

# Glomus Jugulare Tumor の一治験例について

中華民國台灣省國立台灣大學耳鼻喉科教室（主任：杜 詩棉教授）

林 本 仁・周 維 馨・郭 文 芳

〔昭和34年8月28日受稿〕

## I 結 言

1941年 S. R. Guild は人類側頭骨のセクションで従来知られていなかった組織を発見し、Glomus jugulare と命名した。氏によれば、この組織は通常長径 0.5mm 以下の小さなもので、舌咽神経の鼓室枝（ヤコブソン氏神経）及び迷走神経の耳介枝（アーノルド氏神経）の走行に沿うて存在するが、半数以上が頸静脈球天蓋の外膜中にあり、総数の6%がヤコブソン氏神経が頸静脈窩より中耳腔に入る骨管即ち鼓室小管の中に見られ、又被検側頭骨の約4%に於て、この組織はヤコブソン氏神経の鼓室叢に沿うて鼓室岬の粘膜中に見られた。又3例は鼓室岬の上方でヤコブソン氏神経が小茂岩様神経に終る附近に存在し、7例は頸静脈窩より顔面神経下降部に至るアーノルド氏神経に沿うて存在した。組織学的には Glomus jugulare は Carotid body と同様、毛細血管或は前毛細血管の長径を有する多数の血管並びに之等血管間の間質に存在する多くの類上皮細胞から成立っている。

Glomus jugulare より発生する腫瘍に関する最初の症例報告は1945年に Rosenwasser によつてなされたが、それ以来耳鼻科医の興味と関心を惹き、次々と本腫瘍症例の臨床報告がなされ、今日迄に100例以上も文献に現われている。その中には、本腫瘍が未だ知られていない時期に中耳血管腫、血管内皮腫、血管肉腫等の病理診断名を附せられた症例の組織標本を再検して再分類を行つた症例も含まれている。

最近我々は始めてかかる症例1例を経験し、既往文献を渉獵したが、台湾に於ては未だ本疾患の報告はなされていないもの様である。以下本症例の概要を報告する。

## II 症 例

患者：28才，♂，農業（兵役服務中）  
初診：1958年1月31日

主訴：右側耳痛，耳出血及び右側顔面神経麻痺  
家族歴及び既往歴：特記すべき事はない。

現病歴：約7年前より悪臭ある右側膿性耳漏を訴え、その中に同側耳内に新生物があつて、何かで触れると容易に出血するの気づき、聴力もやや低下して耳痛をも訴えるに至つたので、6年前に某地方病院で中耳血管腫の診断の下に、右側外頸動脈結紮及び耳後法による中耳手術を受けた。術後2週間目より週3回、4週間にわたつてレントゲン照射を受けたという。当時の記録が保存されていないので、詳細な事は不明である。術後聴力がよくなり、耳漏も停止したが、約2年前より再び右側耳内痒痒感、続いて耳痛を訴える様になり、又右側眼瞼の閉鎖が不十分で、開口時に口角が歪む事に気づく様になつた。耳痛は益々激しくなり、右側耳内を何かで触れると容易に出血し、なかなか止らない。聴力も悪化し、約2ヶ月前からは耳出血が以前より頻繁となり、右側顔面がほてる感じがし、右側の難聴が服務に影響する様になつたので、1月31日に来院した。

局所所見：右側耳は一見中耳根治手術後の創腔に見る様に外耳道後壁欠損して外耳道腔が広く、中耳腔より乳様洞附近にかけて、表面が上皮で蔽われた。扁平な赤色の腫瘍らしきものが膨隆して居り、搏動を認めない。（第1図）注射筒で試験穿刺を行つた所、約1ccの暗赤色の血液を得た。穿刺後かなりの出血があつたので、固くガーゼタンポンをして止血した。創腔の腫瘍以外の部位は完全に上皮化している。右側耳後部に長さ約5～6cmの切開創痕があり、右側外頸部も舌骨の高さで長さ約5cmの斜走せる手術創痕が認められる。左側鼓膜がやや凹陷している他には、鼻腔、咽頭、喉頭に異常を認めない。

