蝶形骨洞血管腫例

吉田 正¹⁾・中村光士郎²⁾・小林 泰輔²⁾・富所 雄一³⁾

Hemangioma of the Sphenoid Sinus: A Case Report

Tadashi Yoshida

(Ehime Medical University)

Koshiro Nakamura and Taisuke Kobayashi

(Ehime Prefectural Central Hospital)

Yuichi Tomidokoro

(National Cancer Center Hospital East)

Hemangioma is a benign tumor that originates from vascular tissue of the skin, mucosa, bone, muscles and glands. More than half of hemangioma are found in the head and neck regions. Hemangioma of the paranasal sinus is rare, particularly in the sphenoid sinus; only four cases have been previously published in the literature. We report a case of hemangioma of the sphenoid sinus in a 13-year-old boy. CT and MRI demonstrated that the tumor filling the sphenoid sinus extended into the nasal cavity. Following embolization of some feeding arteries, removal of the tumor by the endonasal approach was attempted using an endoscope, however, the procedure could not be completed due to excessive bleeding. The remaining tumor was completely resected by lateral rhinotomy, five months after the previous surgery. Imaging studies such as MRI and conventional angiography play a vital role in the diagnosis of hemangioma. Hemangiomas arising from the paranasal sinus or nasal cavity should be treated by preoperative intervention, such as ligation or embolization of the feeding artery in order to prevent severe intraoperative hemorrhage. Considering the location and size of the tumor, it is important to choose the most appropriate surgical method for the management of hemangioma of the paranasal sinus.

Key words : hemangioma, paranasal sinus, embolization

はじめに

頭頸部領域にみられる血管腫は顔面軟部組織に多くみられ¹⁾, 鼻・副鼻腔領域にはまれである。特に蝶形骨洞血管腫に限ると, われわれの渉猟しえた範囲ではこれまでに世界で4例の報告をみるのみである^{2)~4)}。血管腫は良性の腫瘍であり, 治療は摘出術が原則であるが, 鼻・副鼻腔領域では十分な術野をえがたい場合があり, 大量出血の危険もあるため, 選択的塞栓術など出血予防処置

を行った上で, 血管腫の発生部位や占拠部位を把握し確実な視野がえられるアプローチ法を考慮しなければならない。今回われわれは術中の大量出血に悩まされつつも, 腫瘍を完全摘出しえた蝶形骨洞血管腫の1例を経験したので報告する。

症 例

症例: 13歳, 男性。

1) 愛媛大学耳鼻咽喉科

2) 愛媛県立中央病院耳鼻咽喉科

3) がんセンター東病院頭頸部外科

主訴：両鼻閉。

現病歴：11 歳頃より季節性アレルギー性鼻炎のため近医耳鼻咽喉科でときどき投薬加療されていた。平成 12 年初め頃より徐々に鼻閉感が増悪してきたため、平成 13 年 1 月 15 日近医再診した。その際、右鼻腔内に腫瘍が認められたため、同年 1 月 19 日精査加療目的で愛媛県立中央病院耳鼻咽喉科を紹介受診した。

既往歴、家族歴：特記すべきことなし。

初診時所見：右嗅裂から総鼻道にかけて赤褐色の腫瘍を認め、後鼻孔まで充満していた。その他の耳鼻咽喉科領域には著変はなく、頸部リンパ節も触知しなかった。

検査所見：副鼻腔単純 CT にて右蝶形骨洞から篩骨洞、鼻腔そして翼口蓋窩に及ぶ巨大な陰影がみられた。内部は均一で石灰化や骨破壊、周囲への浸潤等は認められなかった（図 1）。MRI では CT と同様に右蝶形骨洞から鼻腔内にかけて腫瘍の進展を認めた。腫瘍は T1 強調像で低信号、T2 強調像で低～中信号を呈し、ガドリニウムで著明に造影されるため血管系腫瘍が疑われた（図 2）。

