顎下部に生じた静脈石を有する血管腫の1症例

山本 伸介・吉川 文弘・安東 利文・堀内 克啓
杉村 正仁・岡田 征夫*・野田 陽子*・森 昌彦*

Cavernous hemangioma with Phleboliths: Report of a case

Shinsuke YAMAMOTO・Fumihiro YOSHIKAWA・Toshifumi ANDOH
Katsuhiko HORIUCHI・Masahito SUGIMURA・Yukio OKADA
Yohko NODA*・Masahiko MORI*

Abstract: Hemangioma is a dysontogenic malformation which appears as a tumor-like lesion predisposing head and neck areas.

This report represents the detailed description of a case of cavernous hemangioma with phleboliths adjacent to the right submandibular gland.

A 16 year-old Japanese girl was referred to the clinic with a chief complaint of a submandibular swelling which enlarged during and after meals. The salivary flow from the right submandibular gland was rather lower than that of the opposite side. Roentgenograms showed several radiopaque masses at the right submandibular area suggestive of sialoliths. However, sialograms indicated that these masses were not construed as submandibular gland. Moreover the swelling was fluctuant and blood could be aspirated by puncturing.

Under the diagnosis of hemangioma, the tumor was extirpated, which was about 4 cm in diameter and histologically diagnosed as a cavernous hemangioma with several phleboliths. Phleboliths mostly consisted of hydroxyapatite by X-ray diffraction analysis.

The clinical symptoms disappeared and there is no recurrent.

Key words: cavernous hemangioma, phleboliths, submandibular region

緒 言

血管腫は、血管組織の増生を認める病変であり、身体各部に見られるが、特に頭頸部に発生頻度が高く、舌、口唇、頸部に好発するといわれており、なおかつ皮下等のいわゆる浅層に多く発生する¹⁾。

奈良県立医科大学口腔外科学教室
(主任：杉村正仁教授)

* 朝日大学歯学部口腔外科第1講座
(主任：森 昌彦教授)

Department of Oral and Maxillofacial Surgery,
Nara Medical University (Chief: Prof. Masahito Sugimura)

* The First Department of Oral Surgery, School
of Dentistry, Asahi University (Chief: Prof.
Masahiko Mori)

受付日：昭和61年9月10日

わたくしたちは臨床症状から顎下腺唾石症および側頸囊胞を思惟した、静脈石を有する血管腫の1症例を経験したので報告する。

症 例

患 者：16歳 女性。

初 診：1985年8月■日。

主 訴：右側顎下部無痛性腫脹。

既往歴：家族歴をも含め特記事項はない。

現病歴：10歳時に右側顎下部腫脹に気付くも疼痛、嚥下障害等の機能障害がないため放置していた。しかし、摂食時に一過性の腫脹の増大を呈するようになり、12歳時に近内科医を受診し、顎下腺唾石症の診断を受けた。だが、症状が軽度であったため経過観察されていたが、本人が摘出を希望したため、当科紹介来院となった。

現 症：体格、栄養ともに良好であり、右側顎下部に

写真 1 初診時顔貌正面像

写真 4 頭部軸位 CT 像

写真 5 手術中写真

写真 2 頭部側面斜位X線像

写真 3 右側顎下腺造影像

直径約 3 cm, 半球状, 弾性軟で波動を触知する腫瘤を認め, また, その腫瘤の内下方辺縁部に結石様の硬固物を皮膚上より触知できる (写真 1). 自発痛, 圧痛はなく, 皮膚は正常であり毛細血管の拡張等もない. 顎下腺からの唾液流出量は, 左側に比して右側はやや少ないが, 性状は漿液性である. 波動部の穿刺により, 暗赤色, 漿液性の血液様内容液を約 5 cc 吸引する.

X線所見: 頭部側方位にて右側顎下部に小豆大, 卵円形で均一な 2 個の石灰化物を認める (写真 2).

