小児の上顎に発生した軟骨腫症例

斎藤 武久・斎藤 等・佐藤 文彦

上出 一朗・吉田 幸夫・坪川 俊仁

Chondroma of Maxilla

—A Case Report—

Takehisa Saito, Hitoshi Saito, Fumihiko Sato,
Kazuo Uede, Sachio Yoshida and Toshihito Tsubokawa
(Fukui Medical School)

A five-year-old female visited our hospital because of nasal obstruction and epiphora. The right nasal cavity was occupied by a soft gray tumor. After total resection of the tumor piece by piece, it was considered that the tumor originated from the lateral wall of the right nasal cavity and spread to the right maxillary sinus, ethmoid sinus, and nasal cavity. Histological examination revealed a benign chondroma. As chondroma tend to exhibit sarcomatous changes, long-term follow-up is essential.

Key words: chondroma, maxilla, nasal obstruction, surgical resection

緒 言

軟骨腫は大部分が手足の管状骨や胸骨、肩甲骨などの扁平骨に発生し、頭頸部領域ではまれである。特に鼻副鼻腔領域での軟骨腫の報告は、本邦においては19例を数えるにすぎない。

今回我々は、5才女児の鼻腔側壁から発生したと思われる上顎軟骨腫症例を経験したので、文献的考察を加えて報告する。

症 例

患者： 5才，女児。

主訴：鼻閉，右流涙，右鼻根部腫脹。

既往歴・家族歴：特記すべきことなし。

現病歴：2才頃より右流涙を反復し，眼科で鼻涙管狭窄として涙管洗浄やブジーなどの保存的治療を受けていた。昭和59年6月頃から鼻

閉，いびきが増強してきたことに両親が気づき，8月には右鼻根部の腫脹も出現し，徐々に増大するため11月28日に当科を受診した。

局所所見：右鼻屋すなわち外鼻を構成する上顎骨が突出し，外鼻は全体にやや左方へ偏位していた（図1）。前鼻鏡所見では，右側で外鼻孔付近まで鼻粘膜におおわれた弾性軟な灰白色半透明の腫瘤がみとめられ（図2），鼻中隔が高度に左方へ圧排されていたため，左鼻腔はほとんど見えなかった。

血液検査所見：すべて正常範囲であった。

X線所見：頭部断層写真では，右鼻腔，右上顎洞，篩骨洞全体に腫瘍陰影を認めたが，周囲との境界は鮮明であった。CTでも同様に，右上顎洞，篩骨洞，鼻腔全体が腫瘍で占められて

いたが、被膜に包まれ、眼窩内、翼突窩への進展は認められなかった（図3）。また腫瘍内には骨組織と同じ density をもつ構造がみられ、enhance 陽性であったことから、悪性腫瘍である可能性も考えた。

手術所見：12月11日、全麻下にまず右鼻内腫瘍を一部採取して病理へ提出し、右外頸動脈を結紮した。迅速標本の結果が軟骨腫であることを確認してから、右犬歯窩より上顎骨顔面壁を露出し、上顎洞前壁と右梨状孔縁の骨をノミでおとして被膜に包まれた腫瘍を露出していった。しかし、途中で被膜が破れ、内部からはゼラチン状の軟らかい灰白色半透明の腫瘍が出てきた。そこで後方は後鼻孔付近、上方は篩骨洞、鼻腔天蓋、眼窩下壁、下方は鼻底部、側方は上顎洞側壁に及ぶ腫瘍を少量ずつ摘出していった。鼻中隔は腫瘍により左方へ強く圧排されており、腫瘍摘出の後、右方へもどすように両

側鼻内へガーゼを込めた。右鼻屋部の突出は、外からの圧迫で容易に本来の位置にもどすことができた。摘出した腫瘍（図4）は全体で約30gあった。出血量は330mlであった。

病理標本所見：疎に配列した紡錘型細胞からなる胎生型の軟骨部（図5）や成熟した硝子軟骨の像を呈し、核は単核で mitosis はなく、異型細胞も認められなかった。よって良性の軟骨腫と確定診断された。

術後経過：術後、右流涙は消失し、右鼻屋の突出も目立たなくなった。現在、術後1年を経過しているが、肉眼的には腫瘍の再発はみられない。

考 按

軟骨腫は1836年 J. Müller によって命名され、生理的に軟骨が存在する部位から発生した外軟骨腫（*Ecchondroma*）と、生理的に軟骨のない他の組織から発生する内軟骨腫（*Enchondroma*）とに分けられる¹⁾。本邦では1967年までの10年間に登録された骨腫瘍13,299例中、内軟骨腫は1,025例で、その30%以上が指骨や頭蓋に発生している²⁾。

