鼻腔血瘤腫の 1 例

— 上顎洞血瘤腫との組織学的検討 —

*兵庫医科大学耳鼻咽喉科

**横浜市立大学医学部附属市民総合医療センター耳鼻咽喉科

***横浜市立大学大学院医学研究科頭頸部生態機能・病態医科学

八木澤 瑞穂*,***, 石戸谷 淳一**, 佃

守***

Hematoma-like Mass of the Nasal Cavity

Mizuho Yagisawa*,***, Junichi Ishitoya**, Mamoru Tsukuda***

*Department of Otolaryngology, Hyogo College of Medicine, Hyogo

**Department of Otorhinolaryngology, Yokohama City University Medical Center, Yokohama

***Department of Biology and Function in the Head and Neck, Yokohama City University, Graduate School of Medicine, Yokohama

We recently treated a patient with a bleeding nasal polyp that was localized in the nasal cavity. Since its histological features, such as an admixture of capillary congestion, dilated vessels, hemorrhage, and fibrin exudation, which resembled those of hematoma-like mass of the maxillary sinus (HLMMS), which we previously reported; the polyp was diagnosed as a hematoma-like mass of the nasal cavity. The finding that the most frequent site of attachment of the hematoma-like masses in our patients was near the ostium of the maxillary sinus suggests that the masses arose from in that site. The present findings led us to propose the following hypothesis to explain the pathogenesis of hematoma-like mass. Dysfunction of venous return at the ostium of the maxillary sinus leads to capillary and venous congestion in the mucosa, and the vessels become dilated and partially discontinuous. Despite leakage of red blood cells and fibrinogen from these discontinuous vessels, fibrin does not replace collagen, because these conditions do not mobilize inflammatory cells. These conditions cause a hematoma-like mass expansion in the maxillary sinus or the nasal cavity or the maxillary sinus.

Key words : 血瘤腫, 鼻腔, 上顎洞, hematoma-like mass of the maxillary sinus (HLMMS), bleeding nasal polyp

はじめに

出血性鼻茸は鼻腔内に発生する易出血性の腫瘍性病変の総称である。以前より上顎洞血瘤腫との関連について指摘されており, 上顎洞血瘤腫が上顎洞内に発生した出血性鼻茸であるとする報告もある¹⁾。今回我々は鼻腔外側壁より発生し固有鼻腔に局限した出血性鼻茸症例を経験し, この出血性鼻茸症例と我々が既に報告した上顎洞血瘤腫症例の臨床的特徴, および組織学的特徴²⁾につい

て比較検討し, また血瘤腫の成因について考察したので報告する。

対象と方法

2002年から2003年までの2年間に横浜市立大学医学部附属市民総合医療センター耳鼻咽喉科で手術をした出血性鼻茸1例, 上顎洞血瘤腫6例の7症例の臨床的特徴, およびヘマトキシリン・エオジン染色(HE染色)におけるそれぞれの症例の組織所見について比較検討した。

表 1 7 症例の臨床的特徴のまとめ

症 例		病悩期間 (月)		CT 上腫瘤の 大きさ (mm)	CT 上骨破壊所見	治 療	腫瘤付着部
出血性鼻茸	1	11歳 男性	2	固有鼻腔内に限局	無	摘出術	鼻腔外側壁
	2	16歳 男性	3	上顎洞内に限局	無	CL+ESS	—
上顎洞血瘤腫	3	14歳 男性	6	30×30×25	有	CL+ESS	上顎洞内側壁
	4	66歳 男性	2	35×30×30	有	CL+ESS	上顎洞内側壁
	5	68歳 女性	2	40×40×60	有	CL	上顎洞内側壁
	6	17歳 女性	5	60×70×60	有	CL+ESS	上顎洞内側壁
	7	76歳 男性	110	60×80×70	有	デンケル手術	判然とせず

