下顎骨に発生した動静脈奇形

石橋利文・福田廣志・柴谷さき子・田所重映

Arteriovenous malformation of the mandible

Toshihumi ISHIBASHI・Hiroshi FUKUDA・Sakiko SOMEYA・Shigeaki TADOKORO

Abstract: Arteriovenous malformations of the jaws are considered to be rare lesions. A 14-year-old school boy was referred from a hospital for profuse bleeding after the extraction of the mandibular right first molar. Orthopantomography showed an irregular radiolucency extending from the mandibular right lateral incisor region to the right mandibular notch and dental film showed "soap bubble" appearance. In angiogram the main feeding vessels appeared to be the right facial artery, the right lingual artery, the right inferior alveolar artery, the right maxillary artery and the right buccal artery. Especially the right facial artery was as enlarged as the right external carotid artery. Embolization of the facial artery was performed to decrease the blood flow in the region of the mandibular lesion. The next day under nasoendotracheal general anesthesia, preparations were made for enucleation by the ligations of the right external carotid, right lingual and right facial arteries. The enucleation of the tumor was carried out by an intraoral approach. The beginning of the operation was followed by profuse bleeding. However, after the ligation of the right inferior alveolar artery, hemorrhage was controlled and the tumor was removed with relative ease. The postoperative course was entirely without complications. An orthopantomography taken one year and seven months after the operation showed significant osseous regeneration in the area of the lesion. The pathological diagnosis was arteriovenous malformation.

Key words: arteriovenous malformation, mandible

結 言

顎の血管異常は通常、顎骨血管腫、顎骨中心性血管腫、海綿状血管腫として報告されているが¹⁻⁴⁾、顎の動静脈奇形⁵⁾、顎の血管奇形⁶⁾、搏動性血管腫⁷⁾等としての報告もみられる。このような顎の血管の疾患はかなりまれな疾患で、場合によっては死の転帰をとる疾患として報告されている^{3,4,8,9)}。Lamberg ら⁹⁾ (1979) によれば死の転帰をとった報告は11例で、そのうち9例が下顎、2例が上顎であり、死の主な原因は9例が抜歯による出血死で、術前の出血による窒息死、生検による出血死が各

1例だったと述べている。一般的にこの疾患が臨床的には無症状であり、ただ歯牙の動揺およびX線的にはシャボン玉型の陰影像を示しているにすぎず、抜歯または組織生検の時の異常出血として発見されると報告されている¹⁻⁴⁾。

最近、著者らは某歯科にて 6) 抜歯後異常大量出血し、某病院耳鼻科を経て来院した顎の動静脈奇形の1例を経験したので、その概要を報告するとともに、従来の報告例について検索したので報告する。

症 例

患 者：14歳 男性。

初 診：1982年3月 。

主 訴：6) 抜歯後の異常大量出血。

家族歴および既往歴：特記すべき事項なし。

現病歴：5歳頃から食事の時、時に右下顎乳臼歯歯肉より出血した時あり。1982年2月初旬、6) が動揺し痛

筑波大学臨床医学系口腔科

(主任：根本一男教授)

Department of Stomatology, Institute of Clinical Medicine, University of Tsukuba (Chief: Prof. Kazuo Nemoto)

受付日：昭和59年3月5日

写真 1 初診時顔貌

写真 2 初診時口腔内の状態
開口障害および 6| 部に脱脂綿がタンボナーデされている。

写真 3 初診時のオルソパントモ像

み出し、某歯科受診し1か月程通院治療をしていたが、動揺が強くなったため3月■日6|を抜歯された。6|抜去後瞬時に血が噴き出し、脱脂綿、徒手にて圧迫止血された。ただちに某病院耳鼻科に入院し、止血処置として脱脂綿によるタンボナーデが施され、歯肉に縫合固定され、止血剤の全身投与を受けた。その時の出血量は約1,000 mlで、800 ml 輸血されていた。3月■日当病院を紹介され即日入院した。

現症：口腔外所見；体格強健、栄養状態良好だったが、顔色は蒼白であった。右頬部はび漫性に腫脹しており、右顎下リンパ節は小指頭大に腫脹し、可動性で圧痛を認めた(写真1)。

口腔内所見；開口障害あり(開口域2横指) 6|の抜歯創は脱脂綿によりタンボナーデされており、歯肉の腫脹、発赤、圧痛を認めたが出血はなかった(写真2)。5|および7|は歯牙の動揺が強く、いわゆる舞踏様の動揺を呈していた。他の歯牙は智歯が未萌出で16にアマルガム充填を認めるのみで健全であった。その他口腔粘膜に異常を認めなかった。

X線所見：オルソパントモおよび下顎骨斜位撮影法では2|より右下顎枝関節突起基部まで、境界不明瞭な透過像を認め、骨梁は消失、骨の吸収を疑わせる像を認めた(写真3, 4)。頭部 P-A 像では頬側への膨隆像を、口内撮影法では5|7|の部で、歯根膜腔、歯槽硬線の消失およびシャボン玉状の陰影欠損を認めた(写真5)。

初診時臨床検査所見；CRP(±)のほか特別異常値は認められなかった。

臨床診断：下顎骨中心性血管腫。

写真 4 初診時下顎骨斜位投影法X線像

処置および経過：入院当初出血による全身衰弱に対し栄養補給するとともに、6|抜歯創よりときどき出血が認められたため、出血防止のためにレジン床副子を765|部に装着した。病巣部への栄養血管確認のため血管造影を当院放射線科に依頼した。血管撮影では顎骨病

