類皮嚢胞を疑った口底部血管腫の症例

齋藤 晃一・茂木 健司・本多 善孝・杉木 博文

小川 卓・大久保滋郎・松田 登・清水 正嗣*

A case of hemangioma of oral floor suspected dermoid cyst

Koichi SAITO・Kenzi MOGI・Yoshitaka HONDA・Hirofumi SUGIKI

Takashi OGAWA・Shigeo OKUBO・Noboru MATSUDA・Masatsugu SHIMIZU*

はじめに

口腔領域の血管腫は比較的多い疾患であり、舌、口唇、頬粘膜などに好発するが、軟組織の深部や顎骨内に生じた場合には臨床上類似の疾患と診断が困難な場合が起こる。

今回、著者らは、血管腫としては発生頻度の少ない口底部に生じ、臨床的に類皮嚢胞を疑わせた静脈性血管腫の1例を経験したので、その概要を報告する。

症 例

患 者： 2歳2か月 男児。

初 診：昭和49年3月 日。

主 訴：口底部の腫脹。

家族歴：特記事項はない。

既往歴：特記事項はない。

現病歴：昭和48年11月頃、家族がオトガイ下部の無痛性腫脹に気づいた。その後経過をみていたが症状が変らないため、昭和49年2月、某病院外科を受診したところ、オトガイ下部から舌下部にかけての嚢胞の疑いで当科を紹介され来院した。

現 症

全身所見：体格、栄養状態ともに良好である。

写真1 初診時、オトガイ下部の腫脹を示す。

写真2 初診時、舌下正中部を中心に腫脹が認められる。

口腔外所見：オトガイ下部に境界が比較的に明瞭な拇指頭大の腫脹がみられ（写真1）、同部の皮膚の色調は周囲と変りがない。弾性軟の腫脹であり、圧縮性はなく、圧痛、拍動性、勃起性はすべて認められなかった。両側の顎下リンパ節は触知できなかった。

口腔内所見：舌下の正中部に拇指頭大の半球状の腫脹がみられ、腫脹はオトガイ下部にまで及んでいた（写真2）。表面粘膜の色調は正常であり、腫瘍は弾力性があり

群馬大学医学部口腔外科学教室

（主任：松田 登教授）

* 大分医科大学歯科口腔外科

（主任：清水正嗣教授）

Department of Oral Surgery, School of Medicine, Gunma University (Chief: Prof. Noboru Matsuda)

* Department of Dento-Oral Surgery, Medical College of Oita (Chief: Prof. Masatsugu Shimizu)

受付日：昭和58年5月19日

写真 3 生検時の病理組織像 (H-E 染色, ×80)

やや軟かく、軽度の可動性があったが圧痛はなく、圧縮性は明らかではなかった。舌はやや挙上されていたが、舌の運動障害はなかった。また舌下小丘、舌下ヒダ、歯列弓にも異常はなかった。

X線写真所見：とくに異常はなく、静脈石様の像はみられなかった。

試験穿刺所見：口腔内からの穿刺により少量の血液が吸引された。

臨床診断：口底部類皮嚢胞の疑い。

処置および経過：昭和49年11月■日に入院させ、類皮嚢胞の場合には摘出し、以前の試験穿刺では血液が吸引され血管性病変も考えられたので、血管性病変の場合には試験切除を行う方針にした。同年11月■日、全身麻酔下で口腔内に切開を加え剥離を進めたところ、オトガイ舌骨筋を貫いて、出血しやすい赤紫色の圧縮性のある血管腫様の腫瘍を認めたので穿刺をしたところ、血液を吸引したため試験切除に止めた。出血量は10 mlであった。

