静脈石を伴った頬部血管腫の1例

扇内秀樹・山下泰裕・桑澤隆補・古川伸一
三宮慶邦・河西一秀

A case of hemangioma with phlebolithiasis of the cheek

Hideki OGIUCHI・Yasuhiro YAMASHITA・Takaho KUWASAWA
Shinichi FURUKAWA・Yoshikuni SANGU・Issu KAWANISHI

Abstract: There are relatively few reports of phlebolithiasis with hemangioma in the oral region. Recently we had a case of a female patient aged 11, with a multiple stone cavernous hemangioma in the right cheek and she showed satisfactory progress after surgical extraction. Moreover, we analyzed the composition of the stones by using observation from the infrared spectrum, an X-ray microanalyzer and amino-acid analysis.

As a result, the main components of the stone were found to be Ca and P, and from the diffraction pattern, appeared to be hydroxyapatite. The results of the amino-acid analysis showed a high quantity of glycine and this indicated the presence of collagen.

Through extensive reading, we can report that since 1960, 43 cases (21 male, 22 female) of this diseases occurred in Japan. The 60.5% of the patients were 10 to 20 years old. The lesion in 25 cases (58.1%) appeared in the cheek, and in 6 cases (14.0%), in the tongue and submandible. In 11 cases (26.2%), the number of stones ranged 1 to 5 pieces, and the maximum number in any one case was 39 stones.

From the histopathological viewpoint, in 29 cases which were adequately described, there was 21 case preponderance (72.4%) showing cavernous hemangioma.

Key words: Hemangioma, phlebolithiasis

緒 言 症 例

血管腫は、血管組織が増生した腫瘍で、口腔領域では、舌、口唇、頬部などに好発しまれな疾患ではないが、静脈石を伴った報告は比較的少ない。

わたしたちは、右頬粘膜に発生し多数の静脈石を有した血管腫の1例を経験したので、その概要と、摘出した静脈石について行った物理化学的分析の結果に若干の文献の考察を加え報告する。

患者：11歳 女性。

初診：昭和59年3月11日。

主訴：右側頬粘膜の腫脹。

家族歴・既往歴：特記事項なし。

現病歴：約4年前、右側頬粘膜に無痛性の腫脹を自覚し、某歯科医院を受診したところ切開処置を受けたが、止血しにくかったとのことである。その後、放置していたが、徐々に増大する傾向にあるため、当科を紹介され来院した。

現 症

全身所見：体格、栄養ともに中等度で特に異常所見はない。

局所所見：顔貌はほぼ左右対称で、皮膚は健康色である。口腔内所見では、右頬粘膜から下顎歯肉頬移行部に

東京女子医科大学口腔外科学教室

(主任：河西一秀教授)

Tokyo Women's Medical College Department of
Oral Surgery (Chief: Prof. Issu Kawanishi)

受付日：昭和60年1月31日

写真1 口腔内所見

写真4 摘出物所見

写真2 オルソパントモグラムにて結石を認める

写真3 歯科用X線フィルムにより6個の結石を認める

写真5 摘出物のX線所見

臨床検査所見：特に異常所見は認めなかった。

臨床診断：結石を伴った血管腫。

処置および経過：昭和59年3月■日、全麻下に腫瘍部表面粘膜に約3cmの横切開を加え鈍的に剝離を行う。オトガイ静脈が腫瘍内や腫瘍周囲に網状に分布し周囲組織との癒着があったが腫瘍は一塊として摘出でき、出血量はわずかであった。現在、術後9か月であるが、再発もなく経過良好である。

摘出物所見：摘出物は、20×30×10 mm大、重量2.6 g、弾性軟で、表面暗赤紫色の凹凸不定形な腫瘍で、表面からも結石の存在がうかがわれた（写真4）。摘出物のX線写真では腫瘍中に層状構造を示す類円形石灰化様不透過物を6個認めた（写真5）。腫瘍を切断し硬固物を摘出すると、薄い被膜でおおわれた灰白色類球状を呈する直径7 mmから2 mmの結石を6個認め、硬さはいずれも弾性硬であった（写真6）。最も大きい結石の断面は、周囲が半透明、灰白色、中央部は帯黄色で層状構造を呈していた（写真7）。

病理組織学的所見：扁平な内皮細胞に被われ拡張した

かけて比較的境界明瞭な約2×3 cmで弾性軟の腫瘍があり、表面は暗赤紫色を呈し、凹凸不正で自発痛、圧痛はなく、圧迫により退色を呈した。また触診により腫瘍内に数個の可動性球状硬固物を認めた（写真1）。

