聴力保存し得た頸静脈球型頸静脈球腫瘍例

栗山 博道・細田 泰男・辻 裕之
小田 恭弘*・友田 幸一・山下 敏夫

Preservation of Hearing in a Case of Glomus Jugulare Tumor

Hiromichi Kuriyama, Yasuo Hosoda, Hiroyuki Tsuji,
Yasuhiro Shouda, Koichi Tomoda and Toshio Yamashita
(Kansai Medical University)

A 60-year-old female had experienced facial palsy for 6 months and pulsation tinnitus for 9 months in the left ear without hearing loss. Physical examination revealed a vascular mass in the left hypotympanum and no cranial nerve deficits, except in the facial nerve (facial palsy score 27/40). MRI revealed a glomus jugulare tumor along the internal carotid artery. This tumor was classified as class C2 according to Fisch's classification.

An Infratemporal fossa approach was used, with preservation of middle ear structure and reconstruction of the external auditory canal. The tumor was extirpated with preservation of the cochlea, vestibule and facial nerve. After removal of the tumor, the external auditory canal was reconstructed using bone paté and the ossicular chain was reconstructed using a ceramic prosthesis.

Two years postoperatively, the patient has neither hearing problems nor tinnitus, and only mild facial palsy.

Key words : hearing preservation, glomus jugulare tumor, canal reconstruction

はじめに

頸静脈球腫瘍は、有色人種に少なく本邦ではまれな疾患で手術報告例も少ない。特に頸静脈球型頸静脈球腫瘍は、解剖学的に複雑な位置に存在し、内頸動静脈、下位脳神経などが周辺に存在することから、外科的治療には十分な解剖学的知識が必要となる。

今回著者らは、中耳、内耳構造を温存して、外耳道および下鼓室を大きく削除し広い術野で腫瘍を除去した後、これらを再建することで顔面神経および聴力を保存し得る術式を試みたので報告する。

症 例

患者は60歳女性、1993年7月頃より左拍動性耳鳴を認

め、同年10月より左顔面神経麻痺が出現した。1994年2月近医耳鼻科を受診し、左下鼓室に拍動性腫瘍を指摘され当科を受診した。

1) 初診時所見

聴力は正常、左顔面神経麻痺スコアは27/40点で、耳鏡所見は左鼓膜後下象限に赤褐色の拍動性腫瘍が透見された。全身所見特に異常認めず、血圧は120~140/70~80 mmHgと正常であった。

2) 画像所見

MRIでは造影T1強調画像にて、頸静脈孔より上内方に約2cmの辺縁不整な腫瘍が認められた。内頸動脈垂直部の後面に接している頸静脈球型頸静脈球腫瘍が疑われ、Fisch¹⁾の分類によるclass C2に相当すると考え

られた(図1)。

脳血管造影では腫瘍部に左上行咽頭動脈, 後耳介動脈, 後頭動脈よりの血液の流入を認めた(図2)。

以上の結果より頸静脈球型頸静脈球腫瘍と診断し外科的加療を行うこととした。

術式

1) 術前塞栓術

術3日前に左上行咽頭動脈, 後頭動脈に対してPVA (polyvinylalcohol) particle にて塞栓術を施行した。本症例において塞栓術中選択的静脈採血を行ったところ頸静脈のカテコラミン値はノルアドレナリンが塞栓前18826 pg/ml, 塞栓後693 pg/ml, ドーパミンが塞栓前3791 pg/ml, 塞栓後127 pg/mlにそれぞれ減少し, また塞栓前に血圧170/120 mmHgであったものが塞栓後に110/60 mmHg前後に低下した。

2) 手術

皮切はY字切開とした。最初に胸鎖乳突筋を乳様突起附着部より離切し頸二腹筋とともに下前方に翻転した。次に迷走神経, 舌下神経, 顔面神経本幹を観察し, さらに内頸静脈を頸静脈孔付近まで露出した。乳突削開術とともに左外耳道壁は12時から9時の位置までの約2/3を削除し, さらに下鼓室骨も削除した。但し, 外耳道皮膚および鼓膜には, 一切切開を加えず温存した。アブミ-

