骨破壊を伴った上顎洞血瘤腫症例

川井田政弘・甲能 直幸

川崎 順久・福田 宏之*

Blood Boil of the Maxillary Sinus with Massive Bone Destruction ; A Case Report

Masahiro Kawaida, Naoyuki Kohno and Yoshihisa Kawasaki

(Tokyo Metropolitan Ohtsuka Hospital)

Hiroyuki Fukuda

(Keio University School of Medicine)

A 59-year-old man complained of swelling of the cheek, nasal obstruction and nasal bleeding. Radiographic examination showed massive bone destruction of the left maxillary sinus. The tentative diagnosis was malignant tumor of the maxillary sinus. The patient was treated with maxillotomy. Histopathological examination revealed no evidence of malignancy, but hematoma and necrotic tissue with pseudostratified columnar ciliated epithelium.

Blood boil is a clinical term and the etiology is indefinite. It is possible for several causative factors to exist. It is difficult to distinguish such a lesion from malignant tumor and careful examination with long term follow-up is necessary.

Key words: blood boil, maxillary sinus, bone destruction, maxillary cancer

はじめに

副鼻腔に生じるいわゆる血瘤腫は比較的稀な疾患で、上顎洞に好発するが、悪性腫瘍との鑑別がしばしば困難であることが知られている。本症は臨床的な診断名であり、本質的には良性疾患であるが、病理学的に確立されたものではなく、その本態や成因などは明確ではない。

われわれは骨破壊を伴い、当初悪性腫瘍が強く疑われた本症の一例を経験した。本症例を報告するとともに、その本態や成因について考察

を行った。

症 例

患者：59歳，男性。

主訴：左頬部腫脹，左鼻閉塞，左鼻出血。

既往歴：1957年頃(27歳時)に肺結核で右肺上葉切除術を受けた。

家族歴：特記すべきことなし。

現病歴：1988年7月頃より左頬部腫脹が出現し、同年8月頃に近医歯科を受診し、嚢胞の疑いといわれたが、特に疼痛もなかったためその

まま放置していた。1989年2月頃より、左鼻閉塞が出現し、徐々に増強した。また、同年3月頃より、頻回に左片側性の鼻出血が生じるようになったため、1989年5月26日に近医耳鼻咽喉科を受診した。左鼻茸を指摘され、しばらく鼻処置などの保存的治療を受けていたが、軽快しないため、手術を勧められ、1989年7月7日に紹介されて受診した。

初診時現症：左頬部に軽度の腫脹を認めたが、圧痛や自発痛の訴えはなく、外鼻変形は認めなかった。鼻内所見では、左中鼻道から左総鼻道にかけて表面やや凹凸で浮腫状、全体的には灰白色で部分的に暗赤色の鼻茸様腫瘤を認め、一部に凝血塊の付着がみられた。なお、眼球運動は正常で、視力障害はなく、腫脹した頸部リンパ節は触知しなかった。

初診時一般検査所見：末梢血検査では、赤血球数 $451 \times 10^4 / \text{mm}^3$ 、血色素量 13.6 g/dl、ヘマトクリット値 41.9%、血小板数 $24.7 \times 10^4 /$

mm^3 、白血球数 $6,900 / \text{mm}^3$ 、白血球百分率に異常なし。血液凝固系検査ならびに血清生化学検査、一般尿検査、心電図で特に異常は認められなかった。胸部X線写真で右上肺野に肺上葉切除術にともなう変形が認められた。

鼻・副鼻腔X線検査所見：単純撮影では左側の鼻腔および上顎洞、篩骨洞に強度の陰影を認めた。特に後頭頤位撮影法では左鼻腔側壁の骨陰影が不明瞭であり、左上顎洞の外側壁の骨欠損が認められた(図1)。正面断層撮影でも同様に左側の鼻腔および上顎洞、篩骨洞に濃厚陰影を認めるとともに、鼻中隔を右側へ圧排している所見がみられた(図2)。