治療経過：以上より鼻咽腔血管線維腫の術前診断で平成 13 年 2 月 24 日当院入院となり、術中出血を軽減する目的で手術前日の 2 月 26 日、Seldinger 法にて血管造影検査および血管塞栓術を施行した。右外頸動脈造影および右顎動脈造影では、腫瘍は右顎動脈およびその分枝である蝶口蓋動脈、下行口蓋動脈によって栄養され、著明な腫瘍濃染像が認められた（図 3 a）。右顎動脈を Polyvinyl

alcohol (Ivalon®) を用いて塞栓後、腫瘍濃染像は減少した（図 3 b）。

翌 27 日、全身麻酔下に内視鏡下腫瘍摘出術を施行した。腫瘍は右蝶形陥凹部より鼻腔内に進展しており、まず鼻腔側の腫瘍前端より高周波電気凝固装置で焼灼しながら鼻腔内の腫瘍を切断し進展基部である蝶形骨洞自然口を広く開放した。次に蝶形骨洞内の腫瘍を摘出しようとした際、腫瘍内の動脈より大出血をきたし止血困難なため、鼻内タンポン挿入し、右外頸動脈結紮術を併用し止血した。術中出血量は 3432 ml であった。

3 月 7 日止血確認のため、全身麻酔下に鼻内タンポン抜去したところ前回同様の激しい出血をみたため、経上顎洞的に顎動脈のクリッピングを行った。出血は激減するも持続するため内視鏡下に腫瘍内血管にも同様にクリッピングを行うことによって止血できた。本人の通学等の都合もあるため夏休みに再手術を予定し、いったん退院となった。摘出標本は $2.8 \times 1.7 \times 2$ cm で、病理組織学的検査において HE 染色で 1 層の内皮細胞からなる血管の増生が認められ、海綿状血管腫と診断された（図 4）。

平成 13 年 8 月 16 日、低血圧全身麻酔下で外側鼻切開法に下鼻甲介切除を加え、経鼻腔的に腫瘍摘出術を行った。腫瘍は蝶形骨洞前壁下縁に広基性の基部を有し、翼口蓋窩にも深く進入していたが、周囲組織との癒着は軽度で蝶形骨洞前壁を含め一塊として摘出することができ

図 1 単純 CT（術前）

a：軸位断 b：冠状断

右蝶形骨洞から翼口蓋窩、鼻腔内にかけて内部均一な陰影を認める（矢印）。

図2 MRI

a: 軸位断 T1 強調像 b: 軸位断 T2 強調像 c: 矢状断 T1 強調像 (造影) d: 冠状断 T1 強調像 (造影)

右蝶形骨洞から右鼻腔内にかけて T1 強調像で低信号, T2 強調像で低～中信号の腫瘍陰影を認め, ガドリニウムにて強く造影された (矢印)。

た。術中、総出血量は 1120 ml であった。摘出された腫瘍は赤色、弾性硬、表面平滑で、大きさ $5.4 \times 4.0 \times 2.4$ cm, 重さ 21 g だった (図 5)。病理組織像は 1 回目と同様であった。術後 4 日目に鼻内タンポン抜去し、経過良好で術後 13 日目に退院となった。

術後経過：術後 2 年目の CT 所見では腫瘍は完全に摘出されており、再発は認められなかった (図 6)。

考 察

血管腫は血管組織からなる先天的な組織奇形あるいは過誤腫と考えられている。病組織学的分類は諸家により異なるが、通常、毛細管性血管腫、海綿状血管腫、混合型に大別され、Watson ら⁵⁾によると 22% が毛細管性血管腫、73% が海綿状血管腫で血管腫の大部分が毛細管性血管腫、海綿状血管腫の両者で占められるという。発生部位は頭頸部軟部組織に生じることが多く、Macomber ら¹⁾は 281 例の血管腫病変のうち 55% が顔面および頭蓋外頭

