頸静脈球腫瘍の一例

いずみかわふ じ こ まつおか いずる やなぎはらなのおき
泉川不二子・松岡 出・柳原尚明

まつだ いさお はん だ じょうじ
松田 功*・半田 譲二*

はじめに

1941年, Guild¹⁾ は頸動脈小体とよく似た組織構造が頸静脈球に存在する事を発見し, この組織を Glomus Jugular (頸静脈小体) 又は, Jugular body (頸静脈体) と命名する事を提唱した. 1945年, Rosenwasser²⁾ は頸静脈小体より生ずる中耳の腫瘍を初めて報告し, Glomus Jugular Tumor (頸静脈球腫瘍) と命名した. 本症は白色人種に多く, 欧米では多数の報告があるが, 我が国では極めて稀な疾患である. 1956年, 切替・鳥山らにより本邦における第1例が報告されて以来, 学会報告を含めて, 17例の症例報告を数えるに過ぎない. 今回, 本症の一例を経験し, 詳細なレ線学的検討を加え, 治療として Cryosurgery が有効である事を経験したので報告した.

症 例

患者: 34才, 女子.

主訴: 右側拍動性耳鳴及び眼瞼閉鎖不全.

現病歴: 昭和49年1月, 電話の声が右耳で聞えにくく, かすかな拍動性耳鳴及び耳閉塞感を自覚した. 6月19日, 静岡の某病院を訪れ鼓膜肥厚及び軽度の難聴を指摘され, 通気療法を受けたが症状の改善は見られなかった. 同年10月耳漏を見たので某耳鼻科医院を受診し, 慢性中耳炎と診断された. 外来にて耳内の肉芽切除をうけ少量の出血を見た. この頃, 右眼痛を自覚し某眼科を受診したが異常なしと言われた. 昭和50年1月右眼瞼の閉鎖が不完全であるのに気付く, 某院脳外科で耳性顔面神経麻痺と診断され耳鼻科に転科. 同月20日, 局所麻酔下の中耳

炎の手術を受けた. 術中, 異常出血を来し, しかもめまいがひどくなったので, 全身麻酔にきりかえ, 約7時間にて手術が終ったと言う. 出血量は不明であるが, 輸血は行われていない. 術後, 微熱が続いた為, 4週目より副腎皮質ホルモンの投与をうけた. 術後も出血が10週間つづいたが, 耳内は乾燥し, 術創は治癒したと言われた. 術後も, 顔面神経麻痺は不変であった. 聴力は術前より更に悪化した. 術後, 1ヶ月目に, 顔面及び頭部のしびれと重圧感を自覚した. 発病来, 嘔声, 嚥下困難, 唾液貯溜等の症状はなかった.

既往歴: 出産2回, 生来健康.

家族歴: 母親が肺結核で死亡.

Glomus Jugular Tumor.

Fujiko Izumikawa, Izuru Matsuoka, Naoaki Yanagihara, Isao Matsuda and Jyoji Handa
京都大学医学部耳鼻咽喉科学教室 (主任: 森本正紀教授)

*京都大学医学部脳外科学教室 (主任: 半田肇教授)

全身所見：体格中等度，栄養良好．胸部聴診で機能性収縮期雑音を聴取する以外に理学的に異常を認めず，低血圧（90～60 mmHg）と鉄欠乏性貧血があり，赤血球数 $315 \times 10^4 / \text{mm}^3$ ，血色素量 9.8 g/dl，ザリー60%，Fe 値 82 γ /dl，赤血球沈降速度の軽度促進（平均赤沈値 15）があった．出血凝固時間，毛細血管抵抗，プロトロンビン時間等には異常なし．血清電解質，肝機能，尿所見等も正常．脳脊髄液検査では，初圧 110 mm/H₂O 終圧 70 mm/H₂O，クエッケンステット陰性，外観は微黄色透明，細胞数 $3\frac{3}{4}$ ，糖，クロール，蛋白質量共に正常であった．

