小児上顎洞血瘤腫例

積山 幸祐・出口 浩二・黒野 祐一

A Pediatric Case: Blood Boil of the Maxillary Sinus

Kousuke Sekiyama, Kouji Deguchi and Yuichi Kurono

(Kagoshima University School of Medicine)

We report the case of a child patient with blood boil of the maxillary sinus. The patient, a 10-year-old female, visited our clinic suffering from right nasal obstruction and bleeding. Due to considerable loss, she had received a blood transfusion prior to her visit to our clinic, and required definite diagnosis and intensive treatment. A computed tomography scan and magnetic resonance imaging showed the presence of a large mass with heterogeneous enhancement occupying the entire right maxillary sinus.

At first, an endoscopic nasal surgery was performed for histological diagnosis as well as tumor extirpation. However, extirpation of the entire tumor could not be completed due to increased nasal bleeding. Tumor extirpation by trans-maxillary approach was thus performed, and a hematoma-like mass occupying the maxillary sinus was totally removed.

The mass lesion was diagnosed as a so-called 'blood boil' by the histopathological examination, local findings during the operation, and clinical procedures. No recurrence has been observed to date.

Key words : a pediatric case, blood boil of the maxillary sinus, trans-maxillary approach

はじめに

いわゆる血瘤腫は1917年、田所¹⁾により最初に報告された臨床診断名であり、鼻出血、鼻閉、頬部腫脹など一見悪性腫瘍を思わせるような症状を呈し、臨床上悪性腫瘍との鑑別が問題となる。また、ときに大量出血をきたすことがあり注意が必要である。これまでにさまざまな症例が報告されている^{1)~15)}が、その多くは成人例であり^{2)~6)}、小児における報告は少ない。今回われわれは10歳女児における上顎洞血瘤腫を経験したので、若干の考察を加え報告する。

症 例

患者：10歳、女児。

主訴：鼻出血、鼻閉。

既往歴：8歳時、交通事故にて4日間入院。このとき顔面の擦過傷、腫脹があった。

家族歴：特記すべき事項なし。

現病歴：平成11年2月頃より右鼻閉を自覚した。そこで近医耳鼻咽喉科受診し、4月初めより慢性副鼻腔炎、鼻茸の診断にて外来治療を受けていた。5月4日、右頬部痛とともに少量の鼻出血を認め、同耳鼻咽喉科で容易に止血された。しかし5月6日、ガーゼ抜去後再度多量の出血があり、近医総合病院耳鼻咽喉科入院となった。

5月7日、Hb 5.7と著しい貧血を認めたため、濃厚赤血球260ml(2単位)を輸血された。CTにて右上顎洞自然口より上顎洞内に造影効果のある陰影を認め悪性腫瘍も否定できないため、精査目的に5月12日当科紹介受診となり即日入院となった。

初診時所見：前鼻鏡所見にて右中鼻道から総鼻道に鼻茸様組織を認め(図1)、さらに後鼻鏡所見にて褐色腫瘍が右後鼻孔に認められた。生検の結果、線維性の滲出物であり、悪性の所見は認められなかった。単純X線、断

図1 右鼻鏡所見
右中鼻道から総鼻道に鼻茸様組織を認める。

図2 CT所見
右上顎洞に自然口付近がよく造影される異常陰影を認める。骨破壊像は認めない。

層撮影法, CT では左右上顎洞および右鼻腔に異常陰影を, そして右上顎洞自然口付近に造影効果のある陰影が認められた。骨破壊像は認めなかった (図2)。MRI では, 右上顎洞から上顎洞自然口にかけて T1 強調像にて低信号, T2 にてやや高信号, ガドリニウムで不均一に造影される異常陰影を認めた (図3)。血液検査結果において, 赤血球 272 万/ μ l, Hb 8.3 g/dl, Ht 25.2%であったため, 貧血の改善を待って手術を行うことにした。しかし, 5月25日再度多量の鼻出血があり, 再出血と悪性の可能性も否定できなかったため病理診断確定の目的もかねて5月28日鼻内法にて内視鏡下鼻腔内腫瘍摘出術を行った。

鼻腔内の腫瘍は一塊として摘出されたが (図4a), 多量の出血を認めたためそれ以上の操作は行わず, ガーゼにて圧迫止血し手術を終了した。摘出した組織の病理組織学的検査では, 大部分は血液成分であり, わずかに炎症を伴った結合組織が認められた。術後洞内病変評価のため再度 CT を施行したところ, 洞内の腫瘍はそのまま残存し, なおかつ手術により開放されたはずの中鼻道も閉塞していた。鼻鏡検査上も同様の腫瘍病変が認められた。このため経上顎洞的なアプローチによる腫瘍の摘出が必要と判断し6月11日, 2回目の手術を施行した。なお再

図3 MRI所見 ガドリニウム造影 T1 強調画像。(左: 前額断, 右: 水平断)
右上顎洞自然口付近がよく造影される異常陰影を認める。上顎洞正常粘膜は明らかではないものの境界は明瞭である。

図4 摘出標本

a : 1回目の手術（内視鏡下鼻内手術）による摘出標本.

b : 2回目の手術（蓋付骨弁形成上顎洞手術）による摘出標本.

