臨 床

レ線照射により治癒せしめた乳児耳下腺血管腫

田村 浩通・木村 憲司・川本 伸雄・河野 寿之*

Hemangioma of the Parotid Gland in an Infancy Treated by X-Ray Irradiation.

H. Tamura, K. Kimura, N. Kawamoto & T. Kono

Department of Otorhinolaryngology, Hiroshima University, Faculty of Medicine

We encountered on a case of 7 weeks female infant with a great tumor in the right parotid region.

It was revealed microscopically that this tumor was hemangioendothelioma. The tumor had remarkable regression after X-ray therapy. (Author)

緒 言

血管腫は、日常しばしば見られる疾患であつて、多くは顔面、頭頸部に発生するものと考えられている。一方耳下腺に発生する良性腫瘍は、その大部分が混合腫瘍で、血管腫は稀ではある。但し生後1年以内の乳児に関する限りでは、耳下腺腫瘍の大半は、血管腫であると一般に信じられている。かかる耳下腺血管腫について、その第1例を1860年 Gascoye が報告して以来、最近の Walte (1963) の報告に至るまで、外国文献中には本症々例が少なからず散見されるが、本邦文献中には僅か数例を数えるに過ぎない。

最近われわれは、生後48日の乳児で、右耳下腺より発生したと考えられる血管腫に遭遇したので報告する。

症 例

患者： 生後47日，男，外来チャート番号 651，入院チャート番号 45 (1963年)

主訴：右頬部腫脹

家族歴：特記すべきことなし。

既往歴：特記すべきことなく、また右頬部に特に外傷を受けたことはない。

現病歴：生後約2週目に、母親が該児の右耳前部に略々小指頭大の、やや皮膚面より膨隆した腫瘍のあるのに気付き、某医を訪れた所、右外耳道炎によるリンパ腺腫脹であろうと診断された。治療として約3週間ペニシリン等の抗生物質の投与を受けたに拘らず、この腫瘍は益々増大するため別の病院を訪れた。その病院にて、右耳下腺部の腫瘍を種々なる方向より、数回にわたり穿刺を受けたが、穿刺毎に常に暗赤色の血液が得られるために、耳下腺の血管腫が疑われ、経過観

察せる所、腫瘍は急速なる発育を示し、遂には右下顎部および右上顎骨犬歯窩部にも著明な腫脹が見られるに至り、昭和38年2月20日当科に紹介された。すなわち母親が右耳前部の小腫瘍に気附いてから、約5週間の間にこの腫瘍は急速なる発育を示した事が特徴的である。なお分娩は、順調に経過し、成熟児であつた。なお生下時に母親は右頬部には如何なる腫瘍をも認めていない。

現症：気嫌、食欲、睡眠、いずれも良く、発熱はない。体重4.64kg、身長55.7cmで発育、栄養、共に良好、また身体他部に血管腫を思わせる様な所見はない。理学的に、胸腹部に異常所見は認められない。局所所見として、右耳下腺部を頂点として、左方は右上顎骨犬歯窩部、下方は右上顎骨下縁、上方は右顎関節部、後方は耳前部にかけて、経約7×5×3cmの巨大な腫

* 広島大学医学部耳鼻咽喉科教室 (主任：塚本寛教授)

Fig. 1

治療前

癭が認められる (Fig. 1). なおこの腫瘍上の皮膚の変色は認められないが、その頂点を中心に径約 2×2 cm の毛細血管拡張がある。これを触診すると腫瘍の表面は多少の凹凸はあるが、概して平滑で、比較的硬く、その境界は明瞭でなく、浮動性、圧痛ならびに圧縮性はなく、炎症所見も認められない。顎関節の機能は正常で、顔面神経麻痺はない。口腔粘膜、ステノン氏管開口部は、いずれも正常で、その他耳、鼻、咽腔には特記すべき所見はない。