部、5% が頸部に位置していたと報告している。顔面および頭蓋外頭部では口唇、舌、頬粘膜などの顔面軟部組織、そのなかでも特に胎生時裂溝の癒合部に好発し、鼻・副鼻腔領域にはまれである。鼻・副鼻腔の血管腫に関して組織別にみると、毛細管性血管腫は鼻中隔のキーゼルバッハ部位に好発し、鼻前庭、下鼻甲介にも発生する⁶⁾。性別では女性に多く、妊娠により増大したり、自然退縮することもある。海綿状血管腫は鼻甲介骨、まれに上顎洞壁の骨組織に発生し⁷⁾、性差はなく若年者に多くみられ、自然退縮することはないといわれる。

鼻・副鼻腔血管腫は発生領域別にみると約 80% が鼻中隔、特にキーゼルバッハ部位、15% は鼻腔側壁から発生するといわれ⁸⁾、副鼻腔から発生する血管腫はまれであり、本邦では 1984 年以降本症例を加えた 10 例^{9)~14)}の報告のみである (表 1)。この 10 例の副鼻腔血管腫を検討してみると、性別は男性 9 例、女性 1 例のみで、男性に多くみられ、発症年齢は 13 歳から 82 歳、平均 45 歳で

図3 血管造影

- a: 塞栓術前, 右顎動脈造影にて右顎動脈の末梢に腫瘍濃染像を認める.
b: 塞栓術後, 腫瘍濃染像は減少した.

図4 病理組織学的所見 (HE 染色, ×10)

1層の内皮細胞からなる血管の増生を認める.

若年成人に好発する傾向を認めた. 組織学的には毛細管性血管腫が4例, 海綿状血管腫が5例, 不明が1例であり, 発生部位は上顎洞が9例, 篩骨洞が7例で, 蝶形骨洞血管腫の報告は本報告が本邦初である. 世界的にみて

図5 摘出標本

腫瘍は5.4×4.0×2.4cm, 21g, 赤色, 弾性硬で表面平滑であった.

も蝶形骨洞血管腫は4例の報告がある^{2)~4)}だけで, 本症例はきわめてまれな1例と考えられる.

副鼻腔血管腫の症状は鼻閉, 鼻出血が多いが, 上顎洞

図 6 単純 CT (術後 2 年)
a : 軸位断 b : 冠状断
腫瘍は摘出されており, 再発は認められない.

表 1 副鼻腔血管腫本邦報告例

症例	報告者	年齢	性別	発生部位	主訴	術前処置	手術法	術中出血量 (ml)	病理組織
1	高岡ら ⁹⁾	64	男	上顎洞, 篩骨洞, 鼻腔	鼻閉, 鼻出血	(一)	Caldwell-Luc 法	50	毛細管性血管腫
2	小池ら ¹⁰⁾	53	男	上顎洞, 篩骨洞, 鼻腔	鼻出血, 左鼻閉	血管塞栓術	Caldwell-Luc 法	20	壊死 確定できず
3	森ら ¹¹⁾	48	男	上顎洞, 篩骨洞, 鼻腔	頬部腫脹, 鼻閉, 鼻漏	外頸動脈結紮術	Caldwell-Luc 法	130	毛細管性血管腫
4	〃	59	女	上顎洞, 篩骨洞, 鼻腔	鼻閉, 鼻漏, 流涙, 頬部腫脹	外頸動脈結紮術	Denker 法	650	毛細管性血管腫
5	〃	82	男	上顎洞, 篩骨洞, 鼻腔	鼻閉, 鼻出血	(一)	Denker 法	610	海綿状血管腫
6	〃	48	男	上顎洞, 篩骨洞, 鼻腔	鼻閉, 鼻漏, 流涙, 頬部腫脹, 眼球突出	外頸動脈結紮術	Caldwell-Luc 法	130	海綿状血管腫
7	田中ら ¹²⁾	15	男	上顎洞, 鼻腔	鼻閉	血管塞栓術	Denker 法	130	毛細管性血管腫
8	米本ら ¹³⁾	47	男	上顎洞, 鼻腔	鼻閉, 鼻出血	血管塞栓術, 外頸動脈結紮術	経上顎洞法	50	海綿状血管腫
9	大橋ら ¹⁴⁾	21	男	上顎洞, 篩骨洞, 鼻腔	鼻閉	血管塞栓術	経上顎洞法	400	海綿状血管腫
10	自験例	13	男	蝶形骨洞, 鼻腔	鼻閉	血管塞栓術, 外頸動脈結紮術 顎動脈結紮術	内視鏡下手術 (1 回目) 外側鼻切開法 (2 回目)	3432 1120	海綿状血管腫

