occipital-vertebral anastomosis を有した下口唇，オトガイ部，頬部にわたる巨大な血管腫の1手術例

小室 歳 信・長谷川幸一・工 藤 泰 一・北島晴比古
中島 信 雄・岡山 正 明・江 塚 知 義・小 森 康 雄
松尾 敏 明・西田 紘 一・成田 令 博・内田 安 信

A case of large hemangioma extend lower lip, mental and buccal area with occipital-vertebral anastomosis

Toshinobu KOMURO・Koichi HASEGAWA・Taiichi KUDO・Haruhiko KITAJIMA
Nobuo NAKAJIMA・Masaaki OKAYAMA・Tomoyoshi EZUKA・Yasuo KOMORI
Toshiaki MATSUO・Koichi NISHIDA・Yoshihiro NARITA・Yasunobu UCHIDA

緒 言

口腔，顔面領域は血管腫の好発部位であり，他の部に比してその発生頻度が高いが，その多くは比較的小さいものであり，大きさが手拳大以上のものの報告は少ない¹⁻³⁾。また本疾患の治療は，審美上，あるいは手術や外傷による出血に際して止血が困難であるという本疾患の性質上，苦慮する例が多く，従来から種々の方法が試みられているが，いまだ的確な治療法が確立されていないのが現状である。

今回われわれは，55歳男性で，後頭動脈―椎骨動脈吻合 occipital-vertebral anastomosis (以下 O.V.A. と略) を有し，極めて止血困難であった下口唇からオトガイ部・頬部にかけての巨大な血管腫の症例を経験したので，ここにその概要を報告する。

症 例

患 者：55歳 男性。

初 診：昭和53年8月。

主 訴：下口唇からオトガイ部にかけての腫脹および出血。

家族歴：特記事項なし。

既往歴：昭和41年，腎結核に罹患し，左側腎臓摘出手術を受けている他，特記する疾患はない。

現病歴：約10年前に下口唇に大豆大の腫脹のあるのに

気づき，某病院口腔外科を受診し，摘出をすすめられたが，疼痛・機能障害等がないため，放置していた。

その後，腫脹は漸次増大傾向を示し，昭和53年8月，下口唇正中部より血管の破綻をきたして大出血を認めたので，ただちに同病院口腔外科を再受診した。即日入院の下に，下口唇周囲の囲繞結紮手術を受け，ようやく止血したということである。この間約700ccの出血をみたため，800ccの輸血を受けている。5日間の入院後，同病院の入院事情により，8月当科に紹介され受診したものである。

現 症：顔貌は非対称性で，下口唇は小児手拳大程度に腫脹し，赤唇部と口唇皮膚の判別は困難であった。腫

写真 1 初診時顔貌写真

東京医科大学口腔外科学教室(主任：内田安信教授)
Tokyo Medical College, Department of Oral Surgery (Chief: Prof. Yasunobu Uchida)

受付日：昭和54年12月25日

写真 2 口唇部写真

唇部は暗紫色を呈し、表面は滑沢であり、触診によって圧縮性を有していた(写真1, 2)。

口腔内は左側下口唇部より頬粘膜にかけて広範囲に暗紫色の腫脹および、それに伴う圧迫によると思われる歯列の内側転移がみられた。顎下リンパ節は触知されなかった。

臨床検査成績：臨床検査成績は、血沈値のみ1時間値60mm, 2時間値92mmと亢進を示した他、特に異常は認められなかった。

臨床診断：下口唇およびオトガイ部、頬部にかけての血管腫。

処置および経過：昭和53年9月 超音波血流計を用いて血流測定を行い(写真3, 4), さらに9月 左右の外頸動脈撮影 carotid angiography (以下 C.A.G. と

略)を施行した(写真5)。9月 患側の外頸動脈結紮術を行い(写真6), 健側は再度の angiography にて、血管腫への関与を確認の上、翌日結紮を行った。

しかし、血管腫の縮小傾向は全く認められず、10月 腫瘍摘出手術を計画した。注射針による穿刺により噴水のように血液の噴出をみたので、まず血管腫をとり囲み縫合糸によって囲繞結紮を行った。しかしなお、腫瘍の縮小はみられず血液の流入がうかがえたので、さらに電気メスに elastic needle を接続し、結紮した腫瘍内部の焼灼凝固を行い、流入血管血流の凝固阻止を計ったが、ほとんど効果はみられず、刺入口より血液の噴出が著しくみられた。周囲組織の囲繞結紮焼灼のみでは血流の阻止は不可能と判断し内部の焼灼を行った。皮膚側、粘膜側より触診しつつ腫瘍の内部組織全域にわたり焼灼凝固を計ったが、内部は血管そのものであり脆弱で十分な効果を得るには至らなかった。そこで、現状態ではメスを入れることは不可能と考えられたので、組織の器質化を目的として、さらに焼灼を続けた後、口腔の内外よりオストロン板にて圧迫し、手術を終了した。