X線所見：オルソパントモグラムでは、右オトガイ部付近に層状構造を示す球状の石灰化物の陰影を認める（写真2）。歯科用フィルムによる腫瘍部撮影では、軟組織中に不規則に散在する類円形、大小不同の6個の石灰化様不透過物を認めた（写真3）。

写真6 摘出された6個の静脈石

写真7 静脈石の断面

写真8 病理組織学的所見 (弱拡大)

血管が認められ、管腔内には血栓が認められた。管腔間質の円形細胞浸潤は軽度であった(写真8)。静脈石の切片標本では、無構造な核を中心に層状の同心円状の線維様構造であった(写真9)。

病理組織学的診断：静脈石および海綿状血管腫。

静脈石の物理化学的分析結果：3個の静脈石について分析した。各試料の水分、無機物および有機物の割合は、熱分析より求め、また無機成分、有機成分については、赤外吸収スペクトル、X線マイクロアナライザおよびアミノ酸分析を行った。

組成分析：水分は、Shimadzu DT-30 型熱分析計を用

写真9 静脈石の切片標本

表1 静脈石の重量および組成分析結果

試料	重量	水分	無機物	有機物
No. 1	83.87 mg	4.8%	65.8%	29.4%
2	51.39	5.9	58.7	35.4
3	18.30	7.2		

(注) 空欄は試料が少量のため測定不能

表2 アミノ酸分析結果 ($\mu\text{mol/mg}$)

試料 アミノ酸	No. 1	No. 2	No. 3
Asp	0.097	0.119	0.108
Thr	0.045	0.056	0.051
Ser	0.065	0.080	0.073
Glu	0.144	0.180	0.166
Pro	0.132	0.166	0.153
Gly	0.308	0.396	0.345
Ala	0.125	0.168	0.145
Cys	0.001	<0.001	<0.001
Val	0.051	0.077	0.061
Met	0.003	0.002	0.004
Ile	0.030	0.038	0.034
Leu	0.068	0.090	0.080
Tyr	<0.001	<0.001	<0.001
Phe	0.029	0.038	0.034
Lys	0.036	0.049	0.044
His	0.013	0.014	0.015
Arg	0.064	0.077	0.067

いて、常温から170°Cの範囲で、昇温速度5°C/minにより測定した。無機物は、550°Cで40分間加熱した残分から求め、また有機物は試料採取量から水分+無機物の量を差し引いた値より算出した。組成分析の結果を表1に示した。

赤外吸収スペクトル；島津製作所製赤外分光光度計

図1 試料 No. 1 の赤外吸収スペクトル

図2 試料 No. 1 のX線マイクロアナライザーによる分析結果

IR-420 型を用い、KBr 錠剤法により赤外吸収スペクトルを測定した。結果は、 PO_4^{3-} ($1,020\text{ cm}^{-1}$) の強い吸収、 OH^- ($3,400\text{ cm}^{-1}$)、 CO_3^{2-} ($1,450\sim 1,410\text{ cm}^{-1}$ 、 870 cm^{-1})、Amide ($1,650\text{ cm}^{-1}$) の中等度の吸収および CH_2 ($2,930\text{ cm}^{-1}$) の弱い吸収が観察された(図1)。

X線マイクロアナライザーによる分析；日立製作所製 S-650 SEM および堀場製作所製 EMAX-2,200 を用い、試料 No. 1 について、X線マイクロアナライザーによる分析を行った。結石の主要構成元素は Ca と P で、これらが無機質の主成分であり、回析パターンから合成ハイドロキシアパタイトと非常に類似した結果を示している(図2)。

アミノ酸分析；各試料を $6\text{H}\cdot\text{HCl}$ で 110°C 、24時間、酸加水分解した後、日立製作所製 HITACHI 835 型アミノ酸分析計を用い、3 個の静脈石についてアミノ酸分析を行った。いずれもグリシンが最も多くコラーゲンに類似した分析結果であった(表2)。