検査成績：血液、血清、尿検査成績はいずれも正常で、母親の血清梅毒試験陰性である。顔面のレ線所見は、上顎骨、下顎骨共に正常で、左右対称的である。なお頸静脈の圧迫により腫瘍の増大はみられない。腫瘍を穿刺すると暗赤色の血性内容物を採取し得た。以上の所見より臨床的に右耳下腺より発生した血管腫を疑い、翌日入院せしめ、耳下腺部より該腫瘍の小片を採取し、病理組織学的検査を行なった。

組織学的所見：実質細胞は楕円形ないし紡錘形を呈し、その境界は明らかである。細胞の原形質は、比較的明瞭で、核は楕円形または類円形を示し、クロマチンは中等量に存し、微細顆粒状を呈している。なお少数の実質細胞には核分裂像が見られ、この実質細胞は、血管周囲に不規則かつ密に配列している。すなわちこの実質細胞は、血管内皮細胞と考えられる (Fig. 2). さらに別の部位においては、かかる実質細胞は、細胞索を形成し、しばしば管腔形成がみられ、一部には赤血球を入れているものも見らる。かくの如く管

Fig. 2

400×. 血管周囲には血管内皮細胞の増殖が著明に認められる。

Fig. 3

400×. 大小種々の毛細血管の増殖が認められる。

腔形成の著明な部には、大小種々の毛細血管が豊富に認められる (Fig 3). またしばしば脂肪細胞に混じて血管内皮細胞が異常な増殖肥厚を示すため、管腔は狭少となり、遂には内腔が全く閉鎖されている血管も見られる。基質は少量の結合組織よりなり、時には実質細胞、毛細血管等を小葉状に区分している部位もあるが、多くの部位においては明瞭な基質結合組織を認めがたい。

なお組織片の採取部位によるためか、耳下腺の腺組織、排泄管等は認められなかつた。

以上の所見より、右耳下腺より発生した単純性血管腫の像を伴う血管内皮細胞腫と診断した。

治療：患者が生後未だ7週の乳児である事と、我々の臨床に紹介された時はすでに腫瘍は著しく発育増大していた所よりして、その完全なる外科的切除は困難と判定し、一応レ線照射を試みた。レ線照射による皮膚の障害は必然的に避け得られぬ所であるが、特に患

者が発育途上にある乳児の場合は、その他のレ線による副作用は極力避けるべきである。すなわち、頰部にレ線照射を試みるばあいには、1) 耳介軟骨、2) 上顎骨および下顎骨、3) 眼球、等に対して、充分なる注意と適当なる保護とを行なうことが肝要であろう。かかる意味において、先ず耳介軟骨、眼球に対して、それぞれ適當の大きさの厚さ3mmの鉛板を作製し、それを耳介軟骨、眼に固定した。

次にレ線の照射方向を直接顔面骨に向けないために、患者を仰臥位に固定し、管球の門口を交互に耳前部、犬歯窩に置き、その方向は耳前部のものは犬歯窩へ、犬歯窩のものは耳前部の方向へと管球を固定した。従つてレ線は腫瘍を切線方向に切断することになる。

なお管球の門口の口径は 5×5 cmのものを使用し、距離40cm, 15mA, 170kVで1日150rを照射した。2月26日より3月7日までの9回、計1350rの照射により、腫瘍は漸次縦少して 5×2 cm²と当初の約1/3大となつた。なお3月7日に低色素性貧血が現れたので、10日間レ線照射を中止し、その間患児および母親に鉄剤を投与した。以後3月18日より25日まで6回計900rの

照射を行ない、総量、2250rを照射せる所、腫瘍は著明に縮少し遂に腫瘍を触知しなくなつた (Fig 4)。3月29日退院せしめ、1ヵ月後にも再発の徴を認めない。

Fig. 4

治療後

考

一般に血管腫は、先天性に発生する事が多く、生下時、若しくは生後まもなく気附かれ、長年月にわたり漸次増大するものもあるが、中には短期間のうちに急激に発育増大するものもある。また一般にその発生部位は、主として顔面、頸部、頭部が多く、その他の軀幹、四肢には比較的少ないとされ、また血管腫の多くは表在性で、深在性のものは、比較的稀であると思惟されている。

