上顎洞に発生した炎症性偽腫瘍の1症例

木村 有 一¹⁾ 藤 枝 重 治¹⁾
高 林 哲 司²⁾ 窪 誠 太¹⁾

要旨：炎症性偽腫瘍は病理組織学的には非特異性慢性炎症の所見を呈する良性疾患だが、臨床的には腫瘍性に発育して腫瘤を形成する。本症は副鼻腔に発生することはまれであり、さらに画像上においては骨破壊像を高率に認めるため悪性腫瘍との鑑別が困難とされている。

症例は65歳男性、主訴は頭痛・左頬部痛であった。CT・MRIにて腫瘍は左上顎洞から眼窩、翼突筋へと進展していた。PETでも腫瘍に一致して集積亢進がみられ、悪性腫瘍との鑑別に苦慮した。しかし上顎洞試験開洞による術中迅速診断では悪性所見はみられず、腫瘍を可及的に摘出するにとどめた。病理組織学的診断は炎症性偽腫瘍であり、術後経過に特に問題なく退院となり、現在に至っている。

キーワード：炎症性偽腫瘍、上顎洞、骨破壊、PET

Summary Inflammatory pseudotumor of the maxillary sinus:

Yuichi Kimura¹⁾, Shigeharu Fujieda¹⁾, Tetsuji Takabayashi²⁾ and Seita Kubo¹⁾. Department of Otolaryngology-Head and Neck Surgery, University of Fukui Hospital¹⁾, Department of Otolaryngology, Maiduru Kyousai Hospital²⁾

We report a case of inflammatory pseudotumor in the maxillary sinus of the left side. Inflammatory pseudotumor in the paranasal sinus is very rare. It is difficult to make a diagnosis of inflammatory pseudotumor without a histopathological diagnosis, because it simulates malignant disease clinically.

A 65-year-old man was admitted to our hospital because of headache and swelling of the left cheek. CT and MRI findings showed complete occupation of the left maxillary with a large soft tissue mass. There was erosion of the maxillary bony wall and inferior orbital wall with the mass extending from the left maxillary sinus into the left orbit and the pterygopalatine fossa. A FDG-PET revealed that administered FDG was accumulated on the left maxillary sinus. We suspected a malignant tumor of the left maxillary sinus and performed open biopsy under general anesthesia. However, no tumor cells were found in the biopsy specimen, and the histopathological diagnosis was inflammatory pseudotumor. Therefore, we performed partial resection of the left maxillary sinus. He was administered prednisolone for 2 months. There has been no regrowth of the mass. The combination of surgery and steroid therapy was effective for inflammatory pseudotumor in the maxillary sinus.

Key words: inflammatory pseudotumor, maxillary sinus, FDG-PET, steroid therapy

[Received Aug. 3, 2007, Accepted Sep. 29, 2007]

¹⁾ 福井大学医学部耳鼻咽喉科・頭頸部外科

²⁾ 舞鶴共済病院耳鼻咽喉科

[平成19年8月3日受付、平成19年9月29日受理]

はじめに

炎症性偽腫瘍とはその名のとおりに、臨床的には腫瘍に類似した占拠性病変であるが、病理組織学的には非腫瘍性の非特異的慢性炎症の像を呈する疾患である。頭頸部領域では眼窩内に発生することが多く、副鼻腔に生じることがまれである。また臨床的には悪性腫瘍と類似しており、診断は生検による組織診断が不可欠である。今回われわれは、左上顎洞に発生し、臨床症状・画像診断から悪性腫瘍との鑑別に苦慮した炎症性偽腫瘍の1例を経験したので報告する。

症 例

症例：65歳，男性

主訴：頭痛・左頬部痛

既往歴・家族歴：副鼻腔手術の既往（－）

現病歴：平成16年11月初旬、近医歯科にて抜歯を行い、その後左頬部の腫脹、頭痛が出現した。近くの病院に紹介され、抗生物質の投与を受けるが改善しないため、12月当科紹介受診した。

