蝶形骨洞に再発したグロームス腫瘍例

松原 真美・中川 隆之・坂本 達則・伊藤 壽一

A Case of Recurrent Glomus Tumor Arising
in the Sphenoid Sinus

Mami Matsubara, Takayuki Nakagawa, Tatsunori Sakamoto and Juichi Ito

(Graduate School of Medicine, Kyoto University)

Glomus tumor, also known as glomangioma, is a specialized arteriovenous anastomosis usually found in the skin of the extremities. This rare tumor is seldom located in the nasal cavity or paranasal sinuses. Here in we present a case of recurrent glomus tumor in the sphenoid sinus, which is the first reported case to our knowledge. We successfully resected the tumor using an endonasal, endoscopic approach after embolization of the feeding arteries. Histopathologic examination revealed the recurrence of the glomus tumor. The control of intraoperative bleeding is crucial for the complete excision of this tumor through an endonasal, endoscopic approach.

Key words : sphenoid sinus, glomangioma, endoscopic approach, embolization

はじめに

グロームス腫瘍は末梢動脈吻合部の特殊型であるグロームス小体より発生する比較的まれな腫瘍で、多くは四肢末梢に発生し、耳鼻咽喉科領域、とくに鼻副鼻腔に発生することはきわめてまれとされている。鼻副鼻腔原発のグロームス腫瘍例はこれまでの報告では国内外合わせて24例認めるが、再発例に関する報告は2例のみである。治療は完全摘出とされているが、本腫瘍は血管に富む腫瘍であり、外科的に摘出するにあたっては出血のコントロールが重要な問題となる。今回われわれは、グロームス腫瘍の蝶形骨洞での再発例を経験し、内視鏡下鼻内手術にて摘出したので報告する。

症 例

患者：51歳、男性。

主訴：鼻出血。

既往歴：49歳 C型肝炎。

家族歴：特記すべきことなし。

現病歴：1998年鼻閉を主訴に近医を受診し、左蝶形骨

洞から後鼻孔に至る血管腫との診断で腫瘍摘出術を施行された。内視鏡下にYAGレーザーを用いて摘出した際1000mlの出血があり、腫瘍全摘で止血しえた。病理組織診断にて、グロームス腫瘍と診断。以後再発を認めていなかったが、2007年5月に動脈性の鼻出血を認め、精査の結果、左蝶形骨洞での腫瘍再発が疑われたため手術目的で当科紹介となった。

現症：鼻腔ファイバーにて左蝶形骨洞前壁内側に暗赤色の腫瘤を認めた(図1A)。その他鼻内に異常所見を認めなかった。

検査所見：末梢血液検査、凝固検査に異常を認めず、血清生化学検査はHCV抗体陽性を認めるほかに異常を認めなかった。

画像所見：単純CTにて、両側上顎洞、左蝶形骨洞前壁に軟部陰影を認めた(図1B)。MRIでは、CT所見に合致する両側上顎洞および左蝶形骨洞に軟部陰影を認めた。左蝶形骨洞内の陰影は、T1強調像で低信号、T2強調像で内部不均一な高信号を示した。両側上顎洞内の陰影は蝶形骨洞内の病変とは異なり、T1強調像で高信号を

図1 画像所見

A: 内視鏡所見. 蝶形骨洞前壁内側に暗赤色の粘膜変化を認める (矢印).

B: CT 所見. 両側上顎洞内, 左蝶形骨洞前壁に軟部陰影を認める (矢印).

C: MRI T1 強調像 (T1W) 所見. 両側上顎洞内に高信号を示す軟部陰影を認める. 左蝶形骨洞内に低信号を示す軟部陰影を認める (矢印).

D: MRI T2 強調像 (T2W) 所見. 左蝶形骨洞内に内部不均一な高信号軟部陰影を認める (矢印).

図2 血管造影

A: 塞栓術前所見. 矢頭は腫瘍血管の位置を示す.

B: 塞栓術後所見. 矢頭は腫瘍濃染像の消失を示す.

示した (図1C, D).

治療: 左蝶形骨洞グロームス腫瘍再発と診断し, 腫瘍血管塞栓術ならびに鼻内内視鏡下手術を予定した. 腫瘍血管塞栓術に先行して施行した血管造影検査にて栄養血管は蝶口蓋動脈であることが同定された. 顎動脈から蝶口蓋動脈への分岐部でコイルによる塞栓, さらに polyvinil alcohol 粒子 (PVA 粒子) による血管床の塞栓を追加し, 腫瘍濃染像の消失を確認した (図2).

