副咽頭間隙に発生した海綿状血管腫の1手術例

真 栄田 裕 行 當 山 昌 那 安 慶 名 信 也

又 吉 宣 鈴 木 幹 男

要旨：今回われわれは副咽頭間隙に発生した海綿状血管腫の極めてまれな1例を経験した。患者は66歳の男性で主訴は嚥下時の違和感であった。MRI画像上、右副咽頭間隙に境界明瞭な楕円形の腫瘤を認めたため神経原性腫瘍と診断し、経耳下腺経頸部複合アプローチ法により腫瘍を摘出した。ところが術後の病理学的所見により最終的に海綿状血管腫と診断された。副咽頭間隙に初発した海綿状血管腫の報告はわれわれの渉猟しえた範囲では海外の報告と併せても3例のみであった。本症例においては術中の大量出血は認められなかった。血管原性腫瘍は術中出血のリスクが高いため術前に確定診断をつけておくことは重要であるが、本症例のように確定診断が得られない場合においても、当術式で十分に対応が可能であると考えられた。

キーワード：副咽頭間隙腫瘍、海綿状血管腫、脈管原性腫瘍、良性腫瘍、手術

Summary A surgical treatment of cavernous haemangioma in the parapharyngeal space:

Hiroyuki Maeda, Masatomo Touyama, Shinya Agena, Sen Matayoshi and Mikio Suzuki. Department of Otorhinolaryngology-Head and Neck Surgery Graduate School of Medicine, University of the Ryukyus

Cavernous haemangioma commonly occurs at the mucous membrane of the nasal or oral cavity, inside the tongue and on the surface of facial skin in the head and neck region. Tumors occurring in the parapharyngeal space are very rare and we could find only three case reports worldwide. We report in detail our experience of surgical treatment for this rare tumor.

The patient was a 66-year-old male. In April 2014, he visited his family doctor because of the symptom of globus pharyngeus. A tumor occupying the right parapharyngeal space was found by MRI imaging, so he was referred to our hospital for further tests. As initial findings, his mesopharyngeal wall was swollen and the postnasal cavity was completely obstructed. However, irregular surface of the swelling wall was not found. In the CT scan and MRI findings, spindle tumor with an obvious capsule was found in the right parapharyngeal space. In the FDG-PET findings, abnormal concentration was not found in the local neck area or any part of his body. From these results, we diagnosed the tumor as a neurogenic tumor (e.g. Schwannoma), and surgical treatment was performed. The tumor was removed clearly by a combination of the trans-cervical approach and trans-parotid approach. There was little bleeding during the operation and he was in good condition after the operation. However, the tumor was diagnosed as cavernous haemangioma from the pathological findings. Though there was no major bleeding during operation in this case, an accurate pre-operation diagnosis is important because of the high risk of major bleeding during operation.

Key words: parapharyngeal space tumor, cavernous haemangioma, vasculature tumor, benign tumor, operation

[Received May 20, 2015, Accepted Oct. 5, 2015]

はじめに

頭頸部領域の腫瘍のうち副咽頭間隙に発生する腫瘍は全頭頸部腫瘍の約 0.5% と比較的まれなものであるが、その多くは良性腫瘍であり、耳下腺由来の多形腺腫、脂肪腫や線維腫、あるいは迷走神経鞘腫や交感神経鞘腫などの神経原性腫瘍の好発部位でもある。脈管原性腫瘍としては頸動脈小体腫瘍がよく知られているが、他の脈管原性腫瘍の発生は極めてまれであるとされる。副咽頭間隙は解剖学上、茎状突起および付着筋群によって茎突前区と茎突後区に分けられ、各々の部位によって特徴的な腫瘍が発生する。今回われわれは副咽頭間隙のうち茎突後区に発生した海綿状血管腫の 1 例を経験したので文献的考察を加えて報告する。

症 例

患者：66 歳，男性。

主訴：嚥下時の違和感。

現病歴：2014 年 4 月，嚥下時の咽頭違和感を主訴に近医を受診した。MRI 画像所見で右副咽頭間隙の占拠性病変を指摘され，精査加療目的に当院紹介となった。

家族歴：特記事項なし。

既往歴：特記事項なし。

初診時現症：耳・鼻内；異常なし。口腔内；中咽頭右側壁から後壁にかけて著しく膨隆し後鼻腔はほぼ閉鎖されていた。粘膜表面の不整は認められない。また舌根を後方から圧排していた。

