小児の口底部に発生した血管腫の2例

奥山文雄・水野明夫*・羽立賢二・田中みよ子・森下三嗣
佐藤建夫・小浜源郁**・清水正嗣・上野正

Haemangioma of the floor of the mouth in children: Report of two cases

Fumio OKUYAMA・Akio MIZUNO*・Kenji HATATE
Miyoko TANAKA・Mitsutsugu MORISHITA・Tateo SATO
Gen-iku KOHAMA**・Masatsugu SHIMIZU・Tadashi UENO

口腔外科領域の疾患のうち、血管腫は比較的多いものであり、舌、頬粘膜、口唇、口蓋には好発するが、口底部に発生したものは、われわれが渉猟しえた限りでは比較的稀なものと思われる。今回われわれは、小児の口底部に発生した血管腫2例を経験したので、その概要を報告する。

I. 症 例

症 例 1

患 者： 5歳3ヵ月女児（ ）

初 診：1973年7月 日

主 訴：舌下部の腫脹

既往歴および家族歴：特記すべきことはない。

現病歴：生後1年半頃、母親が舌背正中部のそら豆大の腫脹に気づき、徐々に大きくなってきたため、某病院から当科を紹介され受診し、'73年8月、舌背正中部血管腫摘出術を受けた。その時、左口底部に比較的小さな腫瘤を指摘されたが放置した。その後、口底部の腫瘤が徐々に増大してきたため、摘出手術の目的で、'75年6月 当歯科病棟に入院した。

入院時現症：体格中等度、発育良好で全身的には特記すべきことはなかった。

口腔外所見としては、オトガイ下部に軽度のびまん性の腫脹が認められたが、顎下リンパ節の腫脹は認められなかった（写真1）。

口腔内所見としては、D相当右側口底部より正中を越え、左側口底最後方部まで、青紫色の腫脹が認められ、舌挙上時、下顎咬合平面の高さより高くまで達し、舌下小丘、舌下ヒダは不明瞭となっていた（写真2）。疼痛はなく腫瘍は極めて軟で、圧縮性が著明であった。舌は挙上され、舌運動が制限されていたため発音はやや不明瞭であった。

写真1 症例1. 術前左顔側面

東京医科歯科大学歯学部第1口腔外科学教室

（主任：上野 正教授）

* 岩手医科大学歯学部口腔外科学第2講座

（主任：関山三郎教授）

** 札幌医科大学口腔外科学講座（主任：小浜源郁助教授）

Dept. of Oral Surgery I, School of Dentistry, Tokyo
Medical and Dental University
(Chief: Prof. Tadashi Ueno)

* Dept. of Oral Surgery II, School of Dentistry, Iwate
Medical University (Chief: Prof. Saburo Sekiyama)

** Dept. of Oral Surgery, Sapporo Medical College
(Chief: Assist. Prof. Gen-iku Kohama)

受付：昭和51年9月30日

写真 2 症例 1. 術前口腔内所見

写真 4 症例 1. 拡張した毛細血管および細静脈の増殖より成る。

H-E 染色 ×150

授の診断は血管腫であり、その単純性(毛細管)と海綿状の中間型と考えられた(病理報告 No. 69286)。

症 例 2

患 者: [redacted] 女性 14 歳 ([redacted])

初 診: 1969年6月 [redacted]

主 訴: 左口底部の腫脹

既往歴: 11~12歳頃、急性肝炎に罹患。'69年12月 [redacted]、当科で右下顎骨エナメル上皮腫のため開窓術を受け、その後の経過は良好であった。

家族歴: 特記すべきことはない。

現病歴: '69年春頃より、左口底部舌下ヒダ部の腫脹に気付いたが、疼痛がなく、また大きさも変化してないため放置していた。

現 症: 全身および口腔外所見には特記すべきことはなかった。

口腔内所見としては、左側口底部に正中から7近心相当部におよぶびまん性の腫脹が認められた。被覆粘膜の一部はごく軽度の青紫色を呈していたが、大部分は正常であった。硬度は弾性軟であった(写真5)。

写真 5 症例 2. 術前口腔内所見

入院時臨床診断: 口底部血管腫

処置および経過: GOF, 経鼻挿管全身麻酔のもと、黒絹糸、およびデキソン糸で腫瘍の周囲組織を密に結紮し、梱包を行った。この時点で腫瘍の大きさはほぼ半減した。舌下小丘および舌下ヒダをさけて口腔粘膜に電気メスで切開を加え、腫瘍を周囲組織より慎重に剥離し、一塊として全摘出した。創を開放にし、タンポナーデとしてアクロマイシンオリーブゼリン軟膏ガーゼを留置し、梱包した黒絹糸を利用して、タンポナーデを固定した。術後の経過は良好で、術後6日で部分抜糸、ガーゼ全除去を行い、術後8日で全抜糸し、術後13日で軽快退院した(写真3)。

摘出物は約 4.0×0.8×0.5 cm の大きさで、不整形であり、硬度は軟であった。静脈石を思わせる硬固物は認められなかった。さらに摘出物を病理組織学的検索に供した。