10月, 再度左右の C.A.G. を行ったところ、外頸動脈の結紮は確認されたが、他動脈特に、椎骨動脈の腫瘍への関与が窺えたので、左側椎骨動脈撮影 vertebral angiography (以下 V.A.G. と略)を行ったところ、O.V.A. の所見が得られた(写真7)。

11月, 2度目の血流測定によって、左右の口角部と右側オトガイ部に拍動が認められたため、12月, 両側オトガイ動脈の結紮を行い、12月 さらに同部の血流状態を考慮しながら腫瘍の摘出手術を施行した。な

写真 3 側面

写真 4 顎下部

血流経路

写真 5 C.A.G. 所見

写真 6 外頸動脈結紮により、血流の遮断がみられる。

写真 7 V.A.G. 所見

後頭動脈と椎骨動脈の筋枝間吻合 (←印部) がみられる。

お手術時の血流測定によって、頰動脈も腫瘍中に流入している像が認められたのですが、elastic needle に残存していると思われる部分を重点的に組織内凝固を実施した後、切除を行ったが、手術は大量出血もみられず腫瘍部分と正中部の壊死組織部分を含めほぼ完全に摘出することができた。切除部分は、可能な限り筋層、皮膚、粘膜を引き寄せて縫合し、口唇欠損部分は肥厚した口腔前庭粘膜を遊離移動し形態の回復を計った。後日さらに、創面の治癒をまって形成外科的に修正手術を行う予定である (写真 8, 9)。

病理組織学的所見：組織の大部分は横紋筋組織および線維性組織であり、このなかに多数の内腔拡張性の小血管増生がみられ、焼灼や結紮処置のため、どの部分も壊死に陥っていた (写真 10, 11)。

写真 8 正面

写真 9 側面

術後約 1 年の顔貌写真

写真 10 症理組織像, 弱拡大

写真 11 病理組織像, 強拡大

病理組織診断: 海绵状血管腫.

考 察

口腔領域の血管腫は, 口唇, 舌, 頬粘膜が好発部位であり¹⁻¹¹⁾, その大きさは一般に指示頭大以下が多いとされている¹⁻³⁾. 滝川ら³⁾によれば, 大きさの明らかにされている文献64例のなかでは, 鷲卵大5例(7.8%), 鶏卵大9例(14.1%), 拇指頭大12例(18.8%), 指示頭大11例(17.2%), 小指頭大13例(20.3%), 大豆大7例(10.9%)そして小豆大7例(10.9%)となっており, 本症例のように口腔領域における血管腫として小児の手拳大ほどの大きさは, かなり大きな部類に属すると思われる. このような巨大な血管腫であり, さらに O.V.A. を有するため, 治療には多くの適応が限定された.

血管腫に対する治療法は, 現在まで放射線療法, 電気焼灼法, 細包療法, 外科的摘出手術法そして最近多用されてきている凍結外科療法, およびこれらの併用療法等が行われている¹²⁾.

本症例は, 血管腫の大きさが小児の手拳大ほどもあり, 部位が顔面であるためいずれの治療法も, 技術的な面で, あるいは審美的な障害をのこす面で極めて困難と予想された.

保存療法のうち放射線療法に関して, 立原¹³⁾は, 皮膚表在性の毛細血管性血管腫に対しては, P³²によるβ線外面照射の効果が認められるが, 深在性の海绵状血管腫においては感受性が低く, 効果的でないと述べている. また, 藤田ら¹⁴⁾は, 放射線の効果は年齢に関係し, 生後6か月未満のものでは P³²のβ線外面照射は100%の治療効果が期待できるが, 加齢につれて有効率が減少すると報告している. 本症例は, 腫瘍の性質, 大きさ, 年齢などの点から放射線治療の適応外と考えられた.

最近, sclerotherapy¹⁵⁻¹⁷⁾, すなわち, sclerosing agents (以下 S.A. と略) を用いて組織の線維化, 瘢痕化を計り, 腫瘍を縮小・治癒に導く方法も行われている. 本法

は, 線維化の終了ならびに周囲正常組織の炎症症状の回復まで3~4週間を要し, また尾崎ら¹⁵⁾の報告では, 小血管では S.A. の注入後, 血管内腔が結合組織の増殖によって閉鎖され, 再疎通をきたさないが, 大血管の場合は完全に閉鎖することは困難であると述べている. 本法は, 腫瘍の大きさの点からいっても1.5×1.5 cm 程度のもので適応であるとされ¹⁶⁾, 遠隔主要臓器への血栓形成¹⁷⁾も考えると, 本症例のように, 約10×6×4 cm 大のものに対しては適応外と考えられた.

