下顎骨に発生した硬化性血管腫の1例および文献的考察

傾家仁美・傾家 和男・岡本 和己
岸野 優・小川隆嗣・浜田 曉
安達博信*・浜田陽一郎*・湯本東吉*

A case of sclerosing hemangioma in the mandibular bone and its review of the literature

Hitomi RYOKE・Kazuo RYOKE・Kazumi OKAMOTO
Masaru KISHINO・Takaaki OGAWA・Takeshi HAMADA
Hironobu ADACHI*・Yoichiro HAMADA*・Tokichi YUMOTO*

Abstract: Sclerosing hemangioma was formerly considered as hemangioma with fibrous vegetation. But recently this lesion has been believed to belong to subepidermal nodular fibromatosis which is a subtype of fibrous histiocytoma. The histological characteristics of are that many spindle cells and fine fibers present a specific storiform pattern with the arrangements around capillary nets.

The lesions have been rarely reported in maxillofacial region. We recently encountered a mandibular bone case histopathologically diagnosed as sclerosing hemangioma. The patient was a 47-year-old Japanese male who was initially examined in our hospital May 14, 1985 with a chief complaint of painless swelling in the left side of buccal mucosa region, and pre- and infraauricular region. In extraoral findings about 6×6 cm of apparently circumscribed swelling was found in the left side of pre- and infraauricular region, which was painless and elastic hard in consistency. There were not reddish spots and no sensation abnormalities such as hypesthesia on the surface of the mass.

In intraoral findings about 3×3.5 cm of diffuse swelling from the left side of buccal mucosa region to the glosso-palatine arch, which was elastic soft in consistency and indolent, was revealed.

Some radiographs showed an apparently well-defined radiolucency in most of the left mandibular ascending ramus. The tumor was extirpated in a mass intraorally under general anesthesia. Histopathological examination with hematoxylin-eosin stain, PAS stain, silver stain and Masson stain and immunohistological examination were carried out. Consequently this lesion was diagnosed as sclerosing hemangioma. Further review of the literature on this lesion was done.

Key words: sclerosing hemangioma, fibrous histiocytoma, storiform pattern

鳥取大学医学部歯科口腔外科学教室
(主任: 浜田 曉教授)

* 鳥取大学医学部病理学第1教室
(主任: 湯本東吉教授)

Department of Oral and Maxillofacial Surgery,
Tottori University School of Medicine (Chief:

Prof. Takeshi Hamada)

* Department of Pathology, Tottori University
School of Medicine (Chief: Prof. Tokichi
Yumoto)

受付日: 昭和63年3月11日

緒 言

硬化性血管腫 (Sclerosing hemangioma) は、1943 年 Gross ら¹⁾ により初めて記載され、当初は血管腫に線維性増殖が起こったものと考えられていた。

しかしながら、1967年 Stout²⁾ は、これを線維性組織球腫 (fibrous histiocytoma) の一亜型である表皮下結節性線維症 (subepidermal nodular fibrosis) に属するものと解釈した。組織学的には、紡錘形細胞と線維が毛細血管網を中心に配列し、特異な storiform pattern を呈するのが特徴とされており、口腔領域での報告は非常にまれな疾患である。

最近、著者らは下顎骨に発生し、組織学的に硬化性血管腫と診断された1例を経験したので、若干の考察を加えてその概要を報告する。

症 例

患 者： 47歳 男性。

初 診：昭和60年5月 日。

主 訴：左側頬粘膜部および耳介前部から耳介下部への無痛性腫脹。

既往歴：30歳の時、腰椎すべり症の手術を受けている。

家族歴：特記すべき事項なし。

現病歴：当科初診の約1年前に、左側頬粘膜の腫脹に気付くとともに、その頃より左側頬部をよく咬むようになった。その後、同部の腫脹は徐々に増大傾向を示したが、無痛性のため放置していた。約3か月前より、左側耳介前部から耳介下部にかけて、無痛性腫脹を認めるようになったため、某歯科を受診。歯原性炎症の診断下に、7の感染根管治療を受けたが腫脹の改善がみられなため、当科を紹介され来院。

現 症：全身所見では、体格中等度、栄養状態良好であり、特記すべき事項なし。

口腔外所見：左側耳介前部から耳介下部にかけて、約6×6 cm の比較的限局した弾性硬で無痛性の腫脹を認めた。表面皮膚には発赤や知覚低下などの異常は認めなかった。左側顎下リンパ節は、小指頭大に腫脹し、弾性硬、可動性であったが、圧痛は認めなかった。右側顎下リンパ節はエンドウ大に腫脹し、弾性硬、可動性であり、圧痛は認めなかった(写真1, 2)。

