頬脂肪体に発生した血管奇形の1例

鬼澤勝弘¹⁾・安居孝純¹⁾・蔭山雄基²⁾
 軽部健史¹⁾・兵藤朋子³⁾・岩崎良太郎²⁾

A case of vascular malformation in the buccal fat pad

ONIZAWA Katsuhiro¹⁾・YASUI Takazumi¹⁾・KAGEYAMA Yuki²⁾
 KARUBE Takeshi¹⁾・HYODO Tomoko³⁾・IWASAKI Ryotaro²⁾

Abstract: Vascular malformation occurs most frequently in the head and neck region, especially in the lips and tongue, but reports of vascular malformation in the buccal fat pad region are relatively rare. We report a case of vascular malformation in the buccal fat pad. A 64-year-old woman consulted our hospital because of a painless swelling in the right cheek. She presented with an elastic-soft, mobile subcutaneous mass, 20 mm in diameter, in the anterior edge of the masseter muscle of the right cheek. Magnetic resonance imaging showed a well-circumscribed mass in front of the masseter muscle. The mass showed signal intensity nearly equivalent to that of the muscle on the T1-weighted images and high signal intensity on T2-weighted images. The mass was clinically diagnosed as a tumor in the right buccal region. With the patient under general anesthesia, the lesion was enucleated intraorally. The enucleated specimen, measuring 20×17×13 mm, was elastic-soft and dark red. The histological diagnosis was venous malformation. Five years six months after the operation, no recurrence has occurred.

Key words: vascular malformation (血管奇形), venous malformation (静脈奇形), buccal fat pad (頬脂肪体), MRI (核磁気共鳴画像法)

緒 言

血管奇形は口腔顔面領域に多く出現し、なかでも口唇、舌は好発部位であるが頬脂肪体に発生した報告は比較的まれである。また、血管腫や血管奇形は International Society for the Study of Vascular Anomalies (ISSVA) 分類^{2,3)}を用いた診断が放射線科、形成外科を中心として国際標準化されつつあるが、口腔外科領域でこの分類を用いた報告は少ない。今回われわれは、頬脂肪体に発生した血管奇形の1

例を経験したので、ISSVA 分類を用いて若干の文献的考察を加え報告する。

症 例

患 者: 64 歳, 女性.

初 診: 2008 年 5 月中旬.

主 訴: 右側頬部腫瘍.

既往歴・家族歴: 特記事項なし.

現病歴: 2008 年 5 月初旬に右側頬部の腫瘍を自覚し精査目的に川崎市立川崎病院歯科口腔外科を受診した.

現 症:

全身所見: 体格は中等度, 栄養状態良好で全身的に異常所見は認められなかった.

口腔外所見: 右側頬部に境界明瞭で弾性軟, 可動性のある 20mm 大の腫瘍を触知した. 腫瘍部の皮膚は健常色で, 明らかな膨隆は認められなかった (写真 1).

口腔内所見: 腫瘍部の粘膜側は健常色で, 圧痛や拍動はなく, 明らかな膨隆は認められなかった (写真 2).

画像所見: MRI にて右側咬筋前縁で頬筋の外側の頬隙内の頬脂肪体に T1 強調画像で筋肉とほぼ同程度の信号, T2 強

¹⁾ 川崎市立川崎病院歯科口腔外科
(主任: 鬼澤勝弘部長)

²⁾ 慶應義塾大学医学部歯科・口腔外科学教室
(主任: 中川種昭教授)

³⁾ 日野市立病院歯科口腔外科
(主任: 大森司正部長)

¹⁾ Department of Dentistry and Oral Surgery, Kawasaki Municipal Kawasaki Hospital (Chief: ONIZAWA Katsuhiro)

²⁾ Department of Dentistry and Oral Surgery, School of Medicine, Keio University (Chief: Prof. NAKAGAWA Taneaki)

³⁾ Department of Dentistry and Oral Surgery, Hino Municipal Hospital (Chief: Dr. OHTAISHI Masashi)

受付日: 2011 年 2 月 18 日

採択日: 2014 年 4 月 22 日

調像で周囲組織との境界が明瞭な高信号の腫瘍が認められた(写真3)。

臨床診断：右側頬部腫瘍。

処置および経過：2008年5月下旬、全身麻酔下に摘出術を施行した。腫瘍相当部の頬粘膜に切開を加え頬筋を鈍的に剥離し、頬脂肪体内の腫瘍を一部頬脂肪体を含め摘出した。腫瘍と周囲の筋組織や皮下組織等との癒着は認められなかった。また腫瘍への明らかな栄養血管は認められなかった(写真4)。術後5年6か月経過した現在、再発なく経過良好である。

