頭頸部に多発した Venous aneurysm の 1 症例

宮脇 浩紀¹⁾・堀部よし恵¹⁾・石原 啓司¹⁾田頭 宣治¹⁾・木村 信次²⁾・森 良樹³⁾

A Case of Multiple Venous Aneurysms in the Head and Neck

Hironori Miyawaki, Yoshie Horibe, Takashi Ishihara and Nobuharu Tagashira

(Hiroshima Red Cross and Atomic-Bomb Survivors Hospital)

Shinji Kimura

(Hiroshima University School of Medicine)

Yoshiki Mori

(Saiseikai Kure Hospital)

We experienced the case of a 56 year-old male with multiple venous aneurysms in the right neck, bilateral parotid region and head region. The right-sided neck tumor was soft but could not be enlarged by a Valsalva maneuver. Venography revealed venous aneurysms in the right external jugular vein and the right parotid gland. Resection was carried out for the right sided neck tumor and the subcutaneous head tumor. The right external jugular venous aneurysm communicated with the right internal jugular vein. The tumor in bilateral parotid region was not resected due to the possibility of facial palsy and a rupture of the aneurysm.

Key words : venous aneurysm, Valsalva maneuver, venography

はじめに

日常診療でしばしば経験する頸部の腫瘍性病変の中でも venous aneurysm はまれな疾患である。無症状に経過すること多いが、重篤な合併症である肺塞栓症を引き起こす危険性もある。今回我々は頭頸部に多発したきわめてまれな症例を経験したので若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

患者：56歳，男性。

主訴：右耳下部，右頸部，右側頭部腫瘍。

既往歴：糖尿病。

家族歴：特記すべきことなし。

現病歴：平成9年1月頃右耳下部に腫瘍が出現し，徐々に増大してきたため，7月近医を受診した。9月と10月に右頸部より生検を施行されたが，いずれも「静脈内に血栓の形成を伴う」という結果であり，確定診断がつかず，当科を受診した。

来院時現症：両側耳下部，右鎖骨上窩に柔らかな圧痛を伴わない腫瘍を触知した(図1)。また右側頭部皮下にも同様の腫瘍を認めた。これらの腫瘍はいずれも圧迫により縮小し，圧迫を解除すると再び膨隆した。Valsalva maneuver による腫瘍の増大は認められなかった。

CT：右鎖骨上窩に円型に造影され，内部が低吸収の腫瘍陰影を認めた(図2)。左耳下腺内には血管と同程度に強く造影される境界明瞭な径約2cmの腫瘍を認めた。

1) 広島赤十字・原爆病院耳鼻咽喉科

2) 広島大学医学部耳鼻咽喉科学教室

3) 済生会呉病院耳鼻咽喉科

図1 頸部所見

右耳下部(黒矢印)および右鎖骨上窩(白矢印)に柔らかな腫瘍を認める。

図2 CT

右鎖骨上窩の円形に造影され内部が低信号の腫瘍(矢印)。

(図3)。右耳下腺内にも同様に強く造影される径約2 cmの腫瘍を認めた。

MRI：右耳下腺内の腫瘍はT2強調像で周囲が高信号で内部に斑状の低信号域を含む類円型の腫瘍として描出された(図4)。左耳下腺内、右鎖骨上窩の腫瘍も同様に描出された。

以上より血管性病変を強く疑い、静脈造影を施行した。

静脈造影：右耳下腺の腫瘍に直接穿刺した静脈造影では、腫瘍内に陰影欠損がところどころに存在し、血栓の形成が疑われた(図5)。鎖骨上窩の腫瘍に直接穿刺した静脈造影では、外頸静脈に造影剤のpoolingが認められ、耳下腺内の腫瘍と同様に陰影の欠損を認め、血栓形成が

図3 CT

左耳下腺内の血管と同程度に強く造影される境界明瞭な腫瘍(矢印)。

図4 MRI (T₂強調像)

右耳下腺内の周囲が高信号で内部に斑状の低信号域を含む類円形の腫瘍(矢印)。

疑われた。また腫瘍から内頸静脈への交通枝を認めた(図6)。

以上より venous aneurysm を疑い右側頭部と鎖骨上窩の2つの腫瘍に対し摘出術を施行した。

右鎖骨上窩の手術所見：外頸静脈に約2 cmの腫瘍性変化を認め、静脈造影と同様に内頸静脈への交通枝を認めた。腫瘍への流入、流出血管をすべて結紮し摘出した(図7)。周囲との炎症性癒着は認められず胸鎖乳突筋との剥離は容易であった。また側頭部腫瘍は皮膚組織と

