口腔内多発性血管腫の1例

紀平浩之・田川俊郎・平野吉雄・橋本 敏
村田睦男

A case of multipul hemangioma in oral cavity

Hiroyuki KIHIRA・Toshirou TAGAWA・Yoshio HIRANO
Satoshi HASHIMOTO・Mutsuo MURATA

Abstract: Hemangioma occurs frequently in the head and neck region. There are, however, relatively few reports of phleboliths occurring with hemangioma.

This report describes a case of multiple hemangiomas occurring with phleboliths in the oral region. A 45-year-old Japanese man was referred to this clinic with a chief complaint of tumors in the oral cavity. Hemangiomas were found on the bilateral buccal mucosa, tongue, right mandibular gingiva, oral floor and lower lip.

Surgical resection and Laser treatment were applied, and two phleboliths were extirpated. One of these phleboliths was dissected and its cut surface was examined with an X-ray microanalyser. The cut surface was of a stratiform construction in a concentric configuration. Ca, P, Mg, S, Na, O, C, Cl and Al were detected by point analysis. The concentration distributions of Ca and P were almost equal by line analysis.

Postoperatively, round and oval radiopaque shadows were seen on a CT scan at the anterior border of the right masseter, the interior border of the internal pterygoid muscle and the left superior submandibular gland.

Key words: hemangioma, phlebolith

緒 言 症 例

血管腫は一般に真の新生物というよりむしろ奇形または過誤腫様疾患と考えられており¹⁾, 身体の各部に見られるが, 特に頭頸部に好発する。口腔外科領域ではおもに粘膜部に生じるが, 他に咬筋部, 唾液腺部にも発現し, まれに顎骨内に認められることもある²⁾。しかし静脈石を伴う場合は比較的少ないとされている。

今回われわれは, 口唇, 舌, 頬, 歯肉, 舌下小丘に発生した多発性血管腫でかつ静脈石を伴った例を経験し, 若干の検討を加えたのでその概要について報告する。

患 者: 45歳 男性。

初 診: 昭和60年11月

主 訴: 口腔内腫瘍。

家族歴: 特記事項なし。

既往歴: 小児期より低血圧症。アルコールによる接触性皮膚炎をみとめる。

現病歴: 昭和57年頃より口腔内各部に血腫状の腫瘍に気づくも疼痛等がないため放置していた。昭和60年10月某歯科にて16の抜歯をうけた際に同腫瘍を指摘され, 紹介により当科を受診した。

現 症: 全身状態; 体格中等度, 栄養状態良好である。口腔内所見; 右側頬粘膜および第2大臼歯後方, 左側頬粘膜に大豆大から拇指頭大の暗赤紫色の腫瘍が認められた(写真1)。舌では, 舌縁, 舌背部に米粒大から拇指頭大の暗赤紫色の腫瘍がみられた(写真2)。その他下唇部に暗赤紫色の米粒大から小豆大, 舌下小丘部に

三重大学医学部口腔外科学教室

(主任: 村田睦男教授)

Department of Oral Surgery, School of Medicine,
Mie University (Chief: Prof. Mutsuo Murata)

受付日: 昭和63年3月10日

写真 1 右側頬粘膜および下顎第2大臼歯後方部の血管腫

写真 2 左側舌の血管腫

は暗赤色の小豆大から大豆大の腫瘍が認められた(写真3)。また咬合時右側咬筋部は左側咬筋部より大きく腫脹するのが触知され同部にも腫瘍が存在すると推察した。

血液諸検査成績：血液諸検査結果において、異常は認められなかった(表1)。

X線所見：オルソパントモX線写真像において、右側上下第2大臼歯の遠心および、左側下顎枝に6個の大小不同のX線不透過像が認められた(写真4)。咬合法による撮影では、左側下顎臼歯部舌側に層状構造を示す大豆大のX線不透過像を認めた。