発生頻度：耳下腺に発生する良性腫瘍の大部分は、混合腫瘍である。例えば、Lathrof によれば、Lahey Clinic にて最近の25年間に243例の耳下腺良性腫瘍を見ているが、その中の223例は、耳下腺の腺組織より発生したものであり、腺組織以外の組織より発生したものは、僅か20例に過ぎず、さらに前者の223例中実に195例は、いわゆる混合腫瘍であり、後者の20例中血管腫は僅か1例のみであるという。また Foote & Frazell は、877例の唾液腺腫瘍を分類し、その中耳下腺血管腫は、僅か数例に過ぎないと述べ、また Mc Farland は文献から1930年までの耳下腺血管腫の報告例40例を蒐集し、さらに Backus 等は、その後1957年までにその37例が追加報告されていると述べている。

按

本邦においては、1960年北村等が初めて耳下腺血管腫4例を報告し、さらに同年中井等も1例を追加報告している。以後今日までの約3年間の本邦文献を調査した範囲では、耳下腺血管腫の報告例は見当たらない。従つて現在までの本邦における耳下腺血管腫の報告例は、吾々の1例を加えて僅か6例に過ぎない (表1)。

以上の如く外国においても、また本邦においても耳下腺血管腫は非常に稀な疾患と考えられるが、特に本邦においてはその感が深い。

性別：一般に血管腫は、特に女性に多く生ずる事は内外の文献において一致せる見解である。例えば、耳下腺血管腫についても、Campbell は51例中36例は女性に見られると述べ、また本邦の6例中6例共女性であつた。北村等によれば、女性に多い理由については明確に説明され得ないが、女性ホルモンに関係があると看做され、事実月経、妊娠等に関連して腫瘍が出現したり、また増大することはまことに興味ある所であると述べている。しかし一般に耳下腺血管腫は、われわれの症例の如く、乳児に多発するものであり、何か胎生期的な因子に関連あるものの如く推測される。

年齢：血管腫の組織発生については、未だ充分に解

表 1

	気附かれた 時の 年 令	治療を受け た時の年令	性 別	治 療	組 織 学 的 所 見	経 過	報 告 者	発表年月日
1	6 才	23 才	♀	切 除	単 純 性 血 管 腫	治 癒	北村 他	1960
2	3 才	15 才	♀	切 除	血 囊 腫	治 癒	北村 他	1960
3	6 才	19 才	♀	切 除	単 純 性 血 管 腫	治 癒	北村 他	1960
4	14 才	20 才	♀	切 除	海 綿 状 血 管 腫	治 癒	北村 他	1960
5	4 ヲ 月	5 ヲ 月	♀	切 除	単 純 性 血 管 腫	治 癒	中井 他	1960
6	2 週	7 週	♀	レ 線	血 管 内 皮 腫	観察中	田村 他	1963

明されたとはいえないが、一般に胎生期の障害による過誤腫 Hamartoma のことが多いとされている。従つて概して先天性のものが多く、生後直ちにあるいは生後1年以内に発見されることが多く、Wawro 等は10例の耳下腺血管腫中、生下時に見られたもの7例、1年以内に発現したもの3例であると述べ、さらに Campbell によれば、生後1年以内に発現する耳下腺腫瘍の中、90%は血管腫であり、また耳下腺血管腫患者の年齢分布は、生後1年以内に88.5%を占めるという。

本邦においては、中井等およびわれわれの症例以外は総て少年期、青年期あるいはそれ以上の年齢に発現している。中井等は、この点につき、恐らくこの時期に血管腫が発生したのではなく、以前より耳下腺内に潜在し、それが何んらかの刺激を受けて増大し、臨床的意義を持つに至り、始めて発見されたのではないかと考えられると述べている。ともあれ、我々の症例は、生後2週目に小指頭大の腫瘍の発現せんに気付き、それが僅々5週間で巨大な腫瘍に发育増大したことは真に興味深い点である。

