下顎骨中心性血管腫の1例

佐竹 幸雄・田代 英雄・香月 武・宮之下靖子

Central hemangioma of the mandible: Report of a case

Yukio SATAKE・Hideo TASHIRO・Takeshi KATSUKI・Yasuko MIYANOSHITA

緒 言

口腔領域において、浅在性に発生した血管腫は比較的多くみられるが、深部組織、とくに顎骨に発生するものは少ない。最近10年間に当科を受診した患者のうち、臨床的または病理組織学的に血管腫と診断された患者は115例で、そのうち顎骨内に生じたものは2例(1.7%)であった。Watson & MacCarthy³⁷⁾が報告した全身の脈管性腫瘍1056例のうち、骨に発生したものは5例で、そのうち1例が顎骨であったことから顎骨血管腫の発生はまれであるといえる。

最近、右下顎枝部に発生した下顎骨中心性血管腫の1例を経験したので、最近10年間に報告された内外の文献から収集しえた34例の顎骨血管腫の検討とあわせて報告する。

症 例

患者：54歳，男性，公務員

初診：昭和48年10月■日

主訴：右側下顎枝部の無痛性腫脹

家族歴：特記事項はなかった。

既往歴：昭和38年4月頃，右耳下腺腫瘍のため，某病院にて放射線治療および右耳下腺摘出手術を受けた他は特記事項なし。耳下腺腫瘍の詳細については，問合せたが解答がえられず明らかでなかった。

現病歴：昭和45年8月頃，右下顎枝部にクルミ大の無痛性骨膨隆があるのに気づき，某病院外科を受診したが心配ないといわれ放置していた。その後，同骨膨隆は徐々に増大したため，昭和46年6月■日，某大学病院を受診した。そこで同部の組織検査を試みたところ，骨より多量の出血をみたため右外顎動脈が結紮され下顎骨の血管腫が疑われた。その後も無痛性に増大し鶏卵大となったため，昭和48年10月に当科へ来院した。

現症：体格は中等度で，栄養状態は普通であった。顔色はよく，眼瞼結膜および眼球結膜に貧血，黄疸はみられなかった。右耳介前部および頸部に手術創痕がみられ，右側に手術によると思われる顔面神経麻痺がみられた。右下顎関節突起より下顎枝へかけて鶏卵大の限局性腫瘤が認められ，触診すると境界明瞭な骨様硬を示し，皮膚との癒着はなく，圧痛もなかった。開口度は3横指で，顎運動制限はみられなかった。左右聴力に異常はなかった。(写真1)

写真 1

口腔内所見では，下顎は無歯顎で，上顎は3 1 2ののみが残存していた。右頬粘膜にメラニン色素沈着がみられた他は触診により右下顎枝の膨隆も触れず，特記すべき所見はみられなかった。

X線所見：後頭前頭撮影および眼窩関節方向撮影で，右関節突起部を中心に外方へ膨脹性に鶏卵大に増大した骨増生像がみられた。下顎角部より関節突起部にわたる腫瘍中心部は蜂巢状骨粗鬆像を示し，腫瘍周囲の皮質骨は消失し，放射状に細い骨梁柱のみが残存し，いわゆるsun-burst effectに類似した像を呈していた。(写真2，

九州大学歯学部口腔外科学教室(主任：田代英雄教授)
Department of Oral Surgery, Faculty of Dentistry, Kyushu University. (Chief: Prof. Hideo Tashiro)
受付 昭和49年12月11日

写真 2

写真 3

3)

臨床検査：血液検査，尿検査および肝機能検査において異常はみられなかった。

処置および経過：昭和48年10月■日，入院。11月■日，局麻下にて右耳前部より組織検査を行ったところ，骨髓

組織内に不規則に拡張した血管網を示す所見がえられた。11月■日，本学放射線科にて，大腿動脈より Seldinger 法によって右総頸動脈，椎骨動脈，甲状腺動脈の血管造影を施行し，subtraction を行って検討した。

血管造影所見：1. 右外頸動脈は結紮され，内頸動脈

写真 4

写真 5

は頭蓋内で特記すべき所見を認めないが、眼動脈が著明に拡張し、外頸動脈との拡張した吻合枝を通じて外頸動脈の分枝が造影され、さらにその一部は腫瘍部を栄養していた。(写真4)

