診断に苦慮した鼻腔内血管腫の1例

木俣 清子・郡山 智也・稲福 繁*
中山 明峰*・石神 寛通*

A Case Study of Atypical Nasal Hemangioma

Kiyoko Kimata and Tomoya Kohriyama
(Nagoya Memorial Hospital)

Shigeru Inafuku, Meiho Nakayama and Hiromichi Ishigami
(Aichi Medical University)

Hemangioma in the nasal cavity is rarely reported. We report a case of a 50 year old female who visited the Department of Otorhinolaryngology at Nagoya Memorial Hospital complaining of nasal bleeding.

Although we did a biopsy before the surgery, we could not confirm that the tumor was a hemangioma because a large part of the tumor only showed necrosis on pathology. Malignancy was suspected before surgery, and the surgery was done for pathologic confirmation, and possible removal of the tumor. Fortunately, there was little bleeding during the surgery and the pathologic diagnosis showed hemangioma. In general, we must be very cautious with surgery of hemangiomas because of the risk of severe bleeding.

Key words : hemangioma, nasal cavity, tumor, nasal bleeding, pathology

はじめに

鼻腔内血管腫は肉眼的にも画像的にも悪性腫瘍と酷似しており、診断が困難な場合がある。今回、われわれは初期の病理診断では炎症性偽腫瘍と診断されたが、後に鼻腔内血管腫と確診された1例を経験したので、文献および考察を添えて報告する。

症 例

症例：50歳，女性。

主訴：右鼻閉，右鼻出血。

家族歴：特記事項なし。

既往歴：1994年8月慢性腎不全にて死体腎移植。その後より免疫抑制剤であるシクロスポリンを内服中。

現病歴：1996年3月より右鼻閉があり，近医受診し，

右鼻茸の診断のもとに鼻処置や電気メスにより鼻茸焼灼を施行されたが，1998年5月初旬より右鼻出血を繰り返すようになった。1998年6月精査目的にて当院紹介となった。

初診時所見

右鼻腔内に腫瘤が充満し，下鼻甲介の一部はみえたが中鼻甲介は確認できなかった。暗赤色軟性の肉芽様腫瘤を認め，易出血性であった。鼻腔内発生部位は確認できなかった。左鼻腔内および咽喉頭所見に異常を認めなかった。単純X線写真にて右上顎洞・篩骨洞のびまん性陰影を認めた(図1)。西端式鋭匙鉗子にて鼻腔内腫瘤の表面より実質内に向かって組織採取，検査を依頼したところ，後日，炎症性ポリープとの結果が得られた。

図1 単純X線写真

右上顎洞・篩骨洞にびまん性陰影を認める(矢印).

検査所見

CT (図2)にて右鼻腔から上顎洞, 篩骨洞にかけて円形の内部不均一な軟部組織腫瘍陰影を認め, 右上顎洞内側骨壁が消失していた. 上顎洞は小さく, 外側に圧縮され, 下鼻甲介も小さくなっていた. 鼻中隔は左側に偏位していた. MRI (図3)にて右鼻腔から上顎洞, 篩骨洞内に不均一な高～低信号を示す腫瘍陰影を認め, Gd-DTPAにて造影された. これらの画像所見にて不規則な浸潤像はないものの悪性腫瘍も否定できず, 再度, 外来にて鼻内より腫瘍に切開を加えて内部より組織採取したが悪性所見が得られなかった.

手術・術後

悪性腫瘍の疑いを捨てきれず, 1998年7月17日に確定診断を主目的として(状況に応じて二次手術の可能性も考えた上で)右上顎洞開放術を全身麻酔下に施行した. Caldwell-Luc法で右上顎前壁骨を削開すると腫瘍を直視でき, 周囲との剥離は容易であった. 右上顎洞内側骨壁は消失しており, 腫瘍は鼻腔内に連続していた. 上顎洞粘膜は袋状に外側に残存していたが剥離除去した. 萎縮した下鼻甲介を温存し, その上方が大きく開放されたので対孔を形成しなかった. 腫瘍は鼻腔側壁中鼻道部よ

図2 CT

右鼻腔から上顎洞・篩骨洞にかけて内部不均一な軟部組織腫瘍陰影を認める.