鼻・副鼻腔CTscan 検査所見：左上顎洞から左鼻腔に膨張性・進展性に存在するmassを認め、鼻中隔を右方へ圧排し、一部左側の側頭下窩にも及んでいた。また、左上顎洞の前壁下部ならびに内側壁、外側壁、翼突起を除く後壁の骨欠損が認められた(図3)。左側の前部および

図1 鼻・副鼻腔X線検査所見(単純撮影)

後頭前頭位撮影法(左)ならびに後頭頤位撮影法(右)。左側の上顎洞と篩骨洞に陰影を認めるとともに、左上顎洞外側壁の骨欠損がみられる(➤)。

後部篩骨洞にも mass の存在を思わせる所見がみられたが、骨壁の圧排や欠損などは認めなかった。

図2 鼻・副鼻腔X線検査所見
(正面断層撮影)

鼻尖より後方へ6 cm のレベルの断層写真。左側の鼻腔および上顎洞、篩骨洞に濃厚陰影を認め、鼻中隔を右側へ圧排している所見がみられる。

手術時所見：左上顎洞から左鼻腔に及ぶ悪性腫瘍が疑われたため、1989年7月11日に、注射用 nicardipin HCl (商品名 Perdipine® 注) の持続静注による低血圧法(収縮期血圧を約 100 mmHg に維持)を併用した気管内挿管による吸入麻酔下に左上顎洞試験開放術を含む左副鼻腔手術を入院の上施行した。左上顎洞の上壁および下壁はほぼ正常であったが、前壁下部および後壁、外側壁、内側壁の一部に骨欠損を認めた。洞内に充満していた腫瘍塊は非常に柔らかく、暗赤色ないし部分的に灰白色で浮腫状、多量の凝血塊を含んでいた。病変は中鼻道を経て左鼻腔に及んでいたが、周囲に浸潤や癒着を認めず、比較的容易に剝離摘出できた(図4)。腫瘍塊を剝離摘出後に洞内を観察すると、左上顎洞の粘膜は自然孔部を除いてほぼ正常に存在していた。なお、篩骨洞も同時に開放したが、肥厚した粘膜が認められた。術中は多量の出血をみたが、病変摘出後は容易に止血できた。術中の総出血量は約 500 ml であった。

病理組織学的所見：Hematoxylin-Eosin (HE) 染色で、やや浮腫性の多列線毛円柱上皮を伴い、粘膜直下にびまん性の出血と壊死、ヘモジデリンの著明な沈着を認めた(図5)。血管腫や癌腫

図3 鼻・副鼻腔 CTscan 検査所見

左上顎洞から左鼻腔に膨張性・進展性に存在する mass を認める。左上顎洞の前壁下部ならびに内側壁、外側壁、翼突起を除く後壁の骨欠損がみられる。

図4 摘出された腫瘍性病変

腫瘍の表面は凹凸状を呈し、非常に柔らかい。暗赤色ないし部分的に灰白色で浮腫状、凝血塊を含んでいた。左は鼻腔側より、右は上顎洞開放部より摘出された。

図5 摘出された病変の病理組織学的所見 (HE 染色)

表層は多列線毛円柱上皮で覆われ、粘膜下にはびまん性の出血と壊死、ヘモジデリンの著明な沈着を認める(上: $\times 40$ 下: $\times 100$)

などの腫瘍の所見はみられず、病理組織学的診断は出血と壊死を伴う鼻・副鼻腔粘膜ということであった。

経過: 臨床的にはいわゆる上顎洞血瘤腫と診断された。術後経過は良好で、1989年7月27日に退院した。術後約1年7カ月経過しているが、再発の徴候はみられていない。

考 察

いわゆる上顎洞血瘤腫は片側の鼻閉塞ならびに鼻出血、頬部腫脹などの臨床症状に加えて、画像診断で骨破壊を伴うことがあり、悪性腫瘍を疑わせるが、洞内に易出血性の腫瘍(血瘤)が存在し、病理組織学的には悪性所見はなく、本質的には良性疾患と考えられているものである。本邦では田所¹⁾により報告されたものが最初とされているが、現在でもその本態や成因についての明確な結論は出ていない。したがって、本症は洞内に血瘤、すなわち凝血塊を有し、病理組織学的に悪性所見のないものに対する臨床的診断名という考え方が一般的である²⁾³⁾。