生検像：迂曲蛇行する静脈性血管腔が多数存在し、その壁が肥厚しているので静脈性血管腫と診断された(写真3)。

本症例の腫脹の原因が静脈性血管腫であることを両親に説明したところ、“悪性でなければ、経過をみて少し期間を置いてから手術を受けたい”，と強く希望したので、その後外来で経過観察を続けた。オトガイ下部および舌下部の腫脹は徐々に増大し、昭和56年1月(年齢9歳時)には小鶏卵大に達した。腫瘍の増大のため両親ならびに本人も手術を希望したので同年4月■日、血管腫摘出術の前準備として血管造影を本学中央放射線科に依頼し、Angio-Grafin による選択的左右外頸動脈の造影を施行した。

血管造影像：左右オトガイ下動脈からの動脈がオトガイ下部の腫瘍を取り囲むように走向し、腫瘍内には造影剤の取り込みはなく、pooling および shunt などは認められなかった(写真4)。

写真 4 左側外頸動脈よりの血管造影像

写真 5 手術直前のオトガイ下口腔底の腫脹を示す。

初診から約7年間経過し、腫瘍は身体の成長とともに増大し、オトガイ下部皮膚面で計測すると8×6 cmに達したが(写真5)、腫脹部の被覆粘膜、皮膚の性状や、腫脹部の圧縮性、勃起性、圧痛などの所見は初診時にくらべると変化はなかった。

術前の血液、尿の一般検査成績には異常は認められなかった(表1)。

昭和56年8月■日、GOF・全身麻酔下で口腔外から血管腫摘出術を行った。オトガイ下部の腫瘍直下の皮膚に約7 cmの横切開を加え鈍的に剥離を進めると、広頸筋の下方に出血性の暗紫色の腫瘍が存在し、数本の比較的大い血管が腫瘍内に進入しているのが確認された。健康組織との境界は比較的明瞭であったが、出血の危険を避けるため周囲組織の一部を含めて腫瘍を摘出した。出血量は130 mlであった。術後の治癒経過は良好で、現在、1年7か月を経過するがなんらの異常を認めない。

表 1 術前検査成績

血液一般検査	
赤血球数	4.61×10/mm ³
ヘマトクリット値	40.4%
血色素量	14.1 g/dl
白血球数	6.1×10/mm ³
血小板数	234×10/mm ³
血清生化学的検査	
総蛋白	7.2 g/dl
アルブミン	4.6 g/dl
総ビリルビン	0.4 g/dl
直接ビリルビン	0.1 g/dl
GOT	32 IU/l
GPT	24 IU/l
LDH	384 IU/l
Al-p	584 IU/l
クレアチニン	0.6 mg/dl
Na	142 mEq/l
K	3.7 mEq/l
Cl	102 mEq/l
尿一般検査	
色調	淡黄
比重	1.024
pH	8.0
蛋白	(-)
糖	(-)
ウロビリノーゲン	(±)
ビリルビン	(-)
アセトン体	(-)
潜血	(-)
梅毒血清反応	(-)

写真 6 術後1年7か月の口腔外所見

写真 7 摘出物の断面
右上は血管腫内の血栓の断面を示す。

写真 8 病理組織像 (H-E 染色)
矢印は血栓、右上は層状構造をもつ血栓を示す。

(写真 6)。

摘出物所見：大きさ鶏卵大で、重量は18gであった。表面は暗赤色を呈し、弾性軟であった。断面は海綿状を呈し、小血管の集合を思わせ（写真7）、腫瘍中に静脈石様の直径約5mmの暗赤色の球状硬固物が1個存在していた。球状硬固物の断面は、中心部が黄白色で周囲より硬く石灰化しているように思われた（写真7・右上）。しかし摘出物のX線像では、静脈結石のさいにみられるX線不透過像は認められなかった。

病理組織像：静脈血管が多数増生しており、結合織および脂肪組織内にも進入している。血管内膜には線維性肥厚が認められ、血管内には新旧の血栓が多数観察され、血栓中には異物巨細胞もみられる（写真8）。

