上顎洞血瘤腫の検討

因幡 剛・藤村 武之・宇高 毅
塩盛 輝夫・門川 洋平・鈴木 秀明

Maxillary Hematocele

Tsuyoshi Inaba, Takeyuki Fujimura, Tsuyoshi Udaka,
Teruo Shiomori, Yohei Kadokawa and Hideaki Suzuki

(University of Occupational and Environmental Health, School of Medicine)

Hematocele is a benign hemorrhagic pseudotumor that preferably arises in the sinonasal tract, particularly in the maxillary sinus. The occurrence of maxillary hematocele has sporadically been documented, but its nature is not clearly understood. We herein report four cases of maxillary hematocele. The patients were 3 men and one woman, 30-62 years of age with an average of 49.8 years. Major symptoms were nasal obstruction (2 cases), nasal bleeding (2 cases), and toothache (1 case). Computed tomography demonstrated well-defined expansive soft tissue shadows with bone erosion. The lesions showed intermingled high/intermediate/low intensity in both T1- and T2-weighted magnetic resonance imaging. Endoscopic sinus surgery was performed in 3 cases, and the other patient underwent Caldwell-Luc procedure. Surgical specimens microscopically exhibited inflammatory changes with hematoma and fibrin deposition. The postoperative clinical course was uneventful in all cases, and all the patients are currently free from disease 4-25 months after surgery. Clinical, histopathological and radiological characteristics of maxillary hematocele are reviewed.

Key words : maxillary sinus, hematocele, magnetic resonance imaging, endoscopic sinus surgery, Caldwell-Luc procedure

はじめに

上顎洞血瘤腫は、鼻副鼻腔に生じる易出血性良性腫瘍の総称^{1)~3)}と臨床的に定義される、比較的まれな鼻副鼻腔疾患である。本疾患は、一側性の頬部腫脹に反復性の鼻出血や疼痛を伴うことが多く、また術前の画像検査において骨破壊を伴う一側性の上顎洞病変として描出されることが多いなどの理由から、悪性腫瘍との鑑別が問題となることが少なくない。今回われわれは、術前に悪性腫瘍との鑑別が困難であった上顎洞血瘤腫4例を経験したので、これらの病態を報告するとともに、本疾患の診断、治療法について文献的考察を行ったので報告する。

対象症例

2003年11月から2006年10月までの3年間に産業医科大学病院にて入院治療を行った上顎洞血瘤腫4例を対象として、その臨床・画像・病理所見の検討を行った。4症例の概要を表1に示す。年齢は30~62歳(平均49.8歳)であり、男性3例、女性1例であった。基礎疾患を有していた症例は3例であり、心疾患が2例、気管支喘息が1例であった。患側は右1例、左3例であった。自覚症状としては、鼻閉が2例、鼻出血が1例、血性鼻漏が1例、歯痛が1例であった。

症 例

症例1: 62歳, 男性。

表 1 上顎洞血腫腫 4 症例の特徴

症例	年齢	性別	主訴	基礎疾患	患側	術式
1	62	男	右鼻閉 鼻出血	心疾患	右	内視鏡下副鼻腔手術
2	50	女	血性鼻漏	喘息	左	内視鏡下副鼻腔手術
3	30	男	左上顎歯痛	なし	左	Caldwell-Luc 手術
4	57	男	左鼻閉	心疾患	左	内視鏡下副鼻腔手術

図 1 症例 1 の画像所見

- (a) 単純 CT : 右上顎洞内に膨張性で上顎洞内側壁の骨破壊を伴う軟部組織陰影が存在する。
- (b) MRI T1 強調画像 : 低信号領域に一部等信号領域が混在している。
- (c) MRI T2 強調画像 : 低信号領域と高信号領域が混在している。
- (d) MRI Gd-DPTA 造影画像 : 腫瘍辺縁に造影効果がみられ, 腫瘍内部も不均一に造影されている。

主訴 : 右鼻閉, 鼻出血。

既往歴 : 陳旧性心筋梗塞にてワーファリン® 内服中。

現病歴 : 2004 年 6 月ごろより右鼻閉が出現したため近医耳鼻咽喉科を受診した。同院で施行した副鼻腔単純 X 線で一側性の副鼻腔異常陰影を指摘され, 8 月 13 日に精査目的にて当科紹介となった。

鼻内所見 : 右下鼻道側壁が膨隆し下鼻甲介が鼻中隔側に圧排されていた。

画像所見 : 単純 CT で, 腫瘍は右上顎洞内に膨張性の発育を示す軟部組織陰影として描出されており (図 1a), 内側壁の骨破壊を伴っていた。MRI では T1 強調画像 (図 1b) で低信号領域の一部に等信号領域が混在している像を呈し, T2 強調画像 (図 1c) では低~高信号領域の混在している像がみられた。両者の境界は比較的明瞭であった。Gd-DTPA 造影画像 (図 1d) では腫瘍辺縁に造影効果がみられ, 腫瘍内部も不均一に造影されていた。

