上咽頭血管線維腫の3例

中原 学・鈴木 徹・高橋 広臣・設楽 哲也

Three Cases of Nasopharyngeal Angiofibroma

Manabu Nakahara, Toru Suzuki, Hiroomi Takahashi
and Tetsuya Shitara

(Kitasato University)

Nasopharyngeal angiofibroma occur most frequently in young males and are clinically regarded as malignant tumors because of their vigorous by expanding growth, their to bleed tendency and their high rate of recurrence.

In this paper, we report 3 cases of nasopharyngeal angiofibroma treated during the past 11 years in Kitasato University Hospital.

One patient had a postoperative recurrence at a site different from that of the original tumor. Such a case has rarely been reported.

In this case, we removed the tumor by a transoral approach.

It is concluded that for medium-sized tumors with only slight adhesions this transoral approach is effective.

To control bleeding after the resection, the wound was covered with a piece of fascia lata.

Since this method is relatively simple and satisfactory, it can be recommended.

はじめに

上咽頭血管線維腫は若年男子に好発する良性腫瘍であるが、その旺盛な拡張性発育と出血性、さらに易再発性などから臨床的には悪性腫瘍として扱われている。このため現在第一選択として行なわれる手術療法についても多くの術式が考えられている。当科では過去11年間に3例の上咽頭血管線維腫を経験した。このうち1例は初回手術後その経過中に初回とは離れた部位より再発し、再びこれを手術的に摘出したものである。これら3症例についてその概要を述べるとともに、術式、止血方法に関して2, 3の知見を得たので若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

表1に各々の症例について発病年齢、性別、発生部位、手術法、術中出血量などにつき概略を示した。経過・現症の要点および手術の要約

を次に示す。

症例1: 14歳, 男性。

主 訴: 鼻出血および鼻閉。

初 診 昭和54年9月5日

既往歴：特記すべきことなし。

現病歴：昭和54年5月初旬より鼻出血が出現し，7月下旬より鼻閉も伴ってきたため近医から紹介され約1ヶ月後当科を受診した。

初診時所見：口内所見では軟口蓋の著明な膨隆があり，後鼻鏡検査にて後鼻孔全面を占める円形の腫瘤を認めた。表面はピンクをおびた白色を呈し，血管条が透見できた。このため上咽頭血管線維腫が疑われ，9月13日に左外頸動脈

造影を施行した（第1図）。その結果上咽頭に位置し，左頸動脈を主栄養血管とする非常に血管豊富な腫瘍像であることが明らかとなった。

第一回目手術所見：血管造影後4日目に全麻下にて腫瘍摘出手術を施行した。懸垂頭位下に6号ネラトンカテーテルを両鼻腔より咽頭へ挿入し，口から引き出してペアンで固定，軟口蓋を引き上げて視野を確保した（第2図）。舌鉗子にて腫瘍をつかみ，これを捻転すると腫瘍は一塊として摘出された。摘出後止血のためペロックタンポンを挿入した。術中出血は比較적으로少なく，165mlであった。腫瘍は55×40×25mmの大きさで重さは27gであった（第3図）。腫瘍の病理組織学的所見を示す（第4図）。線維成分の中に豊富な血管が存在し，血管線維腫と診断された。

術後経過：術後4日目にペロックタンポンを除去，術後14日目に上咽頭鏡検査を行なった。

第1図 症例1の左外頸動脈造影。血管豊富な腫瘍像を示す。主栄養血管は左頸動脈と思われる。

第2図 症例1の術時の口腔所見。上咽頭の大きな腫瘍を明視下に認める。

表 I

症例	年齢・性別	発生部位	手術法	術中出血	備 考
1	14歳男性	左中鼻甲介 後端基部	経口法 + 捻摘出法	165ml	2年後再発（症例1'）
1'	17歳男性	左中鼻甲介 後端中央部	経口法 + 捻摘出法	650ml	
2	14歳男性	翼状突起	経上顎洞法 + 捻摘出法	3500ml	・術前放射線療法（他院） ・外頸動脈結紮 ・大腿筋膜使用
3	12歳男性	蝶形骨洞下壁	経上顎洞法 + 捻摘出法	3000ml	・頸動脈クリッピング ・大腿筋膜使用

