上顎洞に進展した chronic expanding hematoma の 1 例

須賀 則幸^{1,2)}・重松 久夫²⁾・菊池建太郎³⁾
鈴木 正二²⁾・草間 薫³⁾・坂下 英明²⁾

A case of chronic expanding hematoma developing in the maxillary sinus

SUKA Noriyuki^{1,2)}・SHIGEMATSU Hisao²⁾・KIKUCHI Kentaro³⁾
SUZUKI Seiji²⁾・KUSAMA Kaoru³⁾・SAKASHITA Hideaki²⁾

Abstract: Chronic expanding hematoma (CEH) is a lesion that develops gradually after trauma or surgery. Generally, it arises in the pleural cavity, lower leg, abdomen, or back; occurrence in the head and neck region is uncommon.

We report a case of CEH arising in the maxillary sinus of a 47-year-old man who was referred to our hospital for further evaluation of a lesion in the left maxillary sinus. No subjective symptoms were reported at presentation, and he had no remarkable family or past medical history. Panoramic X-ray films showed a radiopaque dome-shaped mass in the left maxillary sinus, and computed tomography demonstrated a well-circumscribed round lesion. The lesion, which was clinically diagnosed as a maxillary tumor, was resected under general anesthesia. Histopathological examination revealed that the tumor consisted of an inner layer of hematoma with capillaries, a middle layer of granulation tissue, and an outer layer of dense fibrous connective tissue with calcification. The histopathological diagnosis of the lesion was CEH. There was no sign of recurrence 19 months after the operation.

Key words: chronic expanding hematoma (慢性拡張性血腫), maxillary sinus (上顎洞)

緒 言

外傷や手術などで創部に生じた血腫は、短期間のうちに吸収され消失するが、まれに長期間の経過を経て徐々に増大することがあり、これを chronic expanding hematoma (CEH) と呼んでいる¹⁾。本症の好発部位は胸部や下肢、腹部、背部であり²⁾、頭頸部での発生頻度は比較的まれである^{3~6)}。

今回われわれは、上顎洞に進展した CEH の 1 例を経験したので報告する。

症 例

患 者: 47 歳, 男性。

初 診: 2008 年 8 月。

主 訴: 左側上顎部の精査。

既往歴, 家族歴: 特記事項なし。

現病歴: 2008 年 7 月, 近歯科で左側上顎臼歯の治療中, パノラマ X 線写真で左側上顎洞部の不透過像を指摘され, 8 月に精査目的で当科を紹介され受診した。

現 症:

全身所見: 体格中等度, 栄養状態は良好であった。顔貌所見は左右対称で, 左側に鼻症状, 眼症状や眼窩下神経支配領域の知覚異常などは認めなかった。

局所所見: 口腔内所見では, 4 5 6 7 は補綴処置が施行されており, 頬側歯槽骨の膨隆や疼痛などの症状は認めなかった (写真 1)。

画像所見: パノラマ X 線写真では, 4 5 6 は根管治療が施行され失活歯であった。また, 4 から上顎結節に至る上顎洞内部には, 境界やや不明瞭なドーム状の不透過像を認

¹⁾ 公立福生病院歯科口腔外科

(主任: 馬越誠之部長)

²⁾ 明海大学歯学部病態診断治療学講座口腔顎顔面外科学分野 II

(主任: 坂下英明教授)

³⁾ 明海大学歯学部病態診断治療学講座病理学分野

(主任: 草間 薫教授)

¹⁾ Department of Dentistry and Oral Surgery, Public Fussa Hospital (Chief: Dr. MAGOSHI Seishi)

²⁾ Second Division of Oral and Maxillofacial Surgery, Department of Diagnostic and Therapeutic Sciences, Meikai University School of Dentistry (Chief: Prof. SAKASHITA Hideaki)

³⁾ Division of Pathology, Department of Diagnostic and Therapeutic Sciences, Meikai University School of Dentistry (Chief: Prof. KUSAMA Kaoru)

受付日: 2010 年 9 月 21 日

採択日: 2011 年 12 月 27 日

写真1 口腔内写真

左側頬側歯槽部の明らかな自覚症状は認めなかった。

写真2 パノラマX線写真

4 から上顎結節に至る上顎洞内部には、境界やや不明瞭なドーム状の不透過像を認めた(矢印)。

写真3 CT画像

A：冠状断 B：水平断

左側上顎洞内に、ほぼ均一で境界明瞭な類円形の病変を認めた。また、上顎洞の鼻腔側壁は圧迫による吸収像を認めた。

めた(写真2)。CT写真では、左側上顎洞内に周囲軟組織と同程度の density を示す、ほぼ均一で境界明瞭な類円形の病変を認めた。また、病変に隣接した鼻腔側壁の一部に圧迫による吸収像がみられ、6 口蓋根との連続性を認めた(写真3)。右側上顎洞内の一部にも同様の density を示す類円形の小さな病変を認めた。

