鼻腔に発生した血管線維腫 2 症例の治療経験

神戸大学医学部耳鼻咽喉科学教室

藤 島 禎 弘 石 田 春 彦 天 津 睦 郎

ANGIOFIBROMA LOCATED IN THE NASAL CAVITY —A REPORT OF TWO CASES—

Sadahiro Fujishima, Haruhiko Ishida, Mutsuo Amatsu

Department of Otolaryngology-Head and Neck Surgery, Kobe University School of Medicine, Kobe

We report here two rare cases of angiofibroma located in the nasal cavity. After angiographic embolization to reduce operative hemorrhage, surgical resection was performed by a transantral approach in both cases.

Case 1 was a 24-year-old male who presented with a left nasal obstruction and recurrent nasal bleeding. An anterior rhinoscopy showed a reddish tumor occupying the left nasal cavity; the tumor was histologically diagnosed as an angiofibroma. An angiography showed that the feeding artery was the left sphenopalatine artery. One day after angiographic embolization using gelform, the tumor was completely removed from the middle meatus using a transantral approach. Blood loss for the operation was no more than 140 ml, and no sign of recurrence was observed one year after the operation. Case 2 was a 17-year-old male who presented with a left nasal obstruction. An anterior rhinoscopy showed a reddish tumor occupying the left nasal cavity, and a histological examination revealed an angiofibroma. The day after angiographic embolization, the tumor was resected from the middle meatus using a transantral approach, similar to Case 1. Blood loss was no more than 132 ml, and no postoperative bleeding occurred. No sign of recurrence was observed six months after the operation.

Key words : 鼻咽腔血管線維腫, 超選択的動脈塞栓術, 経上顎洞法

I はじめに

鼻咽腔血管線維腫は、主に思春期男性に発症する比較的まれな腫瘍である。病理組織学的には良性腫瘍であるが、易出血性で骨破壊を起こしやすく再発も多く認められることより、臨床的には悪性腫瘍に準じて取り扱われることが多い。本症はほとんどが上咽頭から発生しそれ以外から発生するのは比較的まれであるが、今回われわれが経験した2症例はいずれも鼻腔より発生し、上咽頭には全く病変を認めなかった。さらに術前に超選択的動脈塞栓術を施行することにより少量の出血で摘出し得たので、文献的考察を加えて報告する。

II 症 例

われわれが経験した血管線維腫2症例は、ともに若年男性であり、主訴、局所所見、画像所見、手術所見、発生部位などが非常に酷似しているため、そのうちの症例1を詳細に呈示する。

症例1：24歳、男性

主訴：左鼻閉、左鼻出血

現病歴：平成10年初め頃より左鼻閉を自覚し左鼻出血を反復するようになったため、平成11年12月28日某院耳鼻咽喉科を初診した。鼻腔腫瘍を指摘され同院外来で生検を受けたが、その際出血が多く、鼻咽腔血管線維腫の

疑いとの結果であったため当科を紹介された。

初診時所見：前鼻鏡検査では左鼻腔に充滿する，表面平滑で白苔を伴った赤色の腫瘤を認めた。上咽頭には病変を認めず，腫瘤の発生部位は不明であった（図1）。

画像所見：造影CTでは，左鼻腔に造影効果のある腫瘤陰影を認めた。上顎洞後壁の骨は圧排され，一部に骨欠損像を伴った陰影を認めた（図2）。MRIでは，左鼻腔内にT1強調画像で中信号域，T2強調画像で高信号域と多数の無信号域が混在した腫瘤陰影を認めた。上顎洞内はT1強調画像で低信号域，T2強調画像で高信号域の均一な陰影を認め，これは上顎洞自然口が腫瘤により閉塞され二次的に上顎洞内に液状成分が貯留しているものと考えられた（図3）。