臨床経過：入院後、9月27日内視鏡下副鼻腔手術を行った。術前の画像診断では血瘤腫が強く疑われたものの、悪性腫瘍の可能性も考慮して手術に臨んだ。内服中のワーファリン®に関しては1週間前に休薬を指示して手術に備えた。下鼻道側壁の膨隆部を截除鉗子にて開放したところ、比較的もろい易出血性の軟部組織が認められた。これを術中迅速病理組織検査に提出したところ、悪性所見なしとの診断であった。下鼻甲介骨は消失し、粘膜も菲薄化していたため、中鼻道から下鼻道にかけて下鼻甲介を含めて鼻腔側壁を切除し、上顎洞内容を可及的に搔爬した。出血量は250mlであった。病理組織診断では血腫を伴う浮腫状の炎症性の粘膜であった。術後経過は良好で10月19日に退院となった。現在、術後2年2ヵ月を経て再発の兆候はない。

症例2：50歳、女性。

主訴：血性鼻漏。

既往歴：気管支喘息。

現病歴：2005年1月7日、血性鼻漏を主訴に当科受診した。副鼻腔CTおよびMRIにて左上顎洞に腫瘍性病変が認められたため、手術目的にて2月25日に当科入院となった。

鼻内所見：左中鼻道に凝血塊が認められた。ポリープや明らかな腫瘍性病変はなかった。

画像所見：単純CT（図2a）にて左上顎洞内に膨張性の発育を示す内部不均一な軟部組織陰影が認められ、内側壁と外側壁の一部に骨欠損を伴っていた。MRIではT1、T2強調画像（図2b、c）ともに低信号領域と高信号領域とが混在する像を呈しており、低信号領域と高信号領域との境界は明瞭であった。

臨床経過：入院後、2月28日に内視鏡下副鼻腔手術を施行した。上顎洞自然口を開大して観察すると、洞内には平滑な被膜に包まれた薄赤色の表面凹凸がある腫瘍性病変が存在し、これを搔爬した。出血量は250mlだった。病理所見では、フィブリン析出と血腫形成を伴う副鼻腔粘膜の炎症性病変という診断であった。術後経過は良好で3月7日に退院となった。現在、術後1年9ヵ月を経て再発の兆候はない。

症例3：30歳、男性。

主訴：左上顎歯痛。

既往歴：知的障害。

家族歴：糖尿病（父）。

現病歴：2006年1月より左上臼歯の痛みがあり、歯科

図2 症例2の画像所見

- (a) 単純CT：左上顎洞内に膨張性の内部不均一な軟部組織陰影が認められ、内側壁と外側壁の一部に骨欠損を伴っている。
- (b) MRI T1強調画像：左上顎洞内に低信号領域と高信号領域が混在する像を呈する。
- (c) MRI T2強調画像：低信号領域と高信号領域とが混在する像を呈する。

治療を受けるも改善しなかったため、4月18日近郊の町立病院耳鼻咽喉科を受診した。同院で施行した副鼻腔CTおよびMRIにて左上顎腫瘍が疑われ、精査目的にて当科

紹介となった。

鼻内所見: 左中鼻道にポリープ様の腫瘍が認められた。

画像所見: 単純 CT (図 3a) では, 左上顎洞内に膨張性の発育を示す軟部組織陰影が認められ, 内側壁は広範に欠損し外側壁の一部にも骨欠損を伴っていた。造影 CT では腫瘍内部に不均一で弱い造影効果がみられた。MRI では, T1 (図 3b) および T2 強調画像 (図 3c) とともに高信号領域と低信号領域とが混在する像を呈していた。

臨床経過: 以上の所見より悪性を含めた上顎腫瘍を第一に考えて, 5 月 8 日に Caldwell-Luc 法による左上顎洞根本術を施行した。上顎洞内には表面が灰白色で比較的同時に類円形の腫瘍が存在した。これを術中迅速病理診断に提出したところ, 悪性所見はなかったため, 腫瘍を上顎洞粘膜とともに剥離して摘出した。出血量は 335 ml だった。病理組織学検査ではフィブリンの析出を伴う血腫組織と粘膜の中等度の慢性炎症が認められた。術後経過は良好で 5 月 18 日に退院となった。現在, 術後 7 ヶ月を経て再発の兆候はない。