摘出標本所見：摘出標本は20×17×13mm大の弾性軟で暗赤色を呈していた。標本に割を加えたところ血液の流出を認めた(写真5)。

病理組織学的所見：脂肪組織の内側に被膜に包まれた腫瘍を認め、異型性に乏しい単層の内皮細胞で被覆された大小の血管の増生が認められた。内腔には赤血球の充満を認め器質化した血栓が散見された。腫瘍内に脂肪組織は認められなかった(写真6)。

病理組織学的診断：静脈奇形。

考 察

いわゆる「血管腫」には、1982年にMullikenら¹⁾によって血管腫と血管奇形の異なる疾患群があることが報告されている。この分類は、後にISSVA分類として血管原性腫瘍(vascular tumor)と血管奇形(vascular malformation)に大別されている^{2,3)}。単純でわかりやすい分類にすることにより疾患名および疾患概念の国際標準化を図り、適切な診断を下し治療方針を決定することを目指している。両者は臨床的、病理学的所見だけでなく治療法も異なるため、細分類まで含めたそれぞれの病態、臨床経過、有効な治療法についての理解が重要である。血管原性腫瘍が主に血管内皮細胞の異常増殖により生じる腫瘍性病変であるのに対し、血管奇形は脈管形成異常により生じる非腫瘍性病変で、血管内皮細胞の数および代謝回転自体は正常である^{1~6)}。血管原性腫瘍の代表例である乳児血管腫は生後1~4週に出現し1年以内に急速な増大を示した後、5~7歳までに自然消退するものが多い。一方、血管奇形は胎生4~10週の末梢血管形成期の異常によって発生し、成長とともに増大し消退することはない³⁾。本症例は、病理組織検査にて内皮細胞の異常増殖を認めず、ISSVA分類の静脈奇形に相当

写真3 MRI(↑は病変部を示す)

A: T1 強調像

B: T2 強調像

C: 脂肪抑制 T2 強調像(水平断) D: 脂肪抑制 T2 強調像(冠状断)

右咬筋前縁部に T1 強調像で筋肉とほぼ同程度の信号、T2 強調像で高信号の周囲組織との境界が明瞭な腫瘍を認める。

した。静脈奇形は、血管平滑筋が単層化し、異常に拡張した静脈腔に血液が貯留することにより生じる先天的な脈管形成異常で、成長とともに増大する。外傷やホルモン変動などによって急速に増大することもあり、自然退縮はしないとされている^{4~6)}。

Ernemannら⁷⁾は、血管奇形は皮膚、骨、肝臓、腸などの全身の組織に発生しうが、全血管奇形患者のうち60%は頭頸部領域に発生したとしている。口腔領域では口唇や舌によくみられるが、頬脂肪体の位置する頬隙に発生した報告例は比較的少なく、われわれの渉猟し得た限り本邦での報告は16例であった^{8~15)}(表1)。しかしながら、頬隙に発生した病変のうち、Tartら¹⁶⁾は26例中3例(11.5%)、Kurabayashiら¹⁵⁾は30例中9例(30%)がいわゆる血管腫であったとしていることから、報告は少ないものの潜在的に相当数発生している可能性がある。報告が少ない理由として、頬脂肪体は解剖学的に咬筋、頬筋、側頭筋、下顎枝、頬骨に囲まれた位置にあり¹⁷⁾、皮膚や粘膜面に発生する表在性病変ではなく、病変が弾性軟であることにより腫瘍を触知するか、皮膚や粘膜表面に露出する程度に増大するまで自覚されないことが考えられる。

本症例の発生部位としては、画像所見および摘出標本所

写真1 初診時口腔外写真

右頬部に境界明瞭で弾性軟、可動性のある20mm大の触知可能な腫瘍を認める。

写真2 初診時口腔内写真

右咬筋前縁部に境界明瞭で弾性軟、可動性のある20mm大の腫瘍を認める。腫瘍部の粘膜側は健常色で、圧痛や拍動は認められない。

写真4 術中写真

頬脂肪体内に周囲組織との境界が明瞭な腫瘍を認める。

写真5 摘出標本

A: 摘出標本 B: 摘出標本剖面

摘出標本は20×17×13mm大で弾性軟、暗赤色を呈している。摘出標本に割を加えたところ血液の流出を認めた。

写真6 病理組織像 (H-E 染色)