右側中耳の Glomus jugulare tumor の暫定的診断の下に試切をすすめたが、患者の都合により中止し、3月10日に再び外来を訪れたときに施行した。試切

時かなりの出血があつたが、ガーゼタンポンによる圧迫で容易に止血し得た。病理検査の結果はやはり **Glomus jugulare tumor** と判明したので、入院手術をすすめたが、患者の色々な都合があつて、入院したのは7月15日である。

入院時所見： 栄養体格共に中等度で、右側顔面神経不全麻痺のある他には、四肢、胸、腹部臓器に異常を認めない。

局所所見： 初診時と変わらず、プリューニング氏拡大耳鏡を用いて気圧を加えても別に腫瘍の搏動を認めない。

臨床諸検査所見： 血液所見としては、赤血球数516万、白血球数17800、血色素 13.5 g% である。血液像は中性多核白血球69%、単核球1%、リンパ球30%で、赤沈は1時間値 55mm、2時間値85mm である。血圧は最高116mmHg、最低 70mmHg 出血時間45秒、Sahli-Fonio 氏法による血液凝固時間測定値は、凝固開始1分55秒、完結3分50秒。梅毒血清反応は陰性である。

聴力並びに前庭機能検査成績： オーチオグラム（第2図）に示す如く、左耳聴力は略々正常であり、左耳を遮蔽して右耳を検査した結果は、極めて高度の難聴らしき像を呈している。温度性眼震検査の結果は、左耳前庭機能正常で、右耳機能は消失している。

レ線所見： 右側乳様部に辺縁不規則な骨欠損像を認め、乳様洞附近に幾つかの含気蜂窠が見られる。骨欠損は手術によるものか、腫瘍破壊によるものかレ線像のみからは鑑別不能である。

脳神経検査成績： 右側第七、VIII脳神経以外には障害なく、眼底所見も正常。

組織学的所見： 外来で試切によつて得た腫瘍組織の病理組織学的所見は、典型的な **Glomus jugulare tumor** の組織像を呈する。即ち壁が単層の内皮細胞より成る多くの迂曲せる毛細血管を認め、間質に多くの類上皮細胞が見られる。これらの腫瘍細胞は多角形で核は小さく、濃染性、細胞質はエオジン嗜好性である。（第3図）

手術所見： 7月22日全身麻酔により、耳内法による中耳根治手術施行。外耳道後壁の骨部欠損し、隣在せる乳様部骨皮質にも小指頭大の骨欠損がある。中耳腔より軟骨部外耳道近く迄膨隆している腫瘍に直接接触して出血させるのを防ぐため、外耳道の骨、軟骨部の接合部位で下、前、上壁にわたる皮膚切開をなし、骨膜下に剥離、術野を拡大するため、前、下骨壁を廻転バーではずつた。次に上鼓室及び乳様洞を開放。二、

三の乳様洞周囲蜂窠が残つていたが、肉眼的に異常を認めない。乳様洞は小指頭大で赤色肉芽様組織が充満している。外耳道橋部除去後、腫瘍に囲繞された槌、砧骨を除去したが、侵蝕された様な所見を認めない。出血多量のため、鼓膜を認め得ない。細い骨膜剥離子でなるべく早く中耳腔及び乳様洞内の腫瘍を挙上摘出したが、出血甚だ著明であつた。顔面神経は下降部に於て露出し、汚穢色の硬い組織が鞘状に結合しているので、その部分を切除した。鐮骨は卵円窓窩の肉芽組織中に埋没しているが、放置した。正円窓窩にも線維性組織が認められた。顔面神経下降部の下部、茎乳孔に近い骨は脆弱、出血性であり、出来る限り搔爬した。中耳腔の内、下壁には骨部の欠損や破壊を認めない。術中 750cc の輸血を行つた。術後、外耳道、中耳腔、乳様洞より取出した腫瘍及び切除せる顔面神経に結合せる組織の病理組織学的検査の結果はすべて **Glomus jugulare tumor** であつた。