症例 4: 57 歳, 男性。

主訴: 左鼻閉。

既往歴: 虚血性心疾患にてワーファリン® 内服中, 高血圧, 高脂血症。

家族歴: 脳血管障害 (父), 心疾患 (母)。

現病歴: 2002 年 4 月ごろより慢性副鼻腔炎として近医耳鼻咽喉科にて通院加療を受けていた。2005 年 2 月ごろより鼻内にポリープが出現したため, 手術目的にて近郊の町立病院耳鼻科を紹介された。同病院で副鼻腔 CT, MRI 等の画像検査の結果, 悪性腫瘍が疑われたため 2006 年 6 月 30 日に当科紹介受診となった。

初診時鼻内所見: 両鼻腔内に明らかな異常はみられず, ポリープ等の特記すべき所見はなかった。

画像所見: 単純 CT (図 4a) では左上顎洞内に軟部組織陰影が充満し, 上顎洞内側壁に圧排性の骨の菲薄化がみられた。MRI の T1 強調画像 (図 4b) では低信号領域に一部高信号領域が混在しており, T2 強調画像 (図 4c) では高信号領域と低信号領域とが混在しており, 両信号間の境界は明瞭であった。

臨床経過: 以上の所見より, 上顎洞血腫が疑われたものの, 悪性腫瘍の可能性も想定にいて, 7 月 3 日, 全身麻酔下に内視鏡下副鼻腔手術を行った。内服中のワーファリン® に関しては症例 1 と同様に術前 1 週間前に休薬を指示した。上顎洞自然口を開大すると黄色〜暗赤色

図 3 症例 3 の画像所見

- (a) 単純 CT: 左上顎洞内に膨張性の軟部組織陰影が存在する。上顎洞内側壁は広範に欠損し, 外側壁の一部にも骨欠損を伴っている。
- (b) MRI T1 強調画像: 高信号領域と低信号領域が混在している。
- (c) MRI T2 強調画像: 高信号領域と低信号領域が混在している。

の内容物が確認された。一部を術中迅速病理に提出した結果, 悪性所見なしであったため, 内視鏡下に内容物を可及的に搔爬した。出血量は 350 ml だった。病理組織学

考 察

血瘤腫は、1917年に田所¹⁾によって報告されて以来、数多くの報告⁴⁾がなされてきたが、その病態についてはいまだ不明な点が多い。本疾患の好発部位は上顎洞であり、特に自然口近傍に発生することが多い。一般的に性差はなく、好発年齢は20～40歳代とされている⁵⁾。臨床症状としては、腫瘍が上顎洞から鼻腔または篩骨洞方向へ進展した場合、骨破壊に伴って疼痛や血性鼻漏が出現するため、臨床的に悪性腫瘍との鑑別が問題となる。上顎洞は外来生検が困難な部位であるため、腫瘍が鼻腔内に突出していない症例では術前診断は困難である。また、生検により良性と診断が出ても深部に悪性腫瘍が潜在している可能性が否定できないため、結局は確定診断を兼ねて手術が行われることがほとんどである。今回の検討例においても、術前の諸検査から4例中2例で血瘤腫が強く疑われたものの、最終的には悪性腫瘍の可能性が否定できなかったため、診断と治療を兼ねて手術を行うこととなった。

血瘤腫の病態や成因についてはさまざまな報告がある。有力な説として血管腫、外傷、炎症などが原因となり、出血→血腫・血栓形成→壊死→繊維化→硝子化変化→血管新生血管拡張→出血、の順に悪循環が起り形成されるという機序が尾崎ら²⁾により提唱されている。さらに現在では、真性血管腫として発生する場合と、炎症性変化や出血などの二次的変化後の偽腫瘍として発生する場合とが考えられている。また今回の検討例において、心疾患によりワーファリン®内服歴を有する症例が4例中2例みられたことより、これらの抗凝固剤によって生じる出血傾向が二次性の偽腫瘍としての血瘤腫の形成に何らかの形で寄与した可能性が示唆された。

血瘤腫の確定診断には、術前の画像所見や術中所見に加えて、病理組織学的検査が重要となるが、前述したように本疾患は臨床的疾患概念であるため、病理診断は診断の決め手にはならない。血瘤腫は病理組織学的に血腫形成、変性壊死、繊維化などの器質性血腫像のみで、腫瘍性病変は認められないといった特徴を示す。しかしこれらの病理所見は本疾患に特異的なものではないため、臨床情報に乏しい場合、今回の検討例にもあったように、病理医は「血腫」、「炎症性変化」、「慢性副鼻腔炎」などと診断することが多くなる。これらを考慮して、血瘤腫が疑われる症例の病理診断に際しては、耳鼻咽喉科医から病理医への積極的な臨床情報提供が必要と考えられ