A: 弱拡大 (ルーペ像) (↑は脂肪組織を示す) B: 弱拡大 (×40) (★は脂肪組織を示す) C: 強拡大 (×100)

脂肪組織の内側に、異型性に乏しい単層の内皮細胞で被覆された大小の血管の増生が認められる。内腔には赤血球の充満を認め、器質化した血栓が散見される。

見にて頬脂肪体内に認められたことから頬脂肪体に発生したと考えられた。Tideman ら¹⁷⁾によれば、頬脂肪体には顎動脈分枝の頬動脈と深側頭動脈、浅側頭動脈分枝の顔面横動脈、顔面動脈の小分枝など、血管が豊富に分布する。さらに、脂肪組織には脂肪細胞の他に血管を構成する血管

内皮細胞や周皮細胞、脂肪由来幹細胞を含む脂肪組織由来間質細胞が豊富に存在している^{18, 19)}。脂肪組織由来間質細胞は、脂肪細胞や血管内皮細胞へ分化する。また、脂肪組織内の小血管由来の血管内皮前駆細胞は、新しい脈管ネットワークを形成する血管内皮細胞へ分化する²⁰⁾。そ

表1 本邦における頬脂肪体(頬隙)血管奇形の報告例

報告者	(年)	年齢	性別	臨床診断	大きさ	手術法	アプローチ	病理組織所見	再発
Ikegami ら ⁸⁾	(1984)	23歳	男	血管腫	30×25×15mm	摘出術	口内法	海綿状血管腫*	なし
森ら ⁹⁾	(1986)	11歳	女	神経鞘腫	16×14×14mm	摘出術	口内法	海綿状血管腫*	なし
小野ら ¹⁰⁾	(1993)	22歳	女	頬部血管腫	—	摘出術	口内法	静脈性血管腫*	なし
朴ら ¹¹⁾	(1996)	8歳	男	頬脂肪体内の腫瘤	15, 17, 18mm (多発)	摘出術	口内法	海綿状血管腫*	なし
佐藤ら ¹²⁾	(1997)	28歳	女	頬部腫瘍(血管腫)	33×30×28mm	摘出術	口内法	静脈性血管腫*	なし
Tanaka ら ¹³⁾	(2000)	3歳	男	リンパ管腫	35mm	摘出術	口外法	毛細血管腫**	なし
榎ら ¹⁴⁾	(2001)	3か月	女	横紋筋肉腫	35×20mm	摘出術	口外法	毛細血管腫**	なし
Kurabayashi ら ¹⁵⁾	(2001) 9例	—	—	—	—	—	—	—	—
本症例	(2010)	63歳	女	頬部腫瘍	20×17×13mm	摘出術	口内法	静脈奇形	なし

* ISSVA 分類では静脈奇形に分類される. ** ISSVA 分類では毛細血管奇形に分類される. — は記載なし

のため、頬脂肪体は血管奇形の発生母地として十分に考えられる。

血管奇形は先天的に存在し、性差はないとされている²⁾。頬脂肪体に発生した血管奇形の過去の報告でも、性別は確認できた7例のうち男性3例、女性4例で性差は認められなかった(表1)。また、受診時年齢は3か月から28歳と比較的若年者に多くみられた。

頬隙に発生する他の疾患との鑑別診断として、悪性腫瘍、唾液腺腫瘍、リンパ管腫、神経腫、脂肪腫、炎症性疾患、リンパ節等との鑑別を要する^{15, 16)}。頬隙に発生した病変のうち、Tart ら¹⁶⁾は26例中3例(11.5%)がいわゆる血管腫で、唾液腺悪性腫瘍が4例(15.4%)、肉腫が3例(11.5%)、炎症が1例(3.8%)であったとしている。Kurabayashi ら¹⁵⁾は30例中9例(30%)がいわゆる血管腫で、腺様嚢胞癌、腺房細胞癌、肉腫、リンパ節転移等の悪性腫瘍が7例(23.3%)、リンパ管腫、多形腺腫、神経腫、脂肪腫等の良性腫瘍が14例(46.7%)、炎症が9例(30%)であったとしている。これらの鑑別診断のための画像検査としてはMRIが有効で、軟組織のコントラストに優れ頬隙内の病変の描出が鮮明であるためCTよりも有用である¹⁵⁾。血管奇形の画像所見は、T1強調像では筋肉とほぼ同等の信号、T2強調像では強い高信号を示し脂肪組織より高く、脳脊髄液と同等とされている。ただし、脂肪組織も高信号となるため脂肪抑制法の併用が望ましい。造影剤では濃染することが多く、静脈石が認められることもある^{15, 16, 21)}。本症例では静脈石は認められなかったが、同様の画像所見が認められた。血管奇形が強く疑われたが、唾液腺腫瘍などの他の腫瘍の可能性も否定できなかった。Tart ら¹⁶⁾は鑑別すべき唾液腺腫瘍として多形腺腫、粘表皮癌などを挙げているが、MRIの所見として、多形腺腫は境界明瞭でT1およびT2強調像で筋肉より高信号でやや不均一に造影され、粘表皮癌では低悪性型でT1およびT2強調像で筋肉とほぼ同等か