また, 最近行われている冷凍外科療法についても, 大きさの点, 術後壊死による大出血の危険性などから考えると, やはり不適応と考えられた¹⁸⁻²⁰⁾.

また, 血管腫の治療にレーザー光線を使用した文献も散見せられるようになり²¹⁾, Shafir²²⁾ は, 最少限に出血量を抑制できること, 電気メスや凍結療法に比し壊死部分が少なく, 治療が障害されないこと, 術後疼痛が少ないこと等の利点を有しているが, 本法も血管腫の性状, 大きさなどの点から困難と考えられた.

以上の諸点から, 本症例に対しては, 囲繞結紮, 電気凝固・焼灼を併用した外科的摘出手術療法を施行したものである. 本症例は前医により, 両側顔面動脈結紮, さらに手術に際し両側外頸動脈結紮術を施行したにもかかわらず, 腫瘍の縮小はみられず, 手術時にも極めて止血困難であったことから, 患側の V.A.G. を行い, これによって外頸動脈の枝である後頭動脈と椎骨動脈との吻合の存在を発見したものである. 腫瘍への血流は, 椎骨動脈から吻合枝を経て下歯槽動脈へ入り, 下口唇血管腫へと流入する経路を確認できた. このため, さらに両側オトガイ動脈の結紮をも必要とした症例であった.

O.V.A. の形態には, 後頭動脈と椎骨動脈とを太い血管で連結する直接吻合と, 筋枝により連結する筋枝間吻合の2種類がみられるとされ, いずれも健常では, 全く生体に障害を示さないが, 顎・顔面領域の手術に際して, 本症例のように重篤な出血症状を示し, 止血困難に遭遇する場合がある²³⁻²⁶⁾. 口腔領域に発生した血管腫の

症例で、O.V.A. が証明されたものは、われわれが渉猟し得た範囲では、佐竹ら²⁷⁾、古賀ら²⁸⁾、阿部ら⁴⁾の3症例にすぎなかった。

この吻合について、Padget²⁹⁾は、胎児身長4mmの時期に後頭動脈-椎骨動脈の直接吻合を認め、胎児身長14mmで退化がみられ、内頸動脈の閉塞がこの退化以前に起こった場合に、直接吻合枝は遺残し、退化後に閉塞が起こった場合、筋枝による吻合網が形成されるであろうと推測している。

Bosniak³⁰⁾は、O.V.A. は、主幹動脈が閉塞した時、初めて活動を開始し、血管造影されるものであると述べている。

Gray³¹⁾、Rauber-Kopsch³²⁾は、この吻合は解剖学的には存在しないと述べているが、その発見は極めてまれであるといわれている。Schechter ら³³⁾は、V.A.G. により、吻合のみられるものは1%以下であろうとしており、さらに、Richter³⁴⁾は、V.A.G. を行った30例のうち2例に、高橋ら³⁵⁾は、C.A.G. 2,108例、V.A.G. 315例、計2,423例中4例に認められたにすぎないと報告している。また、儀藤ら³⁶⁾によれば、V.A.G. 100例中4例にこの吻合が認められ、一般に血管造影でこれが証明される頻度は1~6%程度であると述べている。

本症例は、血管腫摘出に際し、極めて止血困難であり、その原因精査のための血管造影によって本吻合の発見されたまれな症例と考えられた。

結 論

1) われわれは、occipital-vertebral anastomosisを有し、止血に困難を極めた巨大な下口唇、オトガイ部、頬部にわたる血管腫の1例を経験した。

2) 本症例は、両側外頸動脈結紮後も血管腫の大きさに変化がみられなかったことから、左側椎骨動脈の撮影を行った結果、椎骨動脈が関与していることが確認された。

3) この結果、腫瘍への血流は、外頸動脈の枝の後頭動脈と椎骨動脈との筋枝間吻合によるものと判明した。

4) 処置は、梱包療法、電気焼灼および摘出手術を併用することによって完全に摘出することができた。なお、術後約1年を経過しているが、再発はみられていない。

引用文献

- 1) 山崎美恵子，他：口腔領域における血管腫24例の臨床的観察。新瀉歯学会誌 6: 77 1976.
- 2) 松村智弘，他：血管腫患者の統計的観察。口科誌 22: 476 1973.
- 3) 滝川富雄，他：口腔外科領域のいわゆる血管腫に関する臨床病理学的研究——第4報 本邦に

おける文献例の統計的観察。日大歯学 46: 494 1972.