脳神経所見：右顔面神経麻痺及び全聾以外に異常所見なし．特にⅡ，Ⅲ，Ⅳ脳神経障害，小脳症状などは認めなかった．

局所々見：右中耳根治術後，外耳道後壁に少量の血液の混入した膿性耳漏を認めた．耳内は軽度に湿潤していたが，清拭すると上皮化は良好で，小血管を多数透見したが，Brownの拍動はなく，上皮下に腫瘤を思わせる様な所見も認めなかった．頸動脈の血管雑音は聴診し得なかったが，頸動脈圧迫により耳鳴は消失した．左側頸部に小豆大の柔軟な，リンパ節を2ヶ触知した．左耳及び鼻咽喉頭には異状所見はなかった．

耳神経学的所見

1) 聴力検査：右側全聾，左側正常聴力．

2) 平衡機能検査：起立試験，足踏検査は正常．自発性眼振，頭位眼振を認めず，温度性眼振検査で右側機能低下を認めた．左耳反応は正常．視運動性眼振，OKN及びOKPでは眼振開発は正常であった．

3) 顔面神経検査：右顔面神経完全麻痺があり，神経興奮性検査で右に僅かに反応認め，誘発筋電図検査で右眼輪筋には筋放電を認めず，口輪筋で僅かに筋反応を見た．尚，電気味覚検査は正常であった．

レントゲン所見：シュロー氏法，ステンバース氏法では手術による骨欠損像を認めるが，

その周辺に残遺蜂巢あり，右側乳突蜂巢発育は良好であったと推定された．錐体尖端部及び乳突部蜂巢にはび慢性混濁を認めた．左乳突蜂巢には異常なく，内耳道にも左右差なかった．タウン氏撮影法による頭蓋底撮影像では錐体骨後下壁に骨破壊を認めるが，腫瘍陰影はなし．頸静脈孔縁の拡大及び肥厚等も認めなかった．前後面における内耳道断層像では図1に示す如く下鼓室より頸静脈球部に一致して腫瘍によると考えられる骨欠損像及びその周辺の陰影不鮮明像を認めた．

血管造影所見：逆行性頸静脈造影では逆流良好であるが，右側はS字状洞から横洞にかけて造影不良，頸静脈球部に内方へ陥凹した像が見られた．（図2矢印）外頸動脈造影では錐体下縁に血管性に富むくみ大の腫瘍が示された．腫瘍の主要栄養血管は後頭動脈よりの枝であった．これはサブトラクションフィルムにより判明した（図3）．内頸動脈造影及び椎骨動脈造影では著変を認めなかった

以上のレ線所見より Glomus Jugular Tumor を疑い手術的剔出を試みた．

手術所見：昭和50年11月13日，全身麻酔下に乳様突起を再開放した．乳突洞部には前回手術による骨欠損を認めた．乳突洞部上皮下より，腫瘍性出血が認められた．乳突尖端，隅角，S状洞周囲，鱗部の蜂巢をドリルにて削開し，後方はS状洞板，下方は顎二腹筋部まで露出した．前回手術では鼓室は開放されておらず，植

図1

図 2

図 3

骨、砧骨共に残存し鼓膜に相当する部位は出血性の固い結合組織と骨板があり、鼓膜と思われるものはなかった。水平半規管、顔面神経の水平部は異常なく、彎曲部から垂直部にかけて赤い透明のぶどうの房を思わせる易出血性の腫瘍を認めた(図4)。垂直部の腫瘍を少しずつ鉗除したが出血が激しい為、外頸動脈結紮を行った。結紮後、出血は減弱したが、頸静脈に向って腫瘍摘出しようとするとき再び激しく出血し、オキシセルにてようやく止血し得た。その後、再びダイヤモンドバーにて、出血停止部位を削開、顔面神経周囲の腫瘍は大凡摘出し得たが、次第に止血に時間を要する様になり、残存腫瘍はクライオサージェリーにより処理する事にした。

