

症例報告

術前血管塞栓術を施行し経鼻内視鏡下に摘出した
上顎洞血瘤腫の1例多根総合病院 耳鼻咽喉科¹, 脳神経外科²平山靖子¹ 天津久郎¹ 大野峻¹ 小川竜介²
西居純平²

要 旨

術前に栄養血管塞栓術を施行し, endoscopic modified medial maxillectomy (以下, EMMM) によるアプローチで内視鏡下に摘出した上顎洞血瘤腫例を経験したので報告する。症例は16歳, 男性。主訴は右鼻出血。CTでは右上顎洞内から一部中鼻道にかけて腫瘍性病変を認め, 蝶口蓋孔付近の腫瘍内部に造影効果を伴う領域を認めた。MRIではT1強調画像で低信号域, T2強調画像で辺縁に低信号域を伴い, 内部に低信号域と高信号域が混在した腫瘍を認めた。Gd造影MRIではT1強調画像で右蝶口蓋孔付近の腫瘍内部に造影効果を認めた。画像所見から血瘤腫を疑われたが, 年齢などから若年性血管線維腫も鑑別に考え, 術中出血量を減じる目的で脳血管内治療科に依頼して血管造影で栄養血管を同定し塞栓術を施行した。手術はEMMMによるアプローチを施行し, 上顎洞内の広い視野を得ることができた。また蝶口蓋孔より出る蝶口蓋動脈を同定して血管クリップをかけて血流を遮断することにより術中出血に難渋することなく腫瘍を一塊に摘出することができた。上顎洞血瘤腫の手術において出血を減じる方法として術前血管塞栓やEMMMによるアプローチで, 蝶口蓋動脈にクリップをかけることが選択肢の一つであると考えらる。

Key words: 血瘤腫; 血管塞栓術; EMMM

はじめに

血瘤腫は臨床上の疾患概念であり, 1917年に田所¹⁾によって最初に報告された鼻副鼻腔に陳旧様々な血液成分が貯留して腫瘤状に拡大し形成する易出血性の良性腫瘍性病変の総称である。手術は従来, 顔面表皮を切開するKillian法や, 犬歯窩を切開するCaldwell-Luc法を用いた手術が行われていたが, 内視鏡手術の発達により内視鏡下鼻内副鼻腔手術での報告例が増えている²⁻⁸⁾。1500 ml以上の出血を伴った報告⁹⁾もあり, 出血傾向や強い造影効果を伴う症例では術前塞栓を推奨する報告もある¹⁰⁾。

術前に血管塞栓を行い腫瘍への血流を減らし, さらにEMMMアプローチで術中腫瘍からの出血を減らす

ために蝶口蓋動脈にクリップをかけ経鼻内視鏡下に摘出した上顎洞血瘤腫の1例について若干の文献的考察を含めて報告する。

症 例

患者: 16歳, 男性。

主訴: 右鼻出血。

既往歴: 右上腕骨内顆骨折。

現病歴: X年5月末頃から繰り返す右鼻出血のため前医を受診した。前医内視鏡検査では右中鼻道方向から総鼻道にかけて発赤した易出血性腫瘤を認め, 副鼻腔CTにて右上顎洞から鼻腔にかけて軟部陰影を認めた。前医にて若年性血管線維腫が疑われたため, X年6月23日に手術加療目的に当科紹介となった。



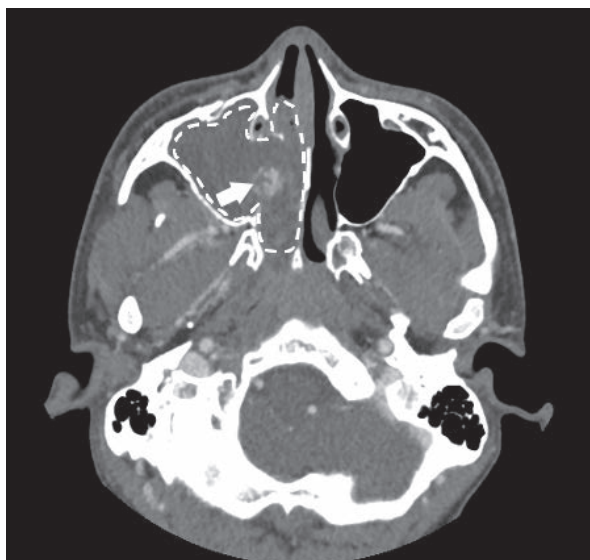


図1 造影CT(軸位断)