以上の如く、Wawro, Campbell 等も指摘している如く、耳下腺血管腫は、生後1年以内に現われる耳下腺特有の腫瘍であると考えられる。

症状：主要症状の1つとして最も重要な点は、上述の如く、生後直ちに、あるいは1年以内に現われる偏側性の耳下腺腫瘍である。かかる耳下腺部の腫脹は漸次増大するが、時にはわれわれの症例の如く急速に増大し、一見悪性腫瘍を思わせる観を呈する点は注意すべきであろう。Glaser 等はわれわれの症例の如く右耳下腺に発生することが多いと述べているが、Campbell は左右別による発現率の差は認められないと述べている。

腫瘍を被う皮膚には通常著明な変化は認められないが、時には皮膚血管腫を合併することがある。また腫瘍が漸次増大すると、皮膚は青紫色を呈したり、ある

いは毛細血管の拡張が見られる場合が多い。この腫瘍を触診すると、多くは多少共圧縮性を有し、泣いたり、怒責、あるいは頭部の位置変換等により静脈圧の亢進を招くと、腫瘍は著明に増大することがある。Backus 等は、定型的な Valsalva maneuver を保たせることにより、静脈圧の亢進を起こさせると、著しく腫瘍が増大する興味ある症例を報告している。かくの如く静脈圧の変化により、腫瘍の大きさが増減するのは、多くは組織学的に海綿状血管腫があり、これに反しわれわれの症例の如く血管内皮腫の如く実質細胞要素に富む血管腫は比較的硬く、かつ静脈圧による腫瘍の大きさの変化は認められないことが多い点は注意すべきである。

なお Glaser 等は、触診する際に、この腫瘍は lobulation を示す如く感ずる事が多いと述べている。

上記の症状のみで診断は必ずしも困難ではないが、ばあいによっては唾液腺造影法や血管撮影を利用すると、一層診断は容易となろう。また非常に稀ではあるが、生後1年以内にすでに耳下腺に混合腫瘍や癌が発生した報告例があるので、組織学的検査は必要欠くべからざるものである。

鑑別診断：上記の混合腫瘍、癌以外に、脂肪腫、腺腫、嚢状腺腫、神経芽腫、嚢腫、先天性側頸部嚢腫、cystic Hygroma, Calculi 等を考慮して鑑別する必要がある。なお Campbell によれば、乳児にすでに慢性耳下腺炎が発生し得るため、これとも注意して鑑別すべきである。また Lingemann によれば耳下腺のリンパ管腫は、その症状は血管腫のそれとまったく同一であるため、その鑑別は組織学的検査を俟つ以外にはない。

組織学的所見：現在一般に真の血管腫は、中胚葉の embryonic sequestrations により発生する先天性の起源をもつものであると考えられている (Anderson)。血管腫の多くは、毛細血管や静脈にその起源があると考え

られ、さらに血管腫のあるものには、血管内皮腫の如く血管内皮細胞が著明に増殖し、細胞成分に富むものもあり、一方海綿状血管腫の如く実質細胞に乏しく、管腔形成とその内腔との拡張とが著明なものもある。かくの如く血管腫の組織学的構造は、非常に複雑、多岐であるため、種々の分類が行われ、また多くの名称が用いられている現況である。しかし現在一般に、単純性血管腫 Hemangioma simplex, 海綿状血管腫 Hemangioma cavernosum, 蔓状血管腫 Hemangioma racemosum, また単にcapillary, cavernous, or mixed Hemangioma 等と分類されている。これら血管腫の組織学的共通点は、血管を主成分とする良性腫瘍と考えられていることであろう。

