鼻出血で初発した鼻副鼻腔骨形成性線維腫例

西園 浩文・松永 信也・森山 一郎*
大野 文夫*・古田 茂*・大山 勝*

Ossifying Fibroma with Severe Nasal Hemorrhage ; A Case Report

Hirofumi Nishizono and Shinya Matsunaga
(Izumi city hospital)

Ichiro Moriyama, Fumio Ohno, Shigeru Furuta and Masaru Ohyama
(Kagoshima university)

Ossifying fibroma is an uncommon fibro-osseous tumor, usually found in the maxilla or mandible. It has been reported that is difficult to differentiate this tumor from fibrous dysplasia clinically and histopathologically.

15-year-old female had severe nasal hemorrhage. CT scans revealed a large and well-circumscribed hard mass with low density areas in maxillary and ethmoid sinuses. Biopsy of the tumor showed cavernous hemangioma, but the histological examination on the surgically removed tumor was revealed ossifying fibroma.

The maxillary artery, which was suspected to be a feeding artery, was successfully embolized with small pieces of Gelfoam. The clinical, radiological, and pathological characteristics of the disease are discussed, the literature is reviewed.

Key words: ossifying fibroma, nasal hemorrhage, cavernous hemangioma

はじめに

鼻副鼻腔領域に発生する硬組織を伴う良性線維性腫瘍は比較的稀である。骨形成性線維腫の報告は散見されるがその主訴の大部分は局所の腫脹である。今回我々は鼻出血を主訴に受診し一部血管腫状に変化した興味ある骨形成性線維腫症例を経験した。本症例の臨床経過を述べるとともに、その病理組織像について若干の考察を加えて報告する。

症 例

症例：15歳，女性。
主訴：左鼻出血。
既往歴：特記すべきことなし。
家族歴：特記すべきことなし。
現病歴：1993年2月19日，特に誘因なく左鼻出血が出現した。なかなか止血しないため近医受診し，CTにて左鼻腔腫瘍を指摘され，同年2月24日鹿児島大学耳鼻咽喉科に紹介受診し入院となった。

入院時所見：左眼球突出と左眼球変位，頬部腫脹を認めた．視力，眼球運動は正常であった．左鼻腔は腫瘍が充満し鼻中隔は強く右に偏位していた(図1)．単純X-pでは左鼻腔に充満する腫瘍が上顎洞，鼻中隔，眼窩内側壁を強く圧排していた(図2)．CTおよびMRIでは左鼻腔から篩骨洞，一部前頭洞に充満する腫瘍を認めた．腫瘍は充実性で辺縁平滑明瞭であり左上

顎洞，眼窩内側壁，鼻中隔を強く圧排していた．CTにて腫瘍周辺の骨形成性の変化を認め，MRIでは腫瘍底部に嚢胞状の変化を認めた(図3～5)．前鼻孔からの生検にて海綿状血管腫との診断を得た．

入院後経過：Hb 6.9, RBC 256万と強い貧血を認めたので，Fe剤投与等で全身状態の改善を計った．しかし入院5日目に大量の鼻出血があり止血困難であったため緊急血管造影を行っ

図1 左鼻腔所見
硬い腫瘍が充満している．

図3 CT所見
高信号な部分と低信号な部分が混在する腫瘍が鼻中隔，上顎洞を強く圧排している．

図2 単純X-p所見
左鼻腔に充満する腫瘍が上顎洞，鼻中隔，眼窩内側壁を圧排している．

図4 MRI所見
充実性の腫瘍とその底部に嚢胞状の変化を認める．

た。左外頸動脈造影にて顎動脈が栄養動脈であることが確認されたため(図6), 超選択的にゼルフォームを用いて左顎動脈塞栓術を行った(図7)。以後鼻出血はなかった。

手術所見: 翌日, 全麻下に腫瘍摘出術を行った。年齢等を考慮して口腔前庭からのアプローチで行った。まず出血に備えて左外頸動脈を露出しテーピングを行った。口腔前庭の粘膜切開を反対側までのばし, contact Nd:YAG レーザーを用いて剝離を進めた。梨状縁を露出