右上顎洞内全体に等信号の軟部陰影を認め(点線), 上顎洞膜様部付近に造影効果を伴う領域(→)を認めた。

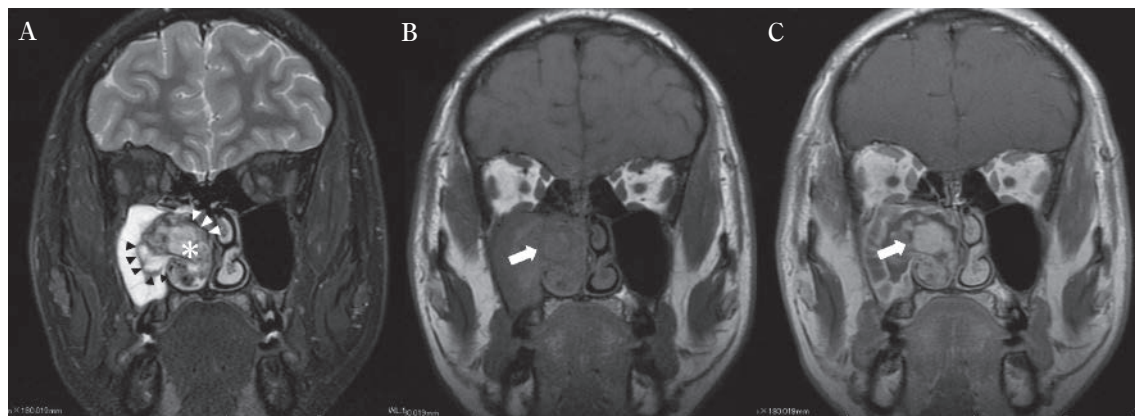


図2 MRI(冠状断)

A: T2強調画像. 辺縁は低信号域(▼)を伴い, 内部は不均一な信号域が混在する上顎洞内側から中鼻道を占拠する腫瘍性病変(*)が認められた. 上顎洞粘膜領域は高信号域を示した.

B: T1強調画像.

C: 造影 T1 強調画像. 腫瘍内部に造影効果を伴う領域(→)を認めた.

初診時現症: 右下鼻甲介前方は正常であった. 総鼻道は膿性鼻汁と凝血塊が充満し, 吸引すると中鼻道方向から総鼻道にかけて強く発赤した易出血性腫瘍を認めた.

画像検査: 鼻副鼻腔造影CT検査にて右上顎洞内に腫瘍性病変を認め, 蝶口蓋孔付近の腫瘍内部に造影効果を認め, 周囲の骨組織は圧排され菲薄化していた(図1).

MRIではT1強調画像にて低信号から中信号で, T2強調画像にて腫瘍辺縁に低信号域を伴い, 内部は低信号域と高信号域が混在していた(図2A). Gd造影MRIではT1強調画像にて蝶口蓋孔付近の腫瘍内部に造影効果を伴う領域を認めた(図2B, C).

血管造影検査: 右大腿動脈アプローチで血管造影を

施行した. 外頸動脈造影では蝶口蓋動脈の外側後鼻枝が主栄養動脈であった. 動静脈シャントは認めなかった.

画像所見からは血腫が考えられたが, 思春期男性の易出血性腫瘍という点から, 若年性血管線維腫も鑑別疾患として挙げられた. 若年性血管線維腫であれば術前血管塞栓術や自己血貯血などの術前出血対策が推奨される¹¹⁾. 造影MRIでは腫瘍内部に造影効果を伴う領域を認め, 血管線維腫としても対応できるべく出血対策として術前血管塞栓を行ったのちに, 経鼻内視鏡下にEMMMを用いて, 摘出する方針とした.

