静脈石を伴った頭頸部血管腫の3例

水田 康雄・大槻 晃直・吉松 政喜
安田 範夫・大島 渉・西村 秀夫
橘 正芳・水越 治

Three Cases of Hemangioma with Phlebolithiasis of the Head and Neck

Yasuo Mizuta, Terunao Ohtsuki, Masaki Yoshimatsu,
Norio Yasuda, Wataru Ohshima, Hideo Nishimura,
Masayoshi Tachibana and Osamu Mizukoshi
(Kyoto Prefectural University of Medicine)

Hemangioma with phlebolithiasis in head and neck region is relatively rare. We have treated three cases of hemangioma with phlebolithiasis during the past 12 years.

All three patients were female adolescence. Two had hemangiomatous swelling on the cheek, and the other on the submandibular area. In all three patients, many calcifications were detected at the swelling areas on roentgenography and surgical removal of the hemangiomatous tissues revealed hemangioma with multiple phleboliths.

Postoperative histological diagnoses were cavernous hemangioma, hemangioma of submandibular gland.

はじめに

血管腫は幼児や小児に多く、真の腫瘍ではなく組織奇形ないし過誤腫と考えられている。好発部位は皮膚や皮下組織であり、特に頭頸部や顔面口腔領域に多い。しかしながら、静脈石を伴った血管腫の報告例は比較的少ない。

最近、私達は、頬部・顎下部に発生した静脈石を含有する血管腫を3例経験したので、若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

症例1: 22才, 女性.

初 診: 昭和58年10月4日

主 訴 右頬部の無痛性腫脹

家族歴: 祖父が喉頭癌

既往歴：特記事項なし

現病歴：幼少時から右頬部の軽度の腫脹に気付いていたが、何ら障害なく外見上も問題なかったため放置していた。約6ヶ月前から摂食時や開口時に右耳下部の疼痛を自覚するようになり、また、右頬部の腫脹も徐々に増大する傾向を認め、精査を希望して当科を受診した。なお、開口障害や自発痛は認めていない。

現 症

全身所見：栄養、体格良好で、その他特記事項なし。

局所所見：右下眼瞼から頬部にかけて瀰漫性・弾性硬の腫脹を認め、一部の頬部皮膚は青色の色調を示しており顔貌はやや左右非対称性を示していた。しかしながら、加圧による腫脹の変化はなく、拍動も触知せず、圧痛や自発痛も認めなかった（図1）。また、 $\frac{87}{87}$ 相当の

頬粘膜にも軽度の腫脹・青色調変化を認めた。双指診により腫脹中に数個の小豆大から雀卵大の可動性良好の硬い腫瘤を触知した。なお、ステノン管開口部には特に異常所見を認めなかった。

レントゲン所見：右頬部軟部組織に類円形の多数のレントゲン不透過結石陰影を不規則散在性に認めた（図2）。

CT所見：右眼窩下外側から頬骨弓内側さらに中咽頭レベルの頬部に多数の円形結石陰影を有する軟部組織を認める。しかしながらこの軟

部組織は造影剤によって増強されなかった（図3）。

第2図 症例1の単純レントゲン像。右頬部軟部組織の類円形レントゲン不透過結石様陰影。

第3図 症例1のCT所見

第1図 症例1の顔貌。右頬部の瀰漫性腫脹を示す。

超音波検査所見：右頬部において、境界不鮮明な内部が非均一性の内部エコーレベルの高い Mass 所見があり、石灰化像や多数の管腔構造が認められる（図4）。

血管造影所見：右外頸動脈から施行したが、右頬部領域において、右顔面動脈・顎動脈から頬部へ分布している末梢枝の軽度の肥大を認めたが、血管新生・腫瘍像・Vascular leaks など血管腫特有の所見は得られなかった。

臨床検査成績：血液一般検査・血清化学検査・尿検査などに異常なく、出血傾向も認めなかった。

臨床診断：静脈石を有する右頬部血管腫。

処置および経過：昭和59年1月4日入院。1月11日NLA全身麻酔下に口腔内頬部粘膜切開にて腫瘤の摘出術を試みた。粘膜下に易出血性の暗赤色のやや海綿状なる組織を認め、その組織中に多数の半米粒大から小指頭大の静脈石を認めた。腫瘍は浸潤性に増殖しており出血も多いため可及的に静脈石の摘出と腫瘤の一部摘出に止めた（図5）。

摘出物所見：静脈石を有するやや海綿状の軟

部組織と、薄い被膜でおおわれた球形の真珠様光沢色調をもつ軟骨様硬度の静脈石を21個摘出した。静脈石の大きさは5mm大が20個、1.5cm大が1個であった（図6）。

病理組織学的所見：種々の大きさの不規則な形状の海綿状の血管腔を有し、その血管腔に一部器質化した血栓を有している（図7a）。また、結石は薄板同心円状の層状構造を示しており、ほとんど細胞を認めない石灰化像である（図7b）。

病理組織学的診断：静脈石を有する海綿状血管腫。

症例2：16才、女性。

初診：昭和49年7月29日

主訴：左顎下部腫脹

第5図 症例1の手術所見。
右頬部軟部組織中の小指頭大の結石を示す。

第4図 症例1の超音波検査像。
境界不明瞭な内部エコーレベルの高い Mass. 石灰化像や管腔構造を多数認める。

第6図 症例1の摘出標本

(a) (b)

第7図 症例1の病理組織学的所見.