一方かかる血管腫に対して、特殊なるものとして血管内皮腫Hemangioendotheliomaがあり、これは別個に取り扱われている。この血管内皮腫は、血管内皮細胞が腫瘍状に増殖したもので、一般の血管腫の如く、この内皮細胞は常に血管腔を形成するとは限らず、血管周囲に増殖してモザイク状にあるいは不規則に配列しているばあいが多いと考えられている。かくの如き血管内皮細胞の増殖を、血管芽細胞の肉腫様増殖に限定して考える人と、広く血管を造る傾向のある肉腫性新生物の総称と見做す人とがあり、後者の立場に立つ場合には、これに血管肉腫 Angiosarcoma の名前がつけられている。かくの如く血管内皮腫については、今日病理学においてなお多くの議論がある。

一方乳児に見られる血管腫は、Anderson も指摘している如く、管腔形成よりもむしろ著明な血管内皮細胞の実質性増殖が見られ、血管肉腫の誤診を招く恐れが少なく、この点についてさらに Stout は、乳児の血管内皮腫は成人における如き悪性な意義を有さず、普通良性の経過をたどると述べている。

耳下腺に発生する血管腫は、普通血管内皮腫、毛細血管腫、海綿状血管腫等が挙げられているが、血管内皮腫については、特に Foote 等も血管肉腫とは鑑別すべきであると強調している。またさらに耳下腺血管腫は、一般に良性の経過をたどることは、多くの研究者の一致した見解であり、従つて耳下腺の血管内皮腫とは、われわれの症例の如く、他の血管腫よりも比較的血管内皮細胞の増殖が著しいばあいに用いられる名称と考えられ、かかるゆえにまた比較的再発が多いものと推測される。Cody は、耳下腺血管腫を cavernous, capillary, cellular の3種類に分類しているが、この cellular のものが、血管内皮腫に相当するものである

う。また Backus 等は、毛細血管腫と血管内皮腫とを同一視し、彼等によれば、1957年までに報告された耳下腺血管腫77例中、毛細血管腫は61例で、海綿状血管腫は僅か16例に過ぎないと述べている。ちなみに本邦においては単純性血管腫は3例、海綿状血管腫1例、血囊腫1例である。兎に角われわれの症例は、一部に単純性血管腫の像をも伴う血管内皮細胞腫と見做すのが妥当であろう。また Wawro 等は、乳児に発生した10例の耳下腺血管腫を経験し、生後4ヵ月以前に発生した耳下腺血管腫は、急速なる発育を示し、また再発を起し易く、組織学的に著明な solid endothelial component が認められるとし、さらに4～6ヵ月以後の乳児のばあいには、血管腫は徐々に増大し、組織学的に未分化を示す要素は減少し、血管腔の形成が顕著となり、また核分裂の像は認め得なくなると記述している。われわれの症例は、僅か1例で、この点について特別の見解を持たないが、ただ患児の年令、腫瘍の発育程度およびその組織学的特徴等は、全く Wawro 等の説に合致し、さらに興味あることは、レ線に著しく感受性が高かつた点であろう。なお Campbell は、彼の3例の耳下腺血管腫の検討より、その臨床的態度と組織学的所見ならびにその患児の年令との間には、Wawro 等が述べる如き理論的関連性はないと述べているが、この問題に関しては、将来さらに十分に検討する必要がある。

なお Heineke によれば、耳下腺の腺組織は、腫瘍の圧迫のために次第に萎縮性となり、初期には腫瘍組織間に腺の残存を認めるが、遂には消失し、これに反し潤管、線条管、排泄管は比較的よく保存されると述べている。われわれの症例では、腺組織およびその排泄管等は認められなかつた。このことは、組織片の採取部位に基づくためか、あるいは急激に成長発育する血管腫にあつては腺組織等は全く破壊されるのを常とするためによるものかは卒爾に断定し難い。