臨床診断：上顎洞腫瘍(歯源性腫瘍疑い)。

処置および経過：病変は画像上で歯根との連続性を認めたことから、歯源性腫瘍の可能性を考慮した。また、骨の圧迫による吸収像が一部であること、病変の境界が比較的明瞭であることから、一塊として摘出が適切であると判断し手術を計画した。2008年12月、全身麻酔下で和辻・Denker法に準じた腫瘍摘出術を施行した。浸潤麻酔後、3 から 6 部の歯肉頬移行部に切開を加え、粘膜骨膜弁を形成し、梨状口および眼窩下孔を明示した。上顎洞前壁の骨を削除したところ、洞内に腫瘤状を呈する病変を認めた(写真4A)。

病変は鼻腔側壁と癒着していたため、鼻腔側壁前方、眼窩下孔付近まで剥離し、一塊として摘出した。また、洞粘膜は炎症性に肥厚していたため可及的に除去したが、洞底部にCT上で示唆された歯根の露出は確認できなかった。術後19か月、再発の所見はなく、経過良好である。

摘出標本所見：病変は38×30×22mm大の類円形、淡黄白色、表面やや凹凸を呈していた(写真4B)。

病理組織学的所見：断面ルーペ像で病変全体をみると、主に充実性を呈し、全体が濃淡をみる好酸性を示し、一部に融解壊死、嚢胞様構造を呈し、好塩基性の部分を認めた(写真5A)。また、病変の外層は膠原線維に富む密な線維成分からなり、Masson trichrome (MT) 染色で青色、Elastica van Gieson (EVG) 染色で赤色に染色され、内部の粗な線維成分からなる部分は淡明に染色された。主として血液凝固成分からなる部分では、MT染色で赤色、EVG染色で黄色に染色された(写真5B～E)。強拡大像では、病変の外層は

写真4 術中写真と摘出標本写真

A: 術中写真; 上顎洞前壁の骨を削除したところ洞内に腫瘍状を呈する病変を認めた。

B: 摘出標本写真; 病変は 38×30×22mm 大の類円形、淡黄白色、表面やや凹凸を呈していた。

硝子化を伴う線維性結合組織の密な増生からなり、部分的に石灰化を認めた(写真6A, B)。その内層は粘液腫様変性を示す線維性結合組織や出血像が混在し、また融解壊死を生じた無構造な部分もみられた(写真6C)。血腫内部には拡張した毛細血管の増生を認め、その周囲にはヘモジリン沈着や泡沫細胞、形質細胞、リンパ球、多核白血球などの炎症性細胞浸潤を認めた(写真6D)。なお、歯根に近接していた洞粘膜は線毛円柱上皮で覆われ、上皮下には慢性炎症性細胞浸潤を伴い肥厚していたが、歯源性上皮は認めなかった。

最終診断: chronic expanding hematoma.

考 察

1968年にFriedlanderら⁷⁾が長期間を経て徐々に増大する血腫として、初めてCEHを報告した。その後、Reidら¹⁾が外傷により生じた血腫が1か月以上持続し、徐々に増大

したものをCEHと定義した。このようにCEHの定義は明らかではないが、病理組織学的に本病変の内層は線維性結合組織や出血像が混在している所見からCEHの診断に合致すると考えられた。

また、発生原因としては、現在のところLabadieら⁸⁾の慢性硬膜下血腫発現に関する説が支持されている。すなわち、まず血塊内の血球などの破壊物が炎症性反応を起こし、血塊周囲に被膜、新生血管が出現し、血腫が形成される。次に、炎症による浸透圧の変化により肉芽組織内の毛細血管からの滲出や出血をくり返すことにより、血腫が増大をきたすとされている。

本邦における報告例97例を集計した北川ら²⁾によると、本症は胸部(44例, 45.4%)にもっとも多く、次いで下肢(14例, 14.4%)、腹部・骨盤部(8例, 8.2%)、背部(7例, 7.2%)、臀部(3例, 3.1%)、頭頸部(3例, 3.1%)、上肢(2例, 2.1%)の順であり、頭頸部領域での報告はまれである。われわれが渉猟し得た限りでは、頭頸部領域に発生したCEHの報告例は5例^{3~6)}で、発生部位は鎖骨上窩、後頸部、頭頂部、側頭部、顎関節部であり、上顎洞に生じた本症例は極めてまれな1例であると考えられた。