図3 MRI (T1 強調画像)

右鼻腔から上顎洞・篩骨洞内に不均一な高～低信号を示す腫瘍陰影を認め、Gd-DTPA にて造影された。

り発生し、上顎洞内側骨壁を壊して中鼻甲介をまきこみ、篩骨洞に及んだものだと考えた。腫瘍の剥離は容易で癒着は少なく、理学的な悪性所見も乏しく、術中迅速病理検査においても悪性所見はなかったので、辺縁部粘膜も含めて根絶的に腫瘍を摘出した。術中出血は約 50 ml と少量であった。腫瘍は 5×4×4 cm と巨大であり上顎前壁開窓部より一塊として摘出するのが困難だったので4切片として分割摘出された(図4)。止血操作は主に電気凝固で行った。摘出術後、鼻腔・上顎洞内にガーゼタンポンを入れ、後出血予防とした。このガーゼタンポンは術後3日目で全抜去をしたが、抜去時にも出血はほとんどなかった。術後7日目の病理組織検査の結果は炎症性偽腫瘍であった。術後経過は良好で、術後10日目に退院した。

組織所見(図5, 6)

摘出した腫瘍の病理組織学的検査の結果は細胞間質にプラズマ細胞を主体として炎症性細胞浸潤を伴い、肉芽と出血を伴った炎症性偽腫瘍であった。しかし典型的の炎

図4 摘出標本

症性偽腫瘍ではなかったため再度検討した結果、血管腫と確診した。その理由として、1. 出血と壊死で組織構築の判読が困難であった。2. 変性・壊死した組織周囲に拡張、増殖した血管が多数みられ、これらの血管に悪性像はなく、血管腫と考えた。3. この血管腫とその周囲が変性・壊死をきたし、ここに炎症性反応が加わり、肉芽形成をきたしたと思われた。

退院後経過

退院後より鼻閉・鼻出血はなく、術後4カ月のCTにて腫瘍像は認めない(図7)。その後、現在まで鼻腔内の理学的所見は良好であり、鼻腔内および創部上顎洞ファイバースコープ検査においても再発はなく手術前同様の

図5 病理組織所見(HE 染色, ×20)

フィブリン析出を伴う肉芽組織内で内腔に多数の赤血球を容れた拡張した血管増生を認める。

図6 病理組織所見(HE 染色, ×100)

増生する血管腔の内皮細胞には異型性は認められず, 良性血管腫の像である。

図7 CT(術後4ヵ月)
腫瘍像は認めない。

社会生活をしている。

考 察

血管腫の多くは血管組織からなった先天的な組織奇形

腫といわれている。脈管系腫瘍のうち血管腫はリンパ管腫より病因論的にも分類上にも複雑であるが、今日、以下の分類が多く用いられる。1) Capillary hemangioma 2) Cavernous hemangioma 3) Venous hemangioma 4) Epithelioid hemangioma 5) Granulation type hemangioma 6) Tufted hemangioma に分けられる¹⁾。本例では Capillary hemangioma であった。血管腫の肉眼的性状は感染を伴わないものは淡紅色または赤色で、表面は平滑で、光沢を帯びており、有茎性であることが多く、その鑑別は比較的容易である。しかし外部より刺激を受けやすい鼻腔にあっては感染などにより二次的修飾を受けると、粘膜上皮は扁平上皮化し、表面は平滑な性状より凹凸不整へと変化し、色調は暗赤色を基調とし、うっ血、浸出液、痂皮付着の状態などにより、暗褐色、灰白赤色、赤褐色、帯黄白色、灰黄色など複雑な色調を呈するようになる²⁾。したがって病理像が多彩な所見を呈し、診断が困難であるとの報告が以前より多い^{3)~9)}。また、臨床的にも易出血性であること、骨破壊を伴うことにより、悪性腫瘍と疑わせることが多い⁸⁾⁹⁾。

この症例に関しても悪性腫瘍を疑って手術を行った。結果として良性腫瘍であったものの、悪性腫瘍でも骨破壊を思わせるようなX線単純写真上の骨欠損がみられない場合もあり¹⁰⁾、腫瘍の疑いがあれば積極的に上顎洞を開放するべきであると考えている。もし術中病理が悪性で摘出が困難であった場合は一旦退去し、その病理組織や進展範囲を再検討して化学療法、放射線学的療法、手術等を考えていた。

本例は刺激を受けやすい鼻腔にあって、感染などにより二次的修飾を受ける可能性にある状況下で、長期に免疫抑制剤であるシクロスポリンを内服していたことが血管腫とその周囲の炎症性反応を誘発し、変性壊死、肉芽形成したと推察される。シクロスポリンは臓器移植における拒絶反応、および骨髄移植における移植片対宿主病を抑制する薬剤であり、移植患者に幅広く用いられている。その薬理作用は、ヘルパーT細胞のインターロイキン-2 (IL-2) の産生と遊離を抑制することによりリンパ球の活性化を抑制し、強力な免疫抑制作用を示す。しかしながらこの免疫抑制作用により抵抗機能障害という副作用がある。抵抗機能障害として肺炎、肺膿瘍、歯窩膿瘍、扁桃炎、膿皮症、口腔内カンジタ症、带状疱疹、ヘルペス脳炎、アフタ性口内炎などの細菌・真菌・ウイルス感染が報告されている¹¹⁾。本例では、口腔・咽頭には