CT 所見：右副咽頭間隙に明らかな被膜を有した 32×22×47mm の境界明瞭な楕円形の腫瘍を認め

た。造影効果は一様に弱く，腫瘍内部に一部低濃度部位が認められた (Fig. 1A)。

MRI 所見：中咽頭後壁粘膜下に T2 高信号，T1 で低信号の腫瘍を認めた。T2 では腫瘍の内部に一部低信号域が認められた。また腫瘍は紡錘状に伸展していた (Fig. 1B, C and Fig. 2A, B)。

CT 血管造影所見：腫瘍への流入・流出動脈や異常血管の増生等は認められなかった (Fig. 2C)。

PET 所見：腫瘍その他に明らかな異常集積は認められなかった。

術前診断：神経原性腫瘍。

治療：経頸部，経耳下腺複合アプローチ法による腫瘍摘出を施行した。頸部皮膚を挙上すると右顎下腺後方に腫瘍の一部を確認できた。腫瘍は被膜にほぼ包まれており周囲組織との癒着もほとんどなかった。顎二腹筋後腹と茎突舌骨筋を切除し，耳下腺下極と顎下部の視野を展開した。頸動脈分岐部より深部に腫瘍本体を確認した (Fig. 3)。迷走神経を同定した後，腫瘍を一塊に摘出した。術中の出血はごく少量であった。

術後経過：神経脱落症状をはじめ合併症は認められなかった。経口摂取も問題なく良好な術後経過である。

摘出標本：腫瘍の表面は平滑でモザイク調の色調であった (Fig. 4A)。内部は嚢胞性の部分と充実性の部分が混在していた (Fig. 4B)。

病理所見：一部嚢胞化した海綿状の脈管構造が認められた (Fig. 5A, B)。また免疫染色において CD31 陽性 (Fig. 5C)，D2-40 陽性，calretinin は陰性であった (Fig. 5D)。

最終診断：海綿状血管腫。

Fig. 1 CT and MRI imaging at first findings

A: The tumor is not enhanced in enhanced CT scan.

B: The tumor is low intensity in T1 imaging.

C: The tumor is high intensity with low intensity areas inside the tumor in T2 imaging.

A: MRI T2 image coronal B: MRI T2 image Sagittal C: CT angiography

Fig. 2 MRI imaging and CT angiography

A: Tumor form is elliptical or spindle in coronal of T2 MRI image.

B: The tumor is likely to continue to any nerve along the parapharyngeal space in sagittal of T2 MRI image.

C: Feeding artery or vascular malformations were not found at vascular imaging.

Fig. 3 Operative finding

The tumor located behind external cervical artery and removed clearly without any complication.

考 察

副咽頭間隙腫瘍の発生頻度は頭頸部腫瘍全体の約0.5%と比較的まれであり、その80%以上は良性とされている¹⁾。副咽頭間隙に発生する良性腫瘍としては耳下腺深葉由来の多形腺腫、迷走神経や交感神経由来の神経原性腫瘍および脂肪腫や線維腫などの間葉系腫瘍がよく知られている。また副咽頭間隙は茎状突起とそれに付着する茎突咽頭筋、茎突舌筋、茎突舌骨筋によって解剖学上茎突前区と後区に画され、その部位によって前述の発生する腫瘍に特徴がある。前区には耳下腺由来の腫瘍が発生し、後区には神経原性腫瘍や脈管原性腫瘍の発生する割合が高い。本邦における過去7年間の報告をまとめると多形腺腫が41.6%、神経鞘腫が38.9%の発生頻度であった¹⁻⁹⁾ (Table 1)。われわれの検討でも多形腺腫および神経鞘腫の発生頻度はともに35%程度であ

A: Surface

B: Inside of tumor

Fig. 4 Removal specimen

A: The surface of tumor is smooth and is wrapped by capsule.

B: There are cystic and solid region inside the tumor at the mixture.