2. 右椎骨動脈より著明に拡張した後頭動脈との吻合枝を通じて逆行性に後頭動脈、舌動脈、外頸動脈さらに顎動脈が造影された。外頸動脈は腫瘍部位後部を円弧状に引っ張られて走り、小枝を腫瘍部に出し腫瘍を栄養していた。静脈相では、腫瘍後部に一致して pooling による均等な tumor stain を認めた。(写真5)

3. 甲状腺動脈に特記すべき所見はなかった。

血管造影によって、骨血管腫様所見とその栄養血管を確認しえたので、11月15日、G-O-P気管内麻酔のもとに、右下顎骨の部分切除と腸骨移植による即時骨再建術を行った。

手術所見：右耳前部より下顎枝後縁に沿って切開を加え下顎枝骨膜を剥離してゆくと、骨表面よりかなりの点状出血をみたため剥離を中断して右外頸動脈を露出した。外頸動脈は起始部で結紮されており、その上部より比較的太い顔面動脈、後頭動脈、顎動脈がでており、これを結紮すると腫瘍表面からの出血はかなり少なくなった。そこで再び骨膜の剥離をすすめ、下顎角部で下顎骨を切断し、関節離断を行って下顎枝を切除した。(写真6)

切除後、レジン床調子を、上顎は歯牙へ結紮し、下顎は固縛結紮をして顎間固定を行い、次に腸骨移植を行った。術中の出血量は約 400ml であった。顎間固定は2カ月間行った。術後5カ月のX線所見では腫瘍の再発はみられず、移植骨の癒合状態も良好で、現在、義歯装着

写真 6

写真 7

時の開口度は2横指で顎運動機能も良好である。

病理組織学的所見：腫瘍組織は主として骨梁，線維性結合組織および血管腔からなり，骨髓腔の大部分を一層の扁平な内皮細胞で囲まれた大小無数の拡張した毛細管，または細静脈が占め，互いに連絡した血管腔もみられた。(写真7)

病理組織学的診断：下顎骨海綿状血管腫

考 察

全身における骨血管腫の好発部位は椎骨，顔面頭蓋骨，長管骨であり，特にほとんど臨床症状を示さない椎骨血管腫の発生率は高いとされている。Junghanns¹⁸⁾によれば，病理解剖を行った3829例の脊柱のうち，409例(10.7%)に椎骨の血管腫を認めたと報告している。しかしJaffe¹⁷⁾は骨血管腫の発生率の評価は，椎骨血管腫の解釈によるもので，剖検例で血管腫として分類されている椎骨の脈管性病変は静脈瘤であろうと考えており，これを除外すれば骨血管腫の発生率はまれであるといっている。1930年，Buccy & Capp²⁾が報告した椎骨以外の骨血管腫は28例で，顎骨に発生したものは5例であった。その後，1959年までにGeschickter & Masseriz¹⁰⁾やSmith³⁰⁾によって計34例が追加報告されている。1964年，Lund²¹⁾は文献より35例の顎骨血管腫を集め，これに自験例4例を加えて検討した。以上からも本疾患の発生率はまれであるといえる。本邦での報告は山中⁴⁰⁾が上顎骨に1例，下顎骨に2例を経験している他，飯田¹⁶⁾，中島²⁶⁾，久野¹⁴⁾らの報告がある。当科では，過去10年間に顎骨血管腫は本症例の他に上顎骨例1例があった。

今回，著者らが1964年より10年間に報告された内外の文献から収集しえた顎骨血管腫34例の内容を検討した結果，好発年齢はSmith³⁰⁾やLund²¹⁾らの報告と同様，図1に示すごとく10歳代に最も多く全体の38.2%を占め，またすべての年代にわたってみられた。性別では，男性は15例，女性は19例でやや女性に多くみられたが，Lund²¹⁾らの報告では，女性は男性の2倍であった。発生部位では，上顎に16例，下顎に18例で，そのうち下顎では右側に11例，左側に7例であったが，上顎では右側に13例，左側に3例と著しい左右差がみられた。臨床症状としては半数以上が发育緩慢な無痛性腫脹を示し，次に鼻または歯肉出血や歯牙弛緩が多く，歯痛を含む疼痛を訴えたものは5例にすぎなかった。したがって患者が自覚してから来院するまで，一般に数カ月から数年を経過したものが多く，来院時にはほとんどの症例において，その病変は数歯にわたる範囲から顎骨の半側を占めるものであった。特にShira²⁹⁾らの症例は右下顎枝から反対側の小白歯部におよぶ大きなものであった。