- 4) 阿部広幸，他：歯肉出血を主訴とした右側上顎骨血管腫の抜歯経験。日口外誌 25: 1537 1979.
- 5) 堀越達郎，他：巨大な頤部血管腫の1例。口病誌 20: 172 1953.
- 6) 大谷隆俊，他：咬筋部に発生した海綿状血管腫の1例。口科誌 17: 524 1968.
- 7) 西嶋克己，他：結石を有する頤部血管腫の1例ならびにその文献的考察。日口外誌 12: 171 1966.
- 8) 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 1964.
- 9) 東 俊雄，他：静脈石を有した舌下血管腫の1例とその静脈石の Electron Microprobe X-ray Analyzer による分析所見について。日口外誌 16: 181 1970.
- 10) 長尾喜景，他：両側頤下部に発生した多数の静脈石を有する海綿状血管腫の一例。歯科学報 60: 390 1960.
- 11) 伊藤輝夫，他：下口唇-オトガイ部に発生した巨大な血管腫について——その1 摘出術と即時皮膚形成。日口外誌 22: 30 1976.
- 12) 小池吉郎，他：頭頸部脈管系腫瘍の治療法について。耳喉 44: 93 1972.
- 13) 立原義夫：血管腫の研究——特に P³² 外面照射の効果と血管腫組織構造との関係に就いて。日皮科誌 69: 790 1959.
- 14) 藤田順一，他：皮膚単純性血管腫のβ線療法。医療 9: 54 1955.
- 15) 尾崎登喜雄，他：Sclerosing Agents の正常家兎舌、頬粘膜に対する組織反応について。口科誌 20: 329 1971.
- 16) 駒井正昭：口腔領域の血管腫に組織硬化剤 sodium morrhuate の応用。岡山県歯科医師会報 258: 20 1971.
- 17) 浜田 曉，他：組織硬化剤による血管腫の治療について。口科誌 20: 524 1971.
- 18) 田中茂男，永田 丕：Cryosurgery の外科臨床への応用——ことに各種腫瘍の破壊について——。臨外 25: 19 1970.
- 19) 和久勝彦：創傷治癒に伴う血管の立体的研究—12 冷凍外科が血管系におよぼす影響。歯科医学 39: 118 1976.
- 20) 飯田 武，他：血管腫に対する cryosurgery. 日口外誌 23: 513 1977.
- 21) Ben-Bassat, M., et al.: The CO₂ laser in Surgery of the tongue. Brit J Plast Surg 31: 155 1978.
- 22) Shafir, R., et al.: Excision of buccal hemangioma by carbon dioxide laser beam. Oral Surg 44: 347 1977.
- 23) 玉木紀彦，他：一側内頸動脈および対側頤動脈閉塞後の脳側副循環について——脳側副循環の血管造影による研究 第1報——。脳と神経

- 21: 25 1969.
- 24) 伊藤健次郎, 他: External Carotid-Basilar anastomosis の 1 例. 脳神経外科 3:429 1975.
- 25) 半田譲二, 他: Carotid-basilar anastomosis. Arteria Hypoglossica Primitiva. 脳と神経 19: 871 1967.
- 26) 二村敦朗, 他: External Carotid-Basilar Anastomosis. 頭部外傷にさいして偶然発見された 1 例. 脳と神経 22: 101 1970.
- 27) 佐竹幸雄, 他: 下顎骨中心性血管腫の 1 例. 日口外誌 21: 170 1975.
- 28) 古賀信憲, 他: 反復性多量鼻出血を伴う上顎血管腫の人工栓塞法による一治験例. 耳喉 51: 185 1970.
- 29) Padget, D.H.: The development of the cranial arteries in the human embryo. Contrib Embryol 32: 205 1948.
- 30) Bosniak, M.A.: Cervical arterial pathways associated with brachiocephalic occlusive disease. Am J Roengenol 91: 1232 1964.
- 31) Gray, H.: Anatomy of the human body. 27 th ed, Lea & Febiger, Philadelphia, 1959.
- 32) Rauber-Kopsch: Lehrbuch und Atlas der Anatomie des Menschen. Aufl Thieme Stuttgart, 1955, p 562.
- 33) Schechter, M.M.: The occipital-vertebral anastomosis. J Neurosurg 21: 758 1964.
- 34) Richter, R.H.: Collaterals between the external carotid artery and the vertebral artery in cases of thrombosis of the internal carotid artery. Acta radiol 40: 108 1953.
- 35) 高橋 弘, 他: Occipital-Vertebral Anastomosis の 4 症例. 脳と神経 23: 1315 1971.
- 36) 儀藤洋治, 他: 後頭動脈-椎骨動脈吻合枝について. 臨床放射線 20: 17 1975.