術後経過： 術後約1ヶ月間は依然として耳痛を訴えた。創腔は肉芽形成の為浅くなつたが、外耳道前壁附近よりの上皮化の進行遅く、その為術後1ヶ月目よりコーチゾン軟膏の局所塗布を始めたが、それより肉芽も強固となり、上皮化も促進して約10日間で完成したが、外耳道腔の中心部に於ける上皮菲薄で、試みに棉棒で突破ると、深さ約 0.5cm の瘻孔があり、その壁は赤色肉芽様で出血し易く、漿液性分泌物があるので、引続きコーチゾン軟膏塗布を行つた所、分泌が停止し、瘻孔も幾分浅くなつたので、9月15日に退院した。

退院後耳痛再発の為5日後に再入院。瘻孔の治癒しない所から、腫瘍の遺残を疑い、二度にわたり瘻孔周囲上皮下組織を試切して病理検査に出したが、二度とも血管に富む肉芽組織の所見で腫瘍でないとの報告であつたので、11月24日に退院した。

患者は1959年3月除隊帰郷したが、引続き観察を要する為書信で来院をすすめた所、都合により来院出来ないが、自覚的には完全に治癒して元気で農業に従事している旨の返信があつた。

## ■ 考 按

本腫瘍は諸家によりいくつかの異つた名称で呼ばれている。Winship は **Glomus jugulare tumor** なる名称を提議し、広く用いられているが、Lattes, Waltner によつて提唱された **Nonchromaffin Paraganglioma** (クロム非親和性旁神経節腫瘍) という名称も多くの報告者により用いられている。かかる総括的名称を以て呼ばれる所以は、**Glomus jugulare**,

G. caroticum, G. aorticum, Paraganglia intravagale & juxtavagale, P. ciliare は夫々局在を異にするが、共に Nonchromaffin paraganglionic system に属し、多くの共通点を有する為である。その共通点は、

1. これらの小体は組織学的に副腎髄質や臓器交感神経節のクロム親和性交感神経節に似ているが、副交感神経及びその神経節と密接な関係にあり、且つクロム非親和性で、アドレナリンを分泌せず、全く内分泌機能を有しない。

2. 胎生学的に脳神経(Ⅲ, IX, X)及びその神経節並びに靭弓に由来する血管と密接な関係がある。

3. 組織学的に血管に富む間質中に存在する類上皮細胞巢から成立している。

4. 恐らくは副交感神経線維より、脳神経への求心性知覚神経を受けている。

5. 恐らく血液中の pH & CO<sub>2</sub> 濃度の変化を感知する Chemoreceptor としての機能を有する事。

6. これらの小体より発生した腫瘍が組織構造のみならず、臨床的にも相似た態度を示す事である。

又 Mulligan はこれらの小体が機能的には恐らく Chemoreceptor という所から Chemodectoma と名づけ、やはりかなり広く使用されている。この様な命名の混乱は Glomus jugulare の機能的意義が決定される迄分続くと思われる。

本腫瘍は病理組織学的に核分裂を認めないので良性といえる。又一般に進行緩慢で、主訴発現後始めて診察を受ける迄の期間が長く、20年の長きに達するものもある位である。しかし腫瘍の増大によつて側頭骨を高度に破壊し、頭蓋内に侵入して脳膜炎や脳膿瘍を合併して急速に不幸の転帰をとるものも少からず、又晩期には頸部リンパ節、肺、肝、脊椎骨、肋骨に転移を来した報告も段々現われて来て居り、臨床的には必ずしも良性といえない。一般に中耳より発生したものはかなり長い間中耳腔に局限し難聴耳鳴の症状あるのみで、鼓膜を破壊しない傾向があるに反し、頸静脈球より発生したものは中耳、錐体骨を侵し、頭蓋内に進展する傾向があるので予後が不良である。Capps, Riemenschneider は前者を良性、後者を悪性と見做して居る。本症例は経過比較的緩慢であり、顔面神経麻痺以外には、頸静脈孔症候群なく、手術時も下鼓室底健全で、頸静脈球窩との間に肉眼的に交通を認めず、且つ腫瘍塊が中耳内壁に附着して居るので原発部位は中耳と思われ、Capps 等の所謂予後良好なるものに属するが、聴力が高度に障害され、前庭機能が消