し上顎骨前面を大きく前頭突起まで剝離した。上顎骨前面の骨を除去すると左鼻腔, 篩骨洞に充満する腫瘍を認めた。上顎洞は強く外側に圧排されており副鼻腔炎を起こしていたが骨壁は保たれていた。上顎洞粘膜を除去し内側壁を落とし腫瘍を起こすように用手的あるいはガーゼを用いて剝離した。眼窩下壁, 内側壁ともに骨欠損は認められなかった。篩骨洞天蓋に一部硬膜の露出を認めた。この付近の手術操作の際, 出血がかなり多かったため, あらかじめテーピングしてあった左外頸動脈を結紮したがあまり効果的でなかった。そのため出血量はかなり多く2040 mlであった。腫瘍は血管腫状の部分, 骨性の部分, 乾酪用物質の部分, 線維性の部分が混在していた。術後経過は良好で術後19日目退院となった。摘出標本での病理診断は骨形成性線維腫であった。

病理組織学的所見では線維性組織中に骨芽細胞に囲まれた様々な程度の骨化像のある骨梁が認められた(図8)。

考 察

骨形成性線維腫は Montgomery¹⁾ によって発表されて以来, 骨形成性骨線維腫, 化骨性線維腫, 類骨線維腫等と呼称されている。その病理像は, しばしば線維性骨異形成との鑑別が問

図5 MRI 所見
嚢胞状の部分を腫瘍の底部に認める。

図6 外頸動脈造影
顎動脈から腫瘍に伸びる栄養動脈を認める。

図7 超選択的顎動脈塞栓術後
腫瘍濃染が消失している。

題となる²⁾³⁾. Thoma⁴⁾は骨形成性線維腫は腫瘍性病変であり, 線維性骨異形成は骨形成障害と推定している. Lichtenstein⁵⁾は線維性骨異形成は全体として骨形成性線維腫より更に線維性であり血管に乏しいことを報告している. 本症例では様々な程度の骨化像をもった骨梁が骨芽細胞に取り囲まれており骨形成性線維腫の診断となった. 術前の生検では層板構造のある骨組織の間質をうめるように血管の増生が認められ周囲骨の破壊と再生を伴う異型のない骨芽細胞と破骨細胞の増殖を認め海綿状血管腫との診断であった(図9).

本邦における骨形成性線維腫症例, 108例を検討した高橋⁶⁾は, その臨床的, 病理組織学的見地から7群に分類している. 今回の症例は高橋⁶⁾の分類によると第Ⅳ群あるいは第Ⅵ群に分類されると思われる(表1). また同一腫瘍内でもかなり異なった像を示すこともあることが知られており本症例でも腫瘍の一部分に血管腫状の変化を認め, 診断上注意を要すると思われた.

高橋⁶⁾の報告以後, 頭頸部領域における骨形成性線維腫症例の報告^{7)~14)}は散見される. その主訴の多くは局所の圧迫症状である. すなわち頬部腫脹, 眼球突出である. 本症例のように大量の鼻出血を主訴とし, 鼻腔を中心に大きな

腫瘤を形成していた症例は我々が検索し得た限りでは皆無であった. 本症例の鼻出血は腫瘍からの後鼻孔付近への出血であったためタンポンガーゼ, ペロックタンポンでは止血不可能であった. そこで緊急血管造影を行い腫瘍の栄養動脈を外頸動脈造影にて確認後, ゼルフォームにて超選択的頸動脈塞栓術を行い鼻出血をコントロールできた. 難治性鼻出血に対する選択的動脈塞栓術は内頸動脈領域塞栓症の危険性や技術

表1 骨形成性線維腫の分類
(高橋 良: 1967⁶⁾より改変)

	腫瘍の範囲	病理学的所見	予後
第1群	単一洞限局	成熟型	良好
第2群	単一洞充満	成熟型	良好
第3群	単一洞占拠 (骨破壊あり)	成熟型	良好
第4群	複洞 (侵襲あり)	成熟型ときに 幼若型と混在	良好
第5群	篩骨洞前頭洞	幼若型	不良
第6群	上顎洞篩骨洞	成熟型と幼若 型の混在	
第7群	複洞 (骨破壊あり)	本態はsarcoma	不良

図8 摘出標本の HE 像

骨芽細胞に囲まれた様々な程度の骨化像のある骨梁を認める.

図9 術前の生検での HE 像

骨板構造のある骨組織の間質をうめるように血管の増生が認められる.