しかしながら、凝血塊をもたらした原因を病理組織学的に検索を行うことは重要であり、いわゆる血瘤腫として報告されたもののうち、血管腫などの病理組織学的な確定診断がなされているものもあり⁴⁾、これらは本来病理学的な診断名を用いるべきものと思われる。ところが、病理組織学的にも腫瘍や炎症性産物として確定できないもの、すなわち壊死組織と出血のみからなるものもみられる⁴⁾⁵⁾。本症例も病理組織学的に血管腫などの腫瘍性病変や炎症性病変の所見を欠き、多列線毛円柱上皮に覆われているものの、粘膜下は壊死組織と出血が主体であり、ヘモジデリンの沈着も認められ、長期間の出血の反復を示唆させた。以上のことから、臨床的に凝血塊を認め、病理組織学的に出血と壊死組織が主体で腫瘍や炎症などの所見がみられないものだけに限り、いわゆる血瘤腫という臨床的診断名を用いるべきものと思われる。

一般に本症は上顎洞自然孔周辺から発生して上顎洞と鼻腔に向かって亜鈴状に発育し、周囲

組織との癒着は少ないとされる³⁾。本症例でも、癒着はなく、術後観察で自然孔部を除いて左上顎洞粘膜がほぼ正常に存在していたことから、同様に自然孔付近より生じて鼻腔ならびに上顎洞に向かって発育増大したものと考えられる。

その成因は明確ではないが、諸説みられる。粘液性鼻茸内の出血や生体異常修復過程の悪循環、血管腫に起因するものなどの他、出血性鼻茸との異同も論じられている^{2)~4)6)}。本症例の手術時所見でも術中きわめて出血が多く、低血圧法を併用したにもかかわらず、総出血量は約500 mlであり、副鼻腔手術としてはかなり大量であったといえる。しかも、腫瘍摘出後は容易に止血できたことから、腫瘍性病変そのものがきわめて易出血性の性格を有していたものと考えられる。そして、病理組織学的にやや浮腫性の多列線毛円柱上皮に覆われていたことを考慮すると、出血性鼻茸と同じ病態もしくは類縁の疾患を基礎にして生じたという可能性も考えられる。出血性鼻茸は鼻内にみられる易出血性の鼻茸の症候学的な総称というべきものであり、その本態は血管腫(毛細管性血管腫)ならびに血管拡張性鼻茸(telangiectatic polyp)、炎症性産物などが含まれるとされる⁷⁾。すなわち、出血性鼻茸も臨床的診断名であるといってよく、その点についてはいわゆる血瘤腫と類似しているといえる。したがって、次に述べるような推測も考えられる。

すなわち、出血性鼻茸と同様な病変が上顎洞自然孔付近に生じて発育すると、自然孔を閉鎖し、上顎洞が閉鎖腔になり、そこへ出血が頻回に反復すると内圧の上昇が生じることになる。内圧の上昇は組織の循環障害を引き起こし、壊死に陥れる。組織壊死と内圧上昇はさらに血管の破綻から出血を引き起こし、内圧はさらに上昇し、悪循環をきたすことになる。その結果、術後性に生じる副鼻腔嚢胞と同様に病変は膨張性に増大するとともに、骨破壊をきたすことになる。このような過程を経て、病理組織学的所見が出血性鼻茸と異なるものに変化していくの

ではないと思われる。以上は推測にすぎないが、本症は出血性鼻茸とともにその病態や成因を考えてみる必要もあるのではないと思われる。

したがって、基礎になった疾患は血管腫や血管拡張性鼻茸、炎症性産物などと異なったものであっても、容易に閉鎖腔に陥りやすい上顎洞などの副鼻腔の持つ解剖学的特殊性によって、いわゆる血瘤腫が二次的に形成されたということが考えられ、同様に本症が二次的産物であると考察されている報告もみられている³⁾⁴⁾。