種々の大きさの不規則な形状の血管腔, 一部器質化した血栓, 層状構造を示す結石像.

家族歴: 母親が肺結核,

弟が紫斑病.

既往歴: 特記事項なし.

現病歴: 8才頃から左耳下部疼痛を時々認めていた. 14才頃から疼痛の増強に加え左顎下部腫脹も認めるようになり, 昭和48年3月当科を受診し左側顎嚢胞の疑いにて経過観察していたが, 改善しないため再度当科を受診した. なお疼痛発生は週に数回あり, 腫脹は日によって変化を認めていた.

現 症

全身所見: 栄養・体格良好にて, その他特記事項なし.

局所所見: 左下顎角部を中心に瀰漫性のやわらかい血管腫様の腫脹を認め, その中心部に小豆大の硬い腫瘤を触知した. この腫脹はこの部を下にするとやや増大する. しかし同部皮膚の色調に変化はなく, 拍動も触知しなかった (図8).

レントゲン所見: 左下顎角部から顎下部にかけて多数の円形のレントゲン不透過同心円状の結石陰影を認めた (図9).

臨床検査成績: 血液一般検査, 血清化学検査, 尿検査などに異常なく, 出血傾向も認めなかった.

臨床診断: 静脈石を有する顎下部血管腫.

処置および経過: 昭和49年9月25日入院. 10

第8図 症例2の顔貌.

左下顎角部を中心とした瀰漫性の腫脹を示す.

月2日GOF全身麻酔下にて口腔外から腫瘤摘出術を試みた. 左下顎骨下縁に平行に約10cmの皮膚切開を加え鈍的に深部へ剝離を進めると, 顎下腺後端から耳下腺下縁まで血管腫様の静脈性血管の集合を認め, 出血量が多い為結石部を中心に一部摘出のみ行った.

摘出物所見: 静脈石は類球形の真珠様光沢色

調にて骨様硬度を有し、直径約8mm大までで11個摘出した(図10)。

病理組織学的所見：脂肪細胞が浸潤した腺基質に繊維化した部分が認められ、またリンパ球の浸潤も認められる中程度に萎縮した顎下腺組織であり、その中に多数の不規則な血管腔を有している(図11a)。また、結石は高度に晶子化しており、中心部に石灰化や骨化を伴った基質

を有し、顎下腺組織の一部を付着しているものもある(図11b)。

病理組織学的診断：静脈石を伴う顎下腺血管腫。

症例3：20才，女性。

初 診：昭和47年6月7日

主 訴：左頬部腫脹

家族歴：特記事項なし

既往歴：特記事項なし

現病歴：17才頃から左頬部腫脹に気付いていた。この腫脹は患部を下にすると増大し、圧迫すると消退する。また時々強く腫脹し、その時には疼痛を伴う。症状が変化しないので精査を希望して当科を受診した。

現 症

全身所見：特記事項なし。

局所所見：左頬部に瀰漫性に弾性硬の腫脹を認め、顔貌は左右非対称性を示していた。触診にて腫脹中に1個の小指頭大の可動性良好の硬い腫瘤を認めたが圧痛はなかった。

第9図 症例2のレントゲン所見。
左下顎角部から顎下部にかけての多数の円形の陰影を示す。

第10図 症例2の摘出結石

第11図 症例2の病理組織学的所見

レントゲン所見：耳下腺造影にて，左頬部軟部組織に類円形の結石様陰影を数個認めたが，腺管の断裂や圧排像などは認めなかった（図12）。

臨床検査成績：異常所見を認めなかった。

臨床診断：左頬部咬筋内静脈石。

処置および経過：昭和47年7月12日入院。7月13日局所麻酔下に口腔内頬部粘膜切開にて腫瘤摘出術を施行した。粘膜下を剝離するとすぐに結石を認め，その周囲は血管腫様にて易出血性であった。1.5cm大から0.2cm大の結石を周囲組織を含めて摘出した（図13）。

病理組織学的所見：不規則に拡張した非典型的な血管が存在する繊維脂肪組織の像を示している血管腫像（図14a）。また，結石は中心部に骨化を示し周囲が層状の繊維性肉芽組織であり，これは血栓が器質化した所見と同様である（図14b）。

病理組織学的診断：静脈石を有する頬部血管腫。

第13図 症例3の摘出標本

第12図 症例3の左耳下腺造影。
左頬部軟部組織のステノン管より下方に類円形の結石様陰影を認む。

第14図 症例3の病理組織学所見

考 察

一般に血管腫は頭頸部に好発するとされ、これまでの報告によると全血管腫の40～80%を頭頸部が占めるとされている¹⁾。しかし、静脈石を伴った頭頸部血管腫症例は少く5～20%と報告されている。