キヌタ関節を離断しキヌタ骨を除去したのち, 顔面神経を第2膝部より耳下腺内本幹まで露出した。腫瘍は顔面神経垂直部で一部癒着を認めたが, 慎重に剥離した後, 顔面神経を前外方へ移動した。この時点で頸静脈球を中心におき, 錐体骨下方に浸潤した腫瘍が明視下に置かれたが(図3a), 本腫瘍は易出血性であるとともに, 周囲に強く癒着し剥離は容易ではなかった。出血を制御するため, S状静脈洞およびその前後の後頭蓋窩硬膜を露出し, S状静脈洞, 頸静脈球, 頸静脈本幹を一連として明視下においた。この上でS状静脈および内頸静脈を結紮し, さらに頸静脈球内に侵入し, 下錐体静脈洞よりの出血をオキシセル綿で塞栓した。上記の止血操作を終了した後, 腫瘍摘出を開始したが, 頸静脈球に浸潤した腫瘍に対して頸静脈球壁の内側壁のみを残してその他は腫瘍と共に切除した。前方では頸動脈管の後壁と癒着を認めたが, 慎重に剥離し内耳を保存してほぼ全摘が可能であった。

腫瘍を摘出した後に人工耳小骨にて伝音系を再建(図3b)し, 大きく削除された下鼓室および外耳道後下壁を骨片と bone paté で再建し, 温存した外耳道皮膚および鼓膜を元に戻した。最後に下方に翻転した胸鎖乳突筋にて死腔を充填した。手術総出血量は968 mlであった。

図1 左に水平断, 右に冠状断の造影T1強調MRI像を示す。頸静脈孔より上内方に約2 cmの辺縁不整な腫瘍(▲▲)が造影され, 内頸動脈垂直部(↑)の後面に接している。

図2 脳血管造影では腫瘍に左上行咽頭動脈(a)，後耳介動脈(b)，後頭動脈(c)より多量の血液の流入を認めた。

図3 外耳道皮膚および鼓膜を温存し，外耳道骨は12時から9時の位置までの約2/3を削除し，さらに下鼓室骨も削除した。この時点で頸静脈球を中心に腫瘍が明視下に置かれた(a)。総頸静脈，S状静脈洞を結紮し腫瘍を摘出した後に人工耳小骨にて伝音系を再建した(b)。

図4 術後6カ月のCTを示す。頸動脈管後面まで骨削開されており、また再建外耳道および下鼓室骨は骨化している(a)．伝音再建に用いた人工耳小骨(b)，蝸牛(c)，半規管(d)が確認される．

術後結果

術後経過に異常なく、嚥下、発声機能共に良好で、また髄膜炎等の頭蓋内合併の症状を認めなかった。

術後6カ月のCTを図4に示す。(a)では頸動脈管後面まで骨削開されているのが分かり、また再建外耳道および下鼓室骨が十分に骨化しているのが観察できる。(b)では伝音再建に用いた人工耳小骨が所定の位置に認められる。(c)では蝸牛、(d)では半規管が温存されているのが確認された。現在術後2年であるが聴力は約30 dB 水平型と実用聴力を保っている(図5)。

考 察

1941年 Guild²⁾が頸動脈小体と類似した組織が頸静脈球の壁、鼓室に存在することを明らかにし、これを *Glomus jugulare* と命名した。1945年 Rosenwasser³⁾が *Glomus jugulare* より発生した頸静脈球腫瘍を初めて報告している。本邦では1956年切替⁴⁾が最初の報告を行