鼻副鼻腔領域の *chondroma* に関しては、Morgan (1842) が最初に記載したとされ、今までに130例近くの報告がなされている³⁾。Harrison ら⁴⁾によれば、鼻腔腫瘍636例中軟骨

図1 初診時所見：右鼻屋の突出と外鼻の左方偏位を認める。

図2 初診時の右前鼻鏡所見：右鼻腔に充満する弾性軟な腫瘍。

図3 術前のCT所見：右上顎洞，篩骨洞，鼻腔全体を占める腫瘍，周囲との境界は鮮明である。

図4 摘出標本 約30g

図5 H. E. 染色 (×400)
疎に配列した紡錐形細胞からなる軟骨腫像

腫は2例あり, 副鼻腔腫瘍216例中にはなかったという。またFuら⁵⁾は鼻副鼻腔の非上皮性腫瘍256例中, 軟骨腫は7例, 軟骨肉腫が10例と報告している。このように鼻副鼻腔領域の軟骨腫は少なく, 本邦での報告は我々の集め得た範囲では1928年の潮の報告以後19例のみである(表1)。

発生部位として頭頸部では喉頭に多く, Jones⁶⁾の7例の報告中, 喉頭に4例で, うち2例が軟骨腫, 2例が軟骨肉腫となっている。鼻副鼻腔領域では篩骨と鼻中隔に多いとされており, Ringertsによれば50例の内軟骨腫中, 篩骨26例, 鼻中隔7例, 蝶形骨6例, 上顎洞4例などとなっており⁵⁾, Williamsによれば62例中25例が篩骨であった³⁾という。そしてKilbyが集計した128例では, 篩骨と鼻腔に50%, 鼻中隔に17%, 上顎・上顎洞が18%となっている³⁾。本邦の報告でもやはり, 篩骨と鼻中隔および上顎洞に多くみられる(表1)。本症例は

腫瘍の広がり方から考え, 右鼻腔側壁に最初発生した内軟骨腫で, 上顎洞, 篩骨洞, 鼻腔へと増大していったと考えられる。

発生原因としてはKilby³⁾は, 先天性に過誤腫または分離腫の形ですでに胎生期中に成立し, 生後軟骨腫として発現するとする説や, 結合織から軟骨組織への化生説, 外傷が何らかの役割をなすとする説, embryonal cartilage cell rests が軟骨から骨化への段階で吸収されず, それが腫瘍化するという説を挙げている。最後の説はLeopoldが胎生軟骨を他の動物に移殖し, 300倍の大きさに増大したという実験からも裏づけられると述べている。そしてJones⁶⁾はその他に, 多方向性分化能をもつ間葉系細胞に起源を求める説を挙げている。本症例は2才頃から症状が出現しており, 先天性の要素がかなり強いといわねばなるまい。

年齢はJourdainの2才からLawsonの76才までの報告があり, Kilby³⁾の集計した128

表1 本邦における鼻副鼻腔軟骨腫

症例	報告者	年代	年令	性	発 生 部 位
1	潮	1928	39	F	右篩骨洞
2	大 沢	1929	53	M	左上顎洞, 鼻咽腔
3	大 沢	1929	54	F	全副鼻腔, 鼻中隔
4	平 岡	1937	34	F	鼻中隔
5	浅 尾	1957	18	M	右篩骨洞, 上顎洞
6	河 辺	1958	20	M	右上顎洞
7	篠 崎	1959	17	F	左鼻腔, 篩骨洞
8	上 条	1961	62	M	鼻中隔
9	檜	1963	30	F	篩骨洞
10	野 本	1966	51	F	右上顎洞
11	神 尾	1969	68	F	全副鼻腔, 鼻腔
12	川 本	1970	60	F	鼻中隔, 鼻咽腔
13	増 田	1973	60	M	右上顎洞, 口蓋
14	土 田	1974	8	M	右篩骨洞
15	原 田	1978	10	F	左上顎洞, 両篩骨洞
16	原 田	1978	60	F	両鼻腔
17	島 津	1981	57	F	蝶形骨洞, 篩骨洞
18	長谷川	1982	54	F	左篩骨洞, 蝶形洞
19	田 中	1982	59	F	鼻中隔, 篩骨洞, 蝶形洞, 頭蓋底

例でみると、20代23%、30代18%、40代15%、50代10%、60代15%と20～30代にやや多いが、男女差はないとしている。本邦では本症例の5才から68才までの20例で、20才以下の青少年が6例、50代が9例と2つのピークをもち、男6 : 女14と女性に多くみられる。