写真 5 口内法X線写真

5) 7) 部に歯根膜腔, 歯槽硬線の消失およびシャボン玉状の陰影欠損を認める。

写真 6 血管撮影

顔面動脈の拡張が認められる。

写真 7 退院時の顔貌

巣部に顔面動脈, 舌動脈および顎動脈の下歯槽動脈, 咬筋動脈, 頬動脈より輸入しているのが認められ, とくに顔面動脈は外顎動脈本幹とほぼ同程度に拡張して顎骨に進入しているのが認められた(写真6)。そこで, 顔面動脈の人工塞栓術を施行後, 患者の希望もあり, まず顎骨を保存して摘出手術をすることとし, 場合によっては右下顎半側切除をする方針とした。顔面動脈の人工塞栓術は当病院放射線科にて施行された。Gelfoam 小片(1×1×2 mm 程度) 60個を使用して行ったが, 顔面動脈が拡張しているため, 十分な効果は得られなかったという報告であった。翌日の3月■日経鼻挿管全麻下にて摘出術を行った。はじめに右総顎動脈を露出させ, 外顎動脈, 舌動脈, 顔面動脈を確認し, 外顎動脈起始部, 舌動脈, 顔面動脈の順に結紮した。次に口腔内より754Iの抜歯後, 粘膜を切開剥離して摘出を始めた。摘出開始時外顎動脈, 舌動脈, 顔面動脈を結紮したにもかかわらず出血が多くガーゼにて圧迫止血して, しばしば手術を中断せざるを得なかった。そこで顎動脈からの輸入動脈の下歯槽動脈結紮してから手術を進めることとし, 下顎小舌部で下歯槽動脈を結紮した。結紮後は出血は激減し剝

離摘出は比較的容易になり, 摘出に従い出血は他の一般的顎骨良性腫瘍摘出手術と同程度となり, 手術操作も楽になり, 完全に剝離摘出することができた。なお顎骨病巣内には, 来院前の止血処置の時に挿入されたと思われる悪臭の強い脱脂綿1枚を発見し摘出した。摘出後はエフトームで骨整形, bone wax, oxyzel を挿入して止血し, 口腔粘膜をデキソン系にて縫合し, 術前装着しておいた三内式シーネを, 術後骨折予防のため, ゴムにて顎間固定した。頸部は通法に従い縫合して手術を終了した。本手術の総出血量は3,500 ml, 輸血量は3,000 ml, 輸液量は3,400 ml 手術時間は4時間20分であった。

術後の創の治癒経過は順調で, 顎間固定を14日間行い経過観察していたが, 顎に過度の打撃が加わらなければ骨折はないと判断し, chin cap の顎外固定に変更し17

写真 8 手術後のオルソパントモ像

写真 9 術後1年7か月後のオルソパントモ像

写真 10 Von Gieson 染色

日目に退院した(写真7)。術後1年7か月現在、術直後からの右下唇オトガイ部の知覚麻痺も消失し、再発もなく欠損部には義歯も装着され元気に通学している。写真8は手術直後のオルソパントモ像であり、写真9は1年7か月後のもので骨梁も明瞭で、骨の再生、増生が認められる。

病理組織学的所見および病理組織診断：異物に対する反応が強く認められ肉芽腫様所見を呈しており、血管腫という所見が認められないということで、摘出標本のblock連続切片を作製した。標本では、脱脂綿の1部と

思われる異物を認め、炎症反応の強い肉芽腫様所見と、蛇行した動静脈が多数みられ、それらの間に、しばしば吻合している部が認められ、動静脈奇形と診断された(写真10)。

考 察

Lund ら⁸⁾(1964)の文献考察によると顎骨の血管腫について最初に発表したのは Stanley (1849) であり、彼はこの腫瘍は明らかに膨隆した血管からなり、母斑にかなり類似していると記載していると報告している。Hitzrot¹⁰⁾(1916)は、最初に上腕骨に発生した骨の血管腫のX線写真を発表した。Bucy ら¹¹⁾(1930)は1次性の骨血管腫8例の報告と文献例についての検索で、骨血管腫は脊椎に多く現れ、脊椎以外では頭蓋部に多く、顎骨に発現したのは下顎2例、硬口蓋2例、上顎1例計5例であったと述べている。Geschickter ら¹²⁾(1938)は Bucy ら後の骨血管腫について検索したところ49例あり、そのうち顎骨に発現したのは5例であったと述べている。Watson ら¹³⁾(1940)は血管リンパ管腫瘍1,056例中、骨に発現した血管腫は5例であり、そのうち顎骨に生じたものは1例であったと報告している。Smith⁴⁾(1959)は Stanley (1849)からの顎骨の血管腫の報告は29例で上顎7例、下顎19例、上顎咽頭喉頭、鼻腔上顎頭蓋底、上顎下顎各1例であり、そのうち抜歯による出血死亡例は3例だったと述べている。Lund ら⁸⁾(1964)は文献例35例のうち Mayo clinic での自験例4例を加え、年齢の不詳なもの1例を除いた38例について検索し、顎骨の血管腫は10歳代に多く出現し、死亡例3例も10歳代に認められ、男女比は1:2であったと報告している。Dahlin¹⁴⁾(1978)によれば、1975年までの Mayo clinic での骨腫瘍6,221例中骨血管腫は69例(1.1%)であり、そのうち顎骨に生じたものは11例だったと述べている。本邦では小野¹⁵⁾(1959)は2年間に腫瘍または嚢胞を疑わしめたもの244例中、顎骨中心性の血管腫は1例だったと、永井¹⁶⁾(1963)は1,000例の腫瘍のうち、顎骨に生じた血管腫は3例であったと述べている。滝川¹⁷⁾(1971)は血管腫について1947~1971年までの24年間の口腔外科領域の文献的集計を行い、自験例および文献例179例中顎骨内に生じた血管腫は10例(5.6%)であったと述べている。佐竹¹⁸⁾は過去10年間の血管腫115例中、顎骨内に生じたものは2例(1.7%)であったと、橋本¹⁹⁾(1977)は10年間の血管腫127例中顎骨内の血管腫は1例であったと報告している。著者らも本例以外に現在栓塞法にて治療し、経過観察中の1例を経験しているが、いずれにしても顎骨中心性血管腫はまれな疾患と思われる。