術前血管塞栓術(X年7月19日): 右大腿動脈よりアプローチし血管造影を施行した. 塞栓物質は12%NBCA(n-butyl-2-cyanoacrylate)を用いた. 右蝶

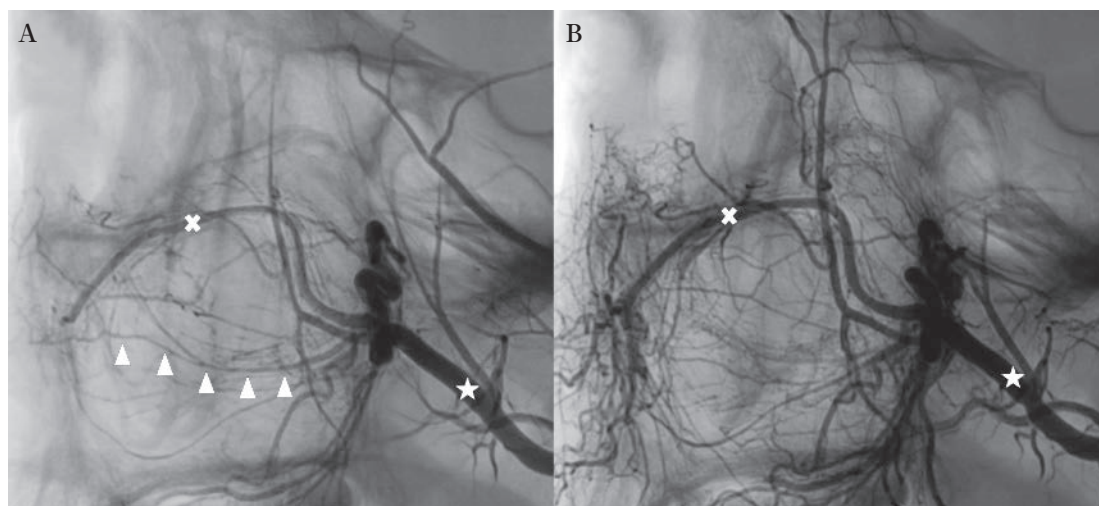


図3 右顎動脈造影側面像

A：蝶口蓋動脈は中隔後鼻枝(×)と外側後鼻枝(▲)に分岐する。腫瘍の主栄養動脈は蝶口蓋動脈の外側後鼻枝であり、外側後鼻枝を選択的に塞栓した。

B：塞栓後は外側後鼻枝の造影は認めない。(★：顎動脈)



図4 塞栓後造影 MRI (冠状断)

造影 T1 強調画像にて塞栓前には認めていた腫瘍の造影効果(→)は認められなかった。

口蓋動脈の中隔後鼻枝を造影すると腫瘍は濃染されなかった。次に外側後鼻枝を造影すると前方枝の末梢にて腫瘍の濃染を認め、外側後鼻枝を塞栓した。その他の血管からの腫瘍への流入は認めなかった。塞栓後、蝶口蓋動脈外側後鼻枝前方枝および腫瘍は濃染されなくなった(図3)。術後脳梗塞や視力障害の出現はなかった。その他鼻腔、口腔粘膜の壊死や違和感などの合併症は認めなかった。塞栓術後の造影 MRI では、腫瘍内部の造影効果は認められなかった(図4)。

手術手順(X年7月21日)(図5)：塞栓術の2日後に全身麻酔下に経鼻内視鏡摘出術を行った。腫瘍は

易出血性で上顎洞方向より中鼻道、鼻腔側に突出していた。鉤状突起は菲薄化し、腫瘍と癒着しており、まず鉤状突起基部を切除した。次に腫瘍が占拠する上顎洞内の視野、術野が確保できるように EMM 施行した。下鼻甲介前端部を電気メスで縦に粘膜切開し、下鼻道側壁粘膜を後方へ剥離した。鼻涙管と下鼻甲介粘膜を一塊として温存、それらを内側に翻展した。上顎洞内側壁をドリルで削開し、彫骨器で除去した。上顎洞内側壁を穿破すると、肥厚した上顎洞粘膜と膿性貯留物および腫瘍を認めた。下鼻甲介付着部後方で蝶口蓋孔より走行する蝶口蓋動脈を同定し、腫瘍への血

