口底に生じた器質化血腫の1例

高松 朋矢¹⁾・山田 浩之²⁾・久保田 卓³⁾
石田 璃久磨⁴⁾・今村 栄作⁵⁾・濱田 良樹²⁾

A case of organized hematoma developing in the oral floor

TAKAMATSU Tomoya¹⁾・YAMADA Hiroyuki²⁾・KUBOTA Taku³⁾
ISHIDA Rikuma⁴⁾・IMAMURA Eisaku⁵⁾・HAMADA Yoshiki²⁾

Abstract: Organized hematoma is a rare progressive cystic lesion. In this paper, we report a case of organized hematoma developing in the oral floor of a 41-year-old woman. Intraoral examination revealed an elastic hard and mobile mass measuring 40 × 30 × 20 mm in the right side of the oral floor. Computed tomography showed a well-defined mass lesion. A high-density area was partially seen around the rim. On T1-weighted, coronal section MR images, the mass lesion appeared as a slightly high-signal area with a partially iso-signal area. On the T2-weighted images, the mass was seen as a low-signal area. The mass was entirely removed with the patient under general anesthesia. Histopathological examination of the specimen showed an old blood clot encapsulated by dense fibrous connective tissue without an epithelial lining. Granulation tissue with infiltration of macrophages and pathologic calcification was seen between the blood clot and fibrous capsule. On the basis of the above-mentioned findings, the mass lesion was finally diagnosed as an organized hematoma. No recurrence has occurred as of 5 years 6 months after surgical removal.

Key words: organized hematoma (器質化血腫), oral floor (口底)

緒 言

器質化血腫は進行性の嚢胞性疾患で、上皮組織を伴わない厚い線維性被膜の内部に古い血腫が認められることを特徴とする¹⁾。同様の病態を表す病名に血瘤腫²⁾や hematic cyst³⁾があり、副鼻腔に生じたものは血瘤腫、眼窩部に生じたものは hematic cyst と呼ばれることが多い。鈍的外傷や突発性出血を契機とするとされているが、その発症機序には不明な点が多い^{1~4)}。本疾患は文献を渉猟した限りでは、上顎洞内⁵⁾、硬膜下⁶⁾、臀部⁷⁾、胸壁⁸⁾などに発症したものが報告されているに過ぎず、口腔内

での報告例は見当たらない。本論文では、口底に生じた器質化血腫の1例について、治療経過の概要に若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

患 者: 41 歳，女性。

初 診: 2008 年 8 月。

主 訴: 右側口底部の腫瘍。

家族歴: 特記事項なし。

既往歴: 特発性血小板減少性紫斑病を 2 歳で発症したが、

¹⁾ 長野松代総合病院歯科口腔外科

(主任：齋藤知之部長)

²⁾ 鶴見大学歯学部口腔顎顔面外科学講座

(主任：濱田良樹教授)

³⁾ 草加市立病院歯科口腔外科

(主任：高田典彦部長)

⁴⁾ 東芝林間病院歯科口腔外科

(主任：金井郁代部長)

⁵⁾ 横浜総合病院歯科口腔外科

(主任：今村栄作部長)

¹⁾ Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Nagano Matsushiro General Hospital (Chief: Dr. SAITO Tomoyuki)

²⁾ Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Tsurumi University School of Dental Medicine (Chief: Prof. HAMADA Yoshiki)

³⁾ Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Soka Municipal Hospital (Chief: Dr. TAKADA Norihiko)

⁴⁾ Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Toshiba Rinkan Hospital (Chief: Dr. KANAI Ikuyo)

⁵⁾ Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Yokohama General Hospital (Chief: Dr. IMAMURA Eisaku)

受付日：2013 年 6 月 24 日

採択日：2014 年 12 月 22 日

幼児期に治癒している。

現病歴：約10年前より、右側口底に徐々に増大する腫瘤を自覚していたが、疼痛がないため放置していた。今回、かかりつけ歯科医院を受診した際に口底の病変を指摘され、精査・加療を目的に横浜総合病院歯科口腔外科を紹介され受診した。

現 症：

全身所見：体格中等度、栄養状態良好。

口腔外所見：特記事項なし。

口腔内所見：右側口底に約40×30×20mm大の境界明瞭で可動性、弾性硬の腫瘤を触知した。被覆粘膜に異常所見は認めなかった(写真1)。また、唾液腺の排泄障害も認めなかった。

X線所見：咬合法X線写真で、口底部に境界明瞭な類円形の不透過像を認めた(写真2)。

CT所見：右側口底部に約40×30×20mm大で、卵型の腫瘍性病変を認めた。腫瘤の境界は明瞭で、外周には石灰化を示唆するhigh densityな部分を有し、内部は不均一なややlow densityな像を呈していた(写真3A, B)。

MRI所見：腫瘤は、T1強調像で境界明瞭な類円形を呈し、内部はやや高信号で、一部に等信号を示す部分が混在していた(写真4A)。一方、T2強調像では著明な低信号を呈していた(写真4B)。