1933年までの顎血管腫(動静脈奇形も含む)としての本邦の症例報告は著者らの渉猟したもので31例^{16~18,20~}

表 1 本邦における顎の血管腫（動静脈奇形を含む）の報告例（1952-1984）

症 例 数	報 告 者	報 告 年	性 別	年 齢	顎 別	左 右 別	主訴または主症状	自覚 期間	臨床診断	主な治療内容			病理組織 診断名
										血管	結紮	処置	
1	松島ら	1956	男	12	上	右	抜歯後出血	—	血管腫	—	—	腫瘍摘出	—
2	河 西	1957	男	19	上	右	—	—	血管腫	外顎	動脈 (他院で)	抜歯, スポンゼル 填塞, 放射線治療	—
3	永井ら	1963	男	13	下	左	歯牙の動揺	1 か月	血管腫	外顎	動脈	下顎骨切除	海綿状
4	山中ら	1963	女	21	下	—	下顎の腫脹	10年	血管腫	両側外顎	動脈	下顎骨切除	Fibro-Osteo- H.
5	山中ら	1964	女	26	上	右	無痛性骨性腫脹	6 か月	線維性骨異 形成症	右外顎	動脈	上顎骨切除	海綿状
6	小谷ら	1964	男	37	上	—	硬口蓋の腫脹	6 年	血管腫	—	—	放射線療法（上顎 骨切除）	海綿状, 腺癌
7	久野ら	1965	女	4	下	右	歯肉の腫脹	6 か月	血管腫	—	—	放射線療法	海綿状
8	藤井ら	1966	女	13	下	右	—	—	血管腫	外顎	動脈	放射線療法	—
9	中久喜ら	1967	男	20	下	右	下唇の麻痺	—	血管腫	右顔面	動脈	梱包療法	—
10	滝川ら	1971	男	25	下	左	口底, 舌下, 顎下部 の無痛性腫脹	1 か月	血管腫	左外顎	動脈	梱包療法 下顎骨連続切除	海綿状
11	飯田ら	1974	男	24	上	右	上顎, 頬の腫脹咀嚼 障害	—	血管腫	—	—	冷凍外科療法	—
12	中島ら	1974	女	19	下	正中	下口唇の腫脹 2-3の疼痛	—	血管腫	外顎	動脈	下顎骨連続切除	—
13	佐竹ら	1975	男	54	下	右	下顎枝の無痛性腫 脹	2 か月	血管腫	顔面, 後頭, 顎動脈	—	下顎骨切除	海綿状
14	河合ら	1976	女	11	下	左	下顎大臼歯の疼痛 出血開口障害	1 年	血管腫	左外顎	動脈	下顎骨切除	過誤腫
15	山田ら	1976	女	19	下	右	下顎大臼歯の瀰漫 性出血	2 年	血管腫	右外顎	動脈	縫合術	—
16	飯田ら	1977	男	23	上	—	—	23年	血管腫	—	—	冷凍外科療法	毛細, 海綿状
17	飯田ら	1977	男	34	上	—	—	数年	血管腫	右外顎	動脈	冷凍外科療法	海綿状
18	飯田ら	1977	女	23	下	—	—	数年	血管腫	下歯槽	動脈	冷凍外科療法	海綿状
19	飯田ら	1977	女	48	上	—	—	14年	血管腫	—	—	冷凍外科療法	海綿状
20	古賀ら	1979	男	59	上	左	鼻出血	—	血管腫	左外顎	動脈	栓塞法	—
21	清水ら	1979	男	25	下	左	歯肉出血	16年	血管腫	左外顎	動脈	下顎骨切除	血管腫
22	阿部ら	1979	男	26	上	右	歯肉より断続的出 血	20年	血管腫	右総顎（他院で）	—	抜歯, オキシセル 填塞	—
23	松田ら	1980	男	26	下	左	大臼歯無痛性腫脹	6 日前	血管腫	左外顎	動脈	下顎骨切除 顎部リンパ節廓清	海綿状
24	山下ら	1980	男	10	下	左	下顎の無痛性腫脹	7 か月	腫瘍?	(一)	—	放射線療法 下顎骨切除	海綿状
25	石川ら	1981	男	36	上	右	歯牙の動揺と鈍痛	3 週間	血管腫	右外	顎動脈	上顎骨切除	—
26	二瓶ら	1981	女	14	上	右	上顎頰部の腫脹	—	血管腫	外顎	動脈	抜歯, オキシセル 填塞, 電気焼灼	—
27	塩入ら	1981	女	2	下	右	舌・オトガイ下の 腫脹	1 年半	血管腫 リンパ管腫	顔面	動脈	栓塞法 下顎骨切除	海綿状, 血管 内皮腫, 毛細 管
28	岩田ら	1981	女	11	下	左	歯肉の腫脹	1 か月	血管腫	外顎	動脈	腫瘍摘出, 掻爬	—
29	笠崎ら	1982	女	16	上	左	歯肉出血	—	動静脈奇形	—	—	栓塞法	—
30	桜井ら	1983	女	14	下	右	無痛性の腫脹	—	血管腫	—	—	栓塞法 下顎骨切除	海綿状
31	柳沢ら	1983	女	55	下	右	口腔内出血	16日前	動静脈瘻	外顎 下顎後	動脈 静脈	下顎骨切除	—
32	著者ら	1984	男	14	下	右	抜歯後出血	9 年前	血管腫	右外顎, 舌, 顔面 下歯槽動脈	—	栓塞法, 摘出 掻爬	動静脈奇形

表 2 性別、年齢別

性別	男 性	女 性	計 (%)
年齢			
0～9		2	2 (6.3)
10～19	5	8	13 (40.6)
20～29	7	3	10 (31.2)
30～39	3		3 (9.4)
40～49		1	1 (3.1)
50～59	2	1	3 (9.4)
計 (%)	17 (53.1)	15 (46.9)	32 (100.0)

表 3 顎別、左右別

	左	正中部	右	記載なし	計
上 顎	2		7	4	13 (40.6)
下 顎	7	1	9	2	19 (59.4)
計	9	1	16	6	32 (100.0)

44), 自験例 1 例を加え計 32 例であった(表 1)。飯田ら⁴³⁾ (1977) の血管腫は、Cryosurgery としての報告 35 例中の 4 例として表に掲載され簡単に記載された以外、松島ら⁴⁰⁾ (1956) から自験例まですべて 1 例報告であった。表 1 は本疾患の本邦症例報告例であるが、以上の報告例について、性別、年齢、顎別発現率、主訴または主症状および自覚期間、単純 X 線所見、血管造影、臨床診断、発生機序、治療法、病理組織診断の順に検討してみた。