流を減らすためにクリップをかけて結紮した。腫瘍基部は上顎洞後壁から膜様部にかけて認めた。腫瘍基部粘膜を上顎洞側からと中鼻道側から全周性に切除し、一塊として摘出した。出血量は90 ml, 手術時間は4時間35分であった。病理診断では腫瘍は多列線毛上皮に覆われ、間質には血管の新生・拡張や出血壊死、フィブリンの析出や硝子化変性を認め、血瘤腫に矛盾

しない所見であった(図6)。

術後経過：右上歯肉や歯の感覚鈍麻の訴えがあったが、術後5日後には消失した。その他眼窩合併症や術後出血はなく経過し、術後8日目に退院となった。術後半年の内視鏡検査およびCT検査にて再発所見を認めず経過している。

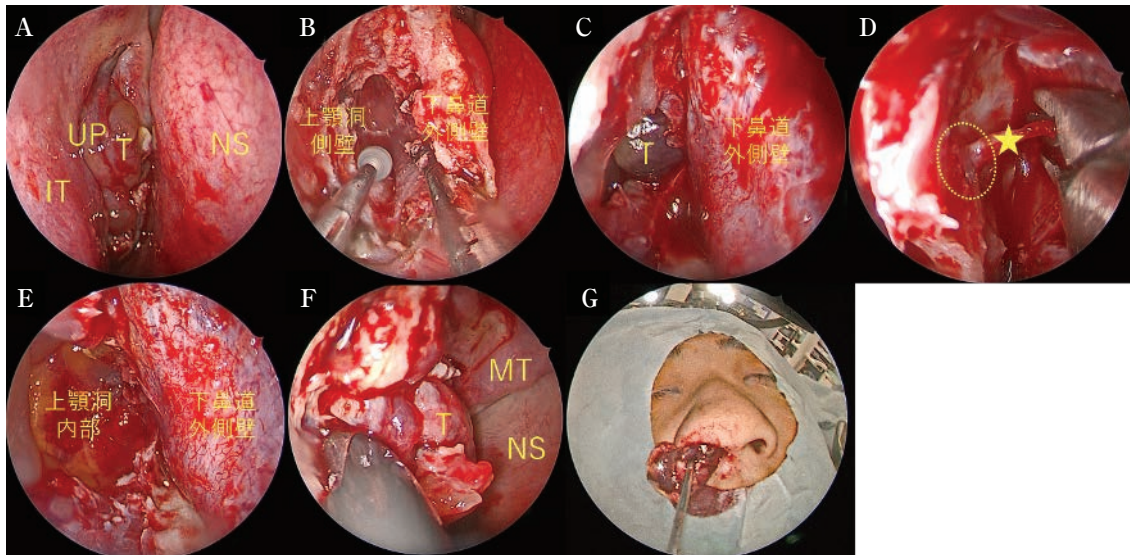


図5 手術所見

- A: 中鼻道に易出血性の腫瘍(T)を認めた。
 B: 皮膚粘膜移行部で粘膜を切開し、上顎洞壁をドリルで削開した。
 C: 上顎洞内側壁を除去すると、上顎洞内に腫瘍を認めた。
 D: 下鼻道粘膜下に剥離し蝶口蓋孔(点線)から出る蝶口蓋動脈(★)を同定し、クリップをかけた。
 E: EMMMを施行することで前方から上顎洞下壁から側壁まで視野が確保できた。
 F: 腫瘍基部は上顎洞後壁から膜様部にかけて認めた。腫瘍基部粘膜を上顎洞側と中鼻道側から全周性に切除し、一塊として切除した。
 G: 右鼻孔から腫瘍を一塊にして摘出した。

(T: 腫瘍, UP: 鉤状突起, NS: 鼻中隔, IT: 下鼻甲介, MT: 中鼻甲介)