病理組織学的所見および診断: その組織所見は、拡張し、赤血球を満した多数の毛細血管とともに、内腔の空虚な拡張した毛細血管および細静脈と思われるものが多数認められ(写真4)、本学口腔病理学教室石川梧朗教

初診時臨床診断：左口底部血管腫

処置および経過：外来にて局所麻酔のもと、左口底粘膜に切開を加え、鈍的に腫瘤を露出せしめた。腫瘤は周囲の粗な結合組織によって境界され、易出血性であり、内容液は暗赤色、静脈血様であった。腫瘤は口底深部に移行していたため、全摘出不可能で、腫瘤の上半部を結紮し、上端部を切除した。切除組織片を病理組織検索に供した。その後、腫瘤の増大はみられず、経過良好である。

病理組織学的所見および診断：その組織所見は、不規則にうねり、拡張した腔を形成する静脈様血管が主体であり（写真6）、本学口腔病理学教室石川梧朗教授により海綿状血管腫と診断された（病理報告 No. 45831）。

写真 6 症例 2. 拡張した血管腔と静脈様血管壁を示す。H-E 染色 ×200

II. 考 察

血管腫は血管組織からなる腫瘍で、一般に組織の發育異常、すなわち過誤腫といわれ、脈管の反応性過形成、または単なる拡張で、臨床的に管腫状を呈するものといわれている¹⁾。

本腫瘍は口腔軟組織の腫瘍として稀なものではなく、多くは舌、口唇、歯肉、頬粘膜にみられるが、ときには顎骨内に生ずることもある¹⁾。松村ら²⁾の報告によれば、82例中単発生のものが71例、多発血管腫が11例で、のべ96発生物位中頬部29、舌26、上口唇部17、下口唇部14、口角部 4、歯肉 4、口蓋 2 と記載し、口底部には 1 例も認められていない。当科の過去約 3 年間（1972 年 1 月～'75 年 9 月）の統計では、単発生のものが 27 例、多発性血管腫が 6 例で、のべ 44 発生物位のうち口底部に発生したものは、本報告例のうちの症例 1 のみ（2.3%）であり、口底部に発生する血管腫は極めて稀なものと考えられる（表 1）。

発症年齢については、多くは先天的な組織異常として、幼児または出生時から認められ、Friedman ら³⁾によれば、出生時に 75%、1 歳以内に認められたものが 85%、

表 1 血管腫33症例の発生部位
——1972～'75——

（東京医科歯科大学第 1 口腔外科学教室）

部位	舌	下口唇	上口唇	頬部	歯肉	骨膜部の軟組織	口底	合計
数	24	7	4	4	3	1	1	44

表 2 血管腫33症例の初診時年齢および性別
——1972～'75——

（東京医科歯科大学第 1 口腔外科学教室）

性 別 年 齢	性 別		合 計
	女 性	男 性	
1 歳未満	0	2	2
1～ 9 歳	7	3	10
10～19 歳	2	2	4
20～29 歳	1	0	1
30～39 歳	5	1	6
40～49 歳	3	1	4
50 歳以上	6	0	6
合 計	24	9	33

Lund ら⁴⁾によれば10年間の統計で、38 例中、19 歳以下が21例（55.3%）、20～39歳が10例（26.3%）、40歳以上が7 例（18.4%）と報告している。しかし、これに反して、Shklar ら⁵⁾は 50% 以上が、40 歳以上に認めたと報告している。本邦においては、松村ら²⁾によれば、来院時年齢は、82例中、20歳以下が 43 例（52.4%）、21～40 歳が22例（26.8%）、41歳以上が 17 例（20.7%）と報告している、著者らの検索した当科の過去約 3 年間の統計でも、4 歳以下が 10 例、5～14歳が 4 例、15～19歳が 2 例、20～39歳が 7 例、40 歳以上が 10 例で、15 歳以下は 42.4%であった（表 2）。

性別については、一般に女性が多く、Friedman ら³⁾によれば、女性に 65%、男性に 35% 認めたと報告し、Lund ら⁴⁾によれば38例中 26 例が女性で、68.4%であったと報告している。本邦では、松村ら²⁾によれば82例中 51例が女性で、全体の62.2%であった。一方著者らが検索した当科過去約 3 年間の統計でも33例中24例が女性で、全体の72.7%であった（表 2）。本報告例は 2 例とも女性であった。

本報告例 2 例中症例 1 は非常に大きく、境界明瞭で、右口底部より左口底部にわたり、約 5.0～1.5cm の大きさであった。松村ら²⁾によれば 3.0cm 以下が全体の 65.9%、3.0 cm 以上の大きさのものが全体の34.1%で、これより比較すると、かなり大きな方に属すると思われる。これは色調、内容物、圧縮性などにより容易に血管腫の臨床診断が得られたが、症例 2 は口底部にびまん性の腫脹があるのみで、他の症状は認められなかったため、鑑別診断が困難で、病理組織診断ではじめて血管腫と判