腫瘍の附着部位は左中鼻甲介の後端基部と思われる、中・下鼻甲介は腫瘍の圧迫による萎縮が認められた。退院後外来にて経過を観察していたが、55年7月・17歳の頃より左中鼻甲介の後端部に乳頭腫状の隆起が出現、1年後の56年8月には明らかな中鼻甲介の腫脹を認め、再発が強く疑われた。その後再び鼻出血を反復するようになり、57年1月には腫瘍は正中を大きく超えるほど発育したため同年3月6日、再手術のため入院となった。

第二回目手術所見：3月8日、全麻下に前回と同じ懸垂頭位をとり再び捻摘出を試みた。今回の腫瘍基部は広基性で、前回の如く茎状ではなくまた癰痕状に硬化していたため一塊としては摘出できず数回に分けてちぎるようにして鉗除し、中鼻甲介の一部も摘出した。腫瘍の重さは12gで術中出血は600mlであり、輸血は行なわなかった（第5図）。術後ベロックタンポン

にて止血した。

術後経過：術後4日目にベロックタンポンを除去し、10日目に退院となった。術後2ヶ月目の上咽頭鏡所見を示す（第6図）。腫瘍は左中鼻甲介後端から広基性に発生したものと思われる。前回の発生部位からは離れていると考えられる。現在術後1年半を経て鼻閉・鼻出血等の症状はなく、後鼻鏡検査でも左中・下鼻甲介の圧迫萎縮を残すのみで再発は認めていない。

症例2：14歳、男性。

主 訴：鼻出血

初 診：昭和48年2月8日

既往歴・家族歴：特記すべきことなし。

現病歴：10歳時より反復する鼻出血があり、他院耳鼻科において上咽頭血管線維腫の診断の下に数回にわたって Telecobalt, Liniac, Radium 針刺入等 10,000 rad 以上の放射線照射および経口蓋法による腫瘍切除術を受けてい

第3図 症例1の摘出標本。55×40×25mm、重さ27g。

第5図 症例1の摘出標本（再手術時）。一塊として摘出不能であったため数回に分けて鉗除。

第4図 症例1の病理組織学的所見。豊富な血管の周囲を線維成分がとり囲んでいる。

第6図 症例1の術後2ヶ月目の上咽頭鏡所見。左中・下鼻甲介の著明な萎縮を認める。

る。14歳になって再び鼻出血が頻回となり、当院救急外来を受診、入院となった。

初診時所見：入院時赤血球 260 万/ mm^3 、Hb 6.9 g/dl、Ht 23% と著明な貧血を呈し、単純 X 線および断層撮影では翼口蓋窩に充満した腫瘍陰影を示した(第 7 図)。貧血に対しては 2400 ml の保存血輸血を行なった。

手術所見：全麻下に経上顎洞法により腫瘍摘出手術を施行した。術後の出血に備え、創面圧迫に用いるための筋膜を予め大腿から採取しておいた。患側外頸動脈を結紮した後、デンケル法にて上顎洞を開洞し視野を拡大した。上顎洞後壁は浅く、腫瘍により前方へ押し出されていたためこれを削開して腫瘍に達した。腫瘍が大きく、一塊としては摘出困難であったため数個の少片として摘出したが茎部は翼状突起の残存部か軸椎の一部と思われ、ここから激しい出血を認めた。ここで先に採取しておいた筋膜を創面に密着するように挿入し、ガーゼを圧迫タンポンして手術を終えた(第 8 図)。術中出血量は 3500 ml、輸血量は 3400 ml であった。

第 7 図 翼口蓋窩を充満した腫瘍像(症例 2)

術後経過：手術終了後は出血はほとんどみられず、術後 3 日目より術創にタンポンしたガーゼを 1 枚ずつ抜去し、術後 7 日目に全抜去した。移植した筋膜は創面に生着しており、出血は全くみられなかった。術後 17 日目に退院し、現在までに再発の徴候はみられない。