CL=コールドウエルルック手術

表 2 7 症例の組織所見の出現のまとめ

症例		腫瘤の大きさ (mm)	静脈のうっ血・拡張	拡張血管の集簇	出血巣	フィブリン析出
1	11歳 男性	固有鼻腔内に限局	+++	++	+	+
2	16歳 男性	上顎洞内に限局	+++	+++	+	+
3	14歳 男性	40×40×50	+++	+++	++	+++
4	66歳 男性	35×30×30	++	+++	+++	+++
5	68歳 女性	40×40×60	+	+++	+++	+++
6	17歳 女性	80×80×60	++	+++	+++	+++
7	76歳 男性	40×70×60	++	+++	+++	+++

+++ = 全スライド中50%以上に各所見が認められるもの
++ = 全スライド中25～50%に各所見が認められるもの
+ = 全スライド中25%以下に各所見が認められるもの

結 果

表 1 に 7 症例の臨床的特徴について、また表 2 にそれぞれの特徴的な組織所見の出現について示す。

症例 1 は術中所見においても CT, MRI 画像所見 (図 1) と同様に上顎洞粘膜は正常で固有鼻腔内に限局しており、内視鏡下で全摘出を行った。摘出検体の肉眼的所見は、黄褐色の被膜様の部分と易出血性の部分が混在して不均一であった (図 2a)。摘出検体が肉眼的に上顎洞血瘤腫に類似 (図 2b) していたため上顎洞血瘤腫 6 症例の組織所見と比較検討したところ、我々が既に報告した上顎洞血瘤腫の特徴的所見^{2,16)}と同様に血管のうっ血・拡張 (図 3b)、拡張血管の集簇 (図 4b)、フィブリン析出・出血巣 (図 5b) の 4 つの所見の混在がみられた。

正常の上皮下の血管のうっ血・拡張の像 (図 3b) は、上顎洞血瘤腫においては比較的病変の小さい症例 (症例 2, 症例 3) で高頻度に見られたが、このような上顎洞血瘤腫の初期変化に類似した所見 (図 3a) を症例 1 においても認めた。

さらに上顎洞血瘤腫において全例に見られた拡張血管の集簇像 (図 4b) を症例 1 においても認めた。上顎洞

血瘤腫ではこのような拡張した集簇血管の周囲に出血やフィブリン析出が見られたが、今回の症例 1 においても同様に、このような血管の周囲に出血・フィブリン析出の像 (図 5) が見られた。またマクロファージやヘモジデリン沈着、コラーゲンはほとんど見られず、フィブリン析出後の器質化の所見があまり見られないことも上顎洞血瘤腫と類似していた。

以上のように上顎洞血瘤腫と症例 1 の出血性鼻茸症例の特徴的な組織学的所見が同様であったことから、この症例を鼻腔血瘤腫と診断した。またこれら 7 例の血瘤腫症例の発生部位は上顎洞血瘤腫 4 例では上顎洞内側壁、鼻腔血瘤腫症例では鼻腔外側壁に腫瘤が付着しており (表 1)、いずれも上顎洞自然口周囲から発生したことが類推された。

考 察

出血性鼻茸、上顎洞血瘤腫のいずれも易出血性の腫瘍性病変に対する臨床上的疾患概念であり、その組織学的所見や成因について統一的な見解はなかった。このうち我々は上顎洞血瘤腫に対して、血管のうっ血・拡張、拡張血管の集簇、出血巣・フィブリン析出の 3 つの所見が様々な頻度で混在することが組織学的な特徴であること

図1 症例1 (鼻腔出血性鼻茸) の単純 CT 画像 (冠状断), 単純 MRI 画像 (冠状断, 軸位断)。固有鼻腔内に限局した腫瘍性病変が見られた。

図2 a : 症例1 (鼻腔出血性鼻茸) の肉眼的所見。黄褐色の被膜様の部分と暗赤色の部分を認めた。
b : 症例6 (上顎洞血管腫) の肉眼的所見。症例1 と類似した黄褐色の被膜様の部分と暗赤色の部分が混在し不均一な所見が見られた。