図5 2回目手術時の摘出病理標本（HE染色. 左：1000倍，右：200倍）

凝結塊のなかに一部器質化した部分を認め、わずかに異型細胞を認めるのみであった.

手術に際しては大量出血の場合，外頸動脈結紮術を行うことの同意を得た.

手術時所見：上顎洞骨膜骨弁を作製した上で上顎洞前壁を開放したところ，暗赤色の凝血塊様腫瘍が存在し，これを一塊として摘出しようとしたが腫瘍がもろく，断片的に摘出した（図4b）. また腫瘍と接するように洞粘膜が存在したが，肉眼上正常であったため温存した. 術中出血量は135 mlであった. 病理組織学的検査ではわず

かに異型の細胞を含む血腫と診断された（図5）. 以上の経過，所見から本症は上顎洞血瘤腫と診断された. 術後経過良好のため6月17日退院となった. 術後3年経過したときの鼻内所見，CT（図6）でも腫瘍の再発を認めていない.

考 察

上顎洞血瘤腫は，1917年，田所¹⁾によって最初に報告

図6 術後3年時CT所見
右上顎洞に腫瘍の再発は認めていない。

された臨床的な疾患概念である。一側性の鼻出血、鼻閉、頬部腫脹等、一見悪性腫瘍を思わせる症状を呈し、悪性腫瘍との鑑別が問題となるが、病理組織学的には悪性の所見を認めず、その発育段階において組織内出血を起こした偽腫瘍と考えられている²⁾。上顎洞血管腫は臨床上の診断名であるため、病態や成因は単一ではなく病理学的にも血管腫様病変、壊死組織、出血巣、慢性炎症、結合組織増生、硝子様変性等が不規則に混在していることが多い。

炎症、外傷、真性血管腫などで上顎洞内に一度出血が起これば、上顎洞という解剖学的条件（閉鎖腔）と悪循環による病理学的変化によって腫瘍塊を形成してくると考えられている²⁾。今回われわれが経験した症例は、8歳時に交通事故による入院歴があり、顔面の腫脹があったことから、このとき上顎洞の出血が起これば、上顎洞血管腫を形成するに至ったのではないかと推測される。

血管腫の罹患年齢は、20～70歳代に分布し20～40歳代がそのほとんどを占める^{2)～6)}。これまでさまざまな症例が報告されているが、小児における報告は少ない。本邦における報告で文献的に渉猟し得た範囲では12歳以下の小児例は1例のみ⁷⁾であった。

本疾患が疑われた場合、診断に際しては悪性腫瘍との鑑別が重要になるが、画像による鑑別はMRIが有効である。一般的にMRIでは多彩な病理学的所見を反映してT1, T2強調画像とも低信号から高信号の不均一な陰影を

示することが多いが、悪性腫瘍と違い上顎洞粘膜は保存されていることが多く、MRIでも上顎洞粘膜が明瞭に造影されることが多い^{8)～11)}。本症例においても術前のMRI診断を再度評価したところ、上顎洞粘膜は明らかではないが腫瘍との境界が明瞭であり、また術中の所見からも上顎洞粘膜は正常と考えられる。また本症例でもそうであったように上顎洞自然口付近がよく造影され、腫瘍遠位部は造影効果に乏しいことが多く、これも血管腫に特徴的な所見と考えられる⁸⁾¹⁰⁾。

画像診断および内視鏡の進歩により以前ほど診断に苦慮することは少なくなったと思われるが、われわれの症例のように完全摘出まで悪性を否定できないことも多いと思われる。また、数回の生検でも壊死組織や凝血塊のみで確定診断がつかず、悪性腫瘍が疑われて放射線治療や化学療法が施行された報告⁴⁾⁵⁾¹²⁾¹³⁾も存在する。確定診断には、やはり腫瘍全摘出で得られる病理組織診断が最も重要と考えられる。石田ら⁵⁾は、速やかに試験開放術を行うことにより診断の確立および治療方針を決定した方がよいと述べている。近年、内視鏡が発達したため、内視鏡下に洞内の組織を十分摘出することは可能で¹⁴⁾、より侵襲の少ない内視鏡下手術を行うのがよい¹¹⁾¹⁴⁾との意見があるが、大量出血、および悪性の可能性を考えると止血操作、摘出が行いやすい経上顎洞的アプローチにて腫瘍を完全摘出し、早期に確定診断を得た方がよい場合もあると思われる。本症例は出血が多く、内視鏡下鼻内手術では洞内病変の完全摘出は不可能で、再度経上顎洞的アプローチで完全摘出し得た。感染症など輸血の副作用の問題に加え、小児であるがゆえ、手術に際して歯牙、上顎骨の発育の問題を特に考慮する必要があるが、本症例もこの点に留意し、骨弁形成した上で上顎洞を開窓し、上顎洞粘膜を温存し腫瘍摘出術¹⁶⁾を行った。現在14歳であるが、顔面骨の発育などに特に問題は認めていない。