血管造影所見：DSA (Digital Subtraction Angiography) 写真において左側口底に2か所、下唇動脈とオトガイ動脈が輸入動脈と考えられる像が写し出された。影像は均一な淡い Stain が認められ、主要血管や静脈の

写真 3 口底部の血管腫

表 1 血液諸検査成績

血液一般検査		血液生化学検査	
赤血球数	470 万/mm ³	T. Protein	6.2 g/dl
白血球数	5,190 /mm ³	A/G	1.8
血色素量	14.7 g/dl	Albumin	4.0 g/dl
ヘマトクリット値	43.8 %	BUN	13 mg/dl
平均赤血球容積	93.1 μ ³	Uric Acid	6.2 mg/dl
平均赤血球血色素量	31.3 μg	GOT	22 U/L
平均赤血球血色素濃度	31.3 %	GPT	32 U/L
好中球	56.8 %	LDH	182 U/L
好酸球	1.8 %	ALP	42 U/L
好塩基球	0.9 %	Na	145 mEq/l
単球	6.8 %	K	4.1 mEq/l
リンパ球	32.8 %	Cl	108 mEq/l
		Ca	8.5 mEq/l
		P	2.6 mEq/l

早期描出等の悪性を疑わせる所見はみられなかった。

処置ならびに経過：昭和60年 外来にて下唇部の腫瘍3か所をヤグレーザーにて焼却，1か所を全摘した。

昭和61年2月 日 NLA, GO 全麻下にて，外傷等により出血のおそれのある舌および頬粘膜の血管腫に対し

て手術を行った。外科的切除は，両側の頬粘膜の腫瘍3か所と，舌の中指頭大から拇指頭大の腫瘍3か所に行った。炭酸ガスレーザーでの焼灼は，舌の外科的切除部位および米粒大から大豆大の腫瘍8か所に対して行った。同時に右側頬粘膜後方より大豆大の，左側舌前方の腫瘍から小豆大の静脈石を1個ずつ摘出した。出血量は382gであった。

術後経過：手術部位の血管腫および静脈石が摘出できたことを確認し，右側咬筋部の腫瘍を精査する目的でCT検査を行った。結果は，右側咬筋部(写真5A)とその前方部(写真5A, B)，両側内側翼突筋の内側(写真5B)，左側顎下腺上方にX線不透過像(写真5C)を認めた。しかしその周囲に血管腫が存在しているか否かは確認できなかったため，MRIによる検査を行った。MRIでは，右側咬筋部のCTのhigh densityに一致する部位にlow intensity spotが認められた。しかし腫瘍像は描出されなかった。

写真4 初診時オルソパントモ写真

; X線不透過像

写真6 病理組織像 (H-E 染色, ×20)

A

B

C

写真5 術後のCT像。多数のX線不透過像が認められた。

写真5-A 右側咬筋部とその前方部にX線不透過性の腫瘍を認めた。

写真5-B 右側咬筋部と両側内側翼突筋の内側にX線不透過性の腫瘍を認めた。

写真5-C 左側顎下腺上方にX線不透過性の腫瘍を認めた。

—A部— —B部— —C部— —B部—

写真7 静脈石断面のSEM像

図1 点分析結果 A部

図2 点分析結果 B部

図 3 点分析結果 C部

図 4 線分析結果 その1

図 5 線分析結果 その2

図 6 線分析結果 その3

図 7 線分析結果 その4

病理組織学的所見：不規則に拡張した毛細血管が多数みられ、海綿状血管腫と診断された（写真6）。

静脈石分析結果：舌より摘出した静脈石を分割し、金蒸着後、島津製作所製X線マイクロアナライザーEMX-SM型にて定性分析を行った。写真7は資料断面のSEM像で、層状構造を呈している。

この試料をA、B、Cの3つに区分し点分析、線分析を行った。

A、B、C、各部から任意の点で行った点分析では、Ca、P、Mg、S、Na、O、CがA、B、C全測定点から検出された。またB部の測定点からはClとAlも検出された（図1～3）。