図5 術前および術後2年聴力像

っている。本腫瘍はその発生部位により鼓室型と頸静脈球型とに分類されている⁵⁾。頸静脈球型頸静脈球腫瘍は、

解剖学的に複雑な位置に存在し、内頸動静脈、下位脳神経などが周辺に存在し、しかも血流に富む腫瘍であることから外科的に全摘出するには困難を伴うことが多い。そこで著者らは、術3日前に血管造影を行い、その栄養血管であった左上行咽頭動脈、後頭動脈、後耳動脈のうち上行咽頭動脈、後頭動脈に対してPVA particleにて塞栓術を施行した。この操作により、術中の出血量を約1000 mlに抑えることができ、本腫瘍には必須の前処置と考えられた^{6)~9)}。また頸静脈球腫瘍は一部にカテコラミンを分泌するfunctioning paragangliomaがあり、塞栓術や摘出術によりhypertensive/hypotensive crisisを引き起こす可能性がある¹⁰⁾¹¹⁾と報告されている。本症例において塞栓術時、カテコラミン値は劇的な低下を示し血圧も急激に低下したが、ドブタミンの少量点滴で問題なく経過した。

頸静脈球腫瘍の術式として有名なFisch¹⁾のinfratemporal fossa approachがあり、これはtype A, B, Cに分類されている。type Aは内頸動脈を頸動脈管入口部から垂直部まで開放するもので、type Bは水平部まで、さらにtype Cは海綿静脈洞部まで開放するものである。著者らの用いた方法はtype Aに相当するが、この方法によれば骨性外耳道は削除、外耳道軟部組織は閉鎖するため中耳伝音系は犠牲となり聴力は失われる。これに対して、Jackson⁶⁾は骨性外耳道、中耳腔とともに温存し、聴力を保存するbasic transtemporal skull base approachを報告している。しかし、これは骨性外耳道を温存する方法で、頸静脈球に限局した腫瘍にのみ適用可能であり、本症例のように内頸動脈にまで達したclass Cに属する腫瘍では術野が狭く限界がある。そこで著者らは骨性外耳道および下鼓室を削除し、infratemporal fossa approach type Aと同等な術野を確保した上で腫瘍を切除し、最後に中耳、外耳を再建することで聴力の温存に成功した。従って、本術式はinfratemporal fossa approach type A with external canal reconstructionと呼べる。この外耳道の再建については、骨性外耳道は12時から9時までの約2/3が削除され、さらに鼓室骨の一部も削除し、これらの骨性の枠組みをbone patéおよび皮質骨にて再建した。この再建を成功させるのに重要なのは鼓膜を含めた軟性外耳道の温存と考えている。外耳道皮膚は術後の感染予防に役立ち、さらに再建外耳道の重要な血行路となることから、著者らはこれに全く切開を加えず温存することに留意している。また、このように

解剖学的に複雑な形態を示す鼓室骨の再建にも、bone patéは自由な形状を保つことができ非常に有効と考えられ、術後2年の現在も外耳道の形態に異常を認めていない。以上のごとく、Fisch¹⁾の原法によれば外耳中耳の枠組みを保てないために伝音系は犠牲となったが、著者らの方法を用いればinfratemporal fossa approachの術野を確保しながら伝音系も温存することが可能と考えられた。

次に顔面神経の処理方法について考案する。Woodsら¹²⁾の60例の報告によると顔面神経の処理法としては減荷、神経移動、神経縫合、神経移植、神経吻合、の5種類をあげており、最も多かったのは神経移動術であったとしている。本症例は術前顔面神経麻痺スコアは27点であり、顔面神経に腫瘍は強く癒着していた。この時点で神経移動を行うべきか、あるいは一塊切除の後に神経移植を行うか迷ったが、良性腫瘍であったことまた中程度の麻痺であったことから顔面神経に腫瘍が一部付着した状態で移動保存した。術後退院時に、スコアは15点となったが、その後2年の現在ではそれ以上の悪化傾向はなく不変であり、さらに長期的に再発ならびに顔面神経麻痺スコアについて観察する必要があると考えられる。

その他顔面神経以外の下位脳神経の損傷の危険性もあったが、これに対して頸静脈球の外側壁を腫瘍とともに切除し内側壁を温存することで、これら下位脳神経は保存され、術後の嚥下、発声機能に異常を認めなかった。また、本手術操作はS状静脈洞結紮以外はすべて硬膜外の操作であり、術後の髄液漏あるいは髄膜炎等も認められなかった。