性 別：骨血管腫では Dahlin⁴⁴⁾ が女性が男性のほぼ 2 倍発現していると述べている。顎骨では Smith⁴⁾ は文献例 29 例のうち性別の記載のあったのは 22 例で、男性 10 例、女性 12 例であり、Lund ら⁸⁾ は 38 例中男性 14 例、女性 24 例であったと述べている。本邦では滝川ら¹⁷⁾ が男性 4 例、女性 5 例で明らかな性差はないと述べており、著者らの検索でも男性 17 例、女性 15 例でほとんど差は認められなかった(表 2)。

年 齢：Dahlin⁴⁴⁾ は骨血管腫は通常成人に認められ、そのうちのほぼ 1/3 が 40 歳代に出現していると述べている。顎骨に対しては Lund ら⁸⁾ は 10 歳代にいちばん発現していたと述べており、石川ら²⁾ は約半数が 20 歳以下にみられると述べている。本疾患の本邦での来院時の年齢は表 2 にあるように、10 歳代 13 例 (40.6%)、20 歳代 10 例 (31.2%) に集中しており、平均年齢は 23.5 歳であった。以上のように顎骨の血管腫は欧米では 10 歳代に多く発現し、本邦では 10 歳代、20 歳代に発現している。

顎別発現率：Smith⁴⁾ は顎骨の血管腫の文献例 29 例における上下顎の比率は約 1 : 2 で下顎に多く発現していたと述べている。一方、Lind ら⁸⁾ は文献例 35 例の上下顎の比率は 1 : 1.5 と下顎に多く、この理由は下顎の方が

上顎より外傷を受けやすいためであろうと推察している。著者らの検索では上顎 13 例、下顎 19 例で、上下顎の比率は約 1 : 1.5 であり(表 3)、Smith より Lund らの報告と同じ値を示していた。

左右別については滝川ら¹⁷⁾ が右側に多く発生すると述べており、著者らの検索では左側 9 例、右側 16 例、正中部 1 例、記載なし 6 例であり、左右の比率は 1 : 1.77 で滝川らの報告ほど極端ではないが右側に多かった。しかしながらその理由に関しては、明らかな原因を解明できなかった。

主訴または主症状および自覚期間：本疾患は臨床的に搏動性の青味がかった腫脹として、口腔内に出現するのはまれであって、むしろ腫瘍上の歯が動揺したり歯肉出血が生じたりして発現してくるといわれている³⁾。本邦では 26 症例に記載あり、そのうち重複は 4 例で 30 例について検討すると出血は 9 例、腫脹 14 例、歯牙の動揺 2 例、疼痛 2 例、下唇の麻痺、開口障害、咀嚼障害各 1 例であった(表 1)。すなわち疼痛のない腫脹と出血異常が二大症状であり、従来の報告と同様であった。

自覚期間の明らかな症例は 22 例であり、その期間は 6 日間から 23 年までとかなりばらつきが認められたが、1 年以内は 11 例であり、約半数以上は 1 年以上前から気づいていたことが推察できる。

単純 X 線所見：顎骨の血管腫に関して比較的特徴のあるものは、X 線所見であるといわれている⁴⁾。口腔内の血管腫は、上顎より下顎に特徴があるといわれ最も一般的な型は、“honey comb” または “soap bubble” とされている^{1,4)}。

Weinstein ら⁴⁶⁾ (1963) は顎骨血管腫病変の X 線像を (1) 長く、薄い不規則な骨中隔により希薄化した小房形成を思わせる型、(2) honey comb または soap-bubble 型、(3) “sunburst effect” 型の 3 型に分類しており、これらの血管間に存在する骨小柱によるものと述べている。また、Worth ら⁴⁷⁾ (1979) は (1) [Cystlike, (2) Cyst-like trabeculated, (3) Cancellous, (4) Linealy trabeculated の 4 型に分類し、さらにそれぞれを 3 型に小分けし、計 12 型に分類している。本邦での X 線像の所見を検討すると、記載のあったのは 32 例中 22 例であり、蜂巢状 (蜂窠状、蜂窩状) 所見 9 例、soap bubble 型は 4 例、透過像と記載されたものは 5 例、嚢胞状 1 例、蜂巢状気泡状混合 1 例、蜂巢状および sunburst effect 1 例、変化なし 1 例が認められた。歯根吸収のあった症例は 3 例 (自験例を含む) であった。このような X 線像を示すものは顎骨では慢性骨髓炎、骨肉腫、巨細胞腫、骨線維腫、線維性骨異形成症、エナメル上皮腫、嚢胞、骨原粘液腫などで、その鑑別診断が必要とされている。慢性骨髓炎の場合は現病歴および現症において必ず炎症の原因と症状が認められ、骨原肉腫とは悪性腫瘍としての症状により鑑別が可能であるが、その他疾患との鑑別診

断ははなはだ困難で、この場合には外頸動脈からの血管撮影が最も確実な鑑別法だと述べている^{8,18,19,22,40,47}。

血管撮影：脳血管撮影は1927年ポルトガルの神経科医 Egas Moniz により創始されて以来、現在では頭蓋内疾患の診断における最も重要な検査法となった。脳血管撮影には頸動脈を穿刺し主として内頸動脈流域の頭蓋内血管を造影する頸動脈撮影 (carotid angiography) と、椎骨動脈流域の頭蓋内血管を造影する方法がある。Seldinger (1953) は経皮的動脈内カテーテル挿入法を考案し、その後スウェーデンの放射線科医らにより完成された選択的動脈撮影法の発表以来、脳血管撮影、椎骨動脈撮影、頸動脈撮影にカテーテル法を採用するものが多くなってきた。この方法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、とくに術者の欲するレベルで注入できるため、椎骨動脈、頸動脈撮影に多く採用されている^{19,48}。Hoey ら⁸ (1970) は頸血管腫の診断に血管撮影法が最良であるとして、その重要性を力説しており、手術前に施行された血管撮影像は、彼らの報告例を含めた文献例で42症例中7例にのみ施行され、さらに手術後の血管撮影像は3例のみであったと述べている。本邦において血管撮影像を施行した症例は、佐竹らから認められ以後自験例を含め13例 (約41%) に認められ、かなり診断上重要な検査法になっている。