的な困難さはあるものの多くの報告¹⁵⁾¹⁶⁾の通りたいへん有用な止血法であることを再確認した。

手術のアプローチ法としては、口腔前庭から、鼻側切開術等が考えられたが若年女性であること、膨張性に徐々に増大していること、視野視力障害を認めないところから口腔前庭からのアプローチを選択した。正中まで大きく粘膜を切開することで上顎洞前頭突起付近まで露出することができ、摘出できた。骨形成性線維腫に対する手術的治療の考え方は2つに大別される。

1つは再発防止のため完全除去を目的とする場合と保存的手術である。前者は若年者に発生した組織学的な未熟ものに対して行われる。これに対して後者は腫瘍そのものの性格として手術的に一部腫瘍を残したとしても残存腫瘍組織は周囲健康組織中に同化吸収される場合があるので極端な外科的侵襲は避けてその後の術後観察を十分行うものである。どの手術法を選択するかは術前診断をより正確に行い、腫瘍の存在範囲の把握、患者の年齢等を総合的に判断し決定すべきであろう。今回の症例は大きな腫瘤を形成し、血管腫様病変を伴う点では、臨床的には血管性病変に近いものであり、このような腫瘍に対しては十分な出血対策を講じながら全摘出をすべきことは論を待たない。

まとめ

1. 鼻出血を主訴に受診した骨形成性線維腫の1例を報告した。
2. 超選択的顎動脈塞栓術が鼻出血のコントロールに有効であった。
3. 口腔前庭からのアプローチで全摘し得た。
4. 血管腫状の変化を伴った稀な症例と考えられた。

本論文の要旨は第55回耳鼻咽喉科臨床学会(横浜)において口演した。

参考文献

- 1) Montgomery AH : Ossifying fibroma of the jaw. Arch Surg 15 : 30~44, 1927.

- 2) 梅原豊治 : 上顎洞 ossifying fibroma の1例. 耳鼻 34 : 507~511, 1989.
- 3) 海老原秀和, 北沢秀行, 長谷川誠 : 眼球突出を呈した ossifying fibroma の1例. 耳喉頭頸 63 : 885~889, 1991.
- 4) Thoma KH : Differential diagnosis of fibrous dysplasia and fibroosseous neoplastic lesion of the jaws and their treatment. J oral Surg 14 : 185~194, 1956.
- 5) Lichtenstein L : Polyostotic fibrous dysplasia. Arch Surg 36 : 874~898, 1938.
- 6) 高橋 良 : 鼻副鼻腔における ossifying fibroma に対する我々の見解. 耳展 10 : 15~32, 1967.
- 7) 白幡雄一 : 若年者に発生したいわゆる ossifying fibroma の術後治癒過程について. 耳展 16 : 299~309, 1973.
- 8) 山崎靖夫 : 悪性変化をきたしたと考えられる上顎洞骨線維腫症例. 耳喉 45 : 647~650, 1973.
- 9) 森中節子, 川西直子, 奥田正也 : 上顎洞 ossifying fibroma の1例. 関西電力病院医学雑誌 14 : 101~106, 1983.
- 10) 後藤昭信, 山本香列 : 上顎洞 ossifying fibroma の1症例. 耳鼻臨床 77 : 1775~1780, 1984.
- 11) 園田明弘, 砂川 元, 宮川 明, 他 : 上顎に発生した化骨性線維腫の1例. 北海道歯科医師会誌 40 : 68~72, 1985.
- 12) 高野信也, 山本賢之, 藤井莊二郎, 他 : 上顎洞骨形成性線維腫の1例. 耳展 29 : 293~296, 1986.
- 13) 山本悦秀, 京極順二, 木村 悟, 他 : 手拳大に発育した上顎化骨性線維腫の1例. 日本口腔外科学会雑誌 33 : 1566~1573, 1987.
- 14) 野村 篤, 佐藤田鶴子, 杉山明克, 他 : 上顎に発生した Ossifying fibroma の1例について. 歯学 77 : 733~741, 1989.
- 15) 柳絵里子, 川上登史, 結縁孝治, 他 : 難治性鼻出血に対する選択的塞栓術. 耳喉頭頸 62 : 1082~1084, 1990.
- 16) 高橋志光, 加藤昭彦, 矢野原邦生, 他 : 難治性鼻出血に対する超選択的動脈塞栓術. 耳鼻臨床 85 : 215~220, 1992.

(原稿受付 : 平成6年5月30日
原稿採択 : 平成6年7月13日
別刷請求先 : 西園浩文
〒899-01 出水市明神町520
出水市立病院耳鼻咽喉科)