図5 右耳下腺の腫瘍に穿刺した静脈造影
腫瘍内に陰影欠損(矢印)を認める。

図6 右鎖骨上窩の腫瘍に穿刺した静脈造影
腫瘍内に陰影欠損(白矢印)を認め、内頸静脈への交通枝(黒矢印)がみられる。

にも切除した。

病理組織所見：側頭部腫瘍と鎖骨上窩腫瘍はともに静脈が瘤状に拡張し静脈内膜の肥厚が認められ、平滑筋層は菲薄化し、弾性線維は断裂していた。内腔には血栓の形成を認めた(図8)。

考 案

従来より静脈の拡張性病変に対し様々な名称が用いられているが、古田¹⁾は静脈が異常に紡錘状に拡張したものを静脈拡張症(phlebectasia)、静脈血還流障害により静脈が種々な程度に拡張、屈曲、蛇行したものを静脈瘤(varix または varicose vein)、静脈が動脈瘤様に異常拡張したものを静脈脈瘤(venous aneurysm)と分類している。今回我々が経験した症例は多発した腫瘍がいずれも静脈の限局性の瘤状の拡張であり venous aneurysm に分類されると考えられる。

venous aneurysm は比較的まれな疾患であるが頸部、胸腹部、四肢とほぼ全身の静脈系に発生する²⁾。そのうち頸部の venous aneurysm について、年齢分布は小児

図7 手術所見
外頸静脈に約2 cmの腫瘍(A)が形成され、内頸静脈への交通枝(B)がある。(図の左が頭側)。

に多いとされているが、2～75歳と幅広く、男女比ではやや女性に多いと言われている³⁾。植田⁴⁾は本邦報告29例のうちで30歳以上の男性例はなかったと報告しているが、今回の症例は56歳男性であり、まれな症例と言える。また、ほとんどの例は単発で、両側頸部発生例が1

図8 病理組織学的所見(HE 強拡大)

静脈の内膜は肥厚し平滑筋層の菲薄化と弾性線維の断裂がみられる。

例報告されている⁴⁾が、本症例のように頭頸部に多発した症例の報告はない。

原因としては解剖学的異常⁵⁾、静脈圧の上昇⁶⁾、静脈壁異常や頸静脈鞘の菲薄脆弱化⁷⁾、外傷、炎症等⁸⁾が考えられているが明らかではない。長山ら⁵⁾は外頸静脈の一端が内頸静脈と接合した形態異常を有した症例を報告している。今回の症例の右頸部の病変については内頸静脈と外頸静脈との交通枝が存在しており、この様な解剖学的異常が venous aneurysm の成因となっている可能性も考えられるが、右側頭部、両側耳下腺内の病変の成因は不明である。

病理学的には静脈壁の平滑筋線維や弾性繊維の減少、内膜の肥厚等が見られるとの報告が多い。Matsuura ら⁹⁾は弾性繊維の欠如、減少の所見より、その原因として先天的な静脈壁の脆弱性を示唆している。今回の症例でも同様に平滑筋層の菲薄化および弾性繊維の断裂が認められた。

診断に際し、鑑別すべきものとしては正中頸嚢胞、側頸嚢胞、皮様嚢腫、血管腫、リンパ管腫、bronchogenic cyst, enterogenic cyst, laryngeal cyst などが挙げられる。

venous aneurysm は緊満感はなく柔らかい腫瘤で圧迫すると容易に縮小する。Valsalva maneuver や体位変換にて腫瘤が増大をする例が多い³⁾⁸⁾¹⁰⁾¹¹⁾が、大きさに変化のない場合もある¹⁾¹²⁾。今回の症例で Valsalva maneuver による腫瘤の増大が認められなかったのは、内部に血栓を形成していたことに起因すると考えられる。