76% ウログラフィンを用いた右側顎下腺造影において導管の狭窄, 拡大もなく, 石灰化物はその導管および腺体内に認められない (写真 3). 軸位 CT 像において, 右側顎下腺の前方に直径 30 mm 程度の辺縁明瞭な充実性の組織を認める (写真 4). 右外頸動脈血管造影では, 顔面動脈の末梢枝は右顎下部で前上方に弧状に圧排伸展されているが, 腫瘍血管, 腫瘍造影像, 導出静脈等は認められない.

臨床診断: 結石を伴う血管腫.

処置および経過: 1985年12月■日, 全身麻酔下にて右側下顎骨下縁に平行でそれより 2 cm 下方に約 4 cm の皮膚切開を加え剝離を進めたところ, 顎下腺の内前方に直径約 2.5 cm, 球状, 青紫色, 弾性軟の腫瘤を認めた (写

図 1 30° 付近の 3 つの peak が Apatite 構造を示唆している.

表 1 測定条件

Target	Cuk α
accel voltage	30 kVp
current	30 mA
range	1 K
scan speed	2°/min
chart speed	10 mm/min

写真 6 摘出物 X 線像

真 5). 周囲は希薄な結合織性の被膜で覆われ, 圧迫により褪色を示した. 周囲の血管との吻合は著明でなく, 後顔面静脈の一部が腫瘍にはいりこんでいることを確認し, その部を結紮して一塊として摘出した. なお, 腫瘍の一部は結合織を介して顎下腺小葉間へもはいりこんでいた.

摘出物所見: 青紫色を呈し, 弾力性に富む腫瘍内部に卵円形の石灰化物を含み, X線にてさらに小さな石灰化物が散見された(写真 6).

静脈石の物理化学的性状: 摘出した静脈石の X 線回折を Moriawaki ら²⁾の方法に準じ行った. 測定条件は表 1 に記す. 測定には Shimadzu 自記 X 線回折装置 XD-3A を使用した.

回折角度 2θ が 30° 付近で 3 本の peak を描き, これはおおの 31.78, 32.20, 32.90° となり, この 3 つの peak より Apatite 構造を示し, なおかつ $\text{Ca}_{10}(\text{PO}_4)_6(\text{OH})_2$ の存在が示唆された(図 1).

病理組織学所見: 著明に肥厚増大した血管様構造が随所に認められ, 各管腔の間には結合織がはいりこんでい

写真 7 病理組織像 (H.E. 染色, 強拡大)

る。管腔内には凝血塊を含み、あるものは層状に結合組織がはいりこみ硝子化している。また一部には石灰化の生じている部を認め、静脈石を含む海綿状血管腫と診断した(写真7)。

考 察

Ribbert³⁾ は血管腫の総説を記し、本疾病は血管となすべき原基が何らかの障害を受け胎生期に發育不全をきたした結果生じたものであるとした。Herxheimer⁴⁾ は一連の腫瘍は胎生期の發育異常、すなわち過誤腫に端を発すると記し、Gruenwald⁵⁾ は当該腫瘍に dysontogenic blastoma と命名した。Watson と McCarthy⁶⁾ は 1,056 名の血管腫の患者から 1,308 の症例を得て広汎な統計学的分析を行い、そのなりたちについて言及し、ぶどう状型を除いては本疾患が周囲の正常な血管と交通あるいは吻合していない事実より本疾患は内皮細胞組織の原基というべき索自身が管腔を形成し、母血管と交通して腫瘍状を示すとしている。Fasske と Morgenroth⁷⁾ は本疾患は生後、腫瘍内部に塞栓を作り、その結果、結合組織の増生を招き瘢痕状となり腫瘍状を呈すと記しており、やはり本腫瘍の実体は過誤腫であるとしている。Watson と McCarthy⁶⁾ は病理組織学的分類も試みており、8型に分類しているが、この疾病のほとんどは毛細血管型、海綿状型であり、先述のぶどう状型は増殖傾向をもち腫瘍様性格を示すもののその発現頻度は低いと述べている。Shklar と Meyer¹⁾ も同様に分類を試み毛細血管型、海綿状型およびその混合型に分類しており皮下の浅層に多くみられるのが毛細血管型であり、深層にあるのは海綿状型をとる傾向があると述べている。本症例も広頸筋の内側にあり比較的深層と考えられ、やはり海綿状型を示していた。