翌日に全身麻酔下で鼻内視鏡下に腫瘍摘出術を行った. 蝶篩陥凹から左蝶形骨洞前壁にかけて骨膜弁を挙上

し, 蝶形骨前壁を露出した. 鋤骨部分切除, 蝶形骨洞前壁部分切除を行い, 蝶形骨洞内への広い交通を形成した. この際, 左蝶形骨洞の正中中部から操作し, 骨壁をドリルで十分に薄くした後に削除, 蝶形骨洞粘膜の温存に留意した. 腫瘍を含む蝶形骨洞粘膜を広く剥離挙上し, 次いで上顎洞粘膜様部後方で蝶口蓋動脈を露出し, バイポーラで凝固切断した. この際, 塞栓部位を切除しないように, 血管の切除は可能な限り末梢側で行った. 蝶口蓋動脈の末梢部分を含める形で骨粘膜弁を挙上し, 蝶形骨洞自然口に向かって剥離を進めた. 中鼻甲介下端部切離を行い,

図3 手術所見

A: 手術所見シェーマ, 点線は切除範囲を示す。

B: 鼻中隔側から蝶形骨洞 (*) に向かって骨粘膜炎を挙上。

C: 蝶口蓋孔 (矢印) から蝶形骨洞自然口 (*) に向かって骨粘膜炎を挙上。蝶口蓋動脈を塞栓部位より末梢側で凝固切断。#は上顎洞を示す。

D: 蝶口蓋動脈末梢側を切除側に含め (矢頭) と一塊に切除。*は蝶形骨洞を示す。

図4 病理所見

A: HE 染色 (×10) 粘膜直下で小型円形核と淡好酸性の細胞質を有する細胞がシート状に増殖し、血管周皮様のパターンを示す。

B: 免疫染色 CD34 (×10) 血管内皮細胞で発現を認め、腫瘍細胞では発現を認めない。

C: 免疫染色 α-SMA (×10) 腫瘍細胞の一部で発現を認める。

D: 免疫染色 Desmin (×10) 腫瘍細胞に発現を認める。

骨粘膜弁, 中鼻甲介下端, 蝶形骨洞粘膜を一塊として切除した(図3). 出血は80 mlで, 創部にサージセル留置のみを行い, タンポンの充填は行わなかった. 上顎洞内の病変は貯留嚢胞と判断し経過観察とした. 術後出血認めず, 術後3日目に退院となった.

病理組織: HE染色では粘膜直下に小型円形核と淡好酸性の細胞質を有する腫瘍巣を認めた. 細血管の介在が随所にみられ, 血管周皮様のパターンがみられた(図4A). 個々の細胞は異型に乏しく, 核分裂や壊死像は認めなかった. 免疫組織化学染色では血管内皮のマーカーであるCD34では血管内皮で発現を認め, 腫瘍細胞では発現を認めなかった(図4B). 一部の腫瘍で平滑筋のマーカーである α -smooth muscle actin (以下 α -SMAとする)の発現を認め(図4C), Desminの発現も認めた(図4D). 以上より, グロームス腫瘍と診断された.

考 察

グロームス腫瘍は良性の腫瘍で, グロームス小体の過

形成または過誤腫といわれている. 正常のグロームス小体は動静脈吻合部に存在し, 体温の調節を担っている. グロームス腫瘍は比較的まれな腫瘍で軟部組織の腫瘍中1.6%という報告がある. そのうち鼻・副鼻腔の腫瘍は0.4%と報告されている¹⁾. 起源となるグロームス小体のみられる四肢, とくに手指の爪床下に好発するがグロームス小体がほとんど存在しないか, まったく存在しない部位にも発生しうる. まれな部位としては喉頭, 気管, 胃, 大腿などが報告されている²⁾. 一般的に若年女性の指の爪床に好発し, 数mm径の小さな赤紫色の病巣を作り, しばしば発作性の激痛をきたす. 組織学的には好酸性の明るい細胞質と卵円核を有する均一な円形細胞が細小血管周囲に増殖し, 血管腔の全部, あるいは一部を囲む像を呈する. 細胞は上皮様の配列を示し, ときに腫瘍細胞は平滑筋への移行像を示す. また免疫組織化学的所見も確定診断に有効であり, 一般的にグロームス腫瘍細胞はビメンチン陽性, muscle specific actin 陽性, ケラチン陰性, S-100 蛋白陰性, epithelial membrane antigen

表1 鼻副鼻腔グロームス腫瘍報告例(24例)