臨床検査所見：血液一般検査、生化学検査に異常値は認められなかった。また、出血時間、プロトロンビン時間や活性部分トロンボプラスチン時間等の凝固系検査においても異常値は認めなかった。

臨床診断：右側口底良性腫瘍あるいは嚢胞の疑い。

処置および経過：2008年11月、局所麻酔下に生検を施行した。口底粘膜に切開を加え腫瘤の一部を検体として切除したところ、腫瘤内部には茶褐色の泥状物が認められた。しかしながら、採取した組織検体量も少なかったことから病理組織学的所見としては、壊死組織と変性した赤血球の塊が認められたのみで、確定診断には至らなかった。そこで、同年12月、全身麻酔下に腫瘤の摘出術を施行した。右側舌下小丘の1cm後方から舌下ヒダの外側に約4cmの粘膜切開を加え、5mmほど深部に切離を進めるとミルクコーヒー色の腫瘤を確認できた。腫瘤と周囲組織には癒着を認めず、腫瘤の剥離摘出は容易であった(写真5)。ワルトン管は内側の粘膜弁に含めて上方に牽引した。また、舌神経は露出しなかった。術後、唾液の排泄障害や舌の知覚異常は認められなかった。現在、術後5年6か月を経過しているが、再発の兆候はなく経過良好である。

摘出標本所見：摘出標本は、弾性硬を呈する約40×30×20mm大の腫瘤で線維性被膜に覆われていた。内部は茶褐色の泥状物で満たされ、腫瘤周囲の一部には、卵殻のよ

うな硬固物を認めた。

病理組織学的所見：線維性被膜に覆われた古い凝血塊を主体としており、被膜を裏装する上皮は認められなかった(写真6A, B)。被膜と凝血塊の間には、マクロファージの浸潤を伴う肉芽組織と著明な石灰化を認める部分が混在していた(写真6C)。マッソントリクローム染色像では、線維性被膜が青紫色に濃染された(写真6D)。ベルリンブルー染色像では、線維性被膜の一部が青く染色された(写真6E)。コッサ染色像では、線維性被膜や凝血塊の一部に黒色を呈する点状石灰化物の沈着を認めた(写真6F)。一方、組織プラスミノゲン活性化因子(tPA)の免疫染色像では、明らかな陽性反応を示す細胞は認められなかった。

病理組織学的診断：器質化血腫。

考 察

器質化血腫は、自然に消失することなく嚢胞壁からの出血を繰り返しながら無痛性に徐々に増大する病変で、その上皮を欠く嚢胞壁には、組織学的に血管の拡張や新生、出血、線維素の析出、線維化および硝子化などが認められ、内部にヘモジデリンやコレステロールを含むことを特徴とする^{1,3)}。また、嚢胞壁には毛細血管は存在するものの、大きな血管は認められず、石灰化や骨形成を伴う症例もある³⁾。自験例においても、嚢胞壁はマッソントリクローム染色により緻密な膠原線維で構成されていることが明らかで、ベルリンブルーの陽性所見からヘモジデリンの存在も確認された。さらに、CT所見とコッサ染色から石灰化物の存在も明らかとなった。これらの所見は、いずれもこれまで報告されている器質化血腫の典型的な病理組織学的所見に合致するものであった。

器質化血腫は、外傷や突発性出血の継発症として発症するとされているが、自験例では外傷の既往や抗血小板薬や抗凝固薬の服用歴がなく、術前の血液検査データにも出血傾向を示唆する所見は認められなかった。既往の特発性血小板減少性紫斑病は口底部の自然出血の一因となりうる疾患であるが、幼少期に治癒しており、患者が腫瘤の存在を自覚した時期から考えても、直接の発症原因とは考え難い。

器質化血腫と同様の病態であるhematic cystの増大機序について、Yoshikawaら³⁾は眼窩に生じたhematic cystの3例におけるtPAの発現を免疫組織化学的に検討し、嚢胞壁の血管内皮細胞で過剰産生されたtPAが嚢胞壁内の線溶系の亢進を招き、結果的に持続性の出血をきたすことによって嚢胞が増大するという見解を提唱している。tPAの過剰発現に伴う線溶系亢進により血腫が増大するという説は、慢性硬膜下血腫においても報告されている^{9~10)}。自験例でも線溶系の亢進が成因である可能性を追求するために、tPAの発現を免疫組織化学的に検討したが、tPAの発

写真1 初診時の口腔内写真

右側口底に約40×30×20mm大の腫瘍が認められる。被覆粘膜に異常所見は認められない。

写真2 咬合法X線写真

口底部に境界明瞭で類円形の弱い不透過像を認める(矢頭)。

写真5 術中写真

腫瘍は口底粘膜下に存在し、被膜に覆われている。周囲組織との癒着は認められない。

写真3 CT写真

A: 水平断像; 右側口底部に約40×20mm大で類円形の腫瘍性病変を認める。腫瘍の境界は明瞭で、石灰化を示唆するhigh densityな部分を有し、内部は不均一なややlow densityな像を呈している(矢頭)。