以上述べた如く、頸静脈球腫瘍は良性腫瘍であり、可能な限り機能保存を考えるべきと思われるが、臨床的には悪性の経過をとる例が報告されており、安易な摘出術等は極力さけるべきと考えられる¹³⁾。また、放射線療法^{14)~16)}を施行する報告も見られるが、根治性がなく2次性癌の可能性を考えれば、機能を保存した全摘が理想的と思われる。この意味でも今回の術式は有用な方法と考えられた。

まとめ

1) 聴力を温存し摘出可能であったclass C2頸静脈球型頸静脈球腫瘍の1例を報告した。

2) 塞栓術の併用により、出血はコントロールされ、

本手技は術前に必須と考えられた。

3) infratemporal fossa approach type A と同等の広い術野を確保しつつ, 軟性外耳道を温存し骨性外耳道, 下鼓室および中耳伝音系を再建することで実用聴力の温存が可能であった。

参考文献

- 1) Fisch U : Infratemporal fossa approach for glomus tumors of the temporal bone. *Ann Oto Rhino Laryngol* **91** : 474~479, 1982.
- 2) Guild SR : A hitherto unrecognized structure, the glomus jugularis, in man. *Anat Rec* **79** Suppl 1 : 28, 1941.
- 3) Rosenwasser H : Carotid body tumor of the middle ear and mastoid. *Arch Otolaryngol* **41** : 64~67, 1945.
- 4) 切替一郎, 鳥山寧二 : 側頭骨の大部を侵した中耳傍神経筋腫の一例とその文献的考察. *日耳鼻* **59** : 1435~1441, 1956.
- 5) 切替一郎, 佐藤恒正, 沢木修二 : 中耳傍神経筋腫の一例. *日耳鼻* **63** : 2231~2239, 1960.
- 6) Jackson CG : Diagnosis for treatment planning and treatment options. *Laryngoscope* **103** : 17~22, 1993.
- 7) Young NM, Wiet RJ, Russell EJ, et al : Superselective embolization of glomus jugulare tumors. *Ann Otol Rhinol Laryngol* **97** : 613~620, 1988.
- 8) Simpson GT II, Konrad HR, Takahashi M, et al : Immediate postembolization excision of glomus tumors. *Arch Otolaryngol* **105** : 639~643, 1979.
- 9) Murphy TP and Brackmann DE : Effect of preoperative embolization on glomus jugulare tumors. *Laryngoscope* **99** : 1244~1247, 1989.
- 10) Farrior JB : Carcinoid apudoma arising in a glomus jugulare tumor ; review of endocrine activity in glomus jugulare tumor. *Laryngoscope* **90** : 110~119, 1980.
- 11) Schwaber MK, Glasscock ME, Jackson CG, et al : Diagnosis and management of catecholamine secreting glomus tumors. *Laryngoscope* **94** : 1008~1015, 1984.
- 12) Woods CI, Stranick B and Jackson CG : Surgery from glomus tumors ; the otology experience. *Laryngoscope* **103** : 65~70, 1993.
- 13) 渡辺健一郎, 森山 寛, 佐野真一, 他 : Glomus jugulare tumor の治療経験. *耳展* **28** : 607~616, 1985.
- 14) Cole MJ and Beiler D : Long-term results of treatment for glomus jugulare and glomus vagale tumors with radiotherapy. *Laryngoscope* **104** : 1461~1465, 1994.
- 15) 白馬 明 : 頭蓋底部に広汎な進展をきたした glomus tumor の1例. *脳神経外科* **2** : 403~408, 1974.
- 16) Hudgins PT : Radiotherapy for extensive glomus jugulare tumors. *Radiology* **103** : 427~429, 1972.

(原稿受付: 平成8年12月5日
原稿採択: 平成9年3月12日
別刷請求先: 栗山博道
〒570 守口市文園町10-15
関西医科大学耳鼻咽喉科学教室)