〈電子版カラー掲載〉

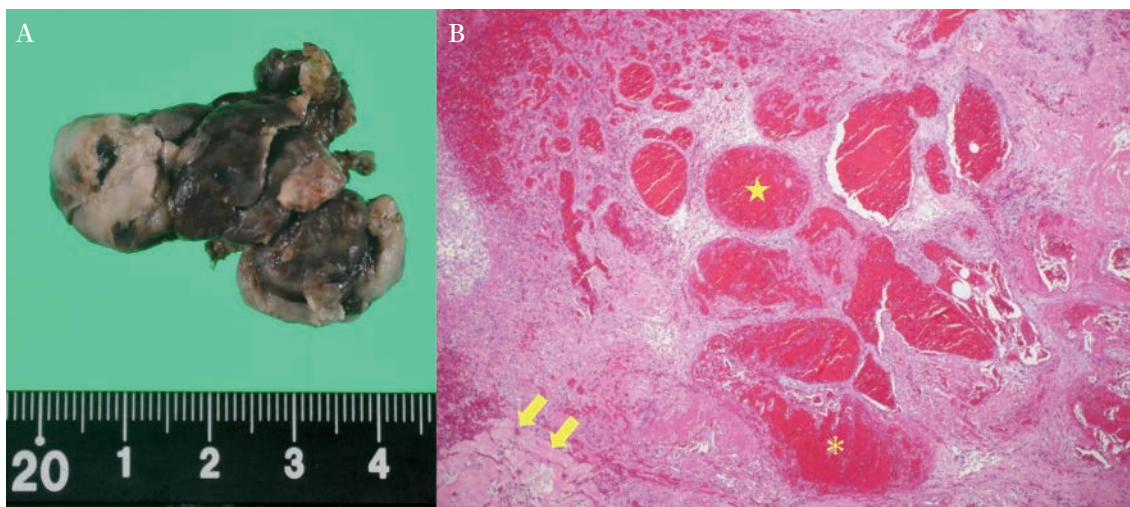


図6 病理所見

- A: 摘出された腫瘍(ホルマリン固定後)。
 B: HE 標本弱拡大。多列線毛上皮に覆われた粘膜で、間質には全般に血管の新生・拡張(★)や出血(＊)を認め、フィブリンの析出や硝子化変性(→)を認め、血瘤腫に矛盾しない所見であった。

〈電子版カラー掲載〉

考 察

上顎洞血瘤腫は1917年に田所¹⁾によって最初に報告された臨床上の診断名で、鼻副鼻腔に生じる易出血性の良性腫瘍の総称である。成因について定説はないが、血管腫、炎症性変化や外傷などが原因で副鼻腔内という閉鎖腔内に出血が起こり、壊死、線維増生、硝子化変性、血管新生、血管拡張の順に悪循環が起こり形成されると推察されている^{10, 12)}。

血瘤腫の画像所見はCTでは内部不均一な陰影を呈し一部で骨欠損を伴うこともあるが、悪性腫瘍と異なり骨の菲薄化を伴う圧排性の骨破壊にとどまることが多い。MRIではT2強調画像にてヘモジデリン沈着に伴う辺縁の低信号帯と内部の様々な組織を反映した不均一な信号強度が混在している。腫瘍を取り囲む粘膜は二次的炎症により肥厚し、明瞭な造影効果を認め、骨破壊性にもかかわらず周囲粘膜が温存されることから良性腫瘍の経過であることが示唆される¹³⁻¹⁵⁾。本症例でもT2強調画像で腫瘍辺縁低信号域と内部は不均一な信号域の混在を認め、血瘤腫に特徴的な画像所見を呈していた。

血瘤腫の治療は手術による摘出である。血瘤腫は易出血性であるため手術の際には出血のコントロールが重要である。血瘤腫の出血量は病変形成の悪循環のサイクルにおけるどの段階が腫瘍の主体になっているかによって出血量が変わるとも推定されている。すなわち壊死、線維組織、硝子化変性の段階が主体であれば血流は少なく、血管新生や血管拡張の段階が主体であれば血流が多くなると考えられている¹⁰⁾。外頸動脈結紮術を行ったにもかかわらず1500 ml以上の出血を認めた症例⁹⁾や内視鏡単独手術にもかかわらず700 mlの出血を認めた症例⁵⁾も報告されており、大量出血の危険性を伴っている。