X線所見は本疾患の特徴を示すものとして診断に重要な手掛りを与えるものである。しかしそのX線像も多様

図1 年齢分布

で，しばしば嚢胞や骨肉腫，エナメル上皮腫，巨細胞腫，骨線維腫，線維性骨異形成症などの歯源性または骨源性腫瘍との鑑別が困難なことが少なくない。

最も一般的なX線像は honeycomb や soapbubble 様多房性骨吸収像や sun-burst 様骨増生像²⁾⁹⁾³⁰⁾³⁶⁾を示し，皮質骨は薄く拡張し，時に破壊されることがある。なぜ骨増生が起こるのかについて山中⁴⁰⁾らは腫瘍の緩徐な増殖に対する反応性骨増殖の他に，多量の血液環流による周囲骨組織に対する局所の栄養状態によるものではないかと考えている。

本疾患の診断確定には組織検査が必要であるが，Weinstein³⁸⁾らは骨血管腫が疑われる場合は生検を行う前に，骨穿刺による内容液の確認を行うべきであることを強調している。不用意な生検は血管腫の大きさに関係なく思わぬ出血を招くこととなる。Thoma & Goldman³⁴⁾は生検にて死亡した例を，Castleman⁴⁾は1,400mlを出血させた例を報告している。Mohnac²⁴⁾らはバーで皮質骨に小さな穴をあけて組織を採取する needle biopsy によれば，出血は容易に抑制されると述べた。

本疾患は良性的非上皮性腫瘍で，骨膜の血管から発生し，骨を2次的に侵す末梢性骨血管腫と骨髓の血管より発生し，1次的に骨を侵す中心性骨血管腫の2つのタイプがある。組織学的には線維性結合組織，骨組織，海綿状血管の3つの要素からなり³⁸⁾，主として海綿状血管腫または単純性血管腫との混合型が多い。Baum⁹⁾らは血管腫の組織型と臨床的性質の間には全く関係がないため，組織型の分類は臨床的価値はないと述べているが，

Choukas⁵⁾らは最初の報告として上顎骨の硬化性海綿状血管腫を報告し、それが海綿状血管腫であったにもかかわらず硬化性であったため、手術時に不当な出血を避けることができたと言った。

本疾患の病因は不明で種々の議論があるが、主として血管に分化した内皮細胞の良性腫瘍であるとする説²⁹⁾³⁰⁾と間質細胞の先天性遺残に起こった発育性奇形または奇芽腫とする説³¹⁾があげられている。

治療は病変の部位、大きさによって異なるが、基本的には病変の切除を行う。著者らの調べた34例のうち、顎切除を行った症例は15例で最も多く、次に掻爬が7例、放射線治療が7例であった。手術時の出血量は病変の大きさおよび組織型とはほとんど関係ないようである。34例のうち1例に抜歯後の出血で死亡した例がみられた。

手術時または抜歯後の出血に対して外頸動脈が結紮された症例は12例であったが、そのうち出血抑制効果がみられたのはわずか4例で、なかには総頸動脈または両側外頸動脈が結紮されたにもかかわらず血流変化がみられなかった症例もあった。顎骨血管腫の栄養血管は罹患側の外頸動脈の分枝からだけでなく、反対側の外頸動脈、さらには椎骨動脈、内頸動脈との側副路からも血流をうけていることが考えられ、上の報告例からもわかるように、外頸動脈の結紮だけでは十分な出血抑制効果はあまり期待できないようである。34例のうち血管造影がなされたのは7例であったが、われわれの症例では、術前の血管造影によって確認した栄養血管の結紮によって、術中の出血を最小限に抑えることができた。以上から、その手術に対しては術前に血管造影による病変の範囲や栄養血管などの精査の必要性が強調される。

Seldinger 法は Seldinger (1953年) が経皮的動脈内カテーテル挿入法を考案し、スウェーデンの放射線科医らによって完成された選択的動脈撮影法である。これは経皮的に高齢者や子供にも利用でき、造影剤の血管外注入の危険がなく、術者の欲するレベルで注入できるため、今日、椎骨動脈撮影は勿論、頸動脈撮影に多く採用されている。