特記すべき所見はなく、リンパ節腫大もなく、易感染性を示唆するエピソードも聞いていない。正常組織ではない血管腫は免疫機構が貧弱であり、ここに感染性炎症が加わり、免疫抑制剤の副作用により難治性となり、変性壊死、肉芽形成したのであろうか。また血栓性微小血管障害があるともいわれているが、本例本腫瘍に該当するところがあるかどうかわからない。

本例での血管腫は変性壊死が著明であることで、通常の血管腫より血流が少なかったためか、術中出血はそれほど認められなかった。通常の血管腫は出血対策に対しては苦悩するものであり¹²⁾、術前に血管腫との診断がつけば予防的に止血操作が必要である。外頸動脈撮影による腫瘍栄養血管を同定し¹²⁾¹³⁾、さらに出血予防処置として人工栓塞法が行われている。内頸動脈領域への栓子の逆流による正常組織の栓塞という重篤な副作用の可能性はあるが、手技的にも確立され日常的に行われてきている^{14)~17)}。また、局所麻酔の場合、 α ブロッカーを用いた低血圧麻酔が手術に鎮痛効果を上げるのみならず、出血予防にもなると報告されている¹⁸⁾。しかしそれでも出血予防に関しては完全なものではなく、自己血貯血などの用意もするべきであろう。

まとめ

1. 変性壊死が強く認められたため、診断に苦慮した鼻腔内血管腫の1例を報告した。
2. 免疫抑制剤の副作用により炎症が修飾され、変性壊死、肉芽形成が加わったと推察した。
3. 臨床的には悪性腫瘍との鑑別診断が難しいので、対応に配慮しながらなるべく早期に積極的に上顎洞試験的開放をするべきである。

本論文の要旨は第38回日本鼻科学会(千葉)にて報告した。

本症例の診断に際し、愛知県がんセンター立松正衛先生の御協力に深く感謝致します。

参考文献

- 1) Franz ME and Sharon WW: Benign tumors and tumorlike lesions of blood vessels. Soft Tissue Tumors. pp 579~

626, Mosby, St. Louis, 1995.

- 2) 白幡雄一, 児玉 実, 足川力雄: 鼻科領域血管腫の臨床像. 耳展 21: 430~439, 1978.
- 3) 石山英一, 千葉暎子, 片野善夫, 他: 鼻腔 Capillary hemangioma の2 治験例. 耳喉 33: 825~827, 1961.
- 4) 中野富夫, 鈴木康生: 篩骨洞粘膜より発生した血管腫の1 例. 耳鼻臨床 57: 407~410, 1964.
- 5) 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.
- 6) 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.
- 7) 博多 弘, 西山明雄: 悪性疾患を疑わせた鼻腔 hemangioma の2 症例. 耳喉 49: 517~520, 1977.
- 8) 高岡基雄, 生駒尚秋, 鈴木健男, 他: 悪性腫瘍を疑った鼻腔内血管腫の2 例. 耳鼻 30: 364~367, 1984.
- 9) 石田春彦, 法貴 昭, 山形健一, 他: 鼻・副鼻腔血瘤腫5 例 一上顎癌を疑わせた1 例を中心として一. 耳鼻臨床 79: 923~929, 1986.
- 10) 加藤孝邦, 石井正則: 鼻・副鼻腔悪性腫瘍と慢性副鼻腔炎. 耳鼻 30: 717~720, 1984.
- 11) ノバルティスファーマ株式会社: サンディミュンカプセル. 医薬品インタビューフォーム. 15~43頁, 1998.
- 12) 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.
- 13) 有友 宏, 丘村 熙, 柳原尚明: 鼻腔血管腫の手術的療法. 耳喉 53: 489~493, 1981.
- 14) 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.
- 15) 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.
- 16) 平本博之, 嶋田高明, 武田直也, 他: 術前塞栓療法を施行した鼻腔血管腫の2 症例. 耳鼻臨床 補61: 211~216, 1993.
- 17) 岡 亮, 中山泰輝, 小川佳伸, 他: 妊娠中に急速に増大した鼻腔細管性血管腫例. 耳鼻臨床 88: 43~48, 1995.
- 18) 中川 肇, 藤川和成, 芹沢泰博, 他: NLA 変法麻酔の鼻副鼻腔手術への応用. 耳喉 55: 503~508, 1983.

(別刷請求先: 木俣清子

〒480-1195 愛知県愛知郡長久手町岩作字雁又21)
愛知医科大学耳鼻咽喉科学教室