しかし、以前より上顎洞血腫の報告があり^{9~11)}、同疾患とCEHとの異同について論じた報告は認めない。過去の報告例を参照すると、これらの病態像がCEHと非常に類似していることから、上顎洞血腫と上顎洞に発生したCEHは類似疾患と考えられた。上顎洞血腫については臨床診断名であり、その診断根拠としては出血があげられているが、病理組織学的には、血腫、壊死組織像が主体をなしていることが重要である¹⁰⁾。また、成因については、血管腫などの腫瘍性病変がその基礎にあり、そこから二次的産物として血管腫様病変の形をとる場合と、腫瘍性病変ではなく他の原因により血腫、壊死が生じたと考えられる場合に大別される^{10, 11)}。本症例は後者に類似していた。

通常、CEHの診断には外傷や手術の既往が鑑別上重要となるために、既往歴の聴取は必須である。しかし、本症例のように外傷や手術などの既往が明らかでなく、自覚症状を認めない場合は診断することは困難である。本症例では明らかな発症原因を認めなかったが、X線検査より上顎洞底が低く、歯根との連続性を認めたことや、歯槽骨の厚みがないことから、根管治療などの歯科治療による洞粘膜の傷害があった可能性も考えられた。また、CT上では上顎洞の鼻腔側壁に圧迫による吸収像を認めることより、鼻腔側壁の傷害が発症原因となった可能性も考えられた。

本疾患は発見されるまで長期間を要することが多く、北川ら²⁾は発症契機から手術までの平均期間を16.9年と報告し、さらに発生部位の深さで集計を行い、浅部発生例(筋膜上、筋内、筋間)で平均5.4年、深部発生例(腹腔内、

写真5 病理組織像

- A: HE 染色；病変全体をみると、主に充実性を呈し、全体が濃淡をみる好酸性を示し、一部に融解壊死、嚢胞様構造を呈し、好塩基性の部分を認めた（ルーペ像）。
- B: Masson trichrome 染色；膠原線維に富む密な線維成分からなる病変の外層は青色に染色され、内部の粗な線維成分からなる部分は淡明に染色された。主として血液凝固成分からなる部分では赤色に染色された（ルーペ像）。
- C: Elastica van Gieson 染色；膠原線維に富む密な線維成分からなる病変の外層は赤色に染色され、内部の粗な線維成分からなる部分は淡明に染色され、主として血液凝固成分からなる部分では黄色に染色された（ルーペ像）。
- D: Masson trichrome 染色；病変の一部拡大像（ $\times 20$ ）。
- E: Elastica van Gieson 染色；病変の一部拡大像（ $\times 20$ ）。

写真6 病理組織像（HE 染色）

- A, B: 病変の外層は硝子化像を伴う線維性結合組織の密な増生からなり、部分的に石灰化像を認めた（A: $\times 40$, B: $\times 200$ ）。
- C: 内層は粘液腫様変性を示す線維性結合組織や出血像が混在していた（ $\times 100$ ）。
- D: 血腫内部には拡張した毛細血管の増生を認め、その周囲にはヘモジデリン沈着や炎症性細胞浸潤を認めた（ $\times 200$ ）。

胸壁、腹腔内、肺、後腹膜、後縦隔)で平均24.6年と、深部発生例で発見が遅い傾向にあったと報告している。本症例のように既存の体腔内に発症した場合は、臨床症状に乏しく、X線検査にて偶然発見されるような場合では、発症契機から手術までに長期間経過していることが考えられた。

画像所見では、被膜の一部に石灰化を有することがあり、CT検査にて内部は不均一な嚢胞状腫瘍として報告されている^{12,13)}。本症例はCT上で境界明瞭、内部均一な充実性病変を示したことからCEHの定型像を示さず、このため臨床的には腫瘍性病変を疑った。

治療は被膜とともに摘出する方法とドレナージ術が主に行われており、穿刺吸引のみで十分であるという報告もある¹⁴⁾。どの方法を選択するかは発生部位、大きさなどによって決定されるが、口腔領域で、大きさが比較的小さい場合は全摘出が望まれる。本症例ではCT検査にて上顎洞の鼻腔側壁が吸収され、病変が鼻腔側壁と癒着していたため、和辻・Denker法に準じた腫瘍摘出術を選択した。摘出術を行ったところ、充実性の病変であった。