を報告した。またこの不均一であるという組織学的特徴から、上顎洞血管腫に類似した症例に対して用いられてきた hemangioma³⁻¹¹⁾, organized hematoma^{12,13)}, hematoma¹⁴⁾, organized hematoma mimicking tumor¹⁵⁾ などの名称はこの上顎洞血管腫の一部分の所見を表現しているのみであると考え、上顎洞血管腫に対して hematoma-like mass of the maxillary sinus (HLMMS) という名称を提唱した²⁾。

さらに上顎洞血管腫にみられる拡張血管の集簇については上顎洞血管腫は海綿状血管腫と類似しているものの血管腫とは異なり、うっ血した血管が過度に拡張し、その血管が集簇している像であると考えている¹⁶⁾。また海綿状血管腫では拡張した血管が一層の内皮細胞で囲まれているが、血管腫ではこのような裏打ちがないという組織学的所見も異なっている。

鼻腔に発生する易出血性病変として報告される症例のうち、最も頻度の多い症例は鼻腔血管腫である。過去の鼻腔血管腫の報告例^{1,17,18,19)} ではいずれも鼻腔外側壁から発生する血管腫は、鼻中隔に発生する血管腫で毛細血管性血管腫が多いのに比較して、海綿状血管腫が多いことを指摘している。このように鼻腔外側壁発生の海綿状血管腫と診断された症例の中には、今回の症例1のように鼻腔血管腫が含まれている可能性があると考えられ、いわゆる出血性鼻茸と総称される病変のうち、鼻腔血管腫は特異な場合ではないと思われる。

血管腫が自然口周囲から発生していることを考えると、この部位における静脈の還流障害が原因となつて血管のうっ血・拡張が引き起こされて血管腫が形成されることが類推される。自然口周囲の静脈還流は重力に抗しなければならぬことから、上顎洞内の粘液線毛運動と

図3 a: 症例1 (鼻腔出血性鼻茸) の組織学的所見 (HE 染色)。正常の上皮下に静脈がうっ血・拡張した像が見られた。
b: 症例2 (上顎洞血瘤腫) の組織学的所見 (HE 染色)。上顎洞に局限した比較的腫瘍の小さい症例2でこのような静脈のうっ血・拡張の像が多く見られた。

図4 a: 症例1 (鼻腔出血性鼻茸) の組織学的所見 (HE 染色)。拡張した血管が集簇している所見が見られた。
b: 症例6 (上顎洞血瘤腫) の組織学的所見 (HE 染色)。このような拡張血管の集簇像は上顎洞血瘤腫症例全例で認められた。

同様にこの部位においては解剖学的理由から他部位よりも静脈の還流障害が生じやすいのではないかと仮説が立てられる。このような静脈還流障害から鼻腔内、あるいは上顎洞内の粘膜に血管のうっ血・拡張が生じ、さらに過度に血管が拡張しその連続性が破綻することで、血管内から周囲の間質に赤血球・フィブリノーゲンが析出することが考えられる。通常の炎症過程においては析出し、間質に存在するフィブリンがコラーゲンに置換されて線維化が起こり、病変は治癒する。しかし血瘤腫にお

いてはこのような血管が拡張し、周囲に赤血球やフィブリノーゲンが析出する過程において炎症性細胞が動員されないことから、フィブリンがコラーゲンに置換されず腫瘍が粘膜下で膨隆し、血瘤腫を形成するという成因についての仮説が考えられた (図6)。

ま と め

1. 固有鼻腔に局限した出血性鼻茸症例の組織所見が上顎洞血瘤腫症例と類似していたことから、鼻腔血瘤腫

図 5 a : 症例 1 (鼻腔出血性鼻茸) の組織学的所見 (HE 染色)。拡張血管の周囲に出血・フィブリン析出の像を認めた。
b : 症例 6 (上顎洞血瘤腫) の組織学的所見 (HE 染色)。拡張した血管の周囲の出血, フィブリン析出が見られ, このような所見は腫瘍が比較的大きい症例で高度かつ高頻度に見られた。