り、前述の報告における発生頻度と同等であった。脈管原性腫瘍としては頸動脈小体腫瘍が代表的な腫瘍であるが、その他の脈管原性腫瘍の発生は非常にまれであり、なかでも海綿状血管腫は耳下腺や咽頭・喉頭から発生して副咽頭間隙に進展した報告例

Fig. 5 Pathological findings

- A: It is found cystic region at HE staining.
 B: The vasculature construction with cavernous change was found at high magnification of HE staining.
 C: There are positive findings at CD31 staining.
 D: There are negative findings at calretinin staining.

Table 1 Reports of parapharyngeal space tumor in Japan before 7 years

報告年	報告者	多形腺腫	神経鞘腫	脂肪腫	その他
2013	岡本ら	28	32	4	5
2012	伏木ら	4	2	0	1
2011	細川ら	7	7	0	4
2011	鈴木ら	7	3	0	3
2009	松吉ら	2	5	1	1
2008	岩永ら	7	4	0	1
2008	三井ら	8	5	1	2
2008	中島ら	8	11	0	11
2008	千々和ら	8	5	1	2
計		79	74	7	30

は散見されるものの^{10,11)}，副咽頭間隙に初発したとされる報告はわれわれの渉猟しえた範囲では上田らの症例報告¹²⁾，および細川ら³⁾の副咽頭間隙腫瘍集計データ中にリストアップされた1例の2例のみであった。海外の報告は1例のみであった¹³⁾。

一方，海綿状血管腫の56%は頭頸部領域で発生するとされ，またその85%が新生児もしくは胎児期に発生したものが，成長に伴い何らかの機械的刺激が加わることで増大する。診断には比較的可動性の良好な上頸部の無痛性腫瘍，あるいは中咽頭側壁の無痛性腫瘍以外には特徴的な所見はなく，CTやMRI等の画像所見が有用である。被膜は明瞭で副咽

頭間隙に沿った楕円形あるいは紡錘形をしており，内部はモザイク調でコントラストの鮮明な所見として描出される。また造影効果が顕著であることも診断の助けになる。しかし本症例のCT画像所見においては腫瘍の造影効果は乏しく，明らかなモザイクパターンは見られなかった。またこれらの所見は神経鞘腫にも合致する所見であり，鑑別が問題となるとされている。細川らは神経原性腫瘍の造影効果は血管原性腫瘍のそれよりも劣るとしている³⁾。またMRIにおいて血管原性腫瘍は内部の血管のflow void効果により高信号領域の腫瘍の中に低信号領域が散在する，いわゆる salt and pepper 所見を呈するこ

とで神経原性腫瘍との鑑別が可能としている¹⁴⁾。本症例においても発生部位が後区であること、術前の検討および術中所見においても神経鞘腫以外を疑う余地はなく、結果的に摘出後の病理所見により診断されたわけであるが、血管原性腫瘍は血流が豊富な腫瘍も多いため、術前に確定診断をつけておくことは心がけて置かねばならない。Calretinin はビタミン D 依存性カルシウム結合タンパクであり、神経節細胞や内因性の神経線維に陽性を示す¹⁵⁾。よって神経節由来の腫瘍の鑑別には有用であり、本症例においても陰性を呈した。また海綿状血管腫は組織学的には1層の血管内皮細胞で覆われた拡張した血管腔とされている¹⁴⁾。よって良性腫瘍であるにもかかわらず深部進展あるいは筋層内に浸潤する傾向が強い易出血性の腫瘍であるため外科的治療の適応になり得る。

治療法は外科的切除が主体で通常良性腫瘍の摘出法に準じて行われる⁸⁾。ただし副咽頭間隙の周囲には頸動脈間隙、咀嚼筋間隙、耳下腺間隙などが接し、内部には重要血管や神経が包含され解剖学的に複雑な領域である。よって同部位の手術は良好な視野を確保することが腫瘍を安全に摘出せしめるために最優先で考えられるべきである。同時に神経機能の温存や整容面への配慮も忘れてはならない。一般的に副咽頭間隙腫瘍の摘出アプローチは以下のごとく代表的な術式に大別される¹⁶⁾。①口内法、②経頸部・経顎下部法、③経耳下腺法、④下顎骨離断法(正中、側方)、⑤経側頭下窩法、⑥複合法。それぞれに長所短所が挙げられるが、腫瘍が良性である場合、摘出方法は腫瘍の大きさのみで決まるのではなく、位置や性状(血流の有無も含む)、重要血管や神経との位置関係あるいは患者の体格などによって決定される。本症例の場合腫瘍の大きさは45×40mm程度であり、また茎突後区に位置することから神経原性腫瘍を疑っていたため、一般的に用いられる経頸部法+経耳下腺法の複合法による術式を選択した。血管腫は神経原性腫瘍のような神経脱落症状は理論上発生しないが、摘出の際の止血操作等による神経障害には留意しなければならない。本症例も摘出後重篤な合併症の発生はなく、術後も良好な経過をたどっている。