失しているため、予後判定上注意を要する。

本腫瘍の肉眼的所見は多くの報告者により赤色乃至紫色、茸様と記載され、大きさも数 mm から外耳道孔より突出するもの迄ある。本症例は術後再発例であつたため、比較的厚い上皮でおおわれた表面平滑な赤色の広基性腫瘍の外見を呈し、諸家の初診は局所所見とは趣を異にしているが、触れると容易に出血し、術後再発、顔面神経麻痺を来している点から、本腫瘍を疑つたのである。診断上注意すべき事は、普通の耳茸と肉眼的に鑑別出来ず、病理検査によつて始めて判明する場合のある事である。一寸した外傷によつてさえ出血する傾向のある事、摘出後容易に再発する事等は特徴的といえるが、そうでない場合もあるので、如何なる耳茸でも病理検査をなすべきである。又腫瘍が未だ中耳内に局限し、鼓膜が健在せる場合、急性中耳炎に於ける発赤や耳硬化症に於ける Schwartz 氏徴候と誤られる事もある。頸静脈孔症候群を伴い、腫瘍が鼻咽腔又は鼻腔内に迄進展せるものも時にあり、かかる場合鼻咽癌悪性腫瘍との鑑別を要する。Brown は腫瘍が特発性搏動を示さない場合でも、プリューニング氏拡大耳鏡を用いて気圧を加えると腫瘍が搏動し、更に圧を加えると腫瘍が蒼白となつて搏動が止み、圧をぬくと又搏動し出し、すつかり圧をぬくと搏動が停止する事を認め、かなり確実な徴候であるとして、この搏動徴候試験を提唱して居る。本症例に於てもこの Pulsation sign test を試みたが、創腔が広くて十分に加圧出来ないためか結果は陰性であつた。

本腫瘍にのみ特異の症状はないが、難聴耳鳴の訴えはかなり多い。難聴は患者自身がやつと自覚する程度のものから全聾に至る迄、症例によつて難聴の度を異にする。本症例に於ては難聴極めて高度であり、前庭機能も消失しているが、眩暈を訴えず、腫瘍が徐々に内耳に侵入したのか、徐々に進行した内耳炎の結果であるのか臨床所見だけからでは明らかでない。Tamari は腫瘍の広汎な破壊により全乳様部骨質壊死状となり、迷路腐骨を形成し、中耳根治手術及び迷路摘出を行つたが、術後9日にして脳膜炎で死亡した例を報告している。しかし大多数の報告例に於ては緻密硬固な迷路殻は破壊を免れて居る。

顔面神経麻痺もかなり多くの報告例に見られ、その初発時期、麻痺の程度は一定せず、腫瘍の局在及び増殖の速さによる。本症例は主訴発現後4年、初回手術後3年を経てから顔面神経麻痺を来し、再手術前は不全麻痺であつたが、再手術で腫瘍組織が該神経と結合している部分を切除後完全麻痺となつた。その他の症

状としては、特発性の、又は耳内をいじつたための耳出血があり、患者はそのため始めて診療を乞う事が少ない。耳内痒痒感、深在性耳痛、患側の頭痛、悪臭ある膿性耳漏もよく訴えられる症状である。