骨血管腫における血管造影の利点は、

- 1) その診断の手掛りを与える。
- 2) 病変の範囲および栄養血管を確認することによって手術時の出血を最小限にし、また完全な切除によって再発を防ぐ。
- 3) 隣接組織の過剰な損傷を避け、審美的変形を少なくすることができることである。骨血管腫の造影所見は多様であるが、病変部の濃染像や栄養動脈の拡張、彎曲蛇行を示し、また早期に動脈相から静脈相への造影剤の移行がみられるのが特徴である。またしばしば拡張した側副路を形成していることがあり、一般によくみられるのは、椎骨動脈と後頭動脈、内頸動脈の枝である眼動脈と頸動脈の分枝との吻合路である³²⁾。ゆえに、手術時の

出血に対しては、外頸動脈起始部の結紮だけでなく、さらにその末梢部における分枝の結紮も必要と思われる。また Hoey¹⁸⁾らは、下顎骨は下顎孔からだけでなく頤舌筋、頤舌骨筋の附着部からも血管が入っていると述べ、Laws²⁰⁾は外頸動脈の結紮だけではほとんど血流変化はなかったが、頤舌筋、頤舌骨筋を下顎骨の舌側面から剥離し血流を遮断したところ、明らかに出血抑制がみられたと報告した。以上から顎骨血管腫の外科的処置に際しては、あらゆる面からの栄養血管の検討が必要であろう。

結 語

54歳の男性で、右下顎枝部に発生した血管腫の1例を報告した。血管造影で認めた栄養血管の結紮後、右下顎枝切除と腸骨移植による即時再建術を行った。術後の経過は良好で、現在、再発はみられない。また最近10年間の内外の文献から収集した顎骨血管腫34例を検討して報告した。

稿を終わるに臨み、本症例の血管造影を行って頂き、さらに御懇切なる御教示を賜った奥寺利男講師はか九大医学部放射線科諸先生方に深謝する。なお本症例は第19回日本口腔外科学会総会にて報告した。

参 考 文 献

- 1) Abramson, B. S. : Central hemangioma of the mandible : report of case. *J Oral Surg* 23 : 66 ~ 70 1965.
- 2) Bucky, P. C., Capp, C. S. : Primary hemangioma of bone with special reference to roentgenologic diagnosis. *Am J Roentgenol* 23 : 1 ~ 33 1930.
- 3) Baum, S. M., Sussman, R., Stoopack, J. C. : Central hemangioma of the maxilla. *J Oral Surg* 30 : 885 ~ 892 1972.
- 4) Castleman, B. : Case records of the Massachusetts General Hospital ; weekly clinicopathological exercises : Case No. 42021, Hemangioma of the mandible. *New Eng J Med* 254 : 70 ~ 73 1956.
- 5) Choukas, N. C., Toto, P. D., Valaitis, J. : Sclerosing cavernous hemangioma of the maxilla : Report of a case. *Oral Surg* 16 : 17 ~ 20 1963.
- 6) Choukas, N. C., Toto, P. D. : Hemangioma of the maxilla with associated dentigerous cyst : report of case. *J Oral Surg* 24 : 169 ~ 172 1966.
- 7) Cran, J. A. : Cavernous haemangioma in the mandible. *Brit J Oral Surg* 3 : 32 ~ 35 1965.
- 8) Davies, D. : Cavernous hemangioma of the mandible. *Plast Reconstr Surg* 33 : 457 ~ 461 1964.
- 9) Ebling, H., Goldenberg, N. : Central angio-