試料の任意の線をとって行った線分析では、CaとPは同様の濃度分布を示した。OはCaに近い濃度分布を示した。MgはOの分布に似ていた。ClとSの分布は均一であった。NaはB部で強いピークを示した。CはCaとは異なった濃度分布を示した（図4～7）。

退院後の経過

昭和61年9月頃に米粒大の硬化物が頸部に触知されるのに気づき、10月には右側上唇部および頬粘膜に血管腫と思われる腫瘍がみられた。昭和62年7月には右側軟口蓋部および口蓋垂に小豆大の血管腫と思われる腫瘍が認められるようになった。現在、出血、嚥下障害、審美障害といった症状が認められないため、積極的な治療は行っていない。今後、CTで認められたX線不透過物および腫瘍は経過をみて、レーザーによる焼却や外科的切除を行う予定である。

考 察

血管腫が静脈石を伴うことは比較的まれであり、1905年に Kirmisson³⁾が最初に報告したとされている。

血管腫における静脈石の発現頻度に関しては、Tho-

mas ら⁴⁾は335例中46例(14.6%)に、橋本ら⁵⁾は127例中6例(4.7%)に静脈石を認めたと報告している。

静脈石の成因については不明で、種々の説があるが、大きく全身的成因説と局所成因説に分けられる。全身的成因説としては、副甲状腺機能亢進との関係を述べている説⁶⁾や、自律神経異常と結石形成の可能性を論じているのが⁷⁾。局所成因説では、Lerche⁸⁾はトロンビンが形成され静脈石にまで成長すると述べている。また緒方⁹⁾は何らかの機会に出血を起こし、周囲組織を壊死に陥らせ、その大部分は未吸収のまま、中心部に石灰沈着をきたして結石が生じると述べている。Ribbert¹⁰⁾は循環血流の速度低下により、血管壁に付着した血栓が同心円的に線維化して器質化され、その後この中心部が壊死に陥り石灰沈着をきたし静脈石を生じるとのべている。一般にはこの Ribbert の説が支持されている。

血栓は、血流が緩慢あるいは停止する部位にできやすいといわれている¹¹⁾。血管腫内の循環血流に関しては、中井ら¹²⁾は静脈造影を行い時間的に追求した所、腫瘍内に入った造影剤が数分経っても消失しなかったと報告している。また、腫瘍内の血液の P_{CO_2} が周囲の血液より高く、 P_{O_2} は逆であったという報告¹³⁾もある。以上の事から血管腫内の血流は緩慢になっており、血栓ができやすい状態にあるのではないと思われる。また長尾ら¹⁴⁾、多田ら¹⁵⁾は血管腫内に血栓と思われる像を認め、岡村⁹⁾は血栓が線維化し次第に器質化して石灰化が行われている像を認めたと報告している。さらに岡村⁹⁾は、腫瘍穿刺液においては磷が著明な増加を示していた。腫瘍内の磷を PO_4 イオンの増量によるものと考えるならば Ca 沈着を容易ならしめ、器質化した血栓を核として PO_4Ca を主要成分として静脈結石の形成を招来することは容易に推察できると述べている。