症例 3：12 歳、男性。

主 訴：鼻閉

初 診：昭和 53 年 1 月 31 日

既往歴・家族歴：特記すべきことなし。

現病歴：幼小時より鼻閉が続いており、52 年に近医で鼻茸を指摘されその治療を受けている。しかし症状の改善がみられないため他院を受診、上咽頭腫瘍の診断の下に生検が行われ紹介により当科を受診した。

初診時所見：前鼻鏡検査では中鼻道に凝血塊の附着があり、後鼻鏡検査により右後鼻孔全体を占めさらに鼻中隔を超える表面平滑な赤味をおびた腫瘍が認められた。このため上咽頭血管線維腫を疑い、副鼻腔の単純 X 線および断層撮影を行った(第 9 図)。断層写真では腫瘍の鼻腔内進展による右鼻腔側壁欠損を認め、鼻中隔は左へ偏位していた。このため直ちに入院となり、入院 4 日目に右外頸動脈造影を行なった(第 10 図)。その結果、右頸動脈を主栄養血管とする非常に血管豊富な腫瘍像が示され、腫瘍の鼻腔内進展も明らかとなった。なお頭蓋底破壊は明らかではなかった。

第 8 図 筋膜をガーゼの表面に拡げ、これを創面に圧着する。

第9図 右鼻腔内に入りこんだ腫瘍。鼻腔側壁が大きく欠損している。顔面の変形も認められる。(症例3)

手術所見：全麻下に経上顎洞法により腫瘍摘出を試みた。まず右上顎洞を開いて後壁の骨を除去し、顎動脈にクリップをかけた。翼口蓋窩には腫瘍の突出はなく、腫瘍の大部分は鼻腔内にあると思われたため残存している鼻腔側壁を削開し、自然口から先に開窓した翼口蓋窩までの骨を除去した。鼻腔内の腫瘍をリストン鉗子にてつかんで捻摘出を試みると腫瘍は一塊として摘出された(第11図)。基部は広基性で蝶形骨洞下壁附近にあり、ここから激しく出血していた。このため症例2と同様に右大腿より筋膜

第10図 症例3の右外顎動脈造影。右顎動脈を主栄養血管とする腫瘍像を示す。

第11図 一塊として摘出された腫瘍(症例3)。

を採取し、これにて出血部を圧迫、ソフラチュールでおおったのちガーゼを洞内にタンポンして止血した。術中出血は3100mlであり、これに対して3200mlの輸血を行った。

術後経過：術後出血はみられず、術後6日目にガーゼを全抜去した。筋膜はよく生着し、ガーゼ抜去後も出血はなかった。術後16日目に退院し、現在まで再発の徴候は認められない。

考

上咽頭血管線維腫は比較的まれな腫瘍であり、10～25歳の男性に好発する。病理組織学的にはその中に拡張した豊富な毛細血管を含み、密に存在する線維細胞を間質組織とする良性腫瘍とされているが¹⁾、その速やかで強力な拡張性発育と反復する出血、さらに治療が困難で再

察

発しやすいことから臨床的には悪性腫瘍として取り扱われている²⁾³⁾⁴⁾。切替⁵⁾、志水⁴⁾は、本腫瘍は中頭蓋底の広範囲にわたって発生するとし部位別に4型に分けた Coenen⁶⁾ の分類法を引用している。第1型は basaler Typus で後頭後基部すなわち後咽頭蓋から発生して上咽