S状洞板を洞硬膜近くで除去し、オキシセルにて充填し、S状静脈洞をブロックした。耳後部創は開放創のままとした。

病理組織学的所見：毛細血管が増生していて、その内面に一層の上皮細胞があり、その周囲に *glomus cell* と思われる円形の比較的小型の細胞が多数見られ、*Glomus Jugular Tumor* と診断された。(図5-a, b)

クライオサージェリーの経過：同年11月26日より、1週間に1回、計5回を、以下の要領で残存腫瘍に対しクライオサージェリーを行った。液体窒素を用いて、直径約1cmの凍結範囲、約1分の凍結時間で、2～3サイクルづつ顔面神経の彎曲部から垂直部にある腫瘍の残存部を凍結した。術中、出血は殆んどなく、めまい、疼痛等も訴えなかった。クライオサージェリー直後は創部は暗赤色で僅かに浮腫状を呈し

図 4

図 5-a

図5—b

た。2～3日後、分泌物増加したが、その後、腫瘍は平坦化してきた。昭和51年1月8日クライオサージェリーによる壊死組織の廓清を行ったが、顔面神経は癒痕化していた。

考

従来、本疾患は欧米人、特に白人に多く邦人には非常に少ないとされて来た。切替らの2症例にしても、初発症状より確定診断、手術に至る迄に2～6年を要している。即ち、臨床症状が他疾患と非常にまぎらわしい為、しばしば見のがされて来たと思われる。耳出血及び出血性ポリープが見られる場合や、一側性耳鳴を来す場合は一応本症を考へに入れる必要がある。又、頸静脈症候群や顔面神経麻痺が比較的早期に起りやすいのも本腫瘍の特徴である。この様な場合出来るだけ頻回の組織検査が望ましい。

Friedmann⁶⁾によると Glomus Jugular は長径 0.25～0.5mm の小橢円形構造の頸動脈小体と似たもので、小体の半数は頸静脈球天蓋血管外壁に、また約半数はヤコブソン及びアーノルド氏神経の走行に沿って存在する。1953年 Capps⁷⁾ は superficial form (鼓室型) と deep form (頸静脈型) に分類、1959年 Meda⁸⁾ は external あるいは tympanic type と、internal あるいは jugular type に分類している。また、Hamberger⁹⁾ が 13人中7人に腫瘍が頸静脈球：あるいは内頸静脈に浸入し

擦

ていると言っている。我々の症例も腫瘍が頸静脈及び内頸静脈に浸潤したケースであった。

診断：確定診断は組織検査を待つわけであるが、術前検査として、聴力検査、平衡機能検査、顔面神経機能等があるが、余り効果は期待出来ない。近年、各種レントゲン診断法が進歩し、断層撮影、血管造影がかなりの効果を期待出来る。Michael ら¹⁰⁾及び House ら¹¹⁾が、Venogram で鼓室型は頸静脈球からS字状洞にかけて造影剤がスムーズに流れ、頸静脈型は頸静脈球部の閉塞、造えい欠損が見られたというが、腫瘍の大きさや進展方向を知るには余り期待出来ない。動脈造影法は図3で見られる様に、腫瘍の大きさ、進行方向、血管走行等を術前に知る上で大切な検査法である。特に、腫瘍の進展方向、大きさ及び血管走行を知る事は手術の方法、術中の出血等を予測する意味で重要である¹⁰⁾。腫瘍の栄養血管については、Shambaugh¹²⁾、Simpson ら³⁾、Spector ら⁹⁾が、それぞれ上行咽頭動脈からだとして述べているが、本例では後頭動脈からであった。