自験例の静脈石は同心円状の層状構造であったが、これは久野ら⁷⁾、多田ら¹⁵⁾、東ら¹⁶⁾、扇内ら¹⁷⁾の報告と同じであった。

静脈石の成分について本症例では、 Ca , P , Mg , S , Na , O , C , Cl , Al を検出した。これに対し、久野ら⁷⁾は Ca , P , Mg , S , Cl , Zn , K , Fe を、多田ら¹⁵⁾は Ca , Fe , リン酸、炭酸を検出し、東ら¹⁶⁾は Ca , P , Mg , S , Na , Cl , Zn , K , Cu , Fe , Si を認めている。また、長尾ら¹⁴⁾は炭酸の存在は不明ながら、 Ca , Mg , Na , K , リン酸、アンモニウム、チスチン、チロジン、コレステリン、蛋白、尿酸の存在を認めている。これらの元素のうち、 Ca と P が無機質の主要構成元素であると報告されている¹⁷⁾。Lerche⁸⁾は2個の静脈石の定量分析を行い、それぞれカルシウムは30.37%, 21.23%, リン酸塩は42.90%, 28.72%であったと述べている。自験例においても Ca と P が多量に検出され、両元素が主成分であると思われる。他の元素に関しては、報告者により異なっている。われわれの症例においては、 Zn , K , Cu ,

Fe , Si は検出し得なかったが、 Al が検出された。 Al については、唾石¹⁸⁾、口蓋扁桃結石¹⁹⁾、歯石²⁰⁾、脾石²¹⁾、胆石²²⁾、尿石²³⁾に認められたと報告されており、また太田ら²⁴⁾は血液中から Al を検出したと述べている。

線分析において Ca と P はほぼ同様に分布していたが、これは東ら¹⁶⁾の報告と同じであった。

術後に行った CT において、右側咬筋部とその前方部、両側内側翼突筋の内側、左側顎下腺上方に円形から楕円形の X 線不透過像がみられた。Thomas ら⁴⁾によると静脈石は X 線的に円形あるいは楕円形の不透過像として映ると述べており、CT でみられた X 線不透過像は静脈石である可能性が高いと思われる。

Watson ら²⁵⁾は、X 線検査における静脈石の存在は海綿状血管腫の鑑別診断の補助になると述べている。この静脈石と思われる X 線不透過像の周囲には、右側咬筋部が左側咬筋部より少しではあるが大きく腫脹するのが触知される事から血管腫が存在していると考えられる。

血管腫の処置には、凍結外科、細包療法、組織硬化剤の注入、放射線治療、外科的切除が行われてきた²⁵⁾。橋本ら²⁶⁾によると外科的摘出は、審美的、機能的に後遺症が残らない部位では簡単で確実な治療法であると述べている。そして舌では大部分に、口唇部や頬部では比較的小さな血管腫や術創の瘢痕・変形が目立たない部位などの一部に行って好成績を得たと報告している。自験例では、頬粘膜および舌の小指頭大から拇指頭大の血管腫を外科的に摘出したが、これらの腫瘍は浅在性に限局しており、術後の瘢痕収縮もほとんどみられなかった。最近ではレーザーによる治療も行われるようになってきた。三村²⁸⁾は Nd-YAG レーザーを凝固止血の目的で使用し良好な結果を得たと報告している。芝ら²⁷⁾は舌血管腫を炭酸ガスレーザーでくりぬき手術を行い、手術時間の短縮、出血量の減少、舌の形態および運動性の保持、味覚やその他の舌感覚の保存といった利点を認めている。

Carruth²⁹⁾も炭酸ガスレーザーの使用は出血量を減少させると述べている。松本ら³⁰⁾は赤唇部単純性血管腫の治療にアルゴンレーザーを使い、肥厚性瘢痕、色素沈着、脱色素斑といった副作用が認められず、53%に有効であったと述べている。われわれの症例においても、下唇部の米粒大から大豆大の腫瘍にヤグレーザーを、舌の外科的切除部位および米粒大から大豆大の腫瘍に炭酸ガスレーザーを使い良好な結果を得ている。

結 語

今回われわれは、45歳男性、口腔領域に血管腫が多発しかつ静脈石を有した症例を経験したので報告した。

摘出した静脈石を X 線マイクロアナライザーにて分析を行った所、 Ca , P , Mg , S , Na , O , C , Cl , Al , が検出された。