やや高信号、高悪性型でさまざまな信号強度を呈するとしている。しかしながら、Joe ら²²⁾は小さな唾液腺悪性腫瘍は境界が明瞭で良性腫瘍に類似しているため鑑別が困難な場合があるとしている。Kurabayashi ら¹⁵⁾は、肉腫では周囲の筋や骨への浸潤がある境界不明瞭な腫瘤を示し、悪性が強く疑われる所見であったとしている。また、転移性リンパ節は非特異的な腫瘤として認められたとしている。炎症性疾患では、膿瘍はT1強調像で低信号、T2強調像で内部高信号で、造影剤にてrim enhancementをともなった領域を認める。また、蜂窩織炎および膿瘍などの炎症性疾患では、周囲脂肪の腫脹により特徴づけられるが、感染を伴った悪性腫瘍と所見が類似することがある²³⁾。これらの他疾患との鑑別診断に加え、治療のためにはhigh-flow か low-flow 病変かの鑑別、限局性か多発性、びまん性病変かの鑑別、進展範囲、正常血管との交通状態の把握が必要となる。そのため、MRI、超音波検査(カラードプラー法)、血管造影、MR angiography や CT angiography 等により診断が行われる²⁴⁾。

血管奇形の治療法としては、レーザー療法、摘出術、塞栓療法、硬化療法などがあるが、血管奇形の種類、存在部位および大きさによってさまざまな治療法が用いられている^{2, 26)}。静脈奇形の治療は、外見上の問題、機能障害、疼痛がある場合に行われ^{25, 26)}、経過観察症例も相当数存在すると考えられる。Richter ら²⁵⁾は、表在性の静脈奇形の治療として摘出術あるいはレーザー治療が適し、深在性の場合には摘出術と硬化療法が適しているとしている。神経や血管に近接している場合には、硬化療法では神経損傷のリスクを予期できないため摘出術を選択するとしている。さらに、2～4 cm 未満の小さな病変に対しては、治癒率の点から摘出術が最も優れているとしている。われわれが渉猟し得た本邦における頬脂肪体の血管奇形に対しては、治療法を確認できた症例では、全例に摘出術が施行されて

いた(表1)。これらの症例は孤立性に存在していたため摘出術が選択されたと考えられ、再発は認められていない。また、Zhongら²⁷⁾は頬部の孤立性静脈奇形10例に対し摘出術を行い、全例で再発はなかったとしている。本症例も頬脂肪体に存在し、摘出可能な大きさと考えられたため摘出術を施行した。術後5年6か月経過した現在、再発なく経過良好であるが、血管奇形はその胚形成の初期段階において間葉細胞に由来しているため高い再発率を持っているとの報告²⁸⁾もあり、今後も慎重な経過観察を要すると思われる。