治療は手術、放射療法或は両者の併用に尽きる。一般に本腫瘍は Carotid body tumor と同様放射線に対する抵抗性が強く、放射療法は適応でないといわれるが、Williams 等の様に平均 2000~3000 r 位の腫瘍量の照射で良い成績を挙げている報告もあり、放射線に対する感受度も症例によつてかなり異なる様である。一般にはレ線照射の単独療法に頼る人は少なく、手術後レ線照射を併用している人が多い。腫瘍のレ線に対する反応は緩慢で、療法完了後数ヶ月にわたつて縮少するといわれている。腫瘍が頸静脈球天蓋より発生して乳様部、錐体骨を侵し、頭蓋内に及ぶ様な症例は、Capps や Rosenwasser の提議する如く、危険を侵して手術をするよりもレ線照射を施行すべきであろう。又手術に際して腫瘍を完全に摘出したかどうか疑わしい場合、或は多量出血の危険を顧慮して腫瘍の一部を残した場合には、術後レ線照射を行うのが合理的である。本症例は術後再度の試切の結果が陰性で、レントゲン科も本腫瘍はレ線に抵抗強く照射の適応でないとの意見であつたため、術後の照射を行わなかつた。

外科的療法に関しては、中耳炎に於ける側頭骨手術と異なる特別の注意事項があり、手術術式も腫瘍の見られた時期によつて異つて来る。腫瘍が早期に発見され、未だ小さくて中耳に限局し、鼓膜も健在している症例ならば、Shambaugh の提唱せる如く、聴力が高度に障害され、又は腫瘍が附近の重要な組織を侵さぬ中に、耳内より鼓膜輪を挙上し、骨部鼓膜溝を除去して下鼓室と腫瘍を十分に露出した上で腫瘍を完全に摘出して鼓膜を又元の位置に戻す氏の所謂 Hypotympanotomy が理想的な術式である。腫瘍が既に鼓膜、

乳様部を侵し、二次感染による膿性耳漏のある症例は中耳根治手術が適応となる。何れの術式を用いたにせよ、腫瘍よりの出血を最小限に止めるためには、腫瘍周囲の骨部を除去して腫瘍が十分に露出された上で、一挙に摘出するという原則によらねばならない。多量の出血で術野が明視されず、或は腫瘍が顔面神経と近接している場合、該神経を傷つけて永久に麻痺を残す事があるので、注意を要する。本症例は前述の如く既に腫瘍組織が顔面神経を侵しているため、敢てその部分を切除したが、かかる場合なるべく腫瘍のみを除去して神経を保存し、術後レ線照射を併用する人もある。

本報告例は本来経過緩慢であり、再手術後1年しか経ていないので、手術の効果、予後を云々し難いが、前庭機能が消失している点より、将来再発の可能性について樂觀出来ないと思う。

#### IV 結 語

台湾に於ける Glomus jugulare tumor の最初の1例を報告した。6年前右側中耳血管腫の診断の下に某病院で摘出手術を受けたが、2年前より同側顔面麻痺を来し、創腔内の赤色腫瘍の試切の結果、診断を確定し得たので、中耳根治手術を施行し、中耳より原発したと思われる腫瘍を摘出した。摘出腫瘍、術前の試験的切除共に組織学的に Glomus jugulare tumor であることが確認された。術後1年に過ぎないが未だ再発を見ない。本腫瘍が Rosenwasser により最初に報告されてから14年になるが、命名、予後、転移、治療法等に関し、今後の知見の集堆によつて解決を俟つべき諸問題を含んで居り、比較的新しい興味ある疾患である。

(稿を終るに当り、御指導並びに御校閲を賜つた岡山大学高原滋夫教授、台湾大学杜詩棉教授に深甚なる謝意を表します。)