- ma. *Oral Surg* 21 : 9~14 1966.
- 10) Geschickter, C. F., Masseritz, I. H. : Primary hemangioma involving bones of the extremities. *J Bone Joint Surg* 20 : 888 1938.
 - 11) Gorlin, R. J., Goldman, H. M. : *Thoma's Oral Pathology*. ed 6. Mosby Co, St Louis, 1970, p 564.
 - 12) Hartley, J. H., Schatten, W. E. : Cavernous hemangioma of the mandible : Case Report. *Plast Reconstr Surg* 50 : 287~290 1972.
 - 13) Hiranandani, L. H., Gosave, D. K. et al. : Clinical records : Angioma of maxillary sinus (a case report). *J Laryngol* 80 : 1257~1259 1966.
 - 14) 久野吉雄, 高橋秀太郎, 青木 啓 : 下顎に発生した血管腫の⁶⁰Co照射による1治験例について. *口科誌* 14 : 242 1965.
 - 15) Hoey, M. F., Courage, G. R. et al. : Management of vascular malformations of the mandible and maxilla : review and report of two cases treated by embolization and surgical obliteration. *J Oral Surg* 28 : 696~706 1970.
 - 16) 飯田 武, 天羽 峻, 渡辺邦一 : 上顎に発生した中心性血管腫の冷凍外科療法. *口科誌* 23 : 245 1974.
 - 17) Jaffe, H. L. : Tumors and tumorous conditions of the bones and joints. Lea & Febiger, Philadelphia, 1958, p 224.
 - 18) Junghanns, H. : Über die Häufigkeit gutartiger Geschwülste in den Wirbelkörpern (Angiome, Lipome, Osteome). *Arch Klin Chir* 169 : 204~212 1932.
 - 19) Ladow, C. S., Henefer, E. P., McFall, T. A. : Central hemangioma of the maxilla with von Hippel's disease : report of case. *J Oral Surg* 22 : 252~259 1964.
 - 20) Laws, I. M. : Pulsating haemangiomata of the jaws. *Brit J Oral Surg* 5 : 223~229 1968.
 - 21) Lund, B. A., Dahlin, D. C. : Hemangiomas of the mandible and maxilla. *J Oral Surg* 22 : 234~242 1964.
 - 22) Macansh, J. D., Owen, M. D. : Central cavernous hemangioma of the mandible : report of cases. *J Oral Surg* 30 : 293~296 1972.
 - 23) Martis, C., Karakasis, D. : Central hemangioma of the mandible : report of case. *J Oral Surg* 31 : 613~616 1973.
 - 24) Mohnac, A. M., Smith, J. R. : Central hemangioma of the mandible : report of case. *J Oral Surg* 25 : 455~459 1967.
 - 25) 中島恭臣, 他 : 下顎骨内に原発したと考えられる血管腫の一治験例. *口科誌* 23 : 253 1974.
 - 26) Palladino, V. S., Danziger, A. E. : Hemangioma of the maxilla. *JADA* 70 : 636~641 1965.
 - 27) Pusey, R. F. : Mandibular central haemangioma. *Brit J Oral Surg* 5 : 25~32 1967.
 - 28) Sawhney, K. L., Rao, P. B., Sankaran, V. : Hemangioma of maxilla. *Ann Otol* 82 : 254~256 1973.
 - 29) Shira, R. B., Guernsey, L. H. : Central cavernous hemangioma of the mandible : report of case. *J Oral Surg* 23 : 636~642 1965.
 - 30) Smith, H. W. : Hemangioma of the jaws : Review of the literature and report of a case. *Arch Otolaryng* 70 : 579~587 1959.
 - 31) Smith, R. A. : Central haemangioma of the maxilla : case report. *Aust Dent J* 17 : 117~119 1972.
 - 32) 鈴木宗治, 岩下一彦, 前島 考, 村瀬 弘, 共著 : 血管読影講座 I (頭部), 金原出版, 東京, 1972, 16頁.
 - 33) Taylor, B. G., Etheredge, S. N. : Hemangiomas of the mandible and maxilla presenting as surgical emergencies. *Amer J Surg* 108 : 574~577 1964.
 - 34) Thoma, K. H., Goldman, H. M. : *Oral pathology*. ed 5. mosby Co, St Louis, 1960, p 373.
 - 35) Thoma, K. H., Harris, M. H. : Osteo-angioma. *Oral Surg* 18 : 223~226 1964.
 - 36) Topazian, R. G. : Central hemangioma of the mandible : Report of a case. *Oral Surg* 18 : 1~6 1964.
 - 37) Watson, W. L., MacCarthy, W. D. : Blood and lymph vessel tumors : Report of 1056 Cases. *Surg Gynecol Obstet* 71 : 569 1940.
 - 38) Weinstein, I., Yamanaka, H., Fuchihata, H. : Resection and reconstruction of the mandible for removal of a central hemangioma. *Oral Surg* 16 : 2~13 1963.
 - 39) Wilde, N. J., Tur, J. J., Call, D. E. : Hemangioma of the mandible : report of case. *J Oral Surg* 24 : 549~552 1966.
 - 40) 山中弘之, 他 : 上顎骨に発生した骨血管腫の1例. *口科誌* 13 : 54~60 1964.
 - 41) 山中弘之, 他 : 下顎骨に発生した骨血管腫. *口科誌* 12 : 140 1963.