臨床診断：頸血管腫がまれな疾患なためかなり鑑別診断が難しいということは前述したとおりである。初診時臨床診断で他の疾患を疑うものとして、Lund ら⁹ の ameloblastoma, dentigerous cyst, chouxas ら⁴⁰ (1963) の Cystic mass 等の報告があり、本邦では、山中ら²² の線維性骨異形成症、松田ら³⁰ の粘液腫または線維性骨疾患、塩入ら⁴⁰ の血管腫、リンパ管腫、岩田ら⁴¹ の動静脈瘤性骨嚢胞および動静脈瘻の報告がみられる。

発生機序：Gorlin ら¹³ は頸の血管腫の発生は多分先天的であろうと述べている。Smith⁴³ は骨の血管腫は骨内の血管から生じたもの (一次性)、骨膜の血管から生じたもの (二次性) があると述べており、Armbrecht ら³⁰ (1966) は頸の血管腫を文献例39例について A. Central bony hemangioma (この型は骨の骨髓腔または海綿質の血管から生じる。成長してくると、臨床的X線写真で明らかな骨の吸収と頸の皮質の膨脹が認められる)、B. Peripheral bony hemangioma (この型は骨膜の血管から起こり、骨に侵入し、皮質の吸収と網状骨を形成する) の2型に分類することができたと述べている。本邦においても前述したものと同様な考えから、塩入ら⁴⁰ は続発性の症例であると、滝川ら¹⁷ は骨髄性のものと、阿部ら³⁵ は中心性の症例であると考察している。著者らは自験例を中心性であると考えている。

治療法：頸の血管腫は腫瘍摘出療法と放射線療法が主な治療法として述べられているが³、実際はさまざまな治療法が報告されている。Hoey ら⁸ によれば40例 (下

顎26例、上顎14例) の文献例について検討し、下顎26例では放射線療法7例、顎骨切除と骨移植7例、掻爬術6例、部分切除術4例、wax による閉塞法または填塞法2例であり、上顎の14例では放射線療法2例、顎骨切除3例、掻爬術と填塞法併用9例であったと、さらに自験例の2例は栓塞法と閉塞法を併用したと述べている。

本邦の32例 (下顎19例、上顎13例) の主なる治療法では、顎切除術10例、放射線療法3例、冷凍外科療法5例、栓塞法および顎切除2例、抜歯および填塞法3例、栓塞法2例、梱包手術および顎切除1例、梱包手術1例、縫合術1例、腫瘍摘出 (掻爬) 術2例、放射線療法および顎切除1例、栓塞法および摘出術1例 (自験例) であった (表1)。

顎切除を施行した報告者らは頸の血管腫の処置は顎骨を切除するとともに腫瘍を剝出することが、最も確実であるとし、その際手術による出血処置として外頸動脈を結紮してから顎切除をすべきであると述べているが、放射線療法を施行した報告者らは出血のため死亡するおそれがあるとして放射線治療をすすめている。

顎切除を施行した場合には、手術中の出血とともに、術後の顔貌の修復ならびに咀嚼、発音などの機能回復が問題とされている。そのために骨移植ないし顎骨線処置がされており、腸骨移植即時再建は Weinstein ら⁴⁰、永井ら¹⁸、山中ら²²、佐竹ら¹⁸、河合ら³⁰ 等にみられ、半年後に顎再建は Piercell ら³¹ にみられ良好な結果を報告している。顎補綴は山中ら²²、滝川ら¹⁷ に、即時再建しなかった例^{34,36,40,52} も報告されている。Davies³² (1964) は顎切除時骨髄を残存させたところ骨が再成していたと述べている。部分切除術施行者ら^{3,30} は、摘出部の顎骨はのちに再成してきて、顎および顔貌の変形を回避することができたと述べている。

掻爬術は初診時診断をはかの疾患 (嚢胞^{9,40}、エナメル上皮腫⁴³ など) としての処置としたものと、Wilde ら⁴⁸ (1966)、Mohnac ら³⁴ (1967) の初めから血管腫に対する手術としての報告がみられる。

本疾患の観血処置の止血対策として外頸動脈の結紮および関連血管の結紮処置が通例になっており、本邦では32症例中23例 (約72%) に認められている (表1)。

外頸動脈の結紮による止血効果について、効果のあったという報告と^{16,18,22,31}、なかったという報告^{3,32,33} がみられる。佐竹ら¹⁸ は他院で施行された外頸動脈結紮に、さらに術前の血管撮影によって病巣への栄養血管である顔面動脈、後頭動脈、頸動脈を結紮したことが効果的であったと報告している。塩入ら⁴⁰ は外頸動脈の各枝のみならず、内頸動脈、椎骨動脈の枝、反対側外頸動脈の吻合枝などが関与していたと述べている。

以上からして、血管結紮の効果が手術における出血量に関連していると思われるが、出血量の多い報告は、Davies³² の 8 pints (約 3,485 ml)、Zelesin ら⁵³ の 4,000

ml, La Daw ら³⁷⁾の 2,300 ml, Kelley ら³⁾の 2,200 ml があり、本邦では中島ら³⁹⁾の 6,000 ml, 塩入ら⁴⁰⁾の 2,800 ml, 松田ら³⁶⁾の 2,000 ml 等の報告がみられ、自験例も 3,400 ml とかなり出血が多かった。自験例の出血について検討してみると、次の 3 点が考えられる。すなわち、①術前血管撮影にて主要栄養血管が外頸動脈本幹とはほぼ同程度に拡張した顔面動脈と判定し、栓塞法を施行するも拡張血管のために効果がほとんどなかったこと、②顔貌の変形および顎機能障害をできるだけ少なくするため手術視野の狭い口内法による顎骨保存療法を施行したこと、③手術中外頸動脈、舌動脈、顔面動脈を結紮したのに、止血効果がほとんどなく、下歯槽動脈結紮により、やっと止血効果が現れたが、それまでの時間が長かったことが考えられる。