現症：左頬部に8.0cm×7.5cmの腫脹を認め、左犬歯窩は腫脹し流涙もみられた。鼻内所見に

異常は認められなかった。頸部リンパ節腫脹も認めなかった。

血液検査所見：一般血生化学検査所見ではWBC：9,700/mm³、CRP：0.62と若干上昇が認められたが、その他には異常を認めなかった。腫瘍マーカーはSCC：3.2と高値を示し、sIL-2R：538の上昇も認めた。そのほかはいずれも正常値であった。

CT：左上顎洞から眼窩内・翼突筋周囲に浸潤する腫瘍陰影を認めた。造影効果は比較的均一であり、骨破壊もみられた（図1）。

MRI：CT所見同様に腫瘍は眼窩へ浸潤し、後方では翼突筋まで浸潤していた。前方では上歯槽骨の前面に沿って大きな腫瘍を形成していた（図2）。

FDG-PET：腫瘍に一致して集積（SUVmax：3.0）がみられた（図3）。

手術所見：画像所見からは悪性腫瘍が疑われたため、平成17年1月全身麻酔下に左犬歯窩より左上顎洞試験開窓術を行った。腫瘍は白色で境界明瞭であり、上方は眼窩下孔、内側は梨状口縁、側後方は上顎骨の側方を回って翼口蓋窩に達していた。術中迅速病理診断では悪性所見はみられず、炎症性偽腫瘍が疑われたため、QOLを考慮

図1 造影CT所見（a：水平断，b：冠状断）

左上顎洞から眼窩内・翼突筋周囲に浸潤する腫瘍陰影を認める。造影効果は比較的均一。一部骨破壊もみられた。

図 2 MRI (T2 強調画像)
左上顎洞を中心に腫瘍陰影を認める。

図 3 PET 所見
左上顎洞に FDG の集積亢進を認めた。

し可及的に摘出するにとどめた。

病理組織所見：膠原線維の増生が目立ち，形質細胞，リンパ球などの炎症細胞の浸潤がみられるが，細胞異形，核分裂像などの悪性所見はみられず，炎症性偽腫瘍と診断された (図 4)。

退院後経過：退院後プレドニン 30mg/日で

内服を行い，頬部腫脹は徐々に改善しプレドニン 15mg/日，プレドニン 5mg/日と減量しながら，術後約 2 ヶ月後にプレドニンの処方を終了した。しかしながら頬部腫脹は改善したが流涙がおさまらず，平成 17 年 11 月に左涙囊鼻腔吻合術を施行した。以降流涙も改善し，また平成 18 年 3 月

図 4 病理組織所見 (HE 染色)
膠原線維の増生が目立つ。形質細胞、リンパ球などの炎症細胞浸潤が見られる。

(約1年3ヶ月後)のMRIにても腫瘍の増大は認めず、現在に至っている。

考 察

炎症性偽腫瘍は病理組織学的には線維芽細胞が増殖しリンパ球、形質細胞、組織球などの炎症細胞の強い浸潤を伴った非特異的慢性炎症の所見を呈する良性疾患^{1,2)}である。しかし臨床症状、画像所見から悪性腫瘍との鑑別が困難とされている。形質細胞性肉芽腫、黄色腫状偽腫瘍などの同義語があるが、最近では炎症性筋線維芽細胞性腫瘍とも呼ばれている³⁾。

炎症性偽腫瘍の発生部位は、肺、腎臓、肝臓、脾臓、胃など全身のさまざまな臓器での発生が報告されており⁴⁾、頭頸部領域では眼窩、副咽頭間隙、喉頭、気管、副鼻腔などでの報告がある⁵⁻¹⁵⁾。頭頸部領域では眼窩内での発生が多く^{4,5)}、副鼻腔での発生は過去に数例報告があるのみでありまれである⁸⁻¹⁵⁾。

成因については未だ不明であるが、外傷、炎症、出血、異物などが引き金になっていると考えられる症例もある。本症例では頬部腫脹の生ずる前に抜歯を行っており、このことが誘因である可能性も疑われる。

上顎洞に発生した場合の臨床症状としては、過去の報告では頬部腫脹、鼻閉、鼻出血、眼球突出、複視、鼻漏などさまざまである⁸⁻¹⁵⁾。鼻腔内の所見としては、鼻腔側壁が突出していたという