血瘤腫において術前血管塞栓を行うかどうかは意見が分かれるところである。術前血管塞栓の有無では出血量に有意差は認められず、血瘤腫においては適切に術式を選択し、慎重に手術を行えば術前血管塞栓は不要という報告もある^{7, 8)}。一方で術前血管塞栓により術中術後の出血量を減じたという報告¹⁴⁾や、手術ハイリスク症例にて血管塞栓術のみで腫瘍が退縮したという報告¹⁵⁾、出血傾向の症例に対して術前血管塞栓術を行い術中出血対策している報告¹⁶⁾もある。術前血管塞栓はMRIにて造影効果の強い症例、出血傾向を有する症例などはやはり検討すべきであり、腫瘍の血流を低下させる目的では有用であると考えられる。

鼻腔を栄養する血管は主に外頸動脈の分枝の顎動脈、顔面動脈、および内頸動脈の分枝の前篩骨動脈、後篩骨動脈である。上顎洞血瘤腫に対して術前血管塞栓を施行した症例は渉猟しえた限りでは17例あり、そのうち15例は顎動脈が栄養動脈と考えられ、2例は同時に顔面動脈からの栄養が認められた^{2-4, 10, 16, 17)}。顎動脈の本幹は外頸動脈分岐直後の下顎枝部、さらに前内側に向かう翼突部、翼口蓋窩以降の翼口蓋部の3つの領域に分けられる。翼口蓋部からは翼突管動脈、眼窩下動脈、正円孔動脈、上眼窩裂動脈、蝶口蓋動脈が分枝している。蝶口蓋動脈の鼻中隔後鼻枝は眼動脈分枝である篩骨動脈との吻合を有しており、内頸動脈系との危険な潜在的吻合を有するため、血管塞栓による神経脱落症状や口腔粘膜壊死、さらには失明や脳梗塞などのリスクもあり選択的に栄養血管を塞栓する方法が推奨されている^{16, 17)}。本症例でも血管造影検査にて腫瘍は主に蝶口蓋動脈の外側後鼻枝から栄養を受けていた。脳血管内治療科に依頼して塞栓術を行うことで、合併症を起こすことなく、腫瘍への血流を減弱することができたと考えられる。

術中出血を減じるためには術式選択も重要である。過去においては上顎洞根本術に準じて、Caldwell-Luc法などの外切開手術が行われていたが、近年では内視鏡手術の発展により内視鏡単独手術での摘出が多く報告されている^{2-8, 16-18)}。塞栓を行っていても外切開アプローチにて出血量が300 ml以上となった症例¹⁹⁾や、外切開手術よりも内視鏡単独手術の方が有意に出血量が少ないという報告⁸⁾もある。術中出血量を減らすためには内視鏡単独手術を選択することが望ましいと考えられる。近年ではEMMMの出現により、内視鏡単独手術の適応は広がっている。上顎洞血瘤腫に対してもEMMMを施行して摘出した報告は複数あり、いずれも出血量は100 ml以下であった^{6-8, 20-22)}。

血流が豊富な腫瘍基部では、動脈性の出血に対応するため直視鏡下に器具の操作が十分にできる広い術野の確保が必要である。腫瘍基部が上顎洞内にある症例などでは、EMMMによって鼻涙管や下鼻甲粘膜機能を温存して上顎洞の広い術野を得ることができる。さらに蝶口蓋動脈にクリップをかけ、血流を遮断することも術中出血を抑えるには有用と考えられる。われわれの症例も上顎洞内での視野を確保し下壁や前壁にも広くアプローチするためにEMMMを施行した。鼻涙管や下鼻甲介を内側に翻転して上顎洞内側壁を切除し、鼻涙管の前方から上顎洞にアプローチした。さらに下鼻甲介付着部後方で蝶口蓋孔から鼻腔を栄養する蝶口蓋動脈を視認することができたためクリップをか