口腔内所見：左側頬粘膜から口蓋舌弓にかけて、約3×3.5 cm のび漫性で、弾性軟、無痛性の腫脹を認めた。表面粘膜は一部咬傷による瘢痕様の白色病変がみられたが、その他には異常は認められなかった(写真3)。左側耳下腺乳頭からの唾液の分泌は、右側に比較して若干低下傾向が認められた。7を含めて歯牙には何ら異常

写真1 初診時の顔貌写真

写真2 初診時の側貌写真

は認めなかった。

X線所見：顔面正面撮影、パノラマ撮影、下顎枝断層撮影にて、左側下顎枝の大部分を占める、比較的境界明瞭なX線透過像を認めた(写真4~6)。左側耳下腺造影所見においては、何ら異常は認められなかった。

臨床診断：下顎骨良性腫瘍の疑い。

処置および経過：昭和61年5月 日、局所麻酔下にて口内法により試験切除を施行した。病理組織学的所見において、神経原性腫瘍または線維性組織球腫が疑われ、確定診断に至らなかった。そこで、創部の治癒を確認

写真 3 口腔内写真

写真 5 パノラマX線写真

写真 4 顔面正面X線写真

写真 6 左側下顎枝断層X線写真 (1.5 cm)

後、7月■日診断確定の目的で当科に入院した。各種臨床検査成績においては、呼吸機能検査で軽度の閉塞性換気障害と動脈血ガス分析で PO_2 の軽度低下がみられた以外、特に異常は認められなかった(表1)。7月■日、全身麻酔下にて再度試験切除を試みたところ、腫瘍は充実性で比較的硬く、被膜に被われて境界明瞭であったため、ほぼ徒手的に一塊として摘出できた。腫瘍は、下顎切痕の一部、下顎頭、筋突起および下顎枝外側の皮質骨を薄く残すのみで、下顎枝の大部分を占めていた。一方、舌側においては口底から口蓋舌弓方向へ多房性に増殖していた。下顎神経血管束は、下顎骨底部でやや舌側に位置し、腫瘍とは比較的容易に剥離できた(写真7)。摘出後創部に抗生物質軟膏を塗布したガーゼを圧迫挿入した。その後創面の上皮化は順調にすすみ、経過良好のため7月■日退院した。

摘出物所見：腫瘍は $5.5 \times 5.5 \times 4.0$ cm の大きさで、その表面は大小さまざまな結節状で凹凸不整を呈していた。硬度はほぼ一様に弾性軟であった。表面は黄白色を呈し、薄い被膜に被われていた。断面においては、充実性ではあるが不均一な性状を示し、色調においても辺縁は灰赤色を呈しているのに対して、中心の大部分は黄白色を呈していた。一部、被膜の穿孔と組織の挫滅が認められたが、前回の試験切除の際に加えられた損傷と考えられた(写真8, 9)。

病理組織学的所見：ヘマトキシリン・エオジン染色標本においては、周辺部には毛細血管増生とその間を埋めるように類円形ないし紡錘形の組織球様細胞が増生が認められたのに対して、中心部は細胞成分は少なく硝子化が著明であった。細胞増生の密な部分では腫瘍細胞の流れがみられ、storiform pattern に類似した像を呈していた。

表 1 臨床検査成績

血液一般検査		尿検査	
白血球数	8,200/mm ³	pH	7
赤血球数	490×10 ⁴ /mm ³	蛋 白	(-)
血色素数	15.1 g/dl	糖	(0)
ヘマトクリット値	44.4%	ウロビリノーゲン	(±)
血小板数	301,000/mm ³	血清学検査	
血液生化学検査		赤血球沈降速度(60分値)	4 mm
Na	141 mEq/l	CRP	(-)
K	4.2 mEq/l	呼吸機能検査	
Cl	109 mEq/l	肺活量	3,837 ml
Ca	9.7 mg/dl	%肺活量	112%
総蛋白	7.4 g/dl	1 秒率	77%
A/G 比	1.94	動脈血ガス分析	
総ビリルビン	0.5 mg/dl	pH	7.418
GOT	22 U/l	PCO ₂	38.4 mmHg
GPT	26 U/l	PO ₂	73.5 mmHg
Al-P	71 U/l	BE	0.4 mEq/l
LDH	179 U/l

写真 7 手術時所見

写真 9 摘出物の断面

写真 8 摘出物所見
一部切除している

写真 10 病理組織像 (H-E 染色)
左は中心部, 右は周辺部

写真 11 病理組織像 (H-E 染色)
周辺部の強拡大

写真 12 病理組織像
左はマッソン染色、右は銀染色

(写真 10, 11).