程度でほとんどの症例が腫瘍状の病変も見られず、異常がみられないようである。本症例においても、鼻腔内は異常がみられなかった。また頸部リンパ節腫脹に関しても副咽頭間隙に発生した症例においては頸部リンパ節腫脹が見られているが⁶⁾、ほとんどの症例で周囲への浸潤にもかかわらず頸部リンパ節腫脹が認められていない。このことは悪性腫瘍の場合との違いと考えられる。

本疾患は病理組織学的には良性疾患であるが、周囲への組織浸潤を示すことが多く、またX線やCTで骨破壊像が高率に認められ、悪性腫瘍が疑われることが多い。FDG-PETにおける画像所見に関しては、過去にはあまり報告は見られないが、肺に発生した炎症性偽腫瘍でFDG-PET検査で検査を行ったところ2例とも集積亢進がみられ、また副咽頭間隙に生じた1例においても集積亢進がみられたという報告がある^{6,16)}。本症例においてもFDG-PET検査で腫瘍に一致して集積亢進がみられた。多くの症例における検討が必要であるが、本疾患においては、FDG-PET検査では高頻度に集積亢進がみられると考えられる。したがって本疾患の画像所見からの診断は困難であり、病理組織検査が不可欠であると思われる。

本症例ではSCCが高値を示したことも術前診断を困難にした一因であるが、過去の報告の検討でも腫瘍マーカーが上昇する例は非常に稀なようである。しかし肝炎症性偽腫瘍でCA19-9が高値を示した症例や¹⁷⁾、肺の炎症性偽腫瘍で腫瘍の増大とともにCEAが上昇した症例の報告がある¹⁸⁾。それらは切除標本の免疫組織学検討から腫瘍組織が腫瘍マーカー因子を産生していると結論付けている。本症例では腫瘍マーカーに関する免疫組織学的検討は行っておらず、また過去にSCCが高値を示した症例報告もなく、SCCとの関連については不明である。

治療方法は外科的切除、ステロイド療法、放射線、化学療法がある⁴⁾。通常術前に確定診断が得られることは困難であるため、診断を兼ねた腫瘍摘出術となることが多いようである。上顎洞炎症性偽腫瘍では、木田らは境界不明瞭な腫瘍で周囲に浸潤している腫瘍では正常組織を含めた拡大切除をするべきであると述べている⁸⁾。確かに最良の方法は完全摘出と思われる。しかしながら眼窩

内に発生した炎症性偽腫瘍では、眼球との関連からステロイド療法が一般的であり、また副鼻腔に発生した炎症性偽腫瘍においてもステロイドが有効であったという報告が多くみられる。本疾患においても、悪性腫瘍を疑い手術を行ったが、術中迅速診断で炎症性偽腫瘍と診断されたため、腫瘍を可及的に摘出し、術後ステロイド療法を行い、顔貌の変形や開口障害などの機能障害を生ずることなく良好な結果を得た。腫瘍の単純摘出にて再発したという報告もあり、可能であれば完全摘出が望ましいが、拡大的に切除した場合に機能障害が残ると考えられる症例では、部分的摘出にとどめステロイド療法を併用する方法も有効な治療方法と考える。

予後に関しては一般的には良好であるが、再発を繰り返す症例もあり慎重な経過観察が必要である。近年、炎症性偽腫瘍と染色体異常やp80, ALK1の発現との関連についての報告がみられるようになった^{19, 20)}。予後との関連などが解明されれば、個々の症例における治療法選択に大いに役立つと思われ、今後の研究成果が待たれるところである。

ま と め

上顎洞に発生した炎症性偽腫瘍症例を経験した。画像上、CT、MRIにて周囲への浸潤像がみられ、FDG-PETにおいても集積亢進がみられたため悪性腫瘍との鑑別が困難であり、診断には生検による組織診断が不可欠であった。治療は、上顎洞試験開窓術にて診断を行ったうえ可及的に摘出し、術後ステロイド内服を行うことで顔貌の変形や開口障害などの機能障害を生ずることなく良好な結果を得た。

文 献

- 1) Ferlito A: The World Health Organization's revised classification of tumours of the larynx, hypopharynx, and trachea. *Ann Otol Rhinol Laryngol* Sep; 102(9) : 666-669, 1993.
- 2) Shanmugaratnam K, Sobin LH: The World Health Organization histological classification of tumours of the upper respiratory tract and ear. A commentary on the second edition. *Cancer* Apr 15; 71(8) : 2689-2697, 1993.
- 3) 橋本 洋: 炎症性筋線維芽細胞性腫瘍および炎症性線維肉腫。病理と臨床, 18 : 95-101, 2000.