頭腔に発育するもの, 第2型は **sphenoethmoidaler Typus** で蝶形骨および篩骨から発生して前下方に進み後鼻腔および鼻腔を充滿するもの, 第3型は **pterygo-maxillarer Typus** で上咽頭側壁近くに発生して側方に成長するもの, 第4型は **tubaler Typus** で耳管軟骨部より発生し側方から上咽頭腔に向って発育するものとしている. 我々の3症例をこの **Coenen** の分類に当てはめると症例3は第2型に相当し, 症例2は第3型に近いが症例1はこれらのいずれの型にも属さないと思われる. この分類法が実際に利用される機会が少ないことを考えると本分類は再検討の必要があると考える. 最近では **Sessions**⁷⁾ は腫瘍の進展に注目して **CT** を利用した **stage** 分類を試みている. 腫瘍の発生しやすい部位として川端ら⁸⁾ は咽頭天蓋部や耳管隆起部附近を指摘しており, 鼻甲介や鼻中隔からの発生は少ないとしている. 本腫瘍は周囲組織と癒着をきたしやすいことから正確な発生部位を術前に知ることは困難な場合が多いが⁴⁾, 術中には触診等により腫瘍の基部を知ることが可能な場合もある. すなわち手術時容易に周囲との癒着を剝離しえる部分から手術をすすめると最後に固い腫瘍基部が残る⁴⁾. この腫瘍基部は限局した基部を有するものもあるが, 広基性である場合が多い⁴⁾⁸⁾⁹⁾. 本症例でも再発例の初発を除き, すべて広基性に発生していた.

本腫瘍患者は性的発育および精神的身体的発育が未熟であるとする意見があるが¹⁰⁾¹¹⁾, 他方これに反対する者も多く¹²⁾¹³⁾, 我々の3症例はいずれも正常に発育した男性であった.

本腫瘍の治療法については古くからホルモン療法, 放射線療法, 手術療法の三つに大別されており, これらの併用も試みられている. 本症が思春期男子に好発することから発生誘因の一つとして性ホルモンおよび脳下垂体ホルモン異常が考えられ⁴⁾¹⁰⁾¹⁴⁾¹⁵⁾, ホルモン療法はこれに対して男性ホルモンを投与する方法で我国では古市ら³⁾ がその詳細を報告している. しかしホ

ルモン療法は単独での有効例は少なく⁴⁾, また治療効果が一定しない¹⁴⁾¹⁶⁾¹⁷⁾ ため現在ではその価値を減じている. 放射線療法は本腫瘍の血管成分がある程度放射線感受性を有するために考案された方法であり⁹⁾¹⁴⁾¹⁷⁾, 毛細血管系・細動静脈の閉塞をおこすとされ **Radium** 照射や **Radon** 針を刺入する方法が行なわれてきた. しかし放射線療法は腫瘍に速効的には作用しないため照射が長期にわたり, また対象が若年者で照射野が頭蓋底であることから周囲健常組織への副作用による後障害が重大な問題となってくる⁹⁾¹⁶⁾. 竹林ら¹⁸⁾ は上・下顎骨の萎縮・壊死による著明な顔面変形, 放射線緑内障による失明など重篤な放射線障害を経験しており, 顔面および眼窩の悪性腫瘍の発生も報告されている. また **Cummingus**¹⁹⁾ は放射線療法を受けた者は正常人より甲状腺癌の罹患率が高いとしている. これらの点から以上の保存的な方法では根治は困難であり, 従って外科的に腫瘍を摘出する方法が最も秀れていると思われる.

手術療法は種々の術式が考案されており代表的なものとして経鼻法, 経上顎洞法, 経口法, 経口蓋法などがありこれら各種のアプローチはいずれも腫瘍の完全摘出のためにいかに広く上咽頭を明視野におくかということを主眼としている²⁰⁾. 窪田ら²¹⁾ は比較的大きな腫瘍摘出のためには経上顎洞法か経口蓋法が最も広い視野を得られると述べている. 通常経上顎洞法は鼻腔から上咽頭への視野拡大のためデンケル法を用いることが多いが, 特に腫瘍が鼻腔内に入りこんでいる症例では下鼻甲介, 場合によっては中鼻甲介をも除去せざるを得ない場合がある. また経口蓋法は腫瘍摘出のため硬口蓋あるいは軟口蓋を開窓する必要がある. これらはいずれも術後に鼻腔・口蓋に欠損を残すことがあり²⁰⁾, また腫瘍に達するまでに相当量の出血が予想される. 今回我々が症例2, 3でとった経上顎洞法では中・下鼻甲介を保存したがそれでもなおかなりの出血があった. 症例1で行なった経口法は腫瘍を明視野におくという点につい