に発生したものでは、頬部腫脹や眼球突出をした例もある。血管性腫瘍性病変の診断には画像検査が有用であるので、副鼻腔血管腫が疑われた場合には、まず CT, MRI, 血管造影等を行うべきである。典型的な血管腫は、CT で

は非常によく造影される軟部腫瘍としてみられ、小斑点が腫瘍内部に認められる。また、増大傾向の強い海綿状血管腫では副鼻腔骨の圧排、骨破壊をきたすことがあり、この場合は悪性腫瘍との鑑別が困難である。MRI では T1

強調像は低信号で、ガドリニウムにより強く造影され、T2 強調像では高信号を呈し、豊富な血管を反映する無信号部分 (flow void) を認める。大きな海綿状血管腫では血管腫内の血栓により血流が遮断し低信号となり、内部不均一な像を呈する。血管造影検査は、腫瘍の大きさ、部位、栄養血管を同定でき診断に有用であるだけでなく、同時に栄養動脈の塞栓術を行うことができ出血予防処置としても有効であるため必須の検査である。本症の確定診断は病理組織学的検査によるが、血管性病変が疑われる場合には大量の出血の可能性があるため安易に生検は行うべきではない。本症例では、年齢、性別、臨床症状、視診、画像所見等から術前は血管線維腫など血管性腫瘍が疑われ、摘出標本で海綿状血管腫の病理組織学的診断を得た。

治療は外科的摘出が第一選択である。血管腫は手術時に大量出血の可能性がある、特に副鼻腔血管腫は術野の確保も困難な場合もあるので術中出血のコントロールがより重要である。そのため、あらかじめ腫瘍の栄養血管に対する選択的塞栓術や頸動脈結紮などを適宜選択して行うのが望ましく、過去の報告例でも表1で示すように2症例以外は何らかの出血に対する予防処置がとられている。また手術時の麻酔は低血圧麻酔が好ましく、十分な量の輸血の準備も必要である。

血管塞栓術は血管造影の治療的応用として、血管病変や悪性腫瘍の治療に広く応用されている。近年、血管性腫瘍に対して選択的動脈塞栓術が前処置として用いられ、その有用性が報告されている¹⁵⁾。塞栓術の施行時期についてはさまざまな意見があるが、一般的に栄養動脈の再開通や側副路の形成時期を考慮し、術前数日以内に施行するのが適当と考えられており、小関ら¹⁶⁾はそのなかでも手術前日の塞栓術が有効であると報告している。塞栓物質にはゼラチンスポンジ (Gelform[®], Spongel[®] など) や Polyvinyl alcohol (Ivalon[®]) があり、Polyvinyl alcohol は直径 150 ~ 250 μm と小さく腫瘍内のより微細な血管を塞栓することができる¹⁵⁾。微細な塞栓物質は腫瘍の輸入動脈よりさらに細い腫瘍内の動脈を閉塞するために、栄養血管以外の側副血行路が発達している腫瘍でも出血予防効果が高いといわれている¹⁷⁾。一方、動脈塞栓術の重篤な合併症として塞栓子の内頸動脈への逆流による脳塞栓や¹⁸⁾、広範囲の虚血による周囲組織の壊死などがあげられる。本症例では手術前日に Polyvinyl alcohol を用いて動脈塞栓術を施行したが、術中大量出血を起こした。