まとめ

①副咽頭間隙に発生する良性腫瘍として極めてまれな海綿状血管腫の1例を経験した。

②本邦における副咽頭間隙初発の海綿状血管腫は渉猟し得た範囲では過去2例のみの報告であった。

③診断にはCT, MRIの画像所見が有用であるが

神経鞘腫との鑑別が問題となることがある。また術前に確定診断が得られない血管原性腫瘍の摘出においても、当アプローチで十分な対応が可能であると思われた。

本論文の要旨は第25回日本頭頸部外科学会総会ならびに学術講演会〔平成27年1月、大阪〕において口演した。

著者らは申告すべき利益相反を有しない。

文 献

- 岡本伊作, 鎌田信悦, 三浦弘規, 他: 副咽頭間隙腫瘍76例の発生部位と病理組織の検討. 日耳鼻, 116: 27-30, 2013.
- 伏木宏彰, 阿部秀晴, 石田正幸, 他: 当科における副咽頭間隙腫瘍手術症例の検討. 耳鼻臨床, 補134: 88-95, 2012.
- 細川誠二, 杉山健一, 岡村 純, 他: 副咽頭間隙腫瘍の手術適応と術式に関する検討. 日耳鼻, 114: 807-813, 2011.
- 鈴木真輔, 本田耕平, 石川和夫: 副咽頭間隙腫瘍手術症例の検討. 頭頸部外科, 21: 229-233, 2011.
- 松吉秀武, 鮫島靖浩, 湯本英二: 副咽頭間隙腫瘍例の手術適応についての検討. 耳鼻臨床, 102: 57-61, 2009.
- 岩永 哲, 崎浜教之, 吉田晴郎, 他: 副咽頭間隙良性腫瘍に対する手術法の検討. 耳鼻臨床, 101: 621-626, 2008.
- 三井 泰, 竹内万彦, 中村 哲, 他: 当科における副咽頭間隙腫瘍の検討. 耳喉頭頸, 80: 805-808, 2008.
- 中島寅彦, 白土秀樹, 安松隆治, 他: 副咽頭間隙腫瘍手術症例の検討. 耳鼻, 54: 10-14, 2008.
- 千々和秀紀, 坂本菊男, 梅野博仁, 他: 副咽頭間隙腫瘍の臨床的検討. 耳鼻臨床, 101: 383-386, 2008.
- 立本圭吾, 斎藤裕子, 高木伸夫, 他: 巨大な中咽頭海綿状血管腫の手術経験. 耳鼻臨床, 84: 197-202, 1001.
- 西篤大宣, 村田麻理, 北原伸郎: 耳下腺から副咽頭間隙にかけて発生し顔面神経麻痺をきたした海綿状血管腫の1例. 耳喉頭頸, 81: 859-863, 2009.
- 上田 大, 島田剛敏, 中井 茂, 他: 副咽頭間隙に生じた海綿状血管腫の1例. 耳喉頭頸, 73: 602-605, 2001.
- Kale US, Ruckley RW, Edge CJ: CAVERNOUS HAEMANGIOMA OF THE PARAPHARYNGEAL SPACE. Indian Journal of Otolaryngology and Head and Neck Surgery 58: 77-80, 2006.
- 箕輪和行, 大森桂一, 細川洋一郎, 他: 頭頸部海綿状血管腫のMRI診断. 日口外会誌, 37: 1802-1809, 1991.
- 服部健吾, 弓場吉哲, 佐藤正人, 他: 直腸粘膜生検によるHirschsprung病病理診断におけるcalretinin免疫染色の有用性の検討. 日小外会誌, 49: 1203-1208, 2013.
- 柴崎仁志, 齊藤祐毅, 朝蔭孝宏, 他: 症例をどうみるか 異なる手術アプローチを用いた副咽頭間隙腫瘍の3症例. JOHNS, 29: 651-655, 2013.