PAS 染色標本においては、腫瘍細胞に PAS 陽性で、しかもジアスターゼで消化される小顆粒が多数認められた。

マッソン染色標本では、硝子化した部分が陽性を示した (写真 12 の左)。

鍍銀染色標本では、腫瘍細胞の多い部分で好銀線維が細胞を取り囲んでいる像が認められた (写真 12 の右)。

腫瘍細胞の核分裂像や細胞の異型性など、悪性像を思わせる所見は認められなかった。

免疫組織化学的所見：腫瘍マーカーによる酵素抗体法を行ったところ、ライソザイム、 α_1 -アンチキモトリプシン、第Ⅷ因子関連抗原においては陽性、S-100 蛋白は陰性の結果が得られた。

病理組織学的診断：硬化性血管腫 (Sclerosing hemangioma)。

考 察

硬化性血管腫の報告は、1943 年 Gross ら¹⁾ によって初めて記載され、その本体は血管腫に線維性増殖が起こったものと考えられていた。1971 年 Colby ら³⁾ も血管腫を組織学的に capillary type, cavernous type, sclerosing type に分類し、やはり本疾患を血管腫の一型とみなしている。一方、1965 年 Shklar and Meyer⁴⁾ は、血管腫がたとえ外傷や感染などをこうむらなくても、しばしば硬化の過程をたどることを指摘し、硬化性血管腫についてふれている。Friedlander⁵⁾ は 54 歳白人男性の舌背部に生じた 1 例を、Stafford⁶⁾ は 25 歳マレーシア人女性の頸部に生じた硬化性血管腫の 1 例を報告している。

本邦において、口腔領域に発生した硬化性血管腫の報告として、その本体を血管腫とするものに、1975 年出崎ら⁷⁾ が報告した 76 歳男性の頬粘膜上に生じた 1 例と、1981 年井上ら⁸⁾ が報告した 26 歳女性の頬粘膜部に生じた

1 例がある。松村ら⁹⁾ は、血管腫に組織硬化剤を注入した後の組織所見として、線維成分に富む sclerosing type を認めたことを報告し、硬化性血管腫の存在を支持している。以上の報告は、いずれもそれぞれの組織像の表現に多少の差異はあるものの、病変の本態あるいは成因に関する考え方として、本疾患は本質的には血管腫であり、それに何らかの硬化要因ないし硬化行程が加わって生じた一種の退行性病変であるという解釈がなされている。

しかしながら、1967 年 Stout and Lattes²⁾ はこのような考え方とは異なり、線維性組織球腫 (fibrous histiocytoma) の vascular variant と解釈している。すなわち、本疾患を組織球由来の腫瘍と考え、線維性組織球腫の一亜型である表皮化結節性線維症 (subepidermal nodular fibrosis) に属するものとみなした。これと同様の考え方に基づいて報告している人たちも多い¹⁰⁻¹⁵⁾。これらの報告における組織像の特徴は、短紡錘形細胞と線維が毛細血管網を中心に、マット状に密に配列し、いわゆる storiform pattern を呈する像とされている。また、脂質やヘモシデリンを貪食した組織球や泡沫細胞がみられるともいわれている組織球腫の一亜型としての本疾患の報告は、皮膚科領域に多いとされており、口腔領域におけるものは、渉猟するかぎりでは 1979 年高木ら¹²⁾ が 76 歳女性の頬粘膜に生じた 1 例をみるのみである。高木らはその中で、硬化性血管腫、皮膚線維腫、線維性組織球腫の 3 つの関係において、その本質には検討の余地があると述べている。

今回の著者らの症例は、かつて本邦において報告をみない下顎骨に発生しており、組織学的所見においても出崎ら⁷⁾、井上ら⁸⁾ の報告とは様相を異にしている。

線維性組織球腫の位置づけについては、さまざまな解釈がある。湯本^{11,12)} によると、Stout and Lattes の見解に従って、本腫瘍を組織球由来の軟部腫瘍として理解している。図 1 に示すように、組織球から泡沫細胞あるいは線維形成への分化の方向があり、組織球増生を主体