治療：保存的療法として、従来より雪状炭酸・電気焼灼法、ラジウム照射法、レ線照射法、アイソトープ等が利用されているが、最も多く用いられているのは腫瘍の外科的切除である。Howard, Wawro 等によれば、乳児の顔面神経は成人に比し耳下腺の表面に近く走っているために、外科的切除の際最も問題となるのは顔面神経の損傷であるといい、事実 Campbell は、46例の手術患者の中9例に顔面神経麻痺の発現を認めている。次に外科的切除の場合に問題となる点は、腫瘍の拡大程度により完全なる摘出が困難で、ばあいに

よつてその部分切除もまた止むを得ない事がある点であろう。Campbell によれば、46例中5例に術後の再発をみたという。

Wawro 等(1955年)によれば、レ線照射のみによる耳下腺血管腫の治験例は、彼らの1症例をも加えて僅か3例であると述べている。すなわち、1950年 Howard 等は9ヵ月の乳児の血管内皮腫にレ線800γを使用し、また1951年 Conway は7ヵ月の乳児の海綿状血管腫に2800γを用いて、それぞれ治癒したと述べている。Wawro 等は3人の患児にレ線照射を試みた所その中1人のみに効果を認めた。

われわれはレ線照射に際し、その影響が顔面骨に至ることを避けるために、腫瘍を切線方向より照射したが、この方法は血管腫が比較的大きく、かつ皮膚面よ

り突出している場合には一応試みるべき方法であると信ずる。しかしこの方法では、腫瘍の深部に充分なるレ線照射が行えないので、嚴重なる経過観察の要があり、従つてもし再発の徴があれば直ちに手術またはレ線照射を追加する必要がある。尚本邦においてはレ線照射により、一応の治癒効果が認められたのは、われわれの症例のみである。

予後：一般に耳下腺血管腫の予後は良好であると考えられているが、Glaser¹⁾によれば、巨大なる血管腫の場合は頸部圧迫により死亡を来す恐れがある点を指摘し、かかる場合には早急なる手術を適応すべきであると述べている。なお耳下腺血管腫は、しばしば再発を見るため、長期間にわたる経過観察の必要があろう。

結 語

われわれは生後47日の女児で、右耳下腺より発生したと考えられる耳下腺血管腫を、レ線照射により一応治癒せしめ得た。なお組織学的には、血管内皮細胞腫であるため、長期にわたる経過観察の必要がある。

文 献

- 1) 北村, 明石: 耳喉科, **32**: 275-279, 1960.
- 2) 中井, 他: 耳鼻臨, **53**: 494-497, 1960.
- 3) Anderson, W. A. D., Pathology, The C. V. Mosby Co., 1953.
- 4) Backus, L. & de Felice, C., Plast. & Reconstruct. Surg., **20**, 328-332, 1957.
- 5) Campbell, J. S., New England J. Med., **254**, 56-60, 1956.
- 6) Conway, H., Plast. & Reconstruct. Surg., **8**, 237-241, 1951.
- 7) Cody, C. C., Arch. of Otolaryng. **57**, 509-513, 1953.
- 8) Cody, C. C., Ann. of Otol., **64**, 1276-1280, 1955.
- 9) Foote, F. W. Jr. & Frazell, E. L., Cancer **6**, 1065-1133, 1953.
- 10) Glaser, K., et al., J. Pediat., **28**, 729-732, 1946.
- 11) Heineke, Ergebn. d. Chirug. u. Orth., **6**, 1913, cyted by 1).
- 12) Howard, J. M., et al., Surg. Gyn. & Obst. **90**, 307-319, 1950.
- 13) Lathrof, F. D., Laryngoscope, **72**, 992-1006, 1962.
- 14) Ligemann, E., Laryngoscpe, **70**, 983-998, 1960.
- 15) Mc Farland, J., Arch. Path., **9**, 820-827, 1930.
- 16) Stout, A. P., Ann. Surg., **118**, 445-464, 1943.
- 17) Walter, C., Z. Laryng. usw., **42**, 8-11, 1963.
- 18) Wawro, N. W., et al., Cancer, **8**, 595-600, 1955.