軟骨腫の発育はきわめて緩慢で、村上ら⁷⁾は17年間にわたって再発をくり返し、数十回の手術を受けた症例、大沢⁸⁾は14年間にわたる症例を報告している。

症状は鼻症状としての鼻閉や鼻出血、圧迫などによる鼻外症状として頬部・顔面の腫脹、眼球突出、視力障害、聴力障害などが挙げられ、頭蓋内への進展や肺合併症が死因になることもある³⁾。本例は外見上、右鼻屋の腫脹があったものの、症状は鼻閉と流涙のみで、腫瘍重量が30gというわりには隣接臓器への圧迫症状がほとんどなく、比較的早く発見できたといえるかもしれない。しかしながら2才頃から右流涙があり、眼科にて保存的治療を受けていたにもかかわらず、当科への紹介はなく、境界領域での発見の遅れが問題となるところである。

治療については一般的には照射は無効で、手術による全摘出が必要であるが、Kilby³⁾によれば今までに9人が放射線照射が有効であったという報告をしているという。また部位的に完全摘出は肉眼的に非常に困難なため、しばしば再発をくり返すことが多い。Lawsonは照射のみの治療を行なって7年後にsarcomaになった例を報告している³⁾。

河辺ら⁹⁾は腫瘍の採取部位によって組織像に差があり、腫瘍が大きい場合には一回の生検で軟骨腫という結果が出て、手術によって摘出された標本の大切片でsarcoma部位がないかどうか調べる必要があると述べている。また術後にも神尾ら¹⁰⁾やFaccini¹¹⁾も述べているように、将来sarcomaへの変化もあるため十分なfollow upが必要である。

まとめ

1. 鼻閉と鼻根部腫脹、鼻涙管圧迫による流

涙を主訴として来院した5才女児の右上顎軟骨腫症例を報告した。

2. 腫瘍は鼻腔側壁から発生したと考えられ、右上顎洞、篩骨洞、鼻腔に充満していた。手術による腫瘍重量は約30gであった。

3. 腫瘍の性質上、再発と悪性変化に留意し、長期間の経過観察の必要性を強調した。

本症例は第33回日耳鼻中部地方部会連合会において発表した。

参考文献

- 1) 森 茂樹：軟骨腫，病理学総論。263～264頁，金原出版，1966。
- 2) 前山 巖：骨腫瘍の統計的観察。臨整外 2 : 984～992, 1967。
- 3) Kilby D and Ambegaokar AG : The nasal chondroma. J Laryngol Otol 91 : 415～426, 1977。
- 4) Harrison DFN and Williams JL : Tumors of the nose and paranasal sinuses. Scott-Brown's Diseases of the Ear, Nose and Throat. pp 299～330, Butterworths, London, 1971。
- 5) Fu YS and Perzin KH : Non-epithelial tumors of the nasal cavity, paranasal sinuses, and nasopharynx : A clinico-pathologic study III. Cancer 34 : 453～463, 1974。
- 6) Jones HM : Cartilaginous tumours of the head and neck. J Laryngol Otol 87 : 135～151, 1973。
- 7) 村上享司，他：17年間に亘って再発を繰り返した難治な上顎軟骨腫症例。耳展 18 : 241～245, 1975。
- 8) 大沢林之助：鼻腔及び副鼻腔における軟骨腫について。日耳鼻 35 : 1220～1240, 1929。
- 9) 河辺義孝，滝本 勲：上顎に発生せる軟骨腫症例。耳喉 30 : 109～112, 1958。
- 10) 神尾友彦，菅原道則：七年の間に軟骨肉腫に転化した鼻副鼻腔軟骨腫の一例。日耳鼻 72 : 2097～2110, 1969。
- 11) Faccini JM : Nasal chondroma. J Laryngol Otol 87 : 811～816, 1973。

- 12) 潮誠四郎: 篩骨軟骨骨腫の一例. 大日本耳鼻 34: 226~227, 1928.
- 13) 平岡六郎: 巨大なる鼻中隔軟骨腫症例. 耳喉 10: 1035~1040, 1937.
- 14) 篠崎藤吉郎, 他: 左篩骨部に原発せると思われる巨大なる軟骨粘液腫症例. 耳鼻臨床 44: 317~319, 1959.
- 15) 上条 豊: 鼻中隔軟骨腫の1例. 耳喉 33: 863~865, 1961.
- 16) 増田 游, 他: 上顎軟骨腫の1例. 耳喉 45: 503~507, 1973.
- 17) 原田康夫, 他: 鼻副鼻腔軟骨腫2症例. 耳喉 50: 369~373, 1978.
- 18) 長谷川哲, 他: 後部篩骨洞, 蝶形骨洞に原発したと考えられる軟骨腫の1症例. 耳喉 54: 637~641, 1982.

原稿到着: 昭和61年1月6日

別刷請求先: 斎藤武久

〒910-11 福井県吉田郡松岡町下合月第23号3番地
福井医科大学耳鼻咽喉科学教室