図 1 Fibrous histiocytoma の各型の相関関係を示す模式図
(湯本東吉：臨整外，8，698-713，1973より利用)

とするものが組織球腫であり，線維形成を主体とするものが表皮下結節性線維症であり，泡沫細胞の増殖を主体とするものが黄色腫であるとしている。従来，硬化性血管腫は，皮膚線維腫（dermatofibroma）と同義語として使用されるなど，表皮下結節性線維症の中に入れられている。しかし，湯本らは自験例において，両者の中間型，移行型は見出せなかったことから，Rentiers and Montgomery ら¹⁰⁾の主張に従い，2つの腫瘍をそれぞれ独立したものと考えている。むしろ，多数例の検討の結果，組織学的には硬化性血管腫は，花むしろ状線維性黄色腫（storiform fibrous xanthoma）と区別できない場合がしばしばあることを指摘し，硬化性血管腫は花むしろ状線維性黄色腫の初期像として理解されるものと主張している。

本症例の組織学的所見は，毛細血管の増生と，それを埋めるように短紡錘形の組織球様細胞増生がみられ，storiform pattern に類似した像を呈していたことより，湯本の見解に従い硬化性血管腫と診断した。しかし，湯本¹¹⁾が述べている硬化性血管腫の特徴として，腫瘤の中心部と辺縁部ではその組織像に著しい差異がないとしているが，本症例の場合，中心部は細胞成分が少なく，硝子化が著明であり，これは皮膚線維腫の特徴に一致するものである。このように組織学的特徴だけでなく，組織由来あるいは分類上において，若干の問題点は残り，今後の検討が必要である。

結 語

著者らは，47歳の男性の下顎骨に生じた硬化性血管腫の1例を経験したので報告した。

引 用 文 献

- 1) Gross, R.E. and Wolbach, S.B.: Sclerosing Hemangiomas; Their Relationship to Dermatofibroma, Histiocytoma, Xanthoma and to Certain Pigmented Lesions of the Skin. Am J Pathol 19: 533-551 1943.
- 2) Stout, A.P. and Lattes, R.: Tumors of the soft tissues. In Atlas of Tumor Pathology. fasc. I, Armed Forces Institute of Pathology, Washington, 1967, p 38-52.
- 3) Colby, R.A., Kerry, D.A., et al.: Color Atlas of Oral Pathology. 3rd Ed, Lippincott Co, Philadelphia, 1971, p 144.
- 4) Shklar, G. and Meyer, I.: Vascular tumors of the mouth and jaws. OS OM OP 19: 335-358 1965.
- 5) Friedlander, A.H. and Zeff, S.: Sclerosing hemangioma of the tongue: report of case. J Oral Surg 33: 212-214 1975.
- 6) Stafford, N.D.: A sclerosing haemangioma in

- the neck. J Laryngol Otol 95: 1173-1177 1981.
- 7) 出崎喜充, 西川太郎, 他: 頰部の硬化性血管腫の1症例. 広島歯誌 3: 41-42 1975.
 - 8) 井上靖彦, 神谷博昭, 他: 頰粘膜部硬化性血管腫の1例. 日口外誌 27: 1479-1481 1981.
 - 9) 松村智弘, 菅原利夫, 他: 血管腫患者の統計的観察. 口科誌 22: 476-480 1973.
 - 10) Robbins, S.L.: Pathologic basis of disease. Saunders Co, Philadelphia, 1974, p 629-630.
 - 11) 湯本東吉: 線維性組織球腫について. 臨整外 8: 698-713 1973.
 - 12) 湯本東吉, 吉田春彦, 他: 良性ならびに悪性線維性組織球腫—252例の臨床病理学的研究—. 米子医誌 29: 1-12 1978.
 - 13) 高木 爽, 渋谷由紀子, 他: 口腔領域の組織球性疾患. 口病誌 4: 43-58 1979.
 - 14) 仲 弥, 北村啓次郎: 皮膚線維腫—臨床統計および病理組織学的検討—. 臨皮 34: 151-156 1980.
 - 15) 戸沢孝之, 新村真人: 皮膚の軟部腫瘍. 病理と臨床 2: 817-818 1984.
 - 16) Rentiers, P.L. and Montgomery, H.: Nodular Subepidermal Fibrosis (Dermatofibroma versus Histiocytoma). Arch Dermatol Syph 59: 568-583 1949.