放射線療法は Thoma³⁾により顔面変形を防ぐ方法として推せんされており、その際、最少の線量を 3~4 か月間に繰返し照射するとしているが、この方法も完全治癒までに 2~5 年かかると述べている。久野ら²⁵⁾ (1965) は ⁶⁰Co による遠隔照射を 3~4 日間隔で、1 日の照射量を 100 r とし、総量 1300 r を照射して 8 か月目に症状が消退したと報告している。Smith⁴⁾, Laws⁷⁾等による放射線治療成功例も報告されているが、Gamez-Araujo ら⁵⁸⁾は放射線治療で腫瘍は縮小したが、やがて増大してきたので顎切除を施行したと、Perriman ら⁵⁹⁾ (1974) も 2 例のうち、1 例は全く放射線療法に反応せず硬化剤 (肝油脂肪酸ナトリウム) を注入して治療したと述べている。Bhoweer ら⁶⁰⁾ (1975), Gamez-Araujo ら⁵⁸⁾は、放射線治療は骨の血管腫や、若年患者の時は考えるべきではないと述べ、その理由として放射線性毛細管拡張症、組織壊死、骨および歯の発育の遅延の続発症が生じるし、また、放射線照射後肉腫が生じるからと述べている。Cannon ら⁶¹⁾ (1959) は良性の条件で放射線照射した 165 症例中 22% に癌が発育し、また、これらの癌は照射後 5~50 年後に発現してきたと述べている。小谷ら²⁴⁾ (1964) の症例では約 18 年間の放射線治療後同部に腺癌が発現したと述べている。以上のような報告から放射線治療は究極的に組織の悪性化の危険が大きく、第一に選択する治療法でないと思われる。

冷凍外科療法は、1961 年 A. Cooper が液体窒素を冷媒とする凍結手術装置を考案し、脳組織で成功して以来、ほかの臨床分野に利用されるようになり、良性疾患への応用と同時に悪性腫瘍の治療の一手段として用いられている。この凍結手術は腫瘍が体表、あるいは体表に近い部分に局在するのが本療法の条件の 1 つで局所治療として施行すべきであり、現時点では特殊の場合を除き、観血治療その他の補助手段と考えるべきであるといわれている⁶²⁾。顎骨血管腫に応用された報告では、Henderson⁶³⁾, Murphy⁶⁴⁾, 飯田ら^{28,32)}におけるものが代表的な報告と思われる。飯田らによれば中心性血管腫に病巣部

に適合するプローブを用い、3 分間の液化窒素灌流を行い、凍結部分の組織の壊死脱落に従い、残存部をさらに凍結させていくという方法で行ったと述べている。また、この方法の検討点として、腫瘍が大きい小さいかではなく、深いか浅いかで回数が違うこと、さらに治療期間が長いことが問題で、主幹動脈の結紮やほかの療法と併用した方が治療期間を短縮できるのではないかと述べている。

硬化剤注入療法は Bhaskar ら⁵³⁾, Chin⁴⁵⁾にみられ sodium morrhuate を注入して良好な結果であったと述べている。Bhaskar らは、子供の血管腫は外傷後または生検後に自然に退行してしまうので積極的治療は推奨できないと述べ、9 歳の症例にこの方法を適用し、顎骨も歯牙も保存できたと述べている。Chin は、硬化剤は症例により単独または外科的切除と併用する療法があり、副作用として注入剤の疼痛、まれにアレルギー反応およびアナフィラキシーショックがあると述べている。本邦では顎骨血管腫に硬化剤を注入した例²⁶⁾はあるが、積極的治療を行ったという報告はない。

栓塞法は Lussenhop ら (1960) が脳動脈の治療に用いて以来、脳以外の血管異常にも用いられるようになり、顎骨血管腫の治療でも保存療法または手術補助療法として使われるようになった⁶⁵⁾。Hoey ら⁶⁾は、第 1 症例に腓腹筋片を、第 2 症例に鉛小球と Gelfoam 片を使用して顎骨内への血管路を明確に閉塞でき、安全に抜歯できたと報告しており、Lin ら⁶⁶⁾は 200 個の Silicone 小球を上顎の血管腫に、La Dow ら³⁷⁾は 160 個の Silicone 球を下顎の血管腫に用い良好な結果であったと報告している。本邦では古賀ら³³⁾, 笠崎ら⁴²⁾が栓塞法単独療法を、塩入ら⁴⁰⁾, 桜井ら⁴³⁾は顎骨切除のための手術補助療法として報告されている。栓子として古賀らは Silicone ball 約 90 個、塩入らは Gelfoam 片 100 数 10 個、自験例は Gelfoam 片 60 個を使用した。腫瘍の大きな血管拡張した自験例のような症例には、栓塞法の効果がなかったけれども、この点については今後に残された課題として説明を要するものと思われる。

その他の治療法として抜歯および填塞法が^{21,35,39,67,68)}報告されており、填塞剤として oxidized cellulose^{35,39,67)}, 石膏⁶⁸⁾などが使用されている。また、外頸動脈結紮により止血して経過観察している報告³¹⁾、梱包療法^{17,27)}がみられ、Monks⁶⁹⁾ (1975) は穿刺により治癒した例を報告している。

病理組織学的診断：成書にある顎骨血管腫の病理像では、欧米と本邦では多少の差異が認められる。Golin ら¹⁾は一般に顎骨血管腫は毛細管血管腫と海綿状血管腫の 2 つの型があり、大部分の腫瘍は両者の混合型であると記述しており、石川ら²⁾は海綿状血管腫の像をとるのが普通であると記載している。欧米では海綿状血管腫以外毛細管型血管腫として、Bhaskar ら⁵³⁾, Lund ら⁸⁾,

Gamez-Aramjo ら⁵⁰⁾, SánchezTorres⁶⁰⁾ Piercell ら⁵¹⁾, 等の報告および混合型として Lund ら⁵²⁾, Mohnac ら⁵³⁾, Zalesin ら⁵⁴⁾ 等の報告がみられるのに対し, 本邦では表 1 にあるとおりで, 海綿状血管腫の報告が多いためと考えられる。

著者らの病理組織学的所見では, 炎症反応組織と, 蛇行吻合した動静脈が入り組んでいる組織 (図10) が認められ, 海綿状血管腫, 毛細管血管腫の組織像ではなく動静脈奇形と診断されたものである。