図1 前鼻鏡所見（T：腫瘍 *：鼻中隔 #：鼻前庭）
左鼻腔に充滿する，表面平滑で白苔を伴った赤色の腫瘤を認めた。

図2 造影CT
左鼻腔に造影効果のある腫瘤陰影（▲）を認める。
上顎洞後壁の骨は圧排され，一部に骨欠損像を伴った陰影を認める。

a

b

図3 MRI

- a（T1強調画像）：左鼻腔内に中信号域の腫瘤陰影を認める。
- b（T2強調画像）：高信号域と多数の無信号域が混在した腫瘤陰影を認める。

上顎洞内はT1強調画像で低信号域，T2強調画像で高信号域の均一な陰影を認め，液状成分が貯留しているものと考えられた。

図4 超選択的動脈塞栓術（側面像）

- a（塞栓前）：栄養血管は顎動脈の枝である蝶口蓋動脈でtumor stain（▲）を認めた。
b（塞栓後）：（↑）よりGelfoam細片を用いて塞栓した結果，tumor stainは完全に消失した。

図5 摘出標本（*：下鼻甲介）
大きさ：35×37×17mm

顎洞自然口付近より発生し，鼻腔内を充満していた。篩骨洞内への腫瘍進展はみられず，外切開を加えずに下鼻甲介とともに摘出することができた（図5）。術中出血量は140mlと少量で，術前の塞栓術が著効を示したと考えられた。

病理組織学的所見：粘膜上皮下に血管と線維性結合組織成分が混在していた。弱拡大では血管壁の薄い一層の内皮細胞からなる毛細血管や，平滑筋の中膜を有する比較的大きな血管など，大小不同の血管を認めた（図6-a）。強拡大では血管内に動脈塞栓術によって生じたと思われる塞栓子を認めた（図6-b）。

術後経過：術後出血を認めず，術後約1年が経過しているが再発は認められていない。

症例2：17歳，男性

主訴：左鼻閉

初診時所見，画像所見，血管造影の所見，手術所見，発生部位，病理組織学的所見は，症例1とほぼ同様であった。術中出血量は132mlであった。

術後経過：術後出血を認めず，術後約半年が経過しているが再発は認められていない。

III 考 察

1 疫学

鼻咽腔血管線維腫は学童期以降の思春期男子に好発することから，若年性血管線維腫ともいわれる。発生率は頭頸部腫瘍の0.5%¹⁾といわれており，比較的にまれな疾患である。そのほとんどが上咽頭から発生し，それ以外から発生するのはまれである。Neel²⁾は120例中，鼻腔内に限局したのは2例(1.7%)であったと報告しており，出井ら³⁾は上咽頭以外に発生したものは，諸外国では上顎洞に多く，本邦では鼻腔内に多い傾向にあったと報告している。我々が渉猟し得た限りでは，上咽頭以外に発生したものは，本邦では自験例を含めて34例であった。そのうち鼻腔から発生した症例は23例（うち自験例が2例），上顎洞が5例，蝶形洞が2例，篩骨洞，翼口蓋窩，翼状突起，側頭下窩がそれぞれ1例であった。また鼻腔から発生した23例の内訳は，中鼻道がもっとも多く9例

図 6 病理組織像 (HE染色)

- a (弱拡大)：血管壁の薄い一層の内皮細胞からなる毛細血管や、平滑筋の中膜を有する比較的大きな血管など、大小不同の血管 (▲) を認める。
- b (強拡大)：血管内に動脈血栓によって生じたと思われる塞栓子 (↑) を認める。

表 1 上咽頭以外に発生した血管線維腫の本邦報告例 (自験例含む)

鼻 腔	2 3	
中鼻道	9	
鼻中隔	8	
下鼻甲介	3	
中鼻甲介	1	
下鼻道	1	
鼻腔側壁	1	
上顎洞	5	
蝶形洞	2	
篩骨洞	1	
翼口蓋窩	1	
翼状突起	1	
側頭下窩	1	
計	3 4	(例)

(うち自験例が 2 例)，鼻中隔が 8 例，下鼻甲介が 3 例，中鼻甲介，下鼻道，鼻腔側壁がそれぞれ 1 例であった (表 1)。

2 診断

臨床症状は，鼻閉，鼻出血，鼻漏，耳閉感，頬部腫脹などで，時に大量の鼻出血をきたすことがある。

前鼻鏡，後鼻鏡所見においては，腫瘍の色調は暗赤色であることが多く，灰白色との報告もある。表面は平滑であることが多いが，結節状，分葉化していることもある。

次に画像所見であるが，造影 CT では造影効果の著明な腫瘍としてみられ hypervascularity を示唆する血管による無信号域 (flow void) を小斑点として認められる