報告者	報告年	年齢	性別	部位	症状
Pantazopoulos ⁴⁾	1965	45	女	下鼻甲介	鼻閉, 疼痛, 鼻出血
DeBord ⁵⁾	1972	33	女	後鼻孔	鼻閉
Fu ら ⁶⁾	1974	71	女	鼻中隔	無症状
Fleury ら ⁷⁾	1979	24	男	鼻中隔	鼻閉
Potter ら ⁸⁾	1984	81	女	鼻中隔	無症状
安江 ⁹⁾	1985	39	女	鼻尖	有痛性結節
田中 ¹⁰⁾	1985	72	女	中鼻洞	鼻出血
Morais ら ¹¹⁾	1986	66	男	外鼻孔	無症状
Alarcos ら ¹²⁾	1992	55	男	篩骨洞	鼻閉
小泉 ¹³⁾	1992	58	男	鼻前庭	疼痛
Hayes ら ¹⁴⁾	1993	32	女	外鼻孔	鼻閉
樋口 ¹⁵⁾	1993	55	男	右鼻腔, 前頭洞, 篩骨洞	鼻閉
Arens ら ¹⁶⁾	1993	40	男	下鼻甲介	鼻出血
Shimono ら ¹⁷⁾	1998	55	男	篩骨洞	鼻閉
Cullen ら ¹⁸⁾	1999	50	女	下鼻甲介	鼻出血
Nakagawa ら ¹⁾	2000	42	男	蝶形骨洞	鼻閉
Shek ら ¹⁹⁾	2001	41	女	鼻中隔	鼻閉
Ahmed ら ²⁰⁾	2003	56	女	鼻中隔	鼻出血
Li ら ³⁾	2003	69	女	左鼻腔	鼻汁
	2003	81	女	右鼻腔	鼻出血
Keelawat ら ²¹⁾	2004	66	女	鼻中隔	無症状
本田 ²²⁾	2004	45	女	右鼻腔	鼻閉, 鼻出血
Gaut ら ²³⁾	2005	87	女	左鼻腔	鼻閉, 鼻出血
大野 ²⁴⁾	2006	58	男	左鼻腔	鼻出血

(以下 EMA) 陰性, 第Ⅷ因子関連抗原陰性であると報告されている³⁾. 本症例は α -SMA 陽性, Desmin 陽性, CD34 陰性であり, 従来の報告に一致する所見であった.

鼻・副鼻腔発生のグロームス腫瘍はまれであり, われわれの調べた限りでは現在までに自験例も含め24例の報告がある(表 1)^{1)3)4) ~ 24)}. これら 24 例についてみると性比は男:女 = 3:5 と女性に多く, 年齢は 24 ~ 87 歳と多岐にわたる. とくに発生部位として, 副鼻腔はまれであり, 24 例中 4 例のみが副鼻腔由来であり, 蝶形骨洞由来の報告は本例のみである. 症状は鼻閉, 鼻出血, 疼痛などであるが, 無症状のことも多く特異的な症状は認められない.

グロームス腫瘍は, 通常良性腫瘍とみなされ局所の完全切除で根治可能といわれている. これまでの報告では, 自験例を含め再発例の報告は 3 例認められている. 再発を認めた Hayes らの報告¹⁴⁾ では, 初回手術後 14 年間で 6 回の局所再発を認め, 切除術を施行している. これは病理診断で浸潤傾向を認めたこと, また 32 歳と若い女性の顔面の腫瘍であり, 切除範囲の美容上の問題から限定されたためと推察される. 自験例では, 前回の手術で内視鏡下に YAG レーザーで腫瘍を全摘したが, 手術開始直後より大量の出血を認め, 一部残存したことが予想され, 良好な視野の確保が重要であると考えられる.

今回の手術に際しては, 鼻内視鏡下での切除に先行して, 腫瘍血管塞栓術を行った. このため, 術中の出血はほとんど認められず, 良好な視野での完全摘出が可能であった. また, タンポン充填を行わなかったが, 術後出血も認めていない. 本例のような血管性腫瘍や多量の出血が予想される線維性血管腫などの内視鏡下手術を行う際には, 十分な視野を確保するために術前に塞栓術を行い, 出血を可能な限り減らすことが重要となる. 術前の塞栓術と術中のバイポーラによる蝶口蓋動脈凝固切断の両方を行うことは確実な止血の点から有用と考える. また, 本例では広く骨粘膜弁を栄養血管を含める形で挙上し, 腫瘍と一塊にして切除することに留意し, 再発防止を企図した. 今後, 詳細な経過観察を行う予定である.

まとめ

1. 蝶形骨洞に再発したグロームス腫瘍の1例を経験した.
2. 術前の血管塞栓術施行により, 術中出血はほとんどなく, 良好な視野で内視鏡下鼻内手術にての完全摘出が

可能であった.

3. 多量の出血が予想される鼻副鼻腔腫瘍の内視鏡下手術に際しては, 血管塞栓術などの術前処置がきわめて重要であると考えられた.

本論文の要旨は第 99 回日本耳鼻咽喉科学会京滋地方部会(2008 年 3 月 8 日, 京都府)にて発表した.