照射療法：照射療法については Spector ら¹³⁾

が1975年に20例について報告しているが、単独照射10例のうち、3例が治癒し、3例に再発を見ており、大きい腫瘍には手術療法との併用がよく、照射総量は5000 rads前後が良いと言っている。Houseら¹¹⁾は全例に於て腫瘍の縮少をみたと言っており、Simpsonら³⁾は組織自身は抵抗性であり、活性は押えられないと報告している。一般に、この腫瘍は放射線に対して抵抗性が強く、余り線量を増加すると骨壊死及び脳壊死を来す場合があるという²⁰⁾。

凍結療法：この腫瘍は組織学的には核分裂がまれであり、転移も殆んどない為良性とされている。しかし、この腫瘍の発生場所が内頸動静脈の近くで、且つ脳に近い所から、術中の大出血や術後合併症が多く、予後の悪い腫瘍の一つとされて来た。一般にこの腫瘍は摘出に際しては大量出血を来す事が少ないとされているが、我々の場合の様に大出血を来す事も充分考えられ

る。我々も大出血が予想出来たので、一次的に腫瘍の徹底的摘出を行う事をせずに残存腫瘍に対してはクライオサージェリーを行った。この腫瘍にクライオサージェリーを導入したのは、

Lewisら¹⁴⁾であり、5例について良好な結果を得たと言う。我々も残存腫瘍が比較的深部の為、クライオサージェリーを反覆して行い、頸静脈球部血管壁を損傷する事もなく癒着化させた。また、クライオサージェリーによる副作用は全くなかった。この腫瘍の治療の一つとしてクライオサージェリーは試みて良い方法と考える。

転移：転移については、罹患頻度の高い欧米でも、10数例しか報告されておらず、頸部リンパ節、肺臓、肝臓等に転移しやすい。我が国では1974年に、松井⁴⁾らにより始めてその一例が報告されているにすぎない。

お わ り に

34才の主婦で2年前より、右拍動性耳鳴及び難聴を自覚、1年前より右顔面神経麻痺も伴った。耳後部皮切による乳突部開放術を行い、顔面神経の彎曲部から垂直部にかけて、ぶどう房状の腫瘍が認められた。浸潤が強く、激しい出血に遭遇したが、クライオサージェリーを反覆して行う事により、腫瘍を摘除し得たのでここに報告した。

参 考 文 献

- 1) Guild, S. R. : A hitherto unrecognized structure the glomus jugularis in man. Arch Otolaryng 41 : 28, 1941.
- 2) Rosenwasser, H. : Carotid body tumors of the middle ear and mastoid. Arch Otolaryng 41 : 64, 1941.
- 3) Simpson, I. C. and Dallachy, R. : A review of tumors of the glomus jugulare with reports of three further cases. J Laryng 72 : 194, 1958.
- 4) 松井隆史, 水越治, 斉藤等, 佐藤文彦 : Glomus Jugulare Tumor 2 症例と遠隔転移. 日耳鼻 77 : 9, 1974.
- 5) 切替一郎, 鳥山寧二 : 側頭骨の大部を侵した中耳傍神経節腫の一例とその文献的考察. 日耳鼻 59 : 1, 1956.
- 6) Friedmann, I. : Pathology of the ear. Blackwell Sci., London, 1972.
- 7) Capps F. C. W. : Chemodectoma tumor of the glomus jugular and tympanic bodies. Arch Otolaryng 67 : 551, 1958.
- 8) Meda, P. : Tumors of the temporal bone. Arch Otolaryng 70 : 471, 1959.
- 9) Spector G. J., Maisel, R. H. and J. H. Ogura. : Glomus tumor in the middle ear. An analysis of 46 patients. Laryngoscope 83 : 1652, 1973.
- 10) Michael, E. G. and George N. : Glomus tumor diagnosis and treatment. Laryngoscope 84 : 2006, 1974.
- 11) House, W. F. and Michael, E. G. : Glomus