考 察

口腔領域では、血管腫に静脈石を伴った症例は比較的少ない。1960年以後の本邦におけるわれわれの渉猟し得た報告例は自験例を含め43例であった¹⁻³⁶⁾。これらの症例について検討を試みた。性別では、男性21例、女性22例で差はみられない。年齢は4歳が最も多く10歳未満が4例(9.3%)、10代が16例(37.2%)、20代が10例(23.3%)、30代が6例(14.0%)、40代が2例、50代が4例、70代が1例で、10～20代で26例、60.5%を占めている。腫瘍を自覚してから受診までの期間は、1年未満が6例(14.3%)、1～5年が14例(33.3%)、6～10年が13例(31.0%)、11～15年が5例(11.9%)、16～20年が4例(9.5%)で、長期間放置しているものが多く、これは、無痛性の腫脹が多く、発育が緩慢であるためと思われる。また生下時に認められたものが4例あった。発生部位は頬部25例(58.1%)で圧倒的に多く、舌と顎下部がそれぞれ6例(14.0%)、口底部5例(11.6%)、オトガイ部1例(2.3%)で口唇部発生がみられないが、頬部症例のうち2例が口唇におよぶものがあった。病理組織学的診断名は、明記されている29例では、海綿状血管腫が21例(72.4%)、単純性血管腫が7例(24.1%)、蔓状

血管腫が1例(3.5%)であった。静脈石数は個数の記載されている29例では1~5個が11例(37.9%), 6~10個が10例(34.5%), 11~19個が6例(20.7%), 20個以上が2例で最も多かったのが39個であった。

結石の成因に関しては、局所の血行障害により血管腫内の管腔に血栓が生じ、その血栓が器質化し石灰沈着をおこして結石を生じるという説が有力のようである³³⁻³⁸⁾。本症例においても、摘出した腫瘍のX線や病理組織所見で層状構造を示す類円形石灰化様不透過物が認められ、また静脈石を生ずる前段階と考えられる増生した血管内に血栓が認められ、結石の形成過程との関連性が示唆された。

静脈石の物理化学的性状に関して奥井ら³⁰⁾は、主要構成元素はCaおよびPで、これが無機質の主成分で、無機成分結晶は主としてハイドロキシアパタイト系結晶構造を有していると述べている。日比野ら³⁶⁾も同様の報告をし、組成分析では、水分が10.5%, 有機成分が40.9%, 無機成分が48.6%であり、本症例の分析では表1のごとく、無機物が約60%で水分がやや少なかった。またX線アナライザー分析および赤外線分析による無機成分においては、われわれの症例でもハイドロオキシアパタイトと類似した結果を得た。アミノ酸分析では、グリシンが最も多く、コラーゲン類似のパターンを示していた。日比野ら³⁶⁾、金沢ら³⁹⁾も同様の報告をしている。

血管腫の治療法については、外科的療法、梱包療法、凍結療法、レーザー療法などがあるが、発生部位、大きさによりその術式の選択が重要である。本症例は、外科的に一塊として摘出でき、出血量も少なく、現在、審美的、機能的障害もなく良好な結果を得ている。著者らは、血管腫に対し、最近では主にレーザー療法単独、あるいは外科療法とレーザー療法⁴⁰⁾を行っているが、本症例では結石を術前に認めており、外科的療法による全摘出を行った。