球状硬固物は層状構造をもつ血栓で、中心部に軽度の石灰化が生じており、静脈石化が認められた（写真8、右上）。

以上の所見より、静脈石の形成傾向のみられる血栓を伴った静脈性血管腫と診断した。

考 察

血管腫は血管組織からなる腫瘍、あるいは組織奇形な

いし過誤腫と考えられており、口腔領域に比較的多い疾患である。

本疾患は舌、口唇、頬粘膜に好発し^{1,2)}、まれには顎骨^{3,4)}内にも生じる。口底部に生じた血管腫は、舌、口唇、頬粘膜に比較するとはるかに少なく、滝川ら⁵⁾は154例のうち7例(4.6%)、奥山ら⁶⁾によると44例のうち1例(2%)にすぎず、また松村ら⁷⁾は82例のうち口底部には1例も認められなかったと述べている。このように口底部に発生した自験例は、血管腫としては数少ない症例と考えられる⁸⁻¹¹⁾。

発生年齢については、本腫瘍は先天的に生じるので大部分は出生時に発見され、出生時にみられなかった血管腫の大部分は生後6か月以内に明らかになるとされている¹²⁾。Watsonら¹³⁾は本腫瘍1,058例のうち出生時に73%を認め、生後1年以内に85%が見い出されたと報告している。また、橋本ら¹⁴⁾は出生時に認められた症例は127例のうち37例(27%)であり、11例(9%)が0～9歳に認められたと記載し、滝川ら⁵⁾は85例のうち28例(33%)が1年未満に認められ、30例(38%)が1～9歳に発見されたと述べている。本症例では、血管腫が比較的深部に発生したにもかかわらず、1歳10か月頃すでに腫脹に気づいているので、腫瘍発症の時期は出生時頃と推定される。

表在性の血管腫では、一般に色調、拍動性、圧縮性、試験穿刺などによって診断は付けられるが、深在性の場合には明確な視診所見が得られない場合があり、試験穿刺や病理組織検査によって確定診断をくだすことがある。本症例は腫瘍の位置が深在性のため写真1、2のように正中部の舌下口腔底が腫脹し、血管腫の視診所見や圧縮性、拍動性、勃起性の特徴を示さず、頬皮嚢胞の臨床像にきわめて類似しており、試験切除によって血管腫の確定診断が得られた珍しい症例であった。血管腫の可能性が大きい場合には、本症例で行った選択的血管造影は確定診断上にも役立つ、しかも輸入血管の存在、血管腫の大きさ、性状を知ることができ有用な検査と思われる。本症例では頬皮嚢胞のはかに甲状舌管嚢胞、腺腫、脂肪腫が鑑別を要する疾患として考えられる。

血管腫は組織学的にいろいろ分類されているが、石川ら¹⁾は単純性、海綿状、蔓状の3型に分類している。本症例では筋層の発達した壁を有する静脈のうねりから成り立っているため、石川ら¹⁾の分類による蔓状血管腫と考えられ、またSchnyder¹⁵⁾、大島ら^{16,17)}の分類では静脈性血管腫に属した。頸部に発生した静脈性血管腫の多くは嚢胞性リンパ管腫と混在してみられるという報告^{18,19)}もあるが、本症例では嚢胞性リンパ管腫は存在しなかった。

自験例では血管腫内に中心部が石灰化した層状構造をもつ血栓が存在した。静脈石の成因^{10,20)}については全身的⁹⁾および局所的因子があげられている。一般に血管腫

内の局所の循環血液の速度が低下し、血管壁に付着した血栓が同心円的に線維化し、器質化され、その後中心部が壊死におちいり石灰化沈着を起こし、ついで血栓と血管壁との間の組織が漸次萎縮し、ついに静脈石は血管腔内に遊離すると考えられている。松田ら²¹⁾や上野ら²²⁾は、静脈石の形成段階を病理組織標本により模式図的に提示している。本症例では、腫瘍内に中心部が石灰化した層状構造をもつ血栓と、多数のいまだ石灰化を含み血栓がみられた。これらの血栓はやがて静脈石に進展する前段階の所見を示していた。