結 論

1) 14歳, 男性の右下顎骨顎骨中心性血管腫と臨床診断した症例にカテーテル栓塞法を併用し, 口内法にて摘出術を施行し, 顎骨を保存することができた。

2) 血管撮影による下顎病巣部への栄養血管は, 右側顔面動脈, 右側舌動脈および右側顎動脈の下歯槽動脈, 咬筋動脈, 頬動脈であり, とくに右側顔面動脈は右側外顎動脈本幹とほぼ同程度に拡張して 顎骨に進入していた。

3) 顔面動脈人工栓塞 (Gelfoam 小片60個使用) 後, 摘出のため, 右側外顎動脈本幹, 右側舌動脈, 右側顔面動脈を結紮しても止血せず右側顎動脈の下歯槽動脈結紮にて止血効果が現れ摘出することができた。

4) 摘出物の病理組織で初めは異物反応の強い炎症組織とのことであったが, 摘出物標本の全組織切片より, 血管腫ではなく, 動静脈奇形と診断された。

5) 本邦の文献例32例の, 性別, 年齢, 類別発現率, 主訴または主症状および自覚期間, 単純X線所見, 血管撮影, 臨床診断, 発生機序, 治療法, 病理組織診断について検索し, あわせて欧米の報告例とも論じた。

稿を終えるにあたり, 病理組織診断にご懸念なご教示を賜った本学病理の小嶋瑞教授, 小形岳三郎教授, 島村香世子博士, 木村雄二講師, ならびに東京医科歯科大学石川梧朗名誉教授に衷心より感謝を捧げます。また, 血管撮影に関しご協力とご教示を賜った本学放射線科平松慶博助教授, 前橋赤十字病院放射線科館澤亮先生に深く感謝を捧げます。

本症例の要旨は, 第124回日本口腔外科学関東地方会 (1982年11月13日, 神奈川歯科大学) において発表した。

引 用 文 献

- 1) Golin, R.J. and Goldmann, H.M.: Thoma's Oral Pathology. 6th Ed, Mosby Co, St Louis, 1970, p 564-565.
- 2) 石川梧朗, 秋吉正豊: 口腔病理学Ⅱ. 増補版,

永末書店, 京都, 1971, 988-991頁。

- 3) Thoma, K.H., Oral Surgery. 5th Ed, Mosby Co, St Louis, 1969, p 1043-1045.
- 4) Smith, H.W.: Hemangioma of the jaws. AMA Arch Otolaryngo 70: 579-587 1959.
- 5) Kelly, D.E., Terry, B.G., et al.: Arteriovenous malformation of the mandible: report of case J Oral Surg 35: 387-393 1977.
- 6) 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.
- 7) Laws, I.M.: Pulsating hemangiomata of the jaws. Brit J Oral Surg 5: 223-229 1968.
- 8) Lund, B.A. and Dahlin, D.C.: Hemangiomas of the mandible and maxilla. J Oral Surg 22: 234-242 1964.
- 9) Lamberg, M.A., Tasanen, A., et al.: Fatality from central hemangoma of the mandible. J Oral Surg 37: 578-584 1979.
- 10) Hitzrot, J.M.: Hemangioma cavernosum of bone. Ann Surg 65: 476-482 1916.
- 11) Bucy, P.C. and Capp, C.S.: Primary hemangioma of bone. Amer J Roentgenol 23: 1-33 1930.
- 12) Geschickter, C.F. and Maseritz, I.H.: Primary hemangioma involving bone of the extremities. J Bone Joint Surg 20: 888-900 1938.
- 13) Watson, W.L. and McCarthy, W.D.: Blood and lymph vessel tumors. Surg Gynec & Obst 71: 569-588 1940.
- 14) Dahlin, D.C.: Bone tumors. 3rd Ed, Charles C Thomas, Springfield, 1978, p 137-148.
- 15) 小野史郎: 口腔領域の腫瘍および囊胞に関する統計的組織学的観察. 口外誌 5: 38-43 1959.
- 16) 永井 巖, 山中弘之, 他: 下顎骨中心性血管腫の1例. 臨歯 242: 21-25 1963.
- 17) 滝川富雄, 寺門正昭, 他: 口腔外科領域のいわゆる血管腫について 第2報 顎骨内に生じた血管腫について. 日大歯学 44: 658-669 1970.
- 18) 佐竹幸雄, 田代英雄, 他: 下顎骨中心性血管腫の1例. 日口外誌 21: 170-175 1975.
- 19) 橋本賢二, 塩田重利, 他: 最近10年間における血管腫の臨床統計的観察. 日口外誌 23: 680-688 1977.
- 20) 松島 税, 古田光行, 他: 血管腫の一治験例について (抄). 大阪歯科臨床: 16 1956.
- 21) 河西一秀: 上顎骨に発生した血管腫と思われる一例 (抄). 口科誌 6: 254 1957.
- 22) 山中弘之, 淵端 孟, 他: 下顎骨に発生した骨血管腫 (抄). 口科誌 12: 140 1963.
- 23) 山中弘之, 淵端 孟, 他: 上顎骨に発生した骨血管腫の1例. 口科誌 13: 54-60 1964.
- 24) 小谷 朗, 金田敏郎, 他: 上顎骨体に海綿状血管腫と腺癌とが混在した一症例 (抄). 口外誌