本論文の要旨は第14回三重歯科学会（昭和61年12月13日）にて口演発表した。

引用文献

- 1) Gerald, S., Irving, M. et al.: Vascular tumors of the mouth and jaws. OS OM OP 19: 335-358 1965.
- 2) 石川梧朗監修：口腔病理学Ⅱ，改訂版，永末書店，東京，1982，572頁。
- 3) Kirrison, M.E.: Angiome calcifié du triceps crural grache; importance de la radiographie pour le diagnostic. Bull Soc Chir 31: 19-22 1905.
- 4) Thomas, A.S., Sherman, A.E., et al.: Primary hemangiomatous tumors of skeletal muscle. Ann Surg 119: 700-740 1944.
- 5) 橋本賢二，塩田重利，他：最近の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.
- 6) 岡村豊治：血管腫にみられた静脈結石の1例。外科の領域 1: 87-90 1953より引用。
- 7) 久野吉雄，東 俊男，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.
- 8) Lerche, V.H.: Ein Beitrag zur Pathologie und Klinik der Hämangiome mit Phlebolithen im Bereich des Kopfes. Dtsch Zahnärztl Z 13: 269-275 1958.
- 9) 緒方芳郎：結石を有する皮下単純性血管腫の1例。臨床外科 7: 141-142 1952.
- 10) Ribbert H.: Die Phlebolithen. Virchows arch 223: 339-350 1917.
- 11) 武田勝男編：新病理学総論，第13版，南山堂，東京，1981，149頁。
- 12) 中井俊夫，小島重信，他：結石を有する深在性血管腫の1例。臨外 18: 1340-1342，1963.
- 13) Sato, M., Shirasuma, K., et al.: Giant cavernous hemangioma of the masseter muscle: report of case. J Oral Surg 37: 496-499 1979.
- 14) 長尾喜景，高橋症二郎，他：両側顎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.
- 15) 参田陽太郎，片山 健：多数の静脈石を有する口底舌下部血管腫の1例。口科誌 8: 276-279 1959.
- 16) 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.
- 17) 扇内秀樹，山下泰裕，他：静脈石を伴った頬部血管腫の1例。日口外誌 31: 1722-1727 1985.
- 18) 中村和行：アレルギー分散型X線分光法による歯科材料の定性分析に対する研究。九州歯会誌 36: 197-211 1982.
- 19) 山脇吉次，岡野善吉：口蓋扁桃結石の症例とその成因の考察。耳鼻臨 48: 184-186 1955.
- 20) 14) より引用。
- 21) 鈴木不二彦，江口正信，他：ヒト脾石に含まれる微量元素の分析。医学のあゆみ 131: 81-82 1984.
- 22) 太田直一，山口 晋，他：胆石症における血液，胆汁および胆石中の微量元素含有量。聖マリアンナ医科大学紀要 15: 35-46 1986.
- 23) Michael, A.E.W. and Michel, A.B.P.: Simultaneous determination of major and trace elements in urinary calculi by microwave-assisted digestion and inductively coupled plasma atomic emission spectrometric analysis. Analyst 111: 1249-1253 1986.
- 24) Watson, W.L. and McCarthy, W.D.: Blood and lymph vessel tumors. Surg Gynecol Obstet 71: 569-588 1940.
- 25) 伊藤秀夫，塩田重利，他編：口腔病変診断アトラス，第1版，医歯薬出版，東京，1980 338頁。
- 26) 三村 保：口腔外科手術における Nd-YAG レーザーの使用。日口外誌 32: 1675-1683 1986.
- 27) 芝 良祐，迫田隅男，他：炭酸ガスレーザーを用いた舌血管腫に対する“くりぬき手術”。日口外誌 32: 240-243 1986.
- 28) Carruth, J.A.S.: Resection of the tongue with the carbon dioxide laser. J Laryng Oto 96: 529-543 1982.
- 29) 松本敏明，大浦武彦，他：赤唇部単純性血管腫のアルゴンレーザー治療。日本レーザー医学会誌 6: 227-230 1986.