- tympanicum tumors. Arch Otolaryng 87 : 124, 1968.
- 12) Shambaugh, G. E. : Surgery of the ear. W. B. Saunders Company, Philadelphia. 1959.
- 13) Spector, G. J., Compagno, J., Perez, C. A., Maisel, R. H. and Ogura, J. H. : Glomus jugulare tumor : Effects of Radiology. Cancer 35 : 1316, 1975.
- 14) Lewis, J. S. and Cahan, W. C. : Cryosurgical management of glomus jugulare tumor. Laryngoscope 77 : 912, 1967.
- 15) Spector, G. J., Ciralsky, R. H. and Ogura, J. H. : Glomus tumors in the head and neck. III Analysis of clinical manifestation. Ann Otol 84 : 73, 1975.
- 16) Malcom, D. G. : The jugular bulb. Arch Otolaryng 101 : 560, 1975.
- 17) Spector, G. J., Maisel, R. H. and Ogura, J. H. : Glomus jugulare tumors. A clinicopathologic analysis of the effects of the radiotherapy. Ann Otol 83 : 26, 1974.
- 18) Valvassori, G. E. and Buckingham, R. A. : Middle ear masses mimicking glomus tumors : Radiographic and otoscopic recognition. Ann Otol 83 : 26, 1974.
- 19) Newton, T. H. : Radiology of the skull and brain. Mosby, St. Louis, 1971.
- 20) Meyers, E. N., Newmann, J., Kaseff, L. and Black, F. O. : Glomus juglare tumor : A radiographic histological correlation. Laryngoscope 81 : 1838, 1971.
- 21) Lever, W. F. : Histopathology of the skin. Lippincott Company, Philadelphia, 1967.
- 22) Rosenwasser, H. : Metastasis from glomus jugulare. Arch Otolaryng 67 : 197, 1958.
- 23) Towson, C. E. and McNellis, F. J. : Tumor of the glomus jugulare. Arch Otolaryng 59 : 152, 1958.
- 24) Lecompte, P. M. : Tumors of the carotid body and related structures. Armed. Forces Inst. of Pathol, 1951.
- 25) 河合純一郎, 鎌野秀嗣, 間中信也 : 頭蓋内に進展した Glomus Jugular Tumor の一例. 耳喉 45 : 25, 1973.
- 26) 沢本沢二 : Glomus Tumor の手術. 医学のあゆみ 53 : 555, 1965.
- 27) 切替一郎, 佐藤恒正, 沢本修二 : 中耳傍神経節腫の一例. 日耳鼻 63 : 2231, 1960.
- 28) 天津睦郎, 細見英男 : 中耳傍神経節腫の一例. 耳鼻臨床 65 : 1163, 1972.
- 29) 下山高生, 高橋雄, 武本欣也, 設楽哲也, 後藤哲也, 柏崎禎夫, 沢田徹 : 頸動脈小体腫瘍の一例. 耳喉 45 : 613, 1973.
- 30) 北村武 : 頭頸部腫瘍の為に頸静脈造影. 医学のあゆみ 53 : 553, 1965.
- 31) 前田真 : 頸静脈小体腫瘍 (総説) 耳喉 32 : 265, 1960.
- 32) 中村四郎, 飯田信長, 山藤勇 : 混合性喉頭麻痺像を呈した Glomus Jugulare Tumor の一例. 耳喉 32 : 473, 1960.
- 33) 志賀逸夫, 種野利雄, 原一夫, 久留裕, 御供政紀 : Glomus Jugulare Tumor—レ線単純撮影による診断— 脳と神経 21 : 1365, 1969.
- 34) 高久晃, 鈴木二郎, 児玉南海雄 : 眼窩及び頭蓋底静脈撮影法. 脳と神経 20 : 77, 1968.
- 35) 工藤達之 : 頭部X線診断学. 金原出版株式会社 東京 1970.

原稿到着 : 昭和51年3月31日

別刷請求先 : 泉川不二子

〒606 京都市左京区聖護院川原町53

京都大学医学部耳鼻咽喉科学教室