参考文献

- 1) Nakagawa T, Takashima T, Tomiyama K, et al. : Glomangioma in the nasal cavity and paranasal sinuses. *ORL J Otorhinolaryngol Relat Spec* 62 : 164 ~ 166, 2000.
- 2) Lee WT, Murthy SC, Gildea TR, et al. : First case of laryngeal glomangiomyoma. *Laryngoscope* 115 : 2038 ~ 2040, 2005.
- 3) Li X, Hisaoka M, Morio T, et al. : Intranasal pericytic tumors (glomus tumor and sinonasal hemangiopericytoma-like tumor): Report of two cases with review of the literature. *Pathol Int* 53 : 303 ~ 308, 2003.
- 4) Pantazopoulos PE : Glomus tumor (Glomangioma) of the nasal cavity. *Arch Otolaryngol* 81 : 83 ~ 86, 1965.
- 5) DeBord BA : Unusual presentations in otolaryngology. *Surg Clin North Am* 52 : 473 ~ 483, 1972.
- 6) Fu YS and Perizin KH : Non-epithelial tumors of the nasal cavity, paranasal sinuses, and nasopharynx: A clinicopathologic study. I. General features and vascular tumors. *Cancer* 33 : 1275 ~ 1288, 1974.
- 7) Fleury P, Bassett JM, Compère JF, et al. : Rare tumors of the septum. 8 reported cases. *Ann Otolaryngol Chir Cervicofac* 96 : 767 ~ 779, 1979.
- 8) Potter AJ Jr, Khatib G and Peppard SB : Intranasal glomus tumor. *Arch Otolaryngol* 110 : 755 ~ 756, 1984.
- 9) 安江厚子, 中島幹夫, 石垣 優, 他 : 鼻尖部に生じたグロームス腫瘍. *皮膚臨床* 27 : 750 ~ 751, 1985.
- 10) 田中 弘 : 固有鼻腔に発生したグロームス腫瘍の 1 例. *日耳鼻会報* 88 : 706, 1985.
- 11) Morais D, Rodríguez J, Velasco MC, et al. : Glomangioma or glomus tumor of the nasal vestibulum. *An otorrinolaringol Ibero Am* 13 : 471 ~ 479, 1986.
- 12) Alarcos Llorach A, Matesanz Sanz A, Alarcos Tamayo E, et al. : A glomus tumor of the nasal fossa and ethmoid sinus. *Acta Otorrinolaringol Esp* 43 : 291 ~ 295, 1992.
- 13) 小泉雄一郎, 柳田真理子 : 鼻腔発生 glomus tumor の 1 例. *日皮会誌* 102 : 209, 1992.
- 14) Hayes MM, Van der Westhuizen N and Holden GP : Aggressive glomus tumor of the nasal region. Report of a case with multiple local recurrences. *Arch pathol Lab Med* 117 : 649 ~ 652, 1993.
- 15) 樋口香里, 和田義正, 三牧三郎, 他 : 副鼻腔グロームスの

- 1 例. 耳鼻・頭頸外科 68 : 111 ~ 116, 1996.
- 16) Arens C, Dreyer T, Eistert B, et al. : Glomangioma of the nasal cavity. Case report and literature review. ORL J Otorhinolaryngol Relat Spec 59 : 179 ~ 181, 1997.
- 17) Shimono T, Hayakawa K, Yamaoka T, et al. : Case report: Glomus tumor of the nasal cavity and paranasal sinuses. Neuroradiology 40 : 527 ~ 529, 1998.
- 18) Cullen RD and Hanna EY : Intranasal glomangioma. Am J Otolaryngol 21 : 402 ~ 404, 2000.
- 19) Shek TW and Hui Y : Glomangiomyoma of the nasal cavity. Am J Otolaryngol 22 : 282 ~ 285, 2001.
- 20) Ahmed A, Sheehan AL and Dugar J : Intranasal glomangioma. Rhinology 41 : 58 ~ 60, 2003.
- 21) Keelawat S, Hirunwiwatkul P and Thanakit V : Recurrent epistaxis from an intranasal glomus tumor: the 22nd case report. J Med Assoc Thai 87 : 442 ~ 445, 2004.
- 22) 本田耕平, 三原国昭, 花田巨志, 他 : 鼻腔グロームス腫瘍の1例. 頭頸部外 14 : 261 ~ 265, 2004.
- 23) Gaut AW, Jay AP, Robinson RA, et al. : Invasive glomus tumor of the nasal cavity. Am J Otolaryngol 26 : 207 ~ 209, 2005.
- 24) 大野雅昭, 野村智幸, 花沢秀行, 他 : 固有鼻腔より発生したグロームス腫瘍の1例. 日鼻科会誌 45 : 355, 2006.
-
- 原稿受付 : 平成20年 4 月 2 日
原稿採択 : 平成20年 5 月 8 日
別刷請求先 : 松原真美
〒632-8552 天理市三島町200
天理よろづ相談所病院耳鼻咽喉科