ことがある。MRI では T1 強調画像で中信号域，T2 強調画像で高信号域を示し，Gd-DTPA により腫瘍実質部分は著明に造影される。MRI においても腫瘍内の比較的大きな血管による無信号域を小斑点として認められる^{4,5)}。本症例では，鼻腔内に限局した腫瘍実質は T1 強調画像で中信号域，T2 強調画像で高信号域と多数の無信号域が混在し，腫瘍内に増生した比較的大きな血管を示しているものと思われた。上顎洞内は T1 強調画像で低信号域，T2 強調画像で高信号域の均一な陰影を認め，これは上顎洞自然孔付近より発生した腫瘍が上顎洞自然孔を閉塞したために，二次的に上顎洞内に液状成分が充満したものと考えられた。

思春期男子に好発するという特徴，反復する鼻出血や鼻閉などの症状，前鼻鏡，後鼻鏡所見，さらに画像所見からある程度は本症と診断できるが，確定診断はやはり病理組織学診断である。術前に生検をすべきか否かについては諸家により意見の分かれるところである。平出ら⁶⁾は，一般的に血管性腫瘍に対する術前の生検は禁忌とされており，それは生検で大量の出血がおこりやすく，また出血する割には採取した組織量が小さく確定診断を得ることができない場合が多いからである，と報告している。著者らは，外来での安易な生検を避けるのは言うまでもないが，大量出血の可能性が低いと考えられた場合は，生検後の出血を念頭に置き十分な止血準備の上で生検を行ってもよいと考える。

鼻出血をきたす易出血性腫瘍として鑑別すべき疾患としては血管腫，血瘤腫，出血性鼻茸や上顎腫瘍などがある。

病理組織学検査では、幼弱な構造をもつ多数の毛細血管と、線維芽細胞や膠原線維からなる間質とで構成される。毛細血管は大小不規則に拡張し、一層から数層の様々な発達程度の血管芽細胞から構成される⁷⁾。また、年齢とともに線維性成分の割合が増加するといわれている⁸⁾。

3 治療

治療は手術による腫瘍の全摘出が基本である。その他に放射線治療、ホルモン療法などがあるが、放射線治療単独では根治性がなく誘発癌も危惧されるため、手術不可能な症例にのみ行われる。またホルモン療法は術前の性ホルモン投与により縮小効果が得られたという報告⁸⁻¹⁰⁾はあるが、いまだ統一した見解はなく単独での根治性もないため術前の補助療法に用いられている。

手術法としては経上顎洞法、経口蓋法、鼻内法、側鼻切開法などがある。自験例のように上顎洞内に病変があり中鼻道に基部をもつ腫瘍であれば、鼻腔、上顎洞を単一空間で視野の確保ができる経上顎洞法を選択すればよいと考える。経口蓋法、鼻内法はそれぞれ上咽頭、鼻腔内に腫瘍が局限している場合に適応となるが、いずれの場合も腫瘍の進展範囲が他部位にまで及んでいれば、ひとつのアプローチだけでは視野が得にくい。その場合、側鼻切開法を用いれば視野を十分にとれるという利点はあるが、顔面に皮膚切開を置かざるを得ない。いずれにしても腫瘍の大きさ、占拠部位、進展範囲を十分に考慮して手術法を選択するべきである。

また本症に対して、1972年、Roberson¹¹⁾は術前に超選択的動脈塞栓術を行うことにより術中の出血を最小限に抑えることができると報告している。以降、術前に血管造影を行い栄養動脈を同定した上で塞栓術を行い、術中出血がかなり減少したという報告が散見される^{4,12-15)}。塞栓の材料としてはGelfoam細片、Ivaron細粒などが使用されている。一般に外頸動脈結紮術後の側副血行路は3日から5日以内に形成されるといわれており¹⁶⁾、塞栓術から手術までの期間は2日以内が理想である。外頸動脈系からの塞栓術に伴う合併症には、塞栓物質の頭蓋内血流への流入と、脳神経栄養血管の塞栓による脳神経麻痺がある¹³⁾が、重篤な合併症は過去に報告がない。自験例においても塞栓術に伴う合併症はなく、塞栓後に腫瘍の色調が赤褐色から明らかに乏血状になった。また術中出血は140ml、132mlと少量であり、術中視野を確保するのに塞栓術は有効で、外科的摘出術と併用されるべき術前処置と考える。