図 6 血瘤腫の成因の仮説

と診断した 1 症例を経験した。

2. 鼻腔血瘤腫, 上顎洞血瘤腫の発生部位およびその組織学的所見から, 上顎洞自然口周囲の静脈の還流障害により血瘤腫が形成されたと考えられた。

参考文献

- 1) 三島陽人, 滋賀秀壮, 森田恵司, 他: 鼻腔血瘤腫症例 過去 10 年間の経験. JOHNS 10: 1613-1617, 1994.
- 2) Yagisawa M, Ishitoya J, Tsukuda M: Hematoma-like mass of the maxillary sinus. Acta Otolaryngol 126: 277-281, 2006.
- 3) Raboso E, Rosell A, Plaza G, et al: Haemangioma of the maxillary sinus. J Laryngol Otol 111: 638-640, 1997.
- 4) Sheppard LM, Mickelson SA: Haemangiomas of the Nasal Septum and Paranasal Sinuses Henry Ford Hosp Med 38(1): 25-27, 1990.
- 5) Yasuoka T, Okumura Y, Okuda T, et al: Hemangioma and Malignant Hemangioendothelioma of the Maxillary sinus: Case Reports and Clinical Consideration. J Oral Maxillofac Surg 48: 877-881, 1990.
- 6) Ghosh LM, Samanta A, Nandy T, et al: Haemangioma of the maxilla. J Laryngol Otol 102(8): 725-726, 1988.
- 7) Tsutsumiuchi K, Hasegawa M, Okuno H, et al: Haemangioma of the Maxillary Sinus Some Comments on Pre-Operative Diagnosis. ORL J Otorhinolaryngol Relat Spec 44(1): 43-50, 1982.
- 8) Kim HJ, Kim JH, Kim JH, et al: Bone Erosion Caused by Sinonasal Cavernous Hemangioma: CT Findings in Two Patients. AJNR Am J Neuroradiol 16(5): 1176-1178, 1995.
- 9) Kulkarni MV, Bonner FM, Abdo GJ: Maxillary Sinus Hemangioma: MR and CT Studies J Comput Assist Tomogr 13(2): 340-342, 1989.
- 10) Most DS: Hemangioma of the maxillary sinus. Oral Surg Oral Med Oral Pathol 60(5): 485-486, 1985.
- 11) Jammal H, Barakat F, Hadi U: Maxillary sinus

- cavernous hemangioma: a rare entity. *Acta Otolaryngol* 124: 331-333, 2004.
- 12) Lee BJ, Park HJ, Heo SC: Organized hematoma of the maxillary sinus. *Acta Otolaryngol* 123: 869-872, 2003.
 - 13) Ozhan S, Arac M, Isik S, et al: Pseudotumor of the Maxillary Sinus in a patient with Von Willebrand's disease. *AJR Am J Roentgenol* 166(4): 950-951, 1996.
 - 14) Tabae A, Kacker A: Hematoma of the maxillary sinus presenting as a mass—a case report and review of literature. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 65(2): 153-157, 2002.
 - 15) Unlu HH, Mutlu C, Ayhan S, et al: Organized hematoma of the maxillary sinus mimicking tumor. *Auris Nasus Larynx* 28(3): 253-255, 2001.
 - 16) 八木澤瑞穂, 石戸谷淳一, 佐久間康德, 他: 上顎洞血瘤腫の成因に関する組織学的検討. *日鼻誌* 43(3): 144, 2004.
 - 17) 香取秀明, 佃 守: 鼻腔血管腫症例の検討. *耳鼻* 51: 46-49, 2005.
 - 18) Iwata N, Hattori K, Nakagawa T, et al: Hemangioma of the nasal cavity: a clinichopathologic study. *Auris Nasus Larynx* 29: 335-339, 2002.
 - 19) Kempson RL, Fletcher C.D.M, Evans HL, et al: capillary hemangioma. In *Armed Forces Institute of Pathology (ed) Tumors of the soft tissues. Atlas of tumor pathology. Third series, fasc 30, Washington DC, 2001, p314-321.*

(2006年1月16日受稿, 2006年4月18日受理)

別刷請求先: 八木澤瑞穂

〒663-8501 兵庫県西宮市武庫川町1-1

兵庫医科大学耳鼻咽喉科学教室

Tel: 0798-45-6493 Fax: 0798-41-8976