ては一步劣るものの術後の鼻腔・口蓋の欠損がなく、出血も比較的少ないという利点があり、腫瘍があまり大きくない場合や有茎性のもの、癒着の強くないものなどについては有用な術式であると思われる²⁰⁾。腫瘍の摘出方法としては大西・設楽²⁰⁾は腫瘍の基部が触診等にて確認できれば、これをつかんで骨膜とともに捻摘出すれば手術時間も短く出血量も少ないと述べており、我々も症例1ではこの方法をとった。しかし特に経口法を行なう場合、比較的大きな腫瘍で周囲の組織を破壊し基部が広範囲にわたっているような症例では経口法だけでは腫瘍の完全摘出や出血に対して不安が残ることも事実である¹⁸⁾²⁰⁾。我々はこのような場合、すぐに経口蓋法あるいは経上顎洞法への切り替えができるように予め準備しておくことにしている。

術後、ことにタンポン除去後の出血もしばしば問題となり、止血処置に難渋することがある²²⁾。この出血に備えて我々は予め大腿筋膜を採取しておく。これをガーゼの表面に広げ、筋膜が創面に密着するようにしておき、圧迫タンポンとする。症例2, 3でこの方法を用いたがタンポン除去後の出血は全くなく、筋膜は創面によく生着していた。この方法は比較的簡単であるうえに満足する結果が得られ、術後出血のトラブルから解放されるので推奨できる方法である。なお Roberson²³⁾は術前に顎動脈の塞

栓をおこしておきその1～2日後に手術を行って術中・術後の出血を減少させる方法を報告しており、Thompson²⁴⁾、Handler²⁵⁾、Cottonらはその材料として Gerfoam を用いているが、我々はいまだこれらの方法は試みていない。

血管線維腫の特徴の一つとして易再発性があるが再発率は多田²⁷⁾は35%、白幡²²⁾や Pressman²⁸⁾、Batsakis²⁹⁾らは50%にものぼっている。再発をおこしやすいものは組織学的に未熟であるとされ、再発例では癒着が強く剥離困難で術中・術後の出血が多量になりやすいといわれる。これらの報告にいう再発とは前回発生した部位からの局所再発のことであり、その最大の原因は基部の残存によるものと考えられる。今回の症例1では再発部位は初発部位に接近してはいるものの両者は明らかに離れており、附着部の性状も初発は有茎性に近く再発は広基性であって興味深い。明らかな異所再発例は文献上からは少なく、その詳細なものとして鳥山³⁰⁾の報告した右側鼻咽腔線維腫が7年後に反対側の下鼻甲介根部～耳管隆起部に再発した症例がある。しかしこの場合は鳥山も述べているように再発というよりもむしろ別の部位に新たに発生したとする方が妥当かと思われる。同所における再発は基部を骨膜とともに完全に除去できればほとんど防止できると考える。