IV まとめ

鼻腔より発生した血管線維腫2症例を経験したので報

告した。血管線維腫に対して術前に超選択的動脈塞栓術を行うことによって術中出血量が減少し、術前処置として有効であると考えられた。また、腫瘍の大きさ、占拠部位、進展範囲を十分に考慮して手術法を選択するべきで、本症例のような場合は、経上顎洞法で腫瘍を摘出するのが妥当と考えられた。

参考文献

- 1) Batsakis JG: Tumors of the head and neck: clinical and pathological considerations. 2nd edition, Williams & Wilkins Co, Baltimor, 1979, pp291-312.
- 2) Neel HB: Juvenile angiofibroma. Am J Surg 126: 547-556, 1973.
- 3) 出井教雄, 新川 敦, 吉田泰行, 他: 篩骨洞より発生したと考えられた若年性血管線維腫の1例. 耳喉頭頸 65: 285-289, 1993.
- 4) 福田 論, 川浪 貢, 犬山征夫: 鼻咽腔血管線維腫の診断と治療. JOHNS 11: 718-723, 1995.
- 5) 鶴 博生, 村上純滋, 鬼塚英雄, 他: 若年性鼻咽腔血管線維腫のMRI. 臨床放射線 37: 499-502, 1992.
- 6) 平出文久, 松原 宏: 若年性鼻腔血管線維腫の1例. 耳喉 50: 991-997, 1978.
- 7) Harma. RA: Nasopharyngeal angiofibroma. A clinical and histopathological study. Acta Otolaryngol (Stockh) 146: 1-74, 1958.
- 8) Martin H, Ehrlich HE, Abels JC: Juvenile nasopharyngeal angiofibroma. Ann Surg 127: 513-536, 1948.
- 9) 古市暢夫, 金森邦彦, 大藤周彦, 他: 鼻咽腔血管線維腫症例追加—男性ホルモン投与と病理組織所見—. 耳喉 45: 91-96, 1973.
- 10) Schiff M: Juvenile nasopharyngeal angiofibroma. A Therapy of Pathogenesis. Laryngoscope 69: 981-1016, 1959.
- 11) Roberson GH, Biller H, Sessions DG. et al: Presurgical internal maxillary artery embolization in juvenile angiofibroma. Laryngoscope 82: 1524-1532, 1972.
- 12) 五十嵐文雄, 野々村直文, 中野雄一, 他: 鼻咽腔血管線維腫3症例の治療経験. 耳喉頭頸 64: 777-782, 1992.
- 13) 山上岩男, 小林繁樹, 大里克信, 他: マイクロカテーテル, polyvinyl alcoholを用いた若年性鼻咽

腔血管線維腫に対する術前塞栓術. 臨床放射線
39:1583-1590, 1994.

- 14) 沖田 渉, 吉岡克己, 石尾健一郎, 他: 若年性鼻咽
腔血管線維腫の 2 症例. JOHNS 14: 253-257,
1998.

- 15) 吉福孝介, 西園浩文, 松崎 勉, 他: 中鼻道に発生
した有茎性鼻咽腔血管線維腫. 耳鼻臨床 92:1205-
1209, 1999.

- 16) 小関芳宏, 新井寧子, 馬場廣太郎, 他: 鼻咽腔血管
線維腫 —手術における超選択的血管造影塞栓術の
効果について—. 日耳鼻 89:1047-1050, 1986.

(2001年 5 月28日受稿, 2001年 9 月28日受理)

別刷請求先 〒654-0155 神戸市須磨区西落合3-1-1

国立神戸病院耳鼻咽喉科 藤島禎弘

Tel: 078-791-0111 Fax: 078-791-5213