その原因として、内視鏡下の操作のため止血処置が困難であったこと、塞栓後の血管造影にて腫瘍濃染像の完全な消失がみられないことより、合併症の危険性を考慮しすぎたために塞栓物質の注入量が少なく腫瘍の輸入動脈まで十分に塞栓されていなかったと考えられる。注入量を増やせば塞栓効果も高まるが合併症の危険も高まる。塞栓効果を得ながら内頸動脈塞栓を防ぐには、カテーテル先端よりも外頸動脈の近位側へ造影剤が逆流し始める時点で塞栓を終えるのが重要であるといわれている。また実際に放射線科医や脳外科医が塞栓術を行う際は、耳鼻咽喉科医も立ち会いの上、塞栓の範囲と量を定めるべきであろう。

鼻・副鼻腔血管腫の手術的アプローチ法としては、内視鏡を用いた経鼻腔の手術、経口蓋法、外側鼻切開法、経上顎洞法、Le Fort I 型骨切術¹⁹⁾ 等がある。内視鏡手術に関しては、若年性血管線維腫で翼口蓋窩、側頭下窩に大きく進展する例でも内視鏡手術のみで切除した報告²⁰⁾ や外切開に内視鏡下切除を併用するとの報告もあるが²¹⁾、症例を慎重に選んで行うべきであろう。すなわち固有鼻腔に局限した腫瘍、あるいは腫瘍が多少篩骨洞、蝶形骨洞に進展しても術前塞栓術などにより栄養血管を完全に塞栓できた場合、より良い視野を得るために他のアプローチに併用する場合等に内視鏡手術が適応になると思われる。本報告例では、血管塞栓術後、内視鏡手術を試みたが出血により十分な視野の確保が困難であった。当初より外側鼻切開に内視鏡の補助的な使用が望ましかったと思われ、反省される点である。仮に内視鏡手術のみで行う場合でも、出血時にはアプローチ法の変更や手術の中止などがありうることを術前に十分説明しておく必要があるだろう。過去の蝶形骨洞血管腫報告例では、4 症例のうち 2 例²⁾ は生検による出血が原因で死亡した。摘出できたのは 2 例で、1 例は経鼻中隔法 (Hardy 法) によるアプローチが施行され³⁾、他の 1 例は本報告例と同様に血管塞栓術後、外側鼻切開法によるアプローチで腫瘍摘出し良好な結果を示しており⁴⁾、外側鼻切開法は蝶形骨洞発症例に良い適応と考えられる。この方法は腫瘍の進展方向に応じて上顎洞や篩骨洞を開放し術野を得られるため、蝶形骨洞だけではなく側頭下窩、篩骨洞天盖への進展例にも有用である。経上顎洞法によるアプローチは、副鼻腔血管腫報告例の上顎洞、篩骨洞、鼻腔へ進展する腫瘍に対して行われており、翼口蓋窩や上顎洞、篩骨洞を占拠する場合に適している。また上顎洞

後壁を削除すれば顎動脈のクリッピング、結紮もできるため出血コントロールにも有用である。Le Fort I型骨切術は顔面に傷が残らないため審美的に優れたアプローチ法であり、腫瘍が鼻咽腔、副鼻腔さらに翼口蓋窩へと進展する場合は適応となる。しかし側方への展開は不十分のため、側頭下窩へ大きく進展した症例には適さない。このようなアプローチ法より、鼻・副鼻腔血管腫の発生部位や占拠部位を十分に把握し確実な視野が得られる手術方法を選択することが重要であり、また必要に応じては、いくつかのアプローチを組み合わせた手術法も考慮すべきである。