図4 症例4の画像所見

- (a) 単純CT：左上顎洞内に軟部組織陰影が充満し内側壁に骨の菲薄化がみられる。
- (b) MRI T1強調画像：低信号領域に一部高信号領域が存在する。
- (c) MRI T2強調画像：高信号領域と低信号領域が混在している。

的検査において貯留物はフィブリン析出を伴った炎症性変化であり、悪性所見はみられなかった。術後特に問題なく経過良好であったため7月10日に退院となった。現在、術後5ヵ月を経て再発の兆候はない。

た。

本疾患の術前診断には画像検査が重要となる。一般的にCTでは一側性で内部不均一な充実性の陰影を呈する。また緩慢な発育と内圧上昇により、膨張性の骨破壊像を伴う例が多いが、腫瘤の大きさの割には骨破壊の程度が少ないという点が悪性腫瘍との鑑別において重要な所見となる。またMRIのT1強調画像では低～等～高信号領域が、T2強調画像で低～高信号領域が混在する画像所見を示し、いずれも信号域間の境界は明瞭であることが特徴とされている⁶⁾。ガドリニウム造影像では腫瘤辺縁が造影され、さらに腫瘤の内部が不均一に造影されるといふ所見が特徴的とされている⁷⁾。

今回の検討例では、いずれの症例でもCTで骨破壊または骨の菲薄化像を伴った内部不均一な片側性病変として描出されていた。MRIでは、全例でT1およびT2強調画像で低～等～高信号領域が混在する画像所見を呈し、またガドリニウム造影を施行した症例では、腫瘤辺縁部と不均一に内部が造影されていた。以上のように、今回の検討例では、全例で血瘤腫に特徴的な画像所見を呈していた。

上顎洞血瘤腫の治療は、外科的摘出が第一選択である。手術に際しては、悪性疾患との鑑別が問題となることが多いため、術中迅速病理検査は必須である。また輸血が必要である可能性を十分に説明し、万全の止血対策をしておく必要がある。手術は、かつてはCaldwell-Luc手術が中心であったが、現在では内視鏡を用いた手術の報告例も増加しており⁸⁾、今回の検討例においても4例中3例(75%)で内視鏡下の搔爬が可能であった。しかし、前述した様に、術中に大量出血が生じる可能性も否定できないため、そういった場合には躊躇なくCaldwell-Luc法に切り替える心構えが必要であることはいふまでもない。

ま と め

今回われわれは、上顎洞血瘤腫4症例を報告した。今回、全例で術前の画像検査によって悪性腫瘍が疑われ、血瘤腫の可能性も考慮した症例はこのうち2例であった。また血瘤腫を考慮していなかった症例でも、レトロスペクティブな画像評価では血瘤腫に特徴的な画像所見を呈していた。手術は、内視鏡を用いた症例が3例であり、悪性腫瘍が強く疑われた残りの1例ではCaldwell-Luc法を施行した。いずれの症例でも、病理所見のみならず画像所見や臨床症状を総合して確定診断がなされた。

参考文献

- 1) 田所喜久馬：上顎洞血瘤に就て。大日耳鼻 23：359～360, 1917.
- 2) 尾崎正義, 酒井俊一, 池田 寛：鼻腔・副鼻腔血瘤腫25例。耳喉 49：55～60, 1977.
- 3) 豊田圭子：頭頸部の画像診断。副鼻腔。日本医放会誌 65：197～206, 2005.
- 4) Yagisawa M, Ishitoya J and Tsukuda M : Hematoma-like mass of the maxillary sinus. Acta Otolaryngol 126:277～281, 2006.
- 5) 秋定 健, 折田洋造, 佐藤幸弘, 他：悪性腫瘍を疑った上顎洞血瘤腫症例。耳鼻・頭頸外科 67：118～121, 1995.
- 6) 藤井直子：鼻・副鼻腔。眼窩・耳鼻咽喉・口腔領域のMRI (小玉隆男編)。90～91頁, MEDICAL VIEW, 東京, 2004.
- 7) 松田圭二, 山崎正幸, 森満 保, 他：上顎洞血瘤腫診断におけるMRIの有用性。耳鼻と臨 42：1072～1075, 1996.
- 8) 力武正浩, 歌橋弘哉, 宇井直也, 他：内視鏡下に摘出しえた上顎洞血瘤腫の1例。耳鼻展望 46：221～226, 2003.

原稿受付：平成18年12月25日
原稿採択：平成19年3月15日
別刷請求先：因幡 剛
〒807-8555 北九州市八幡西区医生ヶ丘1-1
産業医科大学医学部耳鼻咽喉科学教室