けて、術中の出血コントロールに難渋することなく腫瘍を上顎洞粘膜基部から一塊に摘出することができた。上顎洞血瘤腫の手術において出血を減じる方法として術前血管塞栓や、EMMMアプローチで蝶口蓋動脈にクリップをかけることが選択肢の一つであると考えられる。

結 語

術前血管塞栓を行い、EMMMを用いて内視鏡下に摘出した上顎洞血瘤腫の症例を述べた。術前画像検査から腫瘍内部に強い造影効果を伴い出血が予想されたため、脳血管内治療科の協力を得て主栄養動脈である蝶口蓋動脈分枝を選択的に塞栓し、EMMMアプローチで蝶口蓋動脈にクリップをかけて結紮することにより、出血量90 mlと術中出血に難渋することなく全摘出することができた。

文 献

- 1) 田所喜久馬：上顎洞血瘤に就て。大日耳鼻, 23 : 359-60, 1917
- 2) Suzuki H, Inaba T, Hiraki N, et al : Endoscopic sinus surgery for the treatment of organized hematoma of the maxillary sinus. Kurume Med J, 55 (3-4) : 37-41, 2008
- 3) Omura G, Watanabe K, Fujishiro Y, et al : Organized hematoma in the paranasal sinus and nasal cavity—imaging diagnosis and pathological findings. Auris Nasus Larynx, 37 (2) : 173-177, 2010
- 4) 朝子幹也, 小椋 学, 河本光平, 他 : 内視鏡下に摘出し得た巨大な上顎洞血瘤腫の1例。頭頸部外, 21 (3) : 223-227, 2012
- 5) Imayoshi S, Kanazawa T, Fukushima N, et al : Three cases of organized hematoma of the maxillary sinus : clinical features and immunohistological studies for vascular endothelial growth factor and vascular endothelial growth factor receptor 2 expressions. Case Rep in Otolaryngol, 2015 : 846832, 2015
- 6) 北村嘉章, 三好仁美, 松岡百世, 他 : 鼻涙管下鼻甲介スイング法にて内視鏡下に摘出した上顎洞血瘤腫例。日鼻科会誌, 54 (1) : 25-30, 2015
- 7) 関根基樹, 金田将治, 斎藤弘亮, 他 : 鼻内視鏡下に摘出しえた6例の上顎洞血瘤腫の報告。日鼻科会誌, 57 (2) : 159-165, 2018
- 8) 佐藤尊陽, 有泉陽介, 田崎彰久, 他 : 上顎洞血瘤腫に対する術前血管塞栓術を行わない経鼻内視鏡単独手術の安全性。日耳鼻頭頸部外会報, 125 (2) : 143-150, 2022
- 9) 萩森伸一, 川上理郎, 武嶋寛剛, 他 : 上顎洞血瘤腫の5症例。耳鼻臨床, 87 (9) : 1229-1237, 1994
- 10) 重田泰史, 和田弘太, 鴻 信義, 他 : 上顎洞血瘤腫12症例の臨床的検討。耳鼻展望, 48 (2) : 8-14, 2005
- 11) Alimli AG, Ucar M, Oztunali C, et al : Juvenile nasopharyngeal angiofibroma : magnetic resonance imaging findings. J Belg Soc Radiol, 100 (1) : 63, 2016
- 12) 尾崎正義, 酒井俊一, 池田 寛 : 鼻腔・副鼻腔血瘤腫25例。耳鼻咽喉, 49 (1) : 53-58, 1977
- 13) 馬場明子, 菊池俊彦, 穂山直太朗, 他 : 上顎洞血瘤腫に対するCT及びMRIによる画像解析。耳鼻と臨, 47 (6) : 470-475, 2001
- 14) 長門晋平, 菅原一真, 綿貫浩一, 他 : 上顎洞血瘤腫症例MRI所見と組織像。耳鼻臨床, 99 (11) : 929-934, 2006
- 15) Eissa L, Eid M, Razek AAKA, et al : MR and CT imaging features of sino-nasal organized hematomas. Oral Radiol, 37 (2) : 297-304, 2021
- 16) Sekino H, Ishii S, Sato H, et al : Three cases of organized hematoma of the maxillary sinus in patients who underwent preoperative arterial embolization. Radiol Case Rep, 16 (12) : 3945-3949, 2021
- 17) Kurozumi M, Takumi Y, Uehara T, et al : Preoperative arterial embolization to avoid intraoperative bleeding during endoscopic sinus surgery for organized hematoma of the maxillary sinus. A case series and literature review. Interv Radiol (Higashimatsuyama), 6 (3) : 102-107, 2021
- 18) Ohta N, Watanabe T, Ito T, et al : Clinical and pathological characteristics of organized hematoma. Int J Otolaryngol, 2013 : 539642, 2013
- 19) 長 順之, 芳村雅隆, 稲葉雄一郎, 他 : 鼻出血を繰り返す上顎洞血瘤腫に対し、N-butyl Cyanoacrylateを用いた塞栓術を施行した1例。脳血管内治療, 7 (3) : 137-143, 2022
- 20) 鈴木俊彦, 野本美香, 鈴木 亮, 他 : 骨髓異形成症候群により急速に増大した上顎洞血瘤腫例。日鼻科会誌, 59 (2) : 146-153, 2020

