顎顔面領域の血管性病変に対する血管造影術と塞栓療法の検討

松本光治郎*,***・橋本 温*・宝田 学*
山田雅文**・最上 博**・谷岡博昭*

Angiography and embolization for vascular lesions in oral and maxillofacial regions

Kohjiroh MATSUMOTO*,***・Yutaka HASHIMOTO*・Manabu TAKARADA*
Masafumi YAMADA**・Hiroshi MOGAMI**・Hiroaki TANIOKA*

Abstract: During the last 8 years between 1983 and 1991, we experienced 46 cases of vascular lesions of the oral and maxillofacial region at the Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Ehime University Hospital. Thirty-six cases, which were easily diagnosed as capillary or cavernous hemangioma from clinical findings, were treated by vaporization or excisional surgery by CO₂ laser without digital subtraction angiography (DSA) and intravenous radionuclide arteriography (IRA).

The remaining 10 cases were examined by DSA, 8 of these cases also underwent IRA. In DSA, as compared with the conventional film screen methods, stress was less and resolution of the vascular system higher. Hemodynamics were assessed in detail by IRA. Therefore, diagnostic accuracy was improved. Five cases were treated by transcatheter arterial embolization (TAE) after examination by DSA and/or IRA. Treatment was successful in every case without severe complications. DSA, IRA and TAE were evaluated to be useful and safe for the management of oral and maxillofacial vascular lesions.

Key words: digital subtraction angiography (DSA), intravenous radionuclide arteriography (IRA), transcatheter arterial embolization (TAE), vascular lesions in oral and maxillofacial regions (顎顔面領域血管性病変)

緒 言

顎顔面領域の血管性病変は、ごく小さな血管腫から比

較的大きな血管腫、さらに動静脈奇形のような広範囲に及ぶものにまで分類され咀嚼、抜歯、あるいは生検などの際に、致命的な出血をまねくことがある¹⁾。したがってこれらの病変は的確な診断の下に、適切な治療を行わなければならない¹⁾。治療には梱包療法、外科療法、薬物注入療法、腐蝕法、電気およびレーザー焼灼術、放射線療法、冷凍外科療法およびそれらの各種併用療法などが行われてきたが、症例によっては必ずしも満足すべき結果は得られず、その治療法はいまだ確立されていないのが現状である²⁾。一方、最近では超選択的血管造影が可能となり、塞栓材料、カテーテル、手技の発達も相まって血管性病変に対する検査法および治療法が、めざましい発展を遂げつつある³⁾。当科でも1983年から顎顔面領域の血管性病変の検査法として digital subtraction angiography (以下 DSA), intravenous radionuclide arteriography (以下 IRA), 治療法として transcatheter arterial embolization (以下 TAE) を導入実施してい

* 愛媛大学医学部歯科口腔外科学講座

(主任：谷岡博昭教授)

Department of Oral and Maxillofacial Surgery,
Ehime University School of Medicine (Chief:
Prof. Hiroaki Tanioka)

** 愛媛大学医学部放射線科学講座

(主任：浜本 研教授)

Department of Radiology, Ehime University
School of Medicine (Chief: Prof. Ken
Hamamoto)

*** 陸上自衛隊松山駐屯地医務室歯科

Department of Dentistry, Camp Matsuyama,
Japan Ground Self-Defense Force

受付日：平成4年3月19日

表 1 対象，診断および治療法

	症例数
総 数	46
性別（男性/女性）	16/30
年 齢	0.3～76歳(平均37.7歳)
診 断	
動静脈奇形 (AVM)	5
海綿状血管腫	8
毛細血管腫	31
静脈性血管腫	1
リンパ管腫	1
治療法	
外科手術	
切除術	15
焼灼術	14
冷凍外科療法	7
塞栓術	5
経過観察	5

(1983～1991)

る。本研究は，治療成績の改善を目的として当科における血管性病変の臨床統計的観察と新しい検査法および治療法としての DSA，IRA および TAE の有用性を評価検討した。

対象および方法

対象は，1983年から1991年までの約8年間に当科に入院した顎顔面領域の血管性病変患者46症例であり，年齢は，生後4か月から76歳までであり，平均は37.7歳，性別は男性16例，女性30例であった。以上を診断，および治療法について検討し（表1），さらにその46症例中 DSA を施行した10例については，診断別に IRA，TAE，外科的手術の実施状況，および予後などについて検討した（表2，3）。

結 果

診断の内訳は，動静脈奇形5例，海綿状血管腫8例，毛細血管腫31例，静脈性血管腫1例，リンパ管腫1例であった（表1）。治療法は，切除術15例，レーザー焼灼術14例，冷凍外科療法7例，塞栓術5例，および幼少などの理由による経過観察5例であった（表1）。

以上の46症例中血管の走行を精査する必要のある10例について DSA を施行した。内訳は動静脈奇形5例，海綿状血管腫2例，毛細血管腫2例，リンパ管腫1例であった。この10例中8例に IRA を施行し，さらに栄養血管が特定され塞栓術適応と診断された動静脈奇形4例，

表 2 診断別の検査法，処置法の症例数

	症 例 数				
	DSA	IRA	TAE	外科手術	経過観察
動静脈奇形(AVM)	5	4	4	0	1
海綿状血管腫	2	1	1	1	0
毛細血管腫	2	2	0	1	1
リンパ管腫	1	1	0	1	0

海綿状血管腫1例に TAE を施行した（表2）。

TAE は原則的に局麻下にて施行した。術後合併症としては疼痛4例，浮腫2例および発熱2例がみられた以外は特に重篤な合併症