上顎洞血管腫では血管の増生、拡張などのため、手術に際して出血が予想される。また、出血を繰り返して来院時はすでに貧血があることもある。大量出血を予防する目的で外頸動脈の結紮¹³⁾¹⁷⁾やクリッピング¹⁵⁾、顎動脈の塞栓術¹²⁾を術前に施行した報告があるが、本症例は幸いにこれらの処置を行うことなく摘出可能であった。しかし、術中大量出血に対する処置、さらにはこうした術前の治療についての詳細な検討が必要であったと反省させられる。また本症例は小児であったことから血管造影、

シンチグラフィー等を行っていないが、成人例ではこうした検査を積極的に行う必要があると考える。

まとめ

まれな小児上顎洞血瘤腫症例を経験したので若干の考察を加え報告した。

鼻内手術による摘出を試みたが出血が多く上顎洞内腫瘤の完全摘出は不可能であったが、経上顎洞的アプローチ（蓋付骨弁形成上顎洞手術）によって全摘出できた。術前に血管造影、さらには選択的塞栓術を行えば内視鏡下にも摘出は可能と思われるが、こうした処置が困難な小児の上顎洞血瘤腫に対する手術は、鼻内法より経上顎洞法がより確実で安全な方法と考えられた。また、小児上顎洞血瘤腫はその頻度はまれではあるが、小児鼻副鼻腔疾患の一鑑別疾患として考慮する必要があると思われる。

参考文献

- 1) 田所喜久馬：上顎洞血瘤腫について。大日耳鼻 23:359～365, 1917.
- 2) 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.
- 3) 渡邊 建, 佐々木良二, 梅木匡則：上顎洞血瘤腫の 3 症例。耳鼻臨床 92:631～636, 1999.
- 4) 谷本秀司, 古市暢夫, 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.
- 5) 石田春彦, 法貫 昭, 山形健一：鼻・副鼻腔血瘤腫 5 例。耳鼻臨床 79:923～929, 1986.
- 6) 萩森伸一, 川上理郎, 武嶋寛剛, 他：上顎洞血瘤腫の 5 症例。耳鼻臨床 87:1229～1237, 1994.
- 7) 西森繁範, 横田幸治, 兵 行忠, 他：悪性腫瘍を思わせる病態を呈した, 2 歳児の上顎洞に発生したいわゆる血瘤腫の経験。日口診誌 11:85～88, 1998.
- 8) 松田圭二, 山崎正幸, 森満 保, 他：上顎洞血瘤腫診断における MRI の有用性。耳鼻 42:1072～1075, 1996.
- 9) 奥窪明子, 石田春彦, 天津睦郎, 他：上顎洞血瘤腫の術前画像診断。耳喉頭頸 70:35～38, 1998.
- 10) 馬場明子, 菊池俊彦, 穂山直太郎, 他：上顎洞血瘤腫に対する CT および MRI による画像解析。耳鼻 47:470～475, 2001.
- 11) 安田 京, 藤田繁俊, 山本洋平, 他：上顎洞血瘤腫の 1 例。耳鼻 47:456～460, 2001.
- 12) 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.
- 13) 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.
- 14) 福元 晃, 池園哲郎, 中溝宗永：上顎洞血瘤腫の 3 症例。耳喉頭頸 72:665～669, 2000.
- 15) 糸数哲郎, 玉城三七夫, 赤嶺 環, 他：選択的塞栓術ならびに外頸動脈遮断により摘出した上顎洞血瘤腫の 1 例。耳喉頭頸 73:209～212, 2001.
- 16) 大山 勝, 昇 卓夫：蓋付骨弁形成上顎洞手術。鼻副鼻腔炎の病態と臨床（大山 勝編）。167～169 頁, 金原出版, 東京, 1997.
- 17) 大橋伸也, 平出文久：鼻・副鼻腔血管性腫瘍病変の診断と治療。JOHNS 11:693～703, 1995.

原稿受付：平成15年9月3日

原稿採択：平成15年11月5日

別刷請求先：積山幸祐

〒890-8520 鹿児島市桜ヶ丘8-35-1

鹿児島大学大学院医歯学総合研究科先進治療科学専攻感覚器病学聴覚頭頸部疾患学