- 10: 343 1964.
- 25) 久野吉雄, 高橋秀太郎, 他: 下顎骨に発生した血管腫の⁶⁰Co照射による1治験例について. 口外誌 11: 240-243 1965.
 - 26) 藤井祥江, 江盛司郎, 他: 下顎骨に生じた血管腫の1症例(抄). 口科誌 15: 431-432 1966.
 - 27) 中久喜 喬, 古川 正, 他: 下顎骨に発生した血管腫の1例(抄). 歯科学報 67: 450 1967.
 - 28) 飯田 武, 天羽 峻, 他: 上顎に発生した中心性血管腫の冷凍外科療法(抄). 口科誌 23: 245 1974.
 - 29) 中島泰臣, 池尻 茂, 他: 下顎骨内に原発したと考えられる血管腫の一治験例(抄). 口科誌 23: 253 1974.
 - 30) 河合 幹, 立松 充, 他: 下顎骨に発生した顎骨中心性血管腫の1例. 日口外誌 22: 373-381 1976.
 - 31) 山田隆一, 小島正明, 他: 下顎骨中心性血管腫の1例. 日口外誌 22: 801-804 1976.
 - 32) 飯田 武, 松本晃一, 他: 血管腫に対するCryosurgery. 日口外誌 23: 513-520 1977.
 - 33) 古賀信憲, 宮上光祐, 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: 185-189 1979.
 - 34) 清水正嗣, 水谷 雄, 他: 下顎骨体の動脈脈吻合(arterio-venous shunt)を伴った血管腫の1例(抄). 日口外誌 25: 1243-1244 1979.
 - 35) 阿部広幸, 末石玄一, 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: 1537-1541 1979.
 - 36) 松田 登, 小川 卓, 他: 多血球性に生じた下顎骨中心性血管腫の症例. 日口外誌 26: 1263-1268 1980.
 - 37) 山下一郎, 黒江純一, 他: 下顎骨に発生した血管腫の一例(抄). 口科誌 29: 617-618 1980.
 - 38) 石川武憲, 安井良一, 他: 上顎骨体中心性のいわゆる“pulsating haemangioma”の1症例について(抄). 日口外誌 27: 310 1981.
 - 39) 二瓶 徹, 三隅健三, 他: 上顎骨中心性血管腫の1例(抄). 日口外誌 27: 544 1981.
 - 40) 塩入重彰, 大西正俊, 他: カテーテル栓塞法(CATHETER EMBOLIZATION)の顎骨血管腫治療への応用——下顎に主病変を有する巨大な小児血管腫の1治験例——. 日口外誌 23: 680-688 1977.
 - 41) 岩田康一, 金沢美智子, 他: 下顎骨中心性血管腫の1例(抄). 日口外誌 27: 804 1981.
 - 42) 笠崎安則, 山下 誠, 他: 上顎に発生したAVMの1例(抄). 日口外誌 28: 547 1982.
 - 43) 桜井精人, 田村 稔, 他: カテーテル栓塞法を応用した下顎骨中心性血管腫の一治験例(抄). 口科誌 32: 432-433 1983.
 - 44) 柳沢繁孝, 神田 剛, 他: 下顎骨に発生した動脈脈瘤の1例(抄). 口科誌 32: 827-828 1983.
 - 45) Chin, D.C.: Treatment of maxillary hemangioma with a sclerosing agent. Oral Surg 55: 247-249 1983.
 - 46) Weinstein, I. Yamanaka, H., et al.: Resection and reconstruction of the mandible for removal of a central hemangioma. Oral Surg 16: 1-13 1963.
 - 47) Worth, H.M. and Stoneman, D.W.: Radiology of vascular abnormalities in and about the jaws. Dent Radiogr Phtogr 52: 1-23 1979.
 - 48) 鈴木宗治, 岩下一彦, 他: 血管腫影読座Ⅰ. 金原出版, 東京, 1972, 16-36頁.
 - 49) Choukas, N.C., Toto, P.D., et al.: Sclerosing cavernous hemangioma of the maxilla. Oral Surg 16: 17-20 1963.
 - 50) Armbrrecht, E.C., Ahmed, M., et al.: Hemangiomas of the maxillofacial region. Oral Surg 22: 286-289 1966.
 - 51) Piercell, M.P., Waite, D.E., et al.: Central hemangioma of the mandible; intraoral resection and reconstruction. J Oral Surg 33: 225-232 1975.
 - 52) Davies, D.: Cavernous hemangioma of the mandible. Plast Reconstr Surg: 457-461 1964.
 - 53) Bhaskar, S.N. and Dubit, J.: Oral surgery-oral pathology conference No. 20, Walter Reed Army Medical Center. Oral Surg 23: 385-390 1967.
 - 54) Mohnac, A.M. and Smith, J.R.: Central hemangioma of the mandible: report of case. J Oral Surg 25: 455-459 1967.
 - 55) Zalesin, H.M., Rotskoff, K., et al.: Central cavernous hemangioma of the mandible treated by an intraoral approach. Oral Surg 33: 877-884 1975.
 - 56) Wilde, N.J., Tur, J.J., et al.: Hemangioma of the mandible: report of case. J Oral Surg 24: 549-552 1966.
 - 57) La Dow, Jr. C.S., Tatoian, Jr. J.A., et al.: Treatment of central hemangioma of the maxilla by embolization: report of case J Oral Surg 34: 622-626 1976.
 - 58) Gamez-Araujo, J.J., Toth, B.B., et al.: Central hemangioma of the mandible and maxilla. Oral Surg 37: 230-238 1974.
 - 59) Perriman, A., Uthman, A., et al.: Central hemangioma of the jaws. Oral Surg 37: 502-508 1974.
 - 60) Bhoweer, A.L. and Shirwatkar, L.G.: Central hemangioma of mandible. J Oral Med 30: 111-113 1975.
 - 61) Cannon, B., Randolph, J.G., et al.: Malignant irradiation for benign conditions. New Eng J Med 260: 197-202 1959.
 - 62) 中山恒明, 榎原 仟監修: 新臨床外科全書. 第2巻, 金原出版, 東京, 1979, 463-480頁.
 - 63) Henderson, L.T.C.R.L.: Cryosurgical treatment of hemangiomas. Arch Otolaryng 93: 511-

- 513 1971.
- 64) Murphy, J.B.: The management of large hemangioma of the oral cavity with cryotherapy. *J Oral Med* 33: 104-106 1978.
 - 65) Djindjian, R., Cophignon, J., et al.: Embolization by superselective arteriography from the femoral route in neuroradiology. Review of 60 cases. *Neuroradiology* 6: 20-26 1973.
 - 66) Lin, S.R., Ladow, Jr. C.S., et al.: Angiographic demonstration and silicone pellet embolization of facial hemangiomas of bone. *Neuroradiology* 7: 201-204 1974.
 - 67) Baum, S.M., Pochaczewsky, R., et al.: Central hemangioma of the maxilla. *J Oral Surg* 30: 885-892 1972.
 - 68) SánchezTorres, J. and Viñas, F.: Central mandibular hemangioma. *Oral Surg* 37: 509-513 1974.
 - 69) Monks, F.T.: Central angioma of the mandible. A possible treatment. *Br J Oral Surg* 12: 296-297 1975.