結 語

わたくしたちは、9歳女性の右頬部に発生した静脈石を有する海綿状血管腫の1例を経験したので、結石の組成分析結果と若干の文献的考察を加え報告した。

本論文の要旨は、第29回日本口腔外科学会総会(昭和59年9月27日、札幌市)で発表した。

引 用 文 献

- 1) 長尾喜景, 高橋庄二郎, 他: 両側頸下部に発生した多数の静脈石を有する海綿状血管腫の1例. 歯科学報 60: 390-397 1960.
- 2) 朗 義一, 上村卓也, 他: 咬筋内血管腫の1例, 耳鼻臨床 7: 37-40 1960.
- 3) 高橋庄二郎, 渡辺甚一, 他: 静脈石を有する舌血管腫の1例. 歯科学報 61: 475-478 1961.
- 4) 松浦須美子, 豊島敬三, 他: 血管腫の3例, 口外誌 7: 223-225 1961.
- 5) 小倉義郎, 旭 晋: 静脈石を含有した側頸部血管腫の1例, 耳鼻 8: 276-278 1962.
- 6) 長島俊一, 青山 亘, 他: X線学的にみた広範な静脈石を有する血管腫の2例, 臨床放射線 11: 114-119 1962.
- 7) 松田 登, 間仁田恭一, 他: 多数の静脈結石を伴った舌下口腔底部血管腫の1例, 口外誌 8: 18-20 1962.
- 8) 今井恵美子: 静脈結石を伴った部血管腫の1例(抄), 口外誌 9: 294 1963.
- 9) 高橋庄二郎, 田中喜喬, 他: 静脈石を伴った頬部血管腫の1例. 歯科学報 64: 970-971 1964.
- 10) 清水達夫, 青山善男, 他: 結石を有する頬部血管腫の1例. 京大口腔紀 4: 181-183 1965.
- 11) 岡野光雄: 多数の静脈石を伴った頬部血管腫のSylasol 注射の1治療例, 日口外誌 14: 402-403 1965.
- 12) 堀川利彦: 耳下腺嚥石症を思わしめた静脈石について, 耳展 9: 192-194 1966.
- 13) 小田道夫, 守屋清康, 他: 静脈結石を含有せる舌血管腫の1症例, 広島医学 19: 278-280 1966.
- 14) 野添良隆, 坂ノ上 昇: 結石を伴った舌血管腫の1例, 日歯評論 294: 91-92 1966.
- 15) 石井安雄, 山田一郎, 他: 舌に発生した静脈結石を伴う血管腫の2例, 京大口腔紀 6: 254-260 1966.
- 16) 柘植精一, 柴田寛一, 他: 多数の静脈石を伴った頬部血管腫の1例, 口科誌 16: 398-400 1967.
- 17) 伊藤孝広, 熊谷寛一, 他: 静脈石を伴った口腔底部血管腫の1例(抄), 日耳鼻 70: 1753 1967.
- 18) 浜田 眺, 田村浩一, 他: 静脈結石を伴う血管腫の1症例, 日口外誌 14: 85-87 1968.
- 19) 渡辺文磨, 中田 勇, 他: 結石を有する顎下部血管腫の1例(抄), 口科誌 17: 629 1968.
- 20) 北村博之, 田村益己, 他: 静脈石を伴った頬部深在性海綿状血管腫の1例, 耳鼻臨床 61: 976-979 1968.
- 21) 久野吉雄, 東 俊雄, 他: 静脈石を有した口腔底部血管腫の1例, 日口外誌 15: 116-120 1969.
- 22) 佐々木治夫, 福山和彦, 他: 頬部静脈石の1例耳喉 42: 217-219 1970.
- 23) 東 俊雄, 比嘉実盛, 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: 181-188 1970.
- 24) 筒井英夫, 吉田幸子, 他: 静脈石を伴った頬部海綿状血管腫の1例(抄), 口科誌 19: 785 1970.
- 25) 滝川富雄, 寺間正昭, 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 44: 489-501 1970.
- 26) 菱沼文彦, 藤崎隆三: 左顎下部静脈石の1例. 耳喉 43: 469-472 1971.
- 27) 寺井 宏, 堀部 紘: 静脈石を伴った頬部痙攣状血管腫の1例. 口科誌 20: 105-108 1971.
- 28) 森満 保, 篠崎直子: 頬部静脈石症について. 耳喉 44: 971-975 1972.
- 29) 本田光徳, 田中俊彦, 他: 静脈石を伴った血管腫の1例. 口科誌 18: 126-127 1972.
- 30) 奥井 寛, 下里常弘, 他: 頬部血管腫中にみられた静脈石の物理化学的性状に関する研究. 口科誌 26: 61-71 1977.
- 31) 佐藤 圭, 福井浩英, 他: 静脈石を伴った頬部血管腫の1例. 日口外誌 28: 1145-1148 1982.
- 32) 川中敏正, 滝元 徹, 他: 頬部および顎下部静脈石2症例について——頭頸部静脈石の文献的考察——. 耳鼻臨床 77: 30-38 1984.
- 33) 西嶋克己, 森田知生, 他: 結石を有する頬部血管腫の1例ならびに文献的考察. 口外誌 12: 171-175 1966.
- 34) 増田正樹, 成宮正光, 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: 428-431 1971.
- 35) 上野 正, 山城正宏, 他: 多数の静脈石を伴った頬部血管腫の1例. 日口外誌 19: 202-207 1973.
- 36) 日比野 修, 大西正俊, 他: 初回手術後に静脈石の形成をみた頬部血管腫の1例. ——その臨床経過ならびに静脈石の物理化学的性状について——. 日口外誌 26: 1300-1307 1980.
- 37) Lerche, H.: Ein Beitrag zur Pathologie und klinik der Hämangiome mit phelbolithen im Bereich des Kopfes. Dtsch. Zahnärzte Z. 13: 269-275 1958.
- 38) Parker, L.A. and Frommer, H.H.: Pheboliths, Oral Surgery 18: 476-480 1954.
- 39) 金沢拓実, 久保木芳徳, 他: 異所石灰化組織の有機基質について. 骨代謝 12: 434-440 1979.
- 40) 桑澤隆補, 扇内秀樹, 他: CO₂ レーザーメスの口腔外科領域における使用経験 (抄). 口科誌 30: 599 1981.