部位別統計では Geschickter と Keasby⁸⁾ の報告によれば 570 例の血管腫のうち末梢部が 370 例を占め、さら

に頭頸部が 155 例と実に末梢部の 42% を占めている。Watson と McCarthy⁶⁾ の報告によれば、頭頸部が全体表面積の 1/7 を占めるにすぎないのに発現頻度は 56% と高く頭頸部が好発部位であることを強調している。

これら血管腫は静脈石を伴うことがあるものの従来は比較的まれであると考えられていたが、近年は静脈石を伴う血管腫の報告がかなり見られる⁹⁻¹⁹⁾。また、それらの統計的解析もされており^{13,14)}、静脈石は海綿状血管腫に特異的であり、静脈石の存在が海綿状血管腫の確定診断となりうるまで言及している⁶⁾。

静脈石のなりたちは、血管の壁が何らかの刺激で出血を生じ血小板、フィブリンからなる塞栓が生じ、その部が硝子化し、やがて石灰沈着が生じ管腔内の一部を占めるといわれている¹⁵⁾。すなわち異形成としての石灰化と考えるべきであろう^{16,17)}。静脈石の成分分析も積極的にとりくまれている。本症例において、そのX線回折を試みたところ諸家の報告と同様に結晶性の高いリン酸カルシウムのハイドロキシアパタイト構造を示していた。

今回のわたしたちの症例においては、初診時に顎下部に弾性軟、波動を触知する腫脹を認め、摂食時に腫脹の増大を生じ、またX線検査により右側顎下部付近に石灰化物を認めたために、一見、側頸嚢胞と唾石症の合併を思わせた。しかし、唾液腺造影検査の結果、右側顎下腺において、導管の狭窄や閉塞等の異常所見は認められず、また右側顎下部の石灰化物との関係も認められなかった。そこで次に CT-X 線検査を行ったところ、右側顎下部に径約 10 mm の高濃度域がみられ、その外側に径約 30 mm 程度の低濃度域が認められた。この部分の濃度は均一ではなく、海綿状の構造を思わせた。また、波動部の穿刺により血液様内容液を吸引したこともあわせて、静脈石を伴う血管腫が疑われた。血管造影検査を行ったところ、同病変への著明な流入血管は認められなかった。これは Watson と McCarthy⁶⁾ の述べているように本腫瘍は管腔を伴う内皮細胞の集積で周囲の血管

写真 8 術前造影画像

写真 9 術後造影画像

術前造影画像では Wharton 管と側枝が圧迫を受けていることがうかがえる。

と多く吻合していない事実をものがたっているのであろう。摘出時の所見は海綿状血管腫を思わせ、それは病理組織検査においても確認された。本症例において、摂食時に右側顎下部の腫脹の増大を示したのは、血管腫によって Wharton 氏管および、その側枝が圧迫を受けていたためと考えられる(写真 7, 8)。

顎下部に腫脹およびX線写真にて石灰化物を認める場合、腫脹が充実性であれば、頻度から考えてまず顎下腺唾石症が疑われる。したがって臨床所見および唾液腺造影所見にて唾石症と他疾患の鑑別をまず第一に行う。もし唾石症でなければ石灰化物を伴う結核性リンパ節炎か多形性腺腫の単独疾患の可能性が高い。この鑑別は比較的容易であると考えられる。