まとめ

1) 術中の大量出血のため、治療に難渋したまれな蝶形骨洞血管腫の1例を経験したので報告した。

2) 蝶形骨洞血管腫の摘出に対して外側鼻切開法は術野を十分確保でき有用であった。

3) 鼻・副鼻腔血管腫では大出血に遭遇し、治療に難渋することがあるため、術前に出血予防処置や治療計画を十分立てることが重要である。

本論文の要旨は第39回日耳鼻愛媛県地方部会学術講演会(平成13年12月16日、松山市)において口演した。

参考文献

- 1) Macomber WB and Wang MK : The hemangioma. GP 8:41 ~ 49, 1953.
- 2) Hayden RE, Luna M and Goepfert H : Hemangiomas of the sphenoid sinus. Otolaryngol Head Neck Surg 88 : 136 ~ 138, 1980.
- 3) Dufour H, Fesselet J, Metellus P, et al. : Cavernous hemangioma of the sphenoid sinus: case report and review of the literature. Surg Neurol 55 : 169 ~ 173, 2001.
- 4) Kilde JD, Rhee JS, Balla AA, et al. : Hemangioma of the sphenoid and ethmoid sinuses: two case reports. Ear Nose Throat J 82 : 217 ~ 221, 2003.
- 5) Watson WL and McCarthy WD : Blood and lymph vessel tumors; a report of 1056 cases. Surg Gynecol Obstet 71:569 ~ 588, 1940.
- 6) Miller FR, D'Agostino MA and Schlack K : Lobular capillary hemangioma of the nasal cavity. Otolaryngol Head Neck Surg

120 : 783 ~ 784, 1999.

- 7) 三島陽人, 滋賀秀壮, 森田恵司, 他 : 鼻腔血管腫症例一過去10年間の経験一. JOHNS 10(11) : 1613 ~ 1617, 1994.
- 8) Hargetts and Terry R : Pathologic quiz casa 1. Lobular capillary hemangioma (pyogenic granuloma). Arch Otolaryngol Head Neck Surg 112 : 1218 ~ 1220, 1986.
- 9) 高岡基雄, 生駒尚秋, 鈴木健雄, 他 : 悪性腫瘍を疑った鼻腔内血管腫の2例. 耳鼻 30 : 364 ~ 367, 1984.
- 10) 小池聰之, 小川晃弘, 宇野鉄哉, 他 : 鼻副鼻腔血管腫に対する超選択的塞栓術. 耳喉 59 : 467 ~ 470, 1987.
- 11) 森 泰雄, 岩崎幸司, 船井恒嘉, 他 : 巨大な鼻・副鼻腔血管腫の臨床的術前診断と治療. 耳喉頭頸 60 : 105 ~ 111, 1988.
- 12) 田中利善, 市村恵一, 池田利昭, 他 : 鼻副鼻腔領域の血管腫の診断法およびその有用性について. 耳喉頭頸 63 : 115 ~ 120, 1991.
- 13) 米本友明, 浅井和康, 北村達也, 他 : 鼻副鼻腔血管腫の3症例. 耳展 37 : 671 ~ 677, 1994.
- 14) 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 ~ 704, 1995.
- 15) 川浪 貢, 田中克彦, 吉村 理, 他 : 若年性血管線維腫摘出におけるEmbolizationの有効性. 耳鼻 34:630~636, 1988.
- 16) 小関芳宏, 新井寧子, 馬場広太郎, 他 : 鼻咽腔血管線維腫一手術における超選択的血管造影塞栓術の効果について一. 日耳鼻会報 89 : 1047 ~ 1050, 1986.
- 17) 有友 宏, 丘村 熙, 柳原尚明 : 鼻腔血管腫の手術療法. 耳喉 53 : 489 ~ 493, 1981.
- 18) Kirchner JA : Current concepts in otolaryngology. N Engl J Med 307 : 1126 ~ 1128, 1982.
- 19) 林 伊吹, 板倉 敦, 山本祐三, 他 : 上咽頭血管線維腫例一Le Fort I osteotomyの応用一. 耳鼻臨床 85 : 581 ~ 587, 1992.
- 20) Roger G, Tran Ba Huy P, Froehlich P, et al. : Exclusively endoscopic removal of juvenile nasopharyngeal angiofibroma: trends and limits. Arch Otolaryngol Head Neck Surg 128 : 928 ~ 935, 2002.
- 21) Carrau RL, Snyderman CH, Kassam AB, et al. : Endoscopic and endoscopic-assisted surgery for juvenile angiofibroma. Laryngoscope 111 : 483 ~ 487, 2001.

原稿受付 : 平成17年11月4日

原稿採択 : 平成18年2月8日

別刷請求先 : 吉田 正

〒791-0295 愛媛県東温市志津川

愛媛大学医学部耳鼻咽喉科