静脈石を伴った頬部血管腫の2症例

小川 晶子・佐野和生・井口次夫・高橋 弘*

Buccal hemangioma with phlebolith: Report of two cases

Akiko OGAWA・Kazuo SANO・Tsugio INOKUCHI
Hiroshi TAKAHASHI*

Abstract: Hemangioma is common in the region of the head and neck, especially in the tongue, lip and buccal mucosa. But the hemangioma which includes the phlebolith is relatively rare. The authors reported two such cases.

Case 1 was a 17-year-old man who visited our clinic complaining of a swelling of the left cheek. The swelling had been there since his birth, and it had gradually increased in size with general bodily growth. He was diagnosed as a buccal hemangioma with phleboliths. The tumor occupied the entire left cheek. Subtotal extirpation was performed and a multiple ligature suture was done to the residual tumor. The postoperative histological diagnosis was cavernous hemangioma with phleboliths. Scanning electron microscopic findings of the phlebolith revealed a concentric lamellar structure. Analyses of the phleboliths by means of infrared spectrometry and X-ray diffraction identified calcium phosphate as the component of the phleboliths, and suggested the existence of calcium carbonate.

Case 2 was a 37-year-old woman who had noticed the tumor on her left cheek 16 years before and it was excised at that time. But it recurred one month later and grew slowly. Total resection of the tumor was performed in our clinic. The resected tumor was walnut-sized and well-capsulated one. The postoperative histological diagnosis was cavernous hemangioma. Thrombi and phleboliths were also observed within the tumor.

Key words: cavernous hemangioma, phlebolith

緒 言

血管腫の約半数は頭頸部領域に発症するとされており、口腔領域では舌、口唇、頬粘膜が好発部位とされている。しかし、血管腫内に静脈石を伴うことは比較

的まれである。今回、われわれは静脈石を伴った頬部血管腫の2症例を経験したのでその概要を報告するとともに、とくに症例1については静脈石の定性分析の結果についてもあわせて呈示した。

症 例

症例1

患 者：17歳 男性。
初 診：昭和58年7月。[redacted]
主 訴：左頬部腫脹。
既往歴：特記事項なし。
家族歴：特記事項なし。

現病歴：生下時より左頬部の腫瘤を指摘され、6歳時に某大学病院を受診し血管腫との診断を受けるも、手術による顔面神経の損傷を考慮して放置。昭和58年6月、某歯科を受診し、X線写真にて左頬部の石灰化物を指摘

長崎大学歯学部口腔外科学第2講座
(主任：井口次夫教授)
* 長崎大学歯学部口腔病理学講座
(主任：岡邊治男教授)
Second Department of Maxillo-facial and Oral Surgery, Nagasaki University, School of Dentistry (Chief: Prof. Tsugio Inokuchi)
* Department of Oral Pathology, Nagasaki University, School of Dentistry (Chief: Prof. Haruo Okabe)
受付日：昭和60年11月18日

写真 1 症例 1：初診時顔貌所見

写真 2 症例 1：後前法X線写真

写真 3 症例 1：ゼログラフィー所見（外頸動脈血管造影の正面像）

され、紹介来院した。

現 症

全身所見：体格、栄養状態ともに良好で、そのほか特記すべき事項なし。

口腔外所見：顔貌は、左頬部の腫脹により非対称であり（写真1）、左頬部を中心に上方は左頬骨弓、下方は顎下部、後方は耳下腺に至る弾性軟の腫瘤を認め、表在皮膚は一部で青紫色を呈していた。腫瘤中には多数の固形物を触知し、その部位に一致して皮膚が凹凸不整に隆

起していた。

口腔内所見：45 相当部で頬粘膜は青紫色を呈していた。触診により弾性軟の腫瘤および内部に散在する固形物を触知した。

X線所見：後前法撮影により、左頬部に、軟組織様の不透過像がみられ、そのなかに、円形石灰化物が十数個点在していた（写真2）。左外頸動脈血管造影では、顎動脈、顔面動脈が拡張していた。輸入動脈は、顔面動脈が主で、ほかには顎動脈の頬動脈枝などが考えられた。外頸動脈の血管造影正面像のゼログラフィーでは、頬骨弓下部、側頭下窩、口角部、顎下部の範囲で病巣が描出されている（写真3）。CT 像では、左頬部より咬筋部に、比較的境界明瞭な腫瘤および一部に石灰化物を認めた（写真4）。

臨床診断：静脈石を伴う左頬部血管腫。

手術および摘出物所見：手術は昭和58年8月全身麻酔下に行った。左外頸動脈を結紮後、耳介前部から上行枝後縁、顎下部を通り顎下部にいたる皮切を加え（図1、写真5）、顔面神経枝を保存しながら腫瘍の鈍的剝離を進めたが、腫瘍は咬筋を中心に側頭筋、耳下腺浅葉、頬筋および顎部付近に、また表在皮膚にも複雑に入り込んでいたため、顔面神経の損傷および顔面醜形の可能性を考慮して、頬筋、耳下腺、側頭筋、咬筋の一部を含める亜全摘として、表在皮膚、側頭筋の一部、耳下腺の一部に残存する腫瘍については結紮梱包した。出血量