結 語

頬脂肪体に発生した比較的にまれな血管奇形の1例を経験したので報告した。

謝辞

稿を終えるにあたり、本症例の診断、病理所見に対して御助言、御指導を賜りました川崎市立川崎病院病理検査科の入江理恵先生に深謝致します。

本論文に関して、開示すべき利益相反状態はない。

引用文献

- Mulliken JB, Glowacki J, et al : Hemangiomas and vascular malformations in infants and children. A classification based on endothelial characteristics. *Plast Reconstr Surg* 69: 412-422, 1982.
- Enjoras O, Wassef M, et al : Color atlas of vascular tumors and vascular malformations. Cambridge University Press, New York : 3-11, 2007.
- 三村秀文 : ISSVA 分類. 血管腫・血管奇形診療ガイドライン作成委員会編著; 血管腫・血管奇形診療ガイドライン 第1版, 2013, 6-9頁. Available at: http://www.jsivr.jp/guideline/vascular_2013/vascular_2013.pdf Accessed March 22, 2014.
- Viikka M, Boon LB, et al : Molecular basis of vascular anomalies. *Trends Cardiovasc Med* 8: 281-291, 1998.
- Brouillard P and Viskula M : Vascular malformations: localized defects in vascular morphogenesis. *Clin Genet* 63: 340-351, 2003.
- Chiller KG, Frieden IJ, et al : Molecular pathogenesis of vascular anomalies: classification into three categories based upon clinical and biochemical characteristics. *Lymphat Res Biol* 1: 267-281, 2003.
- Ernemann U, Kramer U, et al : Current concepts in the classification, diagnosis and treatment of vascular anomalies. *Eur J Radiol* 75: 2-11, 2010.
- Ikegami N, Nishijima K, et al : Hemangioma of the buccal pad with phlebolithiasis. *Acta Med Okayama* 38: 79-87, 1984.
- 森 士朗, 松田耕策, 他 : 頬脂肪体内に発生した血管腫の1例. *口科誌* 35: 365-369, 1986.
- 小野貢伸, 土井上輝夫, 他 : 静脈石を伴い頬脂肪体内に発生した静脈性血管腫の1例. *日口外誌* 40: 1076-1078, 1994.
- 朴 良和, 村岡道徳, 他 : 頬脂肪体血管腫の1例. *形成外科* 39: 97-100, 1996.
- 佐藤泰則, 埜口五十雄, 他 : 画像所見が診断に有用であった頬脂肪体血管腫の1例. *日口診誌* 10: 381-386, 1997.
- Tanaka A, Hatoko M, et al : A case of Hemangioma of the Buccal Fat Pad. *Ann Plast Surg* 44: 346-347, 2000.
- 榎 栄治, 今井啓介, 他 : 頬部脂肪体内に存在したCapillary Hemangiomaの1例. *日形会誌* 21: 196-198, 2001.
- Kurabayashi T, Ida M, et al : MR imaging of benign and malignant lesions in the buccal space. *Dentomaxillofac Radiol* 31: 344-349, 2002.
- Tart RP, Kotzur IM, et al : CT and MR imaging of the buccal space and buccal space masses. *Radiographics* 15: 531-550, 1995.
- Tideman H, Bosanquet A, et al : Use of buccal fat pad as a pedicled graft. *J Oral Maxillofac Surg* 44: 435-440, 1986.
- Yoshimura K, Shigeura T, et al : Characterization of freshly isolated and cultured cells derived from fatty and fluid portions of liposuction aspirates. *J Cell Physiol* 208: 64-76, 2006.
- Suga H, Matsumoto D, et al : Numerical measurement of viable and non viable adipocytes and other cellular components in aspirated fat tissue. *Plast Reconstr Surg* 122: 103-114, 2008.
- Grenier G, Scime A, et al : Resident endothelial precursors in muscle, adipose, and dermis contribute to postnatal vasculogenesis. *Stem Cells* 25: 3101-3110, 2007.
- 箕輪和行, 大森桂一, 他 : 頭頸部海綿状血管腫のMRI診断. *日口外誌* 37: 1802-1809, 1991.
- Joe VQ, Westesson PL, et al : Tumors of the parotid: MR imaging characteristics of histologic types. *Am J Roentgenol* 163: 433-438, 1994.
- Hopkins KL, Li KCP, et al : Gadolinium-DTPA-enhanced magnetic resonance imaging of musculoskeletal infectious processes. *Skeletal Radiol* 24: 325-330, 1995.
- 青木隆敏, 興梠征典 : 画像診断. 梶原康正編著; 血管腫・血管奇形の診断と治療のストラテジー. 第1版, 先端医学社, 東京, 2004, 30-36頁.
- Richter GT, Braswell L, et al : Management of venous malformations. *Facial Plast Surg* 28: 603-610, 2012.
- Marler JJ and Mulliken JB : Current management of hemangiomas and vascular malformations. *Clin Plastic Surg* 32: 99-116, 2005.
- Zhong LP, Ow A, et al : Surgical management of solitary venous malformation in the midcheek region. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol* 114: 160-166, 2012.
- Hyodoh H, Hori M, et al : Peripheral vascular malformations : Imaging, treatment approaches, and therapeutic issues. *Radiographics* 25: 159-171, 2005.