ま と め

1) 過去11年間に当教室にて経験した再発例1例を含む3例の上咽頭血管線維腫症例につき、その概要を述べた。

2) 再発例では腫瘍の発生部位が初発と再発では異なると考えられ、これは文献的にも報告例が少なく珍しい症例と思われた。

3) 手術法は経口法による捻摘術が比較的簡単・効果的であり腫瘍が中等度の大きさと癒着が強くない場合にはこの方法は有用であると思われた。

4) 腫瘍摘出後の出血対策として大腿筋膜を用いて創面をおおう方法を取り、よい成績を得た。

本論文の要旨は第38回日耳鼻神奈川県地方会にて発表した。

参 考 文 献

- 1) 谷 一郎: 副鼻腔に原発した若年性血管線維腫の一例. 医療 31 : 191~194, 1977.
- 2) 江崎嘉秋, 他: 鼻咽腔線維腫症例: 耳鼻 6 : 105~108, 1959.
- 3) 古市暢夫, 他: 巨大な鼻咽腔血管線維腫の2例と本邦報告例についての文献的考察. 耳喉 44 : 875~890, 1972.
- 4) 志水雄輔, 他: 上咽頭線維腫. 耳喉 45 : 889~900, 1972.
- 5) 切替一郎: 新耳鼻咽喉科学. 南山堂, 1974.
- 6) Coenen, H. : Das Basalfibroid (typische Nasenrachenfibrom) ein Skelet-tumor. München. Med. Wochenschr. 70 : 829~823, 1923.
- 7) Sessions, R.B. : Radiographic staging of juvenile angiofibroma. Headneck surg. 3 : 279~283, 1981.
- 8) 川端五十鈴, 他: 有茎性巨大な上咽頭線維腫症例. 耳鼻 20 : 424~497, 1974.
- 9) 綿貫幸三, 他: 最近の当科における鼻咽腔線維腫5症例. 耳鼻 25 : 271~275, 1977.
- 10) Martin, H., et al. : Juvenile nasopharyngeal angiofibroma. Ann. Surg. 127 : 513~536, 1948.
- 11) 平井文久, 他: 若年性鼻腔血管線維腫の一例. 耳喉 50 : 991~997, 1978.
- 12) Henderson, Jr. G.P., et al. : Further experience in treatment of juvenile angiofibroma. Laryngoscope 79 : 561~580, 1969.
- 13) 小倉義郎, 他: 上顎洞内に原発した若年性血管線維腫の1治験例. 日耳鼻 68 : 1234~1240, 1965.
- 14) 古内一郎, 他: 鼻咽腔血管線維腫について. 日耳鼻 69 : 1192~1197, 1966.
- 15) 古市暢夫, 他: 鼻咽腔血管線維腫症例追加. 耳喉 45 : 91~96, 1972.
- 16) 原田康夫, 他: 巨大な鼻咽腔線維腫の1症例. 耳喉 48 : 657~661, 1976.
- 17) 森田和夫, 他: 上咽頭および鼻腔の血管線維腫並びに血管腫の放射線治療. 日医放線会誌 40 : 711~715, 1980.
- 18) 竹林脩文, 他: 若年性鼻咽腔血管線維腫症例とその治療法の検討. 耳喉 44 : 201~207, 1972.
- 19) Cummings, B. J., et al. : Relative risk factors in the treatment of juvenile nasopharyngeal angiofibroma. Headneck Surg. 3 : 21~26, 1980.
- 20) 大西信治郎, 他: 鼻咽腔線維腫19症例の治療経験. 日耳鼻 74 : 678~689, 1971.
- 21) 窪田哲昭, 他: 鼻咽腔血管線維腫の1例とその手術法に関する考察. 耳喉 52 : 683~687, 1980.
- 22) 白幡雄一, 他: 鼻科領域血管腫の臨床像. 耳展 21 : 430~439, 1978.
- 23) Roberson, G. H., et al. : Presurgical internal maxillary artery embolization in juvenile angiofibroma. Laryngoscope 82 : 1524~1532, 1972.
- 24) Thompson, J. M., et al. : Embolization techniques in vascular tumors of the head and neck. Headneck Surg. 2 : 25~34, 1979.
- 25) Handler, S. D., et al. : Management of neoplasmas of the Head and Neck in children. 1. Benign tumors. Headneck Surg. 3 : 395~405, 1981.
- 26) Cotton, R. T., et al. : Advances in Head and Neck surgery in children. Headneck Surg. 3 : 424~437, 1981.
- 27) 多田信平: 今月の症例—若年性血管線維腫. 臨放 20 : 1039~1040, 1975.
- 28) Pressman, J. J. : Nasopharyngeal angiofibroma. Removal with hypothermia. Arch Otolaryngol 76 : 167~173, 1962.
- 29) Batsakis, J. G. : Tumors of the Head and Neck. Williams Wilkins Company, Baltimore. 1975.
- 30) 鳥山寧二: 異所再発をおこした鼻咽腔血管線維腫症例. 日耳鼻 66 : 611~617, 1963.

原稿到着: 昭和58年11月7日
 別刷請求先: 中原 学
 〒228 神奈川県相模原市桜台18-1
 国立相模原病院耳鼻咽喉科