一方、本症との鑑別疾患としては、その臨床所見から上顎洞の腫瘍性疾患、特に悪性腫瘍との鑑別が問題となることが多い³⁾⁸⁾⁹⁾。その第一の理由は本症がしばしば骨破壊を認めることである。本症例でも画像診断で上下の骨壁を除いて著明な骨破壊が認められた。しかしながら、本症の場合は比較的緩慢な発育増大ならびに内圧上昇に起因するものと考えられ、癌腫のように浸潤性に破壊するというより、本症例もそうであったように膨張性の骨破壊をきたすことが多いようである³⁾。しかし、必ずしもこれが鑑別の決め手になるというものではないと考えられる。第二の理由は部分的な組織生検を行っても壊死組織であることが多いことから、悪性腫瘍に伴う壊死組織との区別がつきにくいことである。結局、本症例でも手術直前まで悪性腫瘍を疑っていたが、出血は多いものの、腫瘍性病変は容易に周囲から剝離でき、ほぼ正常な粘膜が残存していたという術中・術後の観察所見から本症を疑い、最終的には全摘出した組織標本の病理組織学的所見により診断がなされた。いずれにしろ、本症例の診断のためには上顎洞試験開放術を含む副鼻腔手術を施行し、洞内を詳細に観察するとともに、可及的に病変部を全摘出して病理組織学的検索を行う必要があるといえる。

おわりに

著明な骨破壊を伴ったいわゆる上顎洞血瘤腫の一例を経験した。その臨床症状と画像診断か

らは当初悪性腫瘍が強く疑われたが, 術中・術後所見と病理組織学的所見から本症と診断した. 本症例を報告するとともに, 本症の本態と成因について考察を行った.

参考文献

- 1) 田所喜久馬: 上顎洞血瘤 = 就テ. 大日耳鼻 23 : 359~360, 1917.
- 2) 鶴田至宏, 宮原 裕, 佐藤武男, 他: 上顎洞悪性腫瘍を疑ったいわゆる血瘤腫 2 症例. 耳喉頭頸 61 : 131~136, 1989.
- 3) 桐谷伸彦, 青木和博, 足川哲夫, 他: 悪性腫瘍が疑われた上顎洞血瘤腫 —臨床像並びに成因に関する考案—. 耳展 33 : 449~456, 1990.
- 4) 尾崎正義, 酒井俊一, 池田 寛: 鼻腔・副鼻腔血瘤腫 25 例. 耳喉 49 : 53~58, 1977.
- 5) 齊藤龍介, 大道卓也, 陶山貴世子, 他: 上顎洞血瘤腫治療における問題点. 耳喉 58 : 327~334,

1986.

- 6) 白川吾一郎: 鼻腔並ニ副鼻腔血瘤腫 = 就テ. 大日耳鼻 38 : 413~441, 1932.
- 7) 野村恭也: 鼻中隔疾患. 臨床耳鼻咽喉科学 3 —鼻科編(澤木修二, 他 編). 95~112頁, 中外医学社, 東京, 1977.
- 8) 谷本秀司, 古市陽夫, 金森邦彦, 他: 悪性腫瘍を思わせた上顎洞血管腫(いわゆる血瘤腫)の 1 例. 耳喉 47 : 115~120, 1975.
- 9) 石田春彦, 法貴 昭, 山形健一, 他: 鼻・副鼻腔血瘤腫 5 例 —上顎癌を疑わせた 1 例を中心として—. 耳鼻臨床 79 : 923~929, 1986.

(原稿受付: 平成 3 年 2 月 19 日
原稿採扱: 平成 3 年 3 月 13 日
別刷請求先: 川井田政弘
〒170 東京都豊島区南大塚 2-8-1
東京都立大塚病院耳鼻咽喉科)