21) 水野敬介, 菊地正弘, 齊田浩二, 他: 骨破壊を伴う嚢胞を形成した上顎洞血瘤腫例. 耳鼻臨床, 111 (7): 477-481, 2018

22) 牧原靖一郎, 内藤智之, 浦口健介, 他: 鼻副鼻腔血瘤腫の3例. 耳鼻・頭頸外科, 91 (7): 588-593, 2019

Editorial Comment

血瘤腫は上顎洞内に生じた血腫の臨床上の名称であり, しばしば鼻出血や鼻閉, 頬部腫脹など悪性腫瘍と類似の症状を呈する. CTで上顎洞の骨破壊がみられるが, 悪性腫瘍では融解性であるのに対し, 血瘤腫では拡張・菲薄化を伴う骨破壊が認められる. また長期間にわたって出血が反復・貯留することから, 上顎洞内には陳旧性～新鮮な血腫が混在し, MRIでは不均一な信号として描出される特徴がある. 治療は手術だが, 術中ほとんど出血しない例から大出血をきたす例まで様々である. したがって術前には出血に対する評価と準備が最も重要といえる.

著者らは上顎洞血瘤腫を疑った本例に対し, 男子に多い若年性血管線維腫の可能性も念頭に血管造影を行い栄養血管を同定後, 塞栓を施行した. そして手術は内視鏡下で行うendoscopic medial maxillectomy (EMMM)を用いて視野を確保したうえで, 一塊での摘出に成功している. 著者らが引用しているが, 小生は30年ほど前に血管造影で栄養血管を同定したものの塞栓は行わず, 手術は外頸動脈結紮後, 歯齦部切開による上顎洞根本術を行った結果, 1600 mlもの出血

をきたし, 輸血と気管切開を要した血瘤腫例を経験した¹⁾. 当時は良い血管内塞栓物質は未開発, また鼻内視鏡手術も普及していなかった. みるみる上顎洞内に溜まる出血を必死にガーゼで圧迫し続け, ようやく止血したと記憶する. 本例では出血は90 ml, 切開も鼻内に小切開と手術侵襲は極めて小さく, この30年での鼻科手術の飛躍的な進歩を強く感じざるを得ない. 今後はEMMMがこのような上顎洞内良性腫瘍の標準術式となるものと思われる. ただし予期せぬ大量出血をきたせば, 歯齦部切開によるopen fieldの手術へ変更せざるを得ないことも考えられる. したがって古典的な上顎洞根本術についても経験しておく必要がある.

大阪医科薬科大学病院 耳鼻咽喉科・頭頸部外科
萩森伸一

文献:

1) 萩森伸一, 川上理郎, 武嶋寛剛, 他: 上顎洞血瘤腫の5症例. 耳鼻臨床, 87 (9): 1229-1237, 1994