#### 主 要 文 献

- 1) Guild, S. R. : Ann. Ot., Rhin. & Laryng., 62, 1045, 1953.
- 2) Lattes, R. et al : Cancer, 2, 447, 1949.
- 3) Flynn, T. F., Jr. et al : Arch. Otolaryng., 61, 231, 1955.
- 4) Mulligan, R. M. : Am. J. Path., 26, 680, 1950.
- 5) Capps, F. C. W. : J. Laryng. & Otol., 66, 302, 1952.
- 6) Riemenschneider, P. A. : Am. J. Roentgenol., 69, 59, 1953.
- 7) Brown, L. A. : Laryngoscope, 63, 281, 1953.
- 8) Tamari, M. J. et al. : Ann. Ot., Rhin. & Laryng., 60, 350, 1951.
- 9) Williams, H. L. et al. : Ann. Otol., Rhin. & Laryng., 64, 546, 1955.
- 10) Figi, F. A. : J. A. M. A., 156, 1157, 1954.
- 11) Rosenwasser, H. : Arch. Otolaryng., 67, 197, 1958.

- 12) Shambaugh, G. E., Jr. : Laryngoscope, 65, 185, 1955.
- 13) Aquino, J. A. : Arch. Otolaryng., 65, 263, 1957.
- 14) Strong, M. S. : Arch. Otolaryng., 60, 145, 1954.
- 15) Winship, T. et al. : Arch. Otolaryng., 54, 328, 1951.
- 16) Lewis, J. S. et al. : Arch. Otolaryng., 53, 406, 1951.
- 17) Cox, T. R. et al. : Arch. Otolaryng., 67, 368, 1958.
- 18) Bennet, M. et al. : Arch. Otolaryng., 66, 257, 1957.
- 19) Land, R. N. : Radiology, 59, 70, 1952.

---

### Glomus Jugulare Tumor. Report of a Case with Recovery.

By

Pen-Jen LIN, Wei-Hsing CHOU and Wen-Fun KUO

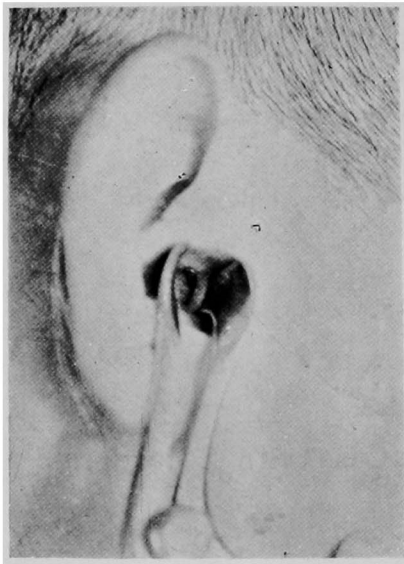
Department of Otolaryngology, National Taiwan University Hospital,  
College of Medicine

(Director : Prof. Shih-Mien TU)

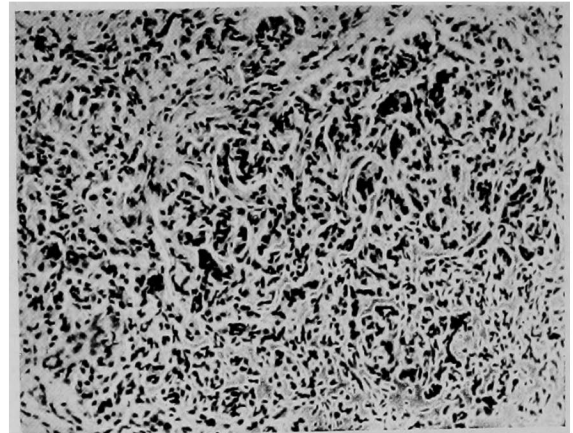
A case report was done on a 28 years old soldier with a glomus jugulare tumor of the right middle ear, which recurred about 4 years after the first removal elsewhere. The recurrence was accompanied with facial nerve paralysis. patient underwent radical mastoidectomy for the removal of the recurrent growth. Clinical and pathological features of the growth, points in diagnosis and methods of treatment were discussed. The tumor is a fascinating subject to otologists because of its relative rarity and many questions to be answered regarding its nature, as only 14 years has elapsed after the first case report by Rosenwasser.

---

第 1 圖



第 3 圖



第 2 圖