写真 4 症例 1 : 頬部 CT 所見

図 1 耳珠前部より頤下部にいたる皮切を示す。

写真 5 症例 1 : 術中所見

A : 咬筋断端, B : 耳下腺, C : 左外頸動脈結紮, D : 下顎骨

写真 6 症例 1 : 術後顔貌所見

写真 7 症例 1 の組織像 : 血管の著しい迂曲拡張 (H-E 染色, $\times 100$)

は, 3300 gr で濃厚赤血球12パック, 新鮮凍結血漿14パックの輸血を行った。摘出された腫瘍塊は失血により縮小したが, 暗赤色を呈し, 白色の結石様固形物を十数個および暗赤色の球状固形物を含んでいた。

術後臨床経過: 術後, 左側耳珠前方の縫合部に耳下腺瘻を形成したが, 再縫合により瘻孔は消失した。また, 左顔面神経麻痺による閉眼不能と口角下垂がみられたが一過性のものであった。術直後より退院時まで開口訓練を積極的に行って瘢痕性開口障害を防止した。顔面の非対称性は改善され (写真 6), 2年後の現在, 腫瘍の増大傾向はみられない。

病理組織学的所見: 著しい蛇行拡張を呈した血管腔がみられ, その内腔には扁平な内皮細胞を有している (写真 7)。血管壁は静脈に類似する比較的厚いところや非

薄化しているところなどが混在している。血管腔内には新旧さまざまな血栓がみられ、血栓の線維化・石灰化なども認められた。また、著しく拡張した血管腔における結石は、層状かつ同心円状の線維成分に石灰沈着を呈しているとき像であった（写真8）。

病理組織学的診断：海綿状（静脈性）血管腫，静脈石。

走査電顕所見：静脈石断面の走査電顕像では，中心に核となる部分が存在しその周囲は同心円状の層状構造を呈していた（写真9）。

静脈石定性分析

① 赤外線分光：日立 260-30 型赤外線分光光度計を用いて静脈石の定性分析を行った結果，リン酸カルシウムの吸収パターンである 610, 1050, 1620, 3340 (cm^{-1}) において吸収ピークが認められた。その他には 870, 1400 (cm^{-1}) の付近でピークが認められ，炭酸カルシウムまたはリン酸マグネシウムアンモニウムの存在が示唆された（図2）。

写真8 症例1の組織像：著しく拡張した血管腔内における結石の形成と新しい血栓（H-E染色，×40）

② X線回折：理学電機 RAD-γA（ターゲットは銅）を使いX線回折による静脈石の定性分析を行った。上からの矢印で示す回折角度 2θ が 21.8, 22.9, 25.9, 28.1, 29.0, 31.8, 32.9, 34.0, 35.4, 39.8, 42.0, 43.8, 45.3, 46.7, 48.1（度）における相対強度のピークより，リン酸カルシウムがやはり同定され，他にピークを示すと思われる回折角度は下からの矢印で示す 2θ が 39.4 度のところであった（図3）。この部分にピークをもつ物質には炭酸カルシウムが相当する。炭酸カルシウムには 2θ が 34.6 度でもピークをもつため同定にはさらに走査速度を遅くして，低い相対強度のピークを検出したところ 34.6 度のところでピークが認められ，炭酸

写真9 症例1：静脈石の走査電顕所見（×20）
同心円状の層状構造を呈している。

図2 静脈石（症例1）の赤外線スペクトル

図 3 静脈石（症例1）のX線回折

図 4 静脈石（症例1）のX線回折

カルシウムの存在が強く示唆された（図4）。

症例2
患者：37歳 女性。
初診：昭和59年9月
主訴：左頬部腫瘍。
既往歴：特記事項なし。
家族歴：特記事項なし。
現病歴：16年前に左頬部腫瘍に気づき、某大学病院にて、局所麻酔下に摘出術を受けたが約1か月後に再発。

無痛性で、発育も緩慢なため放置していたが、近年、軽度自発痛が発現してきたため当院受診。
現 症
全身所見：体格、栄養状態ともに良好で、そのほか特記すべき事項なし。
口腔外所見：顔貌は対称性であるが左頬部に直径約3 cm の丘状の隆起を認めた（写真10）。隆起部の皮膚の色は正常であった。口腔内外からの双手診により、数個の硬固物を含む腫瘍を触知した。腫瘍は弾性軟、比較的