B: 3次元像; 右側口底部に約40×30×20mm大の卵形の腫瘍性病変を認める。腫瘍の外周には、部分的に卵殻状の石灰化を示唆するhigh densityな像を認める。

写真6 病理組織像

A: 病変は嚢胞構造を呈しており、線維性被膜の内部に古い凝血塊が認められる(H-E染色×12.5)。

B: 凝血塊を覆う線維性被膜を裏装する上皮は認められない(H-E染色×200)。

C: 被膜と凝血塊の間には、マクロファージの浸潤を伴った肉芽組織と著明な石灰化を認める部分が混在している(H-E染色×400)。

D: 線維性被膜は、青紫色に濃染された緻密な膠原線維で構成されている(マッソントリクローム染色×200)。

E: 線維性被膜内に青く染色されたヘモジデリンが認められる(ペルリンブルー染色×200)。

F: 黒色を呈する点状石灰化物の沈着が線維性被膜や凝血塊の一部に認められる(コッサ染色×200)。

写真4 MR写真

A: T1強調像; 腫瘍は境界明瞭な類円形を呈し、内部はやや高信号で、一部に等信号を示す部分を認める。

B: T2強調像; 腫瘍は低信号を呈している(矢頭)。

現亢進は認められなかった。加えて、自験例の経過が10年以上に及んでいたため、病変が古く石灰化しており、すでに腫瘍内の出血は止まっていたと考えられる。初診時から手術までの4か月間に腫瘍の増大は認められなかった。これらのことから、自験例では腫瘍の増大におけるtPAの関与を証明することはできなかった。

口底に発生した器質化血腫と鑑別を要する疾患として、類皮嚢胞、ガマ腫、甲状舌管嚢胞、唾液腺腫瘍などが挙げられるが、一般的な嚢胞性疾患の場合にはMRIのT2強調画像で、高信号を呈することから鑑別は比較的容易と考えられる。一方、悪性度の高い唾液腺腫瘍では等信号から低信号を示すことがある¹¹⁾。また、唾液腺腫瘍の中には石灰化や骨形成を伴うものもあり¹²⁾、術前の画像所見による器質化血腫と唾液腺腫瘍との鑑別は困難であった。自験例においても、当初は唾液腺良性腫瘍を疑っていた。したがって、病理組織学的診断に委ねられることになるが、自験例では、器質化血腫が想定外だったこともあり、生検時の標本のみでは確定診断には至らなかった。

口腔内に発生した器質化血腫の報告例は、われわれが渉猟し得た範囲では、自験例のみであったが、外科的に摘出した結果、術後5年6か月経過した現在においても再発は認められていない。

謝辞

稿を終えるにあたり、本症例の病理組織学的診断に対して貴重なご意見を賜りました昭和大学歯学部口腔病理学教室 美島健二教授に深謝いたします。

本論文の要旨は第187回(社)日本口腔外科学会関東地方会(2009年6月27日、東京歯科大学千葉校舎 講堂)において発表した。

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

- 1) Ohta N, Watanabe T, et al : Clinical and Pathological Characteristics of Organized Hematoma. *Int J Otolaryngol* 539642, 2013.
- 2) 山口健司, 佐伯真紀, 他 : 口腔内に突出した上顎洞血腫の1例. *日口外誌* 55: 246-249, 2009.
- 3) Yoshikawa K, Fujisawa H, et al : Cause of hematic cysts of the orbit : increased fibrinolysis and immunohistologic expression of tissue plasminogen activator. *Ophthalmology* 116: 130-134, 2008.
- 4) Orhan K, Nishiyama H, et al : Chronic hematic cyst of the temporomandibular joint. *Saudi Med J* 26: 1283-1285, 2005.
- 5) Yokoi H, Arakawa A, et al : Organized hematoma of the maxillary sinus: a clinicopathologic study of 5 cases. *Ear Nose Throat J* 93: 23-26, 2014.
- 6) Shrestha P, Pant B, et al : Organized subdural hematoma with thick membrane in chronic subdural hematoma. *J Nepal Med Assoc* 52: 1-5, 2012.
- 7) Colt E, Gopan T, et al : Oncogenic osteomalacia cured by removal of an organized hematoma. *Endocr Pract* 11: 190-193, 2005.
- 8) Takami Y, Ina H, et al : Constrictive pericarditis caused by calcification and organized hematoma 30 years after cardiac surgery. *Circ J* 66: 610-612, 2002.
- 9) Fujisawa H, Ito H, et al : Immunohistochemical localization of tissue-type plasminogen activator in the lining wall of chronic subdural hematoma. *Surg Neurol* 35: 441-445, 1991.
- 10) Katano H, Kamiya K, et al : Tissue plasminogen activator in chronic subdural hematomas as a predictor of recurrence. *J Neurosurg* 104: 79-84, 2006.
- 11) Lee YY, Wong KT, et al : Imaging of salivary gland tumours. *Eur J Radiol* 66: 419-436, 2008.
- 12) 中村友保, 片浦俊久, 他 : 多量の石灰沈着を認めた耳下腺多形性腺腫の1例. *日口外誌* 48: 276-279, 2002.