画像診断としては CT, MRI, エコーなどが有用であるが、確定診断を得るためには静脈造影が必要である。しかし直接穿刺法では血栓の形成、腫瘤の破裂等の危険も危惧される。そのため、最近ではカラードプラーエコー⁵⁾や MR アンギオグラフィー¹³⁾が非侵襲的に血流を画像化することが可能であり、また、aneurysm への流入、流出などの血行動態の観察にも優れ有用であったとの報告もある。

venous aneurysm の治療に関しては重篤な合併症である肺塞栓の予防の意味でも外科的切除が一般的である。また肺塞栓症の原因検索中に venous aneurysm が発見されることもある。頸部の venous aneurysm では肺塞栓の合併は比較的少ないが、膝窩静脈の venous aneurysm では活動的な関節に隣接するため、静脈乱流を引き起こし血栓を遊離し、肺塞栓が合併しやすい¹⁴⁾。このため下肢や上大静脈に発生した場合には切除が必要であるが、頸部では血栓性静脈炎や増大傾向にある場合や美容上問題になる時にのみ手術適応となるといったように発生部位により治療方針を分けている報告もある¹¹⁾。我々の経験した症例では、両側耳下腺内の病変については術後顔面神経麻痺の発生する可能性があることと術中の腫瘤破裂による大量出血の危険性を考え、外科的に摘出することが困難と予測され、今回は手術操作を加えなかった。しかし右耳下腺の腫瘤については流出血管を全て結紮し、血栓の流出の予防を行った。現在、血小板凝集抑制剤を投与して経過観察を行っている。

ま と め

1. 頭頸部に多発したまれな venous aneurysm の 1 例について報告した。

2. 右鎖骨上窩の腫瘤は外頸静脈より発生し内頸静脈への交通枝が存在した。両側耳下腺内の腫瘤に関しては顔面神経麻痺の可能性、出血の危険性を考慮し、手術操作を加えなかった。

本論文の要旨は第24回日耳鼻中国地方部会にて口演した。

参考文献

- 1) 古田凱亮, 安藤幸史, 磯部 潔, 他: 外頸静脈拡張症の 2 例. 外科 48: 865~868, 1986.
- 2) 吉田博希, 笹嶋唯博, 森本典雄, 他: 重複 Popliteal Venous Aneurysm の 1 治験例. 静脈学 2: 93~96, 1991.

- 3) 植田 洋, 関 敦郎, 足立昌彦: 高齢者に発生した頸部 venous aneurysm の一例. 耳鼻臨床 補60: 130~135, 1992.
- 4) 武岡哲良, 佐々木重幸, 鵜沢茂樹, 他: 右頸静脈 venous aneurysm の1例. Jpn Circ J 47: 4, 1983.
- 5) 長山郁生, 大尾嘉宏巳, 伊藤真人: 異常頸静脈を伴った頸部 venous aneurysm の1例. 耳鼻 39: 161~164, 1993.
- 6) Garrow E, Kirschten H and Soh HL: Internal jugular phlebectasia. Am J Surg 108: 380~383, 1964.
- 7) 丸山 毅, 村上 泰: 小児内頸静脈拡張症 — 5 症例手術治験のまとめ—. 日耳鼻 82: 1361~1364, 1979.
- 8) 林 載鳳, 石原 浩, 浜中喜晴, 他: Venous aneurysm の1例. 日外会誌 94: 655~657, 1993.
- 9) Matsuura Y, Higo M, Yamashina H, et al: A case report of venous aneurysm of the neck vein. Jpn J Surg 11: 39~42, 1981.
- 10) 植松正久, 岡田昌義, 松田 均, 他: 血栓を有する外頸静脈の venous aneurysm の2手術治験例. 静脈学 6: 97~101, 1995.
- 11) 花上 仁, 津久井優, 徳田 裕, 他: 小児の外頸静脈に発生した venous aneurysm の1例. 日臨外会誌 50: 2161~2164, 1989.
- 12) 野村和彦, 宮川真一, 萩原迪彦, 他: 血栓を伴っていたため確定診断が困難であった右内頸静脈の venous aneurysm の1例. 外科 55: 230~232, 1993.
- 13) 久我貴之, 松本直晃, 中山富太, 他: MR アンギオグラフィーが有用であった右外頸静脈 aneurysm の1治験例. 日臨外医会誌 52: 70~73, 1991.
- 14) 舟波 誠, 高場利博: Venous aneurysm. 静脈およびリンパ管疾患と外科. 241~243頁, 日本アクセルシュプリング出版, 東京, 1997.

(別刷請求先: 宮脇浩紀
〒730-0052 広島市中区千田町1-9-6
広島赤十字・原爆病院耳鼻咽喉科)