顎関節部に発生した chronic expanding hematoma の 1 例

内藤 博之¹⁾・関谷 亮²⁾・太田 嘉英³⁾
椎木 一雄¹⁾・佐藤 浩子¹⁾・浅野 重之⁴⁾

A case of chronic expanding hematoma arising in the temporomandibular joint

NAITO Hiroyuki¹⁾・SEKIYA Ryo²⁾・OTA Yoshihide³⁾
SHIIMI Kazuo¹⁾・SATO Hiroko¹⁾・ASANO Shigeyuki⁴⁾

Abstract: We report a rare case of chronic expanding hematoma (CEH) that formed a mass in the temporomandibular region 15 years after injury. A 37-year-old man presented with a subcutaneous, painless mass in the right preauricular region. He had suffered a blow to the right temporomandibular region during a martial arts match 15 years earlier. From 3 years after the trauma, he noticed a painless, subcutaneous swelling in the right temporomandibular region, which showed repeated enlargement and reduction while growing slowly. An X-ray film of the head revealed pressure resorption of bone in the condylar process of the right mandible. CT showed an ovoid lesion in the masseter muscle lateral to the condylar process of the right mandible. The mass margins showed low signal intensities on T1- and T2-weighted MR images, and the interior of the mass displayed a mixture of high and low signal intensities on T2-weighted images. The clinical diagnosis was a soft tissue tumor arising in the temporomandibular joint. Under general anesthesia, the mass was resected with the surrounding normal tissue. The histopathological diagnosis was CEH. The patient remains free of recurrence 6 years after surgery, without motor impairment of the mandibular joint.

It is difficult to diagnose CEH preoperatively; however, this condition should be considered in the presence of a history of surgery or trauma in a patient with a gradually enlarging mass.

Key words: chronic expanding hematoma (慢性拡張性血腫), trauma (外傷), temporomandibular joint (顎関節)

緒 言

手術や外傷などにより軟部組織に血腫が生じることがあ

るが、一般的には出血や二次感染がなければ血腫は吸収され、臨床的に問題になることは少ない。しかしときに長期間にわたって徐々に血腫が増大する症例があり、これを Friedlander ら¹⁾は Chronic expanding hematoma (以下 CEH)と命名して 1968 年に初めて報告した。また Reid ら²⁾は、CEH の発生機序は慢性硬膜下血腫と同様であるとして、手術や外傷後、慢性的に 1 か月以上の経過で徐々に増大する血腫であると提唱した。本症は外科手術後の胸部や外傷を受けやすい上下肢に生じやすいため、胸部外科・整形外科領域での報告があるが頭頸部領域ではまれである。われわれは下顎骨関節突起外側に生じた CEH を経験したので報告する。

症 例

患 者：37 歳，男性。
初 診：2002 年 9 月 25 日。
主 訴：右側耳前部の無痛性腫脹。

¹⁾ いわき市立総合磐城共立病院歯科口腔外科

(主任：椎木一雄部長)

²⁾ 恩賜財団済生会平塚病院歯科口腔外科

(主任：関谷 亮医長)

³⁾ 東海大学医学部口腔外科

(主任：金子明寛教授)

⁴⁾ いわき市立総合磐城共立病院病理科

(主任：浅野重之部長)

¹⁾ Department of Dentistry and Oral Surgery, Iwaki Kyoritsu General Hospital (Chief: Dr. SHIIMI Kazuo)

²⁾ Department of Dentistry and Oral Surgery, Social Welfare Organization, Imperial Gift Foundation Inc. Saiseikai-Hiratsuka-Hospital (Chief: Dr. SEKIYA Ryo)

³⁾ Department of Oral Surgery, Tokai University, School of Medicine (Chief: Prof. KANEKO Akihiro)

⁴⁾ Department of Pathology, Iwaki Kyoritsu General Hospital (Chief: Dr. ASANO Shigeyuki)

受付日：2008 年 11 月 21 日

採択日：2009 年 3 月 31 日

写真1 初診時顔貌写真
右耳前部に腫脹（矢印）を認める。

写真2 頭部正面 X 線写真
右側下顎骨関節突起外側に骨の
窩状吸収（矢印）を認める。

写真3 造影 CT 画像
右側関節突起外側に接する約
20 × 20mm 大の境界が比較的明瞭
で不均一に造影される病変を認める。

既往歴：特記事項なし。

家族歴：特記事項なし。

職業：公務員。

現病歴：15 年前に格闘技の試合中に、右側顎関節部を強打し、約 1 か月程度の開口障害が生じたが自然に緩解した。12 年前より右側顎関節部の無痛性腫脹を自覚し、腫脹は増大と縮小を繰り返しながら、徐々に増大した。2002 年 9 月 5 日人間ドックにて精査を勧められ、9 月 17 日当院耳鼻咽喉科を受診し、紹介にて 9 月 25 日、当科初診となった。