- 4) Kovach SJ, Fischer AC, Katzman PJ, et al: Inflammatory myofibroblastic tumors. *J Surg Oncol* Oct 1; 94(5) : 385-391, 2006.
- 5) 瀬野悟史, 鈴木幹男, 花満雅一, 他: 眼窩内炎症性偽腫瘍例。耳鼻臨床, 97 : 1083-1087, 2004.
- 6) 森合重誉, 大崎隆士, 原淵保明: 副咽頭間隙に発生した炎症性偽腫瘍例。耳鼻臨床, 97 : 537-542, 2004.
- 7) Suh SI, Seol HY, Lee JH, et al: Inflammatory myofibroblastic tumor of the larynx. *Head Neck* Apr; 28(4) : 369-372, 2006.
- 8) 木田亮紀, 原 睦子, 澤田達男, 他: 上顎洞に発生した Inflammatory Pseudotumor の1例。JOHNS 5 : 111-118, 1989.
- 9) 中川 崇, 服部賢二, 岩田伸子, 他: 悪性腫瘍が疑われた上顎洞炎症性偽腫瘍例。耳鼻臨床, 95 : 1135-1141, 2002.
- 10) 安田 京, 橋本敏光, 丸屋信一郎, 他: 上顎洞に発生した炎症性偽腫瘍の2例。耳鼻臨床, 95 : 481-486, 2002.
- 11) 関 彰彦, 加賀田博子, 佃 守, 他: 炎症性偽腫瘍と考えられた骨破壊を伴った上顎洞良性疾患症例。耳展, 41 : 591-596, 1998.
- 12) 糸数哲郎, 古謝静男, 幸地綾子, 他: 悪性腫瘍が疑われた副鼻腔の炎症性偽腫瘍の1例。耳喉頭頸, 69 : 228-231, 1997.
- 13) 櫻井 努, 鎌田英男, 安岡義人, 他: 篩骨洞に発生した炎症性偽腫瘍の1例。日耳鼻, 108 : 806-809, 2005.
- 14) Thomas L, Uppal HS, Kaur S, et al: Inflammatory pseudotumour of the maxillary sinus presenting as a sino-nasal malignancy. *Eur Arch Otorhinolaryngol* Jan; 262(1) : 61-63, 2005.
- 15) Karakok M, Ozer E, Sari I, et al: Inflammatory myofibroblastic tumor (inflammatory pseudotumor) of the maxillary sinus mimicking malignancy: a case report of an unusual location (is that a true neoplasm?). *Auris Nasus Larynx* Oct; 29(4) : 383-386, 2002.
- 16) Slosman DO, Spiliopoulos A, Keller A, et al: Quantitative metabolic PET imaging of a plasma cell granuloma. *J Thorac Imaging* Spring; 9(2) : 116-119, 1994.
- 17) Ogawa T, Yokoi H, Kawarada Y: A case of inflammatory pseudotumor of liver causing elevated serum CA19-9 levels. *Am J Gastroenterol* 93 : 2551-2555, 1998.
- 18) Misao T, Satoh K, Nakano H, et al: Pulmonary inflammatory pseudotumor with rapid growth and serum carcinoembryonic antigen elevation. *The Japanese Journal of Thoracic and Cardiovascular Surgery* 51 : 104-106, 2003.
- 19) Biselli R, Boldrini R, Ferini, et al: Myofibroblastic tumours: Neoplasias with divergent behaviour. Ultrastructural and flow cytometric analysis. *Pathol Res Pract* 195 : 619-632, 1999.
- 20) Cessna MH, Zhou H, Sanger WG, et al: Expression of ALK1 and p80 in inflammatory myofibroblastic tumor and its mesenchymal mimics: A study of 135 cases. *Mod Pathol* 15 : 931-938, 2002.