明した。底口部に出現し、血管腫と鑑別すべきものには、一般に腺腫、線維腫、脂肪腫、筋芽細胞腫などの腫瘍、ガマ腫、類皮嚢胞、類表皮嚢胞、粘液嚢胞などの嚢胞があるが⁶⁾、これらとの鑑別には注意を要する場合があるものと思われる。

石川ら¹⁾によれば、血管腫を組織学的に大きく分け、単純性(毛細管)血管腫、海綿状血管腫、および蔓状血管腫の3型に分類している。松村ら²⁾は組織型が判明しているもののうち、海綿状血管腫が30例、毛細管血管腫が19例とほぼ3対2の比率を記載している。本報告例のうち症例1は、病理組織学的所見により、単純性(毛細管)血管腫と海綿状血管腫の混合型と考えられ、症例2は海綿状血管腫と考えられた。

血管腫の治療法としては、外科的療法、放射線療法、凍結療法、血管硬化剤注射が多く用いられている。その治療にあたっては、その性状、組織型、年齢などに応じてまず考慮を払われなければならない。血管腫の分類はいろいろ行われているが、北村ら⁷⁾のそれに従うと、単純性血管腫、海綿状血管腫などがあげられており、その前者では、いわゆる port-wine staining としてブドウ酒赤色で、生下時からものが多いが、前額中央部、眼瞼あるいは項部に生じたもの以外は自然治癒は望みがたいとされている。その範囲が広範な場合は、雪状炭酸もしくはβ線などで可及的に褪色させるとしているが、近年放射線の適応は指示し難く、完全治癒は困難とされている。

一方海綿状血管腫では、生後1カ月以内に気付かれることが普通であるが、自然治癒も多く、ある程度経過をみるべきとされている。しかし晩期残留に対しては放射線ないし外科的治療が指示され、今日では後者に重点がおかれる。

本報告の2例は共に後者に属し、かつ晩期留置型の性格の強いものであり、かつ限局的なものとして、外科的処置に従ったものである。

さらに血管腫の治療は、その部位的特徴からも決められ種々の考慮が払われるものである。口腔領域において口底の血管腫に対する治療として、外科的療法を採用する場合、留意すべき点としていくつか上げられる。すなわち口底には顎下腺、舌下腺、および唾液腺管が存在するため、これらをできるだけ損傷しないように注意すべきである。さらに口底には筋肉群が錯走し、また疎な結合組織に満された組織隙があり、これらは互いに連絡しており、時には後の炎症性変化が頸部、縦隔におよぶことがありうることを念頭においておくべきである。特に

呼吸器系の入口となっているため、術後の気道の確保に注意を要する。本報告例では症例1は比較的境界が明瞭であったため、細包療法にひきつづき全摘出を行い、症例2では周囲組織との境界が不明瞭であり、さらに深部におよんでいたため、腫瘍の上端を一部切除したのみで経過観察している、2例とも経過は良好で現在に至っている。今後、さらに再発および増大という点について経過観察を要するものと思われる。

なお本報告例の症例2は、14歳の時右側下顎エナメル上皮腫として当科において処置を受け治癒した後に、約3カ月経過して口底の血管腫に気付いたものであり、これら両腫瘍の口腔内、および時期をほぼ同じくして発症を観察した併発例としては、稀なものと考えられるので、別の機会にエナメル上皮腫とあわせて考察したい。

III. む す び

血管腫が口底部に発生するのは稀と思われるが、今回われわれは5歳と14歳女児の口底部に発生した、比較的大きな血管腫を2例経験し、術後再発なく順調に経過しているので報告した。さらに当科における血管腫の過去3年間の統計的観察を行い、加えて文献の考察を行った。

稿を終えるにあたり、本報告の病理組織学的検索にご指導、ご教授を頂いた本学口腔病理学教室主任石川梧朗教授、那須道世先生に深謝致します。

文 献

- 1) 石川梧朗, 秋吉正豊: 口腔病理学, II. 改装版, 永末書店, 京都, 1970, 988頁。
- 2) 松村智広, 他: 血管腫患者の統計的観察. 口科誌 22: 476 1973.
- 3) Friedman, J. M., Gormley, M. B., Kupfer, S., Jarrett, W., Brooklyn, M.: Cavernous hemangioma of the oral cavity: review of the literature and report of case. J Oral Surg 31: 617 1973.
- 4) Lund, B. A and Dahlin, D. C: Hemangiomas of the mandible and maxilla. J Oral Surg Anesth Hosp D Serv 22: 234 1964.
- 5) Shklar, G., Meyer, I.: Vascular tumors of the mouth and jaws. Oral Surg 19: 335 1965.
- 6) 中村平蔵: 最新口腔外科学. 第1版第3刷, 医歯薬出版, 東京, 1973, 573頁。
- 7) 北村包彦, 川村太郎: 小皮膚科学. 改訂第8版増刷, 金原出版, 東京, 1963, 143頁。