本邦においては、静脈石を伴った頭頸部血管腫症例について、川中ら³⁾が1930年～1972年で43例、金田ら²⁾が1932年～1981年で67例と報告しており、両報告例から重複例を除いて改めて集計すると1930年～1972年で78例の報告となる。さらに、北村ら⁴⁾の1例、石井ら⁵⁾の2例、高橋ら⁶⁾の1例、佐藤ら⁷⁾の1例があり、本邦においての1930年～1982年までに83例、今回の我々の3症例を含めて86例が静脈石を伴った頭頸部血管腫症例となる。

静脈石を伴う頭頸部血管腫の臨床像については、川中ら³⁾、金田ら²⁾、滝川ら¹⁾の詳細な報告がある。我々の経験した3症例をまとめてみると表1のようになる。2症例は頬部血管腫であり、他の1例は顎下腺血管腫であった。顎下腺血管腫は顎下腺原発であるか顎下腺周囲血管腫の顎下腺への浸潤によるのかは定かには出来なかったが興味深い症例である。結石の成因については、一般に局所の血行障害により血栓を生じ、血管壁に付着した血栓が器質化し石灰沈着をおこして形成されるとされているが、我々の3症例の病理組織学的所見においても拡張血管腔に一部器質化を認める血栓がみられることは、やはり血栓からの結石形成を示唆してい

る。また、我々の症例1において、血管造影において腫瘍像を得られなかったことや、CT所見での造影前後に変化の認められなかったことも、血管腫付近における血流の緩慢ならびに停止を示唆していると考えられる。結石の成分については、Lerche⁸⁾によれば炭酸カルシウム7.65～7.96%、リン酸カルシウム46.89～70.15%と報告しており、我々の症例1においても、炭酸カルシウム28%、リン酸カルシウム72%であった。

静脈石を伴う頭頸部血管腫の診断は、静脈石との診断が出来ればまず血管腫が存在すると考えられるが、静脈石と唾石やリンパ節石灰化との鑑別が必要である。静脈石・唾石・リンパ節石灰化のいずれも頭頸部においてはほぼ同様の部位に発生するが、特長的な臨床症状・単純レントゲン像・唾液腺造影に加え超音波検査・CT検査を併用すれば十分に鑑別可能である。もっとも、静脈石の存在を念頭に置いていることが基本となる。

血管腫の治療法には、従来より、外科的摘出、放射線療法、腐蝕法、組織硬化剤注入法、凍結療法、**embolization** 法およびこれらの併用療法などが行なわれて来た。静脈石を伴う血管腫に対しても基本的には同様の方法が取られるが、深在性浸潤性広範囲に渡るものが大半であり、最も良い外科的摘出法に硬化剤注入や**embolization** 法を加味するのが最良かと考えられるが、美容上の観点もあり部分切除の減量

表1 静脈石3症例

症例	年齢	性別	発生部位	主 訴	自覚期間	処置	病 理	静脈石数
	22	♀	右頬部	右頬部無痛性腫脹	約17年	摘出	海線状血管腫	20数個
	16	♀	左顎下部	左顎下部腫脹	9年	摘出	顎下腺血管腫(?)	11個
	20	♀	左頬部	左頬部腫脹	4年	摘出	血管腫	7個

手術も止むを得ないと考える。我々の3症例も血管腫が浸潤性にて広範囲のため、静脈石部を

中心とする部分切除に止めているが、経過は良好である。

ま と め

22歳女子および20歳女子にみられた静脈石を伴った頬部血管腫の2例, 16歳女子にみられた静脈石を伴った顎下腺血管腫1例を経験したので, その概要を報告した。

稿を終えるにあたり御校閲を賜った水越治教授に深謝いたします。

本論文の要旨は第46回耳鼻咽喉科臨床会総会(1984, 大阪)において口演した。

文 献

- 1) 滝川富雄, 他: 口腔外科領域のいわゆる血管腫に関する臨床病理学的研究. 日大歯学 44: 489~501, 1970.
- 2) 金田式世, 他: 静脈石を伴った頬部血管腫の1例と文献的考察. 臨床歯科: 35~41, 1982.
- 3) 川中敏正, 他: 頬部および顎下部静脈石2症例について. 耳鼻臨床 77: 29~38, 1984.
- 4) 北村 武, 他: 唾液腺疾患のいろいろ. 耳喉 32: 275~279, 1960.
- 5) 石井隆志, 他: 結石を伴った顎部血管腫の2症例. 外診療 13: 876~881, 1971.
- 6) 高橋廣臣, 他: 頭頸部領域における良性腫瘍の病理所見. 耳喉 48: 329~341, 1976.
- 7) 佐藤 圭: 静脈石を伴った頬部血管腫の1例. 日口外誌 28: 159~162, 1982.
- 8) Lerche, H.: Ein Beitrag zur Pathologie und Klinik der Hämangiome mit Phlebolithen im Bereich des Kopfes; Deutsche Zahnärztliche Zeitschrift H (5) 269, 1958.

原稿到着: 昭和59年10月25日 急載

別刷請求先: 水田康雄

〒607 京都市山科区竹鼻四丁野町19番地の4
愛生会山科病院耳鼻咽喉科