治療法として外科的療法、凍結療法²³⁾、血管硬化剤の注入²⁴⁾が一般に用いられているが、治療法の選択は、腫瘍の組織型、発生部位、性状や年齢などを考慮し決定されている。しかし、血管腫の型のうちとくにsalmon patchでは、自然治癒の可能性があるため経過観察がすすめられている²⁵⁾。本症例では、初診時が聞き分けのない幼児期であり、さらに両親の希望が強かったため経過観察を行うことにした。時間の経過とともに腫瘍は漸次増大したが、深在性のため局所刺激による出血の恐れが少なく、また腫瘍が限局していたので、両親ならびに本人の手術の希望と術後管理の容易な時期を選び摘出術を行い、予後良好な結果を得ている。

ま と め

2歳2か月男児の舌下口底部の正中部を中心に、腫瘍が比較的深部に発生したため臨床に、頬皮嚢胞を思わせた静脈石の形成傾向のある血栓を伴う静脈性血管腫の概要を報告した。

本論文の要旨は、昭和57年6月、第123回日本口腔外科学会関東地方会において発表した。血管造影につきご教示いただいた本学中央放射線科副部長・平敷淳子助教授に感謝する。

引用文献

- 1) 石川梧郎，他：口腔病理学Ⅱ。永末書店，京都，1970，988頁。
- 2) Thoma, K.H., et al.: Contribution to the oncology of the jaws. *Oral Surg* 1: 40 1948.
- 3) 佐竹幸雄，他：下顎骨中心性血管腫の1例。日口外誌 21: 170 1975.
- 4) 山田隆一，他：下顎骨中心性血管腫の1例。日口外誌 22: 810 1976.
- 5) 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。日大歯学 46: 494 1972.
- 6) 奥山文雄，他：小児の口底部に発生した血管腫の2例。日口外誌 22: 860 1976.
- 7) 松村智弘，他：血管腫患者の統計的観察。日口外誌 22: 476 1973.

- 8) 久野吉雄, 他: 静脈石を有した口腔底部血管腫の1例. 日口外誌 15: 116 1969.
 - 9) 増田正樹, 他: 多数の結石を有するオトガイ下口底部血管腫の1例. 日口外誌 17: 428 1971.
 - 10) 松田 登, 他: 多数の静脈石を伴った舌下口腔底血管腫の1例. 口外誌 8: 18 1962.
 - 11) 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. 日口外誌 16: 181 1970.
 - 12) 鈴木慶二, 他: 血管腫. 耳喉 49: 731 1977.
 - 13) Watson, W.L., et al.: Blood and lymphvessel tumor. Surg Gynec & Obs 71: 569 1970.
 - 14) 橋本賢二, 他: 最近の10年間における血管腫の臨床統計的観察. 日口外誌 23: 680 1977.
 - 15) Schnyder, U.W.: Zur Klinik und Histologie der Angiome. IV. Arch klin exp Derm 204. 457 1957.
 - 16) 大島良夫, 他: 2, 3 の血管腫と血管造影. 形成外科 19: 101 1976.
 - 17) 大島良夫, 他: Cystic hemangioma の3例. 形成外科 21: 300 1978.
 - 18) Landing, B.H., et al.: Tumors of the cardiovascular system. AFIP, Washington DC, 1966, p 67.
 - 19) 泉 廣次, 他: 顎下部に発生した静脈性血管腫の1症例. 日口外誌 25: 152 1979.
 - 20) Parker, L.A.: Phleboliths. Oral Surg 18: 476 1963.
 - 21) 松田 登, 他: 顎下腺結石症の二型について. 口外誌 9: 231 1963.
 - 22) 上野 正, 他: 多数の静脈石を伴った頬部血管腫の1例. 日口外誌 19: 202 1973.
 - 23) 飯田 武, 他: 血管腫に対する Cryo surgery. 日口外誌 23: 513 1977.
 - 24) 浜田 驍, 他: 組織硬化剤による血管腫の治療について. 口科誌 20: 529 1971.
 - 25) 大浦武彦: 血管腫について. 形成外科 17: 393 1975.
-