肉眼所見では、通常、線維性被膜をもつ嚢胞様構造を示し、赤褐色泥状の内容液やゼラチン様物質などを含むことが多い¹²⁾。しかし、一部に充実性の構造を示すことがある^{6,15)}。本症例は淡黄白色で、一部に嚢胞様構造をみたが、大部分は充実性であった。病理組織学的所見では、外層はヘモジデリン沈着やマクロファージを含む厚い線維性結合組織、中層は疎性結合組織、内層は赤血球やフィブリン様物質を含んだ肉芽組織の3層構造から成る¹⁾。また、外層には黄色肉芽腫様組織や石灰化を伴ったコレステリン沈着も認めることがある¹⁶⁾。本症例でも、毛細血管を伴う血腫からなり、その周囲にはヘモジデリン沈着を認める内層、肉芽組織からなる中層、石灰化像をみる密な線維性結合組織からなる外層で構成されていた。しかし、病変内部における線維成熟のありかたはさまざまであり、時相が同えた。外層においては硝子化像や石灰化像の出現、MT染色およびEVG染色の所見より、密な膠原線維に置換されており、病変形成の時間的経過が長いことが示唆された。

臨床的にCEHと診断することは困難であり、最終的な確定診断には、病理組織学的検査が不可欠である。しかし、上顎洞に関連した腫瘍を疑う症例においては、CEHをも念頭に置き、臨床経過、外傷および手術の既往などを問診するということの大切さを再認識された。

結 語

今回われわれは、上顎洞に進展したCEHの1例を経験したので、その概要を報告した。

本論文の要旨は第189回日本口腔外科学会関東地方会(2010年6月、栃木県)において発表した。

引 用 文 献

- 1) Reid, J.D., Kommareddi, S., et al.: Chronic expanding hematomas. A clinicopathologic entity. JAMA 244: 2441-2442 1980.
- 2) 北川朋子, 若森 健, 他: 非定型的な臨床経過を示した術後血腫の1例“Chronic expanding hematoma”の文献的考察を含めて. 日皮会誌 115: 1327-1331 2005.
- 3) Brown, C.S. and Wallac, C.T.: Chronic hematomas; a complication of percutaneous cathelization of the internal jugular vein. Anesthesiology 45: 368-369 1976.
- 4) 黒川正人, 宗内 巖, 他: 小児頭頸部のChronic Expanding Hematomaの2症例. 日形会誌 19: 583-587 1999.
- 5) Tada, H., Hatoko, M., et al.: Chronic expanding hematoma in the temporal region. J Craniofac Surg 17: 567-570 2005.
- 6) 内藤博之, 関谷 亮, 他: 顎関節部に発生したchronic expanding hematomaの1例. 日口外誌 55: 300-304 2009.
- 7) Friedlander, H.L. and Bump, R.G.: Chronic expanding hematoma of the calf. A case report. J Bone Joint Surg Am 50: 1237-1241 1968.
- 8) Labadie, E.L. and Glover, D.: Physiopathogenesis of subdural hematoma; Part I: Histological and biochemical comparisons of subcutaneous hematoma in rats with subdural hematoma in man. J Neurosurg 45: 382-392 1976.
- 9) 田所喜久馬: 上顎竇血腫二就テ. 大日耳鼻 23: 359-360 1917.
- 10) 松本康博, 瀬戸皖一, 他: 上顎洞血腫の1例. 日口診誌 5: 221-224 1992.
- 11) 宮田 勝, 坂下英明, 他: 悪性腫瘍が疑われた上顎洞血腫の1例. 日口診誌 9: 114-117 1996.
- 12) 河内秀幸, 白方秀二, 他: 25年前の外傷による胸腔内“chronic expanding hematoma”の1手術治験例. 日胸外誌 38: 1068-1072 1990.
- 13) 水尾秀代, 伊藤義雄: 腫瘍とまぎらわしかった胸腔内chronic expanding hematoma—肺全摘後33年目に摘出された1例のCT, MRI所見について—。画像診断 16: 912-915 1996.
- 14) 篠原一彦, 栗原泰行, 他: 原因不明の後腹膜・胸腔内慢性血腫の1例. 臨床外科 46: 767-769 1991.
- 15) Kwon, Y.S., Koh, W.J., et al.: Chronic expanding hematoma of the thorax. Yonsei Med J 48: 337-340 2007.
- 16) Okada, K., Sugiyama, T., et al.: Chronic expanding hematoma mimicking soft tissue neoplasm. J Clin Oncol 19: 2971-2972 2001.