次に腫脹が嚢胞性で唾石でない石灰化物が認められる場合、穿刺によるその内容液の所見が、診断の重要な鍵となる。頻度から考えると、本症例のように血液様内容物を吸引することが多く、静脈石を伴った海綿状血管腫と診断してもよいであろう。しかし、他の血管腫との鑑別のために血管造影検査が必要である。本症例の場合、穿刺により血液様内容物を吸引したこと、血管造影検査において腫瘍血管、腫瘍造影像、導出静脈等が認められなかったこと、また、CT 上で腫瘍に随伴する石灰化物を認めたことが海綿状血管腫と診断する上で有力な手がかりとなった。

もし、内容液が血液様でなく、側頸嚢胞と診断できるようなのであれば、石灰化物は他疾患によるものと考えるべきであろう。したがって腫脹と石灰化物との位置関係の把握は診断に重要であり、これにはCT所見が有用である。

以上のように顎下部に腫脹および石灰化物がある場合、単独疾患であることもあるが、複数の疾患が合併していることも考えられるので前述のような諸検査にて確実な診断を下し、処置することが大切である。

結 語

わたくしたちは16歳の女性にみられた静脈石を伴う右側顎下部海綿状血管腫の1症例を経験したので、その概要を報告し、若干の考察を加えた。

本論文の要旨は昭和61年6月21日、第12回日本口腔外科学会近畿地方会において発表した。

引 用 文 献

1) Shklar, G. and Meyer, I.: Vascular tumors of the mouth and jaws. *Oral Surg* 19: 355-358 1965.

2) Moriwaki, Y., Aoba, T., et al.: X-ray diffraction studies on the lattice imperfection of biological apatites. *J Osaka Univ Dent Sch* 16: 33-45 1976.

3) Ribbert, V.A.: Über Bau, Wachstum und Genese der Angiome, nebst Bemerkungen über Cystenbildung. *Arch f path Anat* 151: 381-401 1898.

4) Herxheimer, G.: Die Morphologie der Missbildungen des Menschen und der Tiere. Gustav Fischer, 1913, p 51.

5) Gruenewald, P.: A note on the so-called undifferentiated and embryonic cells. *Arch Pathol* 36: 190-194 1943.

6) Watson, W.L. and McCarthy, W.D.: Blood and lymph vessel tumors. *Surgery Gynecol Obstet* 71: 569-588 1940.

7) Fasske, E. and Morgenroth, K.: Pathologische Histologie der Mundhöhle. S Hirzel Verlag, Leipzig, 1964, p 164.

8) Geschickter, C.F. and Keasby, L.E.: Tumors of Blood vessels. *Amer J Cancer* 26: 568-591 1935.

9) 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血管腫の1例. *口外誌* 8: 18-20 1962.

10) 久野吉雄, 東 俊雄, 他: 静脈石を有した口腔底部血管腫の一例. *日口外誌* 15: 116-120 1969.

11) 菱沼文彦, 藤崎隆三: 左顎下部静脈石の一例. *耳喉* 43: 469-472, 1971.

12) 峰松洋一郎, 石川武憲, 他: 顎下部および頤下部にわたる深在性海綿状血管腫の一症例. *広大歯誌* 14: 57-62 1982.

13) 佐藤 圭, 福井治英, 他: 静脈石を伴った頬部血管腫の一例. *日口外誌* 28: 1145-1148 1982.

14) 川中敏正, 滝本 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: 29-38 1984.

15) 扇内秀樹, 山下泰裕, 他: 静脈石を伴った頬部血管腫の一例. *日口外誌* 31: 1722-1727 1985.

16) Büchner, F.: Allgemeine Pathologie. Urban & Schwarzenberg, München-Berlin-Wien, 1966, p 242.

17) 増田正樹, 成宮正光, 他: 多数の結石を有するオトガイ口底部血管腫の一例. *日口外誌* 17: 428-431 1971.

18) 日比野 修, 大西正俊, 他: 初回手術後に静脈石の形成を見た頬部血管腫の一例—その臨床経過ならびに静脈石の物理化学的症例について— *日口外誌* 26: 1300-1307 1980.

19) 小川晶子, 佐野和生, 他: 静脈石を伴った頬部血管腫の2症例. *日口外誌* 32: 619-626 1986.