写真 10 症例 2 : 初診時顔貌所見

写真 12 症例 2 の組織像 : 血管の著しい増生と拡張 (H-E 染色, $\times 25$)

写真 11 症例 2 : 摘出物

写真 13 症例 2 の組織像 : 血管腔内における血栓の線維化と石灰化 (H-E 染色, $\times 50$)

境界明瞭でクルミ大, 口腔粘膜および表在皮膚との癒着は認められず可動性であった。

口腔内所見 : 左頬粘膜に隆起は認められず, その他口腔内には特に異常所見を認めなかった。

X線所見 : 後前法撮影により, 左頬部に直径約 3 cm で円形のほぼ均一な軟組織様不透過像がみられ, そのなかに直径 1~3 mm の円形石灰化物が数個点在していた。左外頰動脈血管造影では, 特に異常を認めなかった。CT 像では, 左咬筋の前方部に石灰化物を含んだ比較的境界明瞭な円形腫瘍を認めた。

臨床診断 : 静脈石を伴う左頬部血管腫。

手術および摘出物所見 : 手術は昭和59年11月全身麻酔下に行った。左頬粘膜に腫瘍の直上で約 3 cm の横切開を加えた後, 鈍的に剝離を進めたところ, 腫瘍は被膜に被われていて剝離は容易であったが, 腫瘍中に入る

2本の小血管を結紮し切断した後, 一部癒着していた頬脂肪体を含め一塊として摘出した。出血量は 50 gr であった。摘出物はくるみ大で赤紫色, 弾性軟, 表面は凹凸不整を呈しており, 球状の血管塊を思わせる形状であった (写真 11)。また, 球状の結石様固形物も表在していた。

術後臨床経過 : 術後経過は良好で, 半年後の現在, 再発の傾向はみられない。

病理組織学的所見 : 症例 2 の組織像は, 基本的には症例 1 とほぼ類似しているが, 血管の増生や迂曲拡張の程度は症例 1 よりもきわめて顕著であった (写真 12)。また, 本症例でも血管腔内に新旧さまざまな血栓および結石の形成が確認され, 新しい血栓から血栓の線維化, 石灰化にいたる過程を示唆する所見も認められた (写真 13)。

病理組織学的診断 : 海綿状(静脈性)血管腫, 静脈石。

考 察

血管腫は、真性腫瘍というよりはむしろ血管の先天性奇形に由来する^{1,2)}と考えられている。初発年齢も川中³⁾によれば、生下時が13%，10歳代以下が73%を占め、また、橋本⁴⁾は、生下時が27%，20歳代までに気づいたものが過半数であったと報告しており、本症例も初発年齢は、生下時および21歳時と、ほぼ同様であった。

頭頸部を好発部位とする本疾患が静脈石を伴うことは比較的まれであり、1905年に Kirrmission⁵⁾により報告されたのが最初とされている。本邦において、口腔領域の血管腫が静脈石を伴った症例としては、橋本⁴⁾は、127例中6例(4.7%)、滝川⁶⁾は、154例中30例(19.4%)を報告している。静脈石の発生部位は頬部に多く⁷⁾、金田⁸⁾は、静脈石を伴った口腔領域の血管腫67例中38例(56.7%)が頬部であったと報告している。

静脈石の成因については、一般に Ribbert⁹⁾の説が支持されており、局所の循環血流の速度が低下し、血管壁に付着した血栓が石灰沈着をきたし、静脈石を形成すると考えられている。また、斎藤¹⁰⁾は、その過程について、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を起こす、と述べている。著者らは、光顕的に著しく蛇行拡張した血管腔内に新しい血栓の形成、さらには血栓の器質化を認めた。この血栓の器質化の過程では、血栓が層状に線維化をおこし、さらに核部に石灰沈着を呈する所見を確認したことから、血管腫の増生する血管内に形成された血栓が結石の核になることが示唆された。局所循環の低下が原因と考えられる例として、咬傷により血腫を形成し、そこに結石が形成されたと推察される報告¹¹⁾もある。

結石の定性分析、定量分析には、赤外線分光による分析^{12~14)}、X線回折、X線マイクロアナライザーなどの方法が用いられており、われわれも今回赤外線分光とX線回折によって静脈石の定性分析を行った。静脈石の成分は、奥井¹⁴⁾によると、赤外線分光により、 PO_4 、 CO_3 、 OH 、 CH_2 、amide の吸収帯を呈し、X線回折パターンより結石核部の構造は、ハイドロキシアパタイトであったと報告している。また、Letrche¹⁵⁾は、炭酸カルシウム7.65~7.96%，リン酸カルシウム46.89%~70.15%であると述べており、定性的にはわれわれの結果と一致している。

口腔領域で結石様不透過像としてX線写真上にあらわれる代表的なものとして唾石があげられるが、唾石との鑑別は、唾仙痛や唾腫などの臨床症状により容易である。X線写真上の鑑別点として一般に、静脈石は同心円状の層状構造を示し、唾石の場合には層状構造を示すことは

まれであるとされているが、藤木¹⁶⁾によれば、径2~3 mm以下の静脈石では円形の均一な不透過像として現れ、中等度の大きさ(径2~3 mmから10 mm程度)の静脈石でほとんどがいわゆる標的様の像を示し、一方、唾石では32症例中12症例(いずれも中等度大)に層状構造を認めている。また、同報告において、静脈石はほぼ円形で辺縁部も明瞭なのに対し、唾石は完全な円形を示すものではなく長楕円形や、涙滴状のように紡錘形となるものなど、一定せず、辺縁が明瞭なものでも辺縁の一部、あるいは全体が中心部よりX線透過性の高いものが多いと述べている。

血管腫の治療法に関しては、外科的療法が一般的であり、その他放射線療法、梱包療法、組織硬化剤の注入療法、凍結療法などが行われている。本症例では、静脈石を多数伴っており、保存療法では静脈石の消失までは期待できず、静脈石の残存により審美障害をきたすことが予想され外科的療法を選択した。症例1のように、血管腫が広汎で外科的療法により多量の出血が予想される場合、まず術前に血管造影による輸入動脈の確認や、CT像による範囲の把握を行うことが、術中の出血量を最小限にする手段として肝要である。その際には外頸動脈の結紮や低血圧麻酔などの併用も考慮されるべきである。また外科的療法との併用療法として、梱包療法¹⁶⁾や術前の塞栓法¹⁷⁾の有効性についても報告されている。

結 語

静脈石を伴った頬部血管腫2症例を報告した。症例1については、静脈石の定性分析を行った結果、リン酸カルシウムが同定され、さらに炭酸カルシウムの存在が示唆された。

稿を終えるにあたり、静脈石の定性分析に関しご教示いただきました本学歯学部歯科理工学講座久恒邦博助教授に深謝いたします。

本論文の要旨は、第17回日本口腔科学会九州地方部会(昭和59年12月1日、熊本)において発表した。

引 用 文 献

- 1) 石塚理一郎，山崎英隆，他：多数の石灰化物をともなった頬部血管腫の2症例。日大口科学 9: 298-300 1983.
- 2) Ikegami, N. and Nishijima, K.: Hemangioma of the buccal pad with phlebolithiasis: Report of a case. Acta Med Okayama 38: 79-87 1984.
- 3) 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。耳鼻臨床 77: 29-38 1984.

- 4) 橋本賢二, 塩田重利, 他: 最近の10年間に
ける血管腫の臨床統計的観察. 日口外誌 23: 680-
688 1977.
- 5) Kirrmission, E.: 8) より引用.
- 6) 滝川富雄, 山梨 孝, 他: 口腔外科領域のい
ゆる血管腫に関する臨床病理学的研究 第3報
被験例の統計的観察. 日大歯学 46: 234-240
1972.
- 7) 佐藤 圭, 福井治英, 他: 静脈石を伴った頬部
血管腫の1例. 日口外誌 27: 1145-1148 1982.
- 8) 金田式世, 富久尾明德, 他: 静脈石を伴った頬
部血管腫の1例と文献的考察. 臨床歯科 304:
35-40 1982.
- 9) Ribbert, H.: Die Phlebolithen. Virchow
Archiv 223: 339-350 1917.
- 10) 斉藤晃一, 茂木健司, 他: 頬皮嚢胞を疑った口
底部血管腫の症例. 日口外誌 29: 1651-1655
1983.
- 11) 川本洋子, 尾崎登喜雄, 他: 当科でみられた唾
石症および静脈結石に関する臨床的検討. 日口
外誌 28: 416-423 1982.
- 12) 市川篤二, 柿崎 勉, 他: 尿石の赤外線スペク
トルによる分析 第1編 定性的応用. 日泌尿会
誌 50: 1-21 1959.
- 13) 高橋悦司: 尿石の赤外線スペクトルによる分析
第2編 定量的応用. 日泌尿会誌 51: 639-663
1960.
- 14) 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. 日
口外誌 26: 61-68 1977.
- 15) Letrche, H.: 8) より引用.
- 16) 藤木知一, 藤下昌巳, 他: 顎, 顔面領域におけ
る血管腫ならびに類似疾患のX線診断学的検
討. 歯放 21: 229-239 1982.
- 17) Bardach, J. and Panje, W.: Surgical mana-
gement of the large cavernous hemangioma.
Otolaryngol Head and Neck Surg 89: 792-
796 1981.
- 18) Biller, H.F., Krespi, Y.P., et al.: Combined
therapy for vascular lesions of the head and
neck with intra-arterial embolization and
surgical excision. Otolaryngol Head and
Neck Surg 90: 37-41 1982.