現 症：

全身所見：体格中程度、栄養状態良好。

口腔外所見：右耳前部に直径 25mm

大の弾性硬の無痛性腫瘍を認めた（写真 1）。関節雑音および開口障害は認めず、また顔面の知覚麻痺および運動障害は認めなかった。

口腔内所見：特記事項なし。

X 線所見：頭部 X 線写真で、右側下顎骨関節突起外側に軽度の窩状吸収を認めた（写真 2）。

CT 所見：造影 CT では、咬筋内に位置し右側関節突起外側に接する約 20 × 20mm 大の境界が比較的明瞭な腫瘍を認めた。腫瘍の辺縁は一層造影され、内部は筋肉と同程度の density であったが不均一であった（写真 3）。

MRI 所見：右側関節突起外側に 20 × 20mm 大の腫瘍を認めた。T1、T2 強調画像にて腫瘍の辺縁は低信号を呈し、内部は T1 強調画像にてやや不均一な低信号を呈した。T2 強調画像では高信号と低信号が混在した（写真 4A、B）。

穿刺吸引細胞診：パパニコロウ分類 class I で、血液成

写真4 MR画像（A：T1 強調画像、B：冠状 T2 強調画像）
病変内部は T1 強調画像にてやや不均一な低信号を呈し、T2 強調画像では高信号と低信号が混在した。

分と少数の泡沫細胞のみを認めた。

臨床検査所見：血液一般、生化学検査に異常所見を認めなかった。

臨床診断名：右側顎関節部軟部腫瘍。

処置および経過：手術は耳下腺腫瘍摘出術における耳前部 S 状切開に準じて皮切線を設定した。顔面神経本幹を明示し、顔面神経上枝を末梢側に追求し保存し、側頭筋膜、頬骨弓を明示した後、耳下腺より深部に腫瘍を認めた。悪性腫瘍の可能性を考慮し、腫瘍に周囲の健常組織を被覆して、内方は外側翼突筋上で、後方は下顎骨関節突起前縁で剥離し、外側翼突筋上頭の付着部および咬筋の一部を含めて切除した。剥離は容易で、切除操作中に著しい出血を伴わなかった。右側関節突起の前外側に腫瘍による骨の圧迫吸収を認めた（写真 5）。全摘標本を用いた術中迅速病理診断にて悪性所見を認めなかったため閉創した。

写真5 腫瘍切除後の術中写真
右側下顎骨関節突起の外側面に骨の圧迫吸収を認める（矢印）。
T: 側頭筋

写真6 切除標本（剖面）
周辺が血管に富む暗赤色の肉芽組織で、内部は灰白色の肉芽組織で構成されていた。

切除標本所見: 約 25 × 25 × 30mm の類球形の充実性腫瘍で、剖面は周辺が血管に富む暗赤色の肉芽組織で、内部は灰白色の肉芽組織で構成されていた（写真6）。

術後経過: 術後、顔面神経前頭枝領域の運動麻痺を生じたが、約1年で軽快した。現在術後6年を経過するが、機能障害はなく再発は認めない。

病理組織学的所見: 腫瘍は線維性被膜に覆われ、被膜内側の肉芽組織内にヘモジデリンの沈着を認め、さらに内層で血液を含んだ拡張した微小血管と小出血巣が散在していた（写真7）。脈管増生の著しい部分が存在したため、血管内皮細胞特異的抗原 Factor VIII および抗ヒトリンパ管内皮抗原モノクローナル抗体 D2-40 による免疫組織染色を行ったところ、血管増生の著しい部分（写真8A, B）とリンパ管増生の著しい部分（写真8C, D）が混在したが、腫瘍性病変は認められなかった。

病理組織学的診断: chronic expanding hematoma.

考 察

1968年 Friedlander ら¹⁾ は、約5年の経過で徐々に増大した下腿の被膜形成を伴った血腫の1例を chronic expanding hematoma と命名して初めて報告した。また、1980年 Reid ら²⁾ は、CEHの発生機序は、手術後や外傷後に血腫が吸収されずに残ると、慢性硬膜下血腫の発生機序³⁾ と同様に、血塊内の血球などの破壊物が炎症を惹起し、炎症性肉芽反応が起こり血腫の周囲に被膜および新生血管が出現し、血腫が形成される。次に血塊から析出する plasminogen activator により、血腫中心部が空洞化し、この空洞内に炎症によって透過性が亢進した新生血管からの血液が漏出することで血腫が徐々に増大すると指摘した。

本症の好発部位としては肺結核や肺癌に対する開胸術後

の胸腔内および胸壁と、外傷を受けやすい上下肢があげられ、報告も胸部外科および整形外科領域が多かった^{4~12)}。しかし頭頸部領域での報告例は少なく、われわれが渉猟しえた範囲では4例^{13~15)}のみで（表1）、顎関節部に発生した報告例はなかった。本症例では15年前に顎関節部に受けた外傷により生じた血腫が慢性的に増大したものと考えられた。

CEHの診断として手術や外傷の既往があることが重要である。

本症の画像診断としてはCT所見では周囲組織との境界は比較的明瞭であるが、内部は不均一な囊胞様の病変として認められることが多い^{16, 17)}。MRIに

関する報告ではT2強調画像において器質化した凝血塊と考えられる低信号域の部分と、液状の血腫と考えられる高信号域の部分より成り、腫瘍の性状判定に有用である。T1強調画像においても腫瘍内は不均一で新旧の血腫の存在を示唆するといわれている^{16~18)}。本症例のCT所見として腫瘍は境界明瞭で、周囲に被膜と考えられる高吸収域を認め、内部はやや不均一であった。MRI所見ではT1, T2強調画像で周囲に被膜と考えられる低信号域を認めた。T2強調画像で内部に器質化した凝血塊と液状の血腫と考えられる、それぞれ低信号域と高信号域の混在を認め、他の報告例における画像所見と同様な所見を呈していた。しかしこれらの画像所見は、必ずしも本症に特異的なものといいきれず、頭頸部領域における本症の発生頻度の低さも併せ、15年前に外傷の既往があるものの術前にはCEHの診断には至らなかった。

CEHの鑑別診断としては血管肉腫や悪性血管内皮細胞腫などの血管に富む腫瘍や、血腫を形成する悪性線維性組織球腫などの軟部腫瘍があげられるが、画像所見による鑑別診断は容易ではなく確定診断は病理組織学的に行われるべきとされている¹³⁾。

他の報告例におけるCEHの病理組織学的所見として外層は緻密な線維性結合組織より成り、中間層は粗な結合組織で、内層は毛細血管を新生した肉芽組織より成っている^{4~14, 16~18)}。本症例の病理組織学的所見では腫瘍の外層は線維性被膜を有し、内部の肉芽組織内にヘモジデリンの沈着を認め、その周辺で脈管増生の著しい部分が存在した。リンパ管腫も鑑別診断としてあげられるため、リンパ管に特異性を示すD2-40による免疫組織染色と血管壁に特異性を示すFactor VIIIによる免疫組織染色を行ったところ、被膜下の肉芽組織内には古い出血であるヘモジデリンの沈着

写真7 病理組織像 (H-E 染色, ×40)

腫瘍は線維性被膜に覆われ、被膜内側の肉芽組織内にヘモジデリンの沈着がみられた。

とその周辺に血管増生が著しい部分とリンパ管増生が著しい部分が混在し、リンパ濾胞が散見された。またさらに内層は微小血管の拡張とうっ血および出血がみられた。以上の所見から腫瘍が形成されるまでに長期間経過していることが示唆され、他の報告例の病理組織学的所見と矛盾せず、また臨床的に外傷の既往があることから CEH と診断した。

治療については全摘出、搔爬、穿刺吸引が行われているが、搔爬、穿刺吸引では被膜が残存するため血腫が再発する可能性が高く、松毛ら⁹⁾は胸腔内の CEH において被膜ごと切除できなかった 3 症例のうち 1 例は再発を認めており、可能であれば周囲臓器の合併切除を含め、被膜ごと完全切除を追及すべきとしている。四肢軟部組織に発生した症例では、ほとんどが被膜を含んだ全摘出が行われている。その理由として軟部腫瘍との鑑別診断が得られなかったことや重要臓器が隣接していなかったため全摘出が可能

写真8 病理組織像 (H-E 染色および免疫染色, ×100)

- A : 血管増生の著しい部分 (H-E 染色)
- B : 血管内皮細胞に陽性を示す (Factor VIII による免疫染色)
- C : リンパ管増生の著しい部分 (H-E 染色)
- D : リンパ管内皮に陽性を示す (D2-40 による免疫染色)

表1 頭頸部に発生したCEHの報告例

症例	報告者・年	性別	年齢	部位・ 大きさ(cm)	受傷機転	出血性素因	病悩期間	臨床診断	治療	予後
1	Tada, et al ¹⁴⁾ 2005	女	12	側頭部 5×6×2	打 撲	な し	12年	血管腫または 皮様嚢胞	全摘出	再発なし
2	黒川ら ¹³⁾ 1999	男	5	頭頂部 2.5×1.5	不 明	血友病B	4か月	頭部皮下血腫	全摘出	再発なし
3	黒川ら ¹³⁾ 1999	男	5	後頸部 3×3	不 明	な し	1か月	項部粉瘤	全摘出	再発なし
4	Brown, et al ¹⁵⁾ 1976	女	56	鎖骨上窩 9×10	内頸静脈 カテーテル挿入	抗血栓療法	1か月	頸部血腫	切 除	再発なし

であったことがあげられる。本症例も術前に CEH と診断できず、軟部悪性腫瘍との鑑別が困難であったことから全摘出術を行ったが、術後 6 年を経過するが再発はなく経過良好である。

CEH は頭頸部領域では極めてまれであると考えられるが、打撲も含め、外傷の既往を有する患者においては本症を念頭に置くことが重要であると考えられた。

引 用 文 献

- 1) Friedlander, H.L., Bump, R.B., et al.: Chronic expanding hematoma of the calf; a case report. J Bone Joint Surg 5A: 1237-1241 1968.
- 2) Reid, J.D., Kommaareddi, S., et al.: Chronic expanding hematomas; a clinicopathologic entity. JAMA 244: 2441-2442 1980.
- 3) Labadie, E.L. and Glover, D.: Physiopathogenesis of subdural hematoma; Part I : Histological and biochemical comparisons of subcutaneous hematoma in rats with subdural hematoma in man. J Neurosurg 45: 382-392 1976.
- 4) 中村佳代, 前川二郎, 他: 肘窩部に発症した chronic expanding hematoma の 1 例. 形成外科 42: 959-963 1999.
- 5) 味元宏道, 鬼束惇義, 他: インラインスケーター愛好者に発生した左肘部の Chronic expanding hematoma と考えられる 1 例. 岐阜赤十字病医誌 11: 13-17 1999.
- 6) 熊谷謙治, 鈴木暢彦, 他: 大腿部肉腫を疑わせた Chronic expanding hematoma の 1 症例. 整形外科と災害外科 50: 224-228 2001.
- 7) 小野尚司, 佐藤栄一, 他: 骨盤部に発生した Chronic expanding hematoma の 1 例. 整形外科 54: 542-546 2003.
- 8) 桑原理充, 真柴久実, 他: 小児足背に認めた Chronic expanding hematoma の 1 例. 日形会誌 24: 646-649 2004.
- 9) 松毛真一, 細川營至雄, 他: Chronic expanding hematoma に対する 5 手術例の検討. 胸部外科 53: 768-773 2000.
- 10) 林田良三, 松尾敏弘, 他: 胸部形成術, 合成樹脂球充填術後 44 年目に発症した巨大 Chronic Expanding Hematoma の一手術例. 日呼外会誌 15: 606-612 2001.
- 11) Okada, D., Koizumi, K., et al.: A case of chronic expanding hematoma presenting as a huge mass in the pleural cavity. J Nippon Med Sch 69: 282-285 2002.
- 12) 北川朋子, 若森 健, 他: 非定型的な臨床経過を示した術後血腫の 1 例 — chronic expanding hematoma の文献的考察を含めて —. 日皮会誌 115: 1327-1331 2005.
- 13) 黒川正人, 宗内 巖, 他: 小児頭頸部の Chronic Expanding Hematoma の 2 症例. 日形会誌 19: 583-587 1999.
- 14) Tada, H., Hatoko, M., et al.: Chronic expanding hematoma in the temporal region. J Craniofac Surg 16: 158-161 2005.
- 15) Brown, C.S. and Wallac, C.T.: Chronic hematomas; a complication of percutaneous cathelization of the internal jugular vein. Anesthesiology 45: 368-369 1976.
- 16) 水尾秀代, 伊藤義雄: 腫瘍とまぎらわしかった胸腔内 Chronic Expanding Hematoma. 画像診断 16: 912-915 1996.
- 17) 野尻陽子, 成松明子, 他: 出血性膿胸の 2 例. 臨床放射線 40: 269-272 1995.
- 18) Aoki, T., Nakata, H., et al.: The radiological findings in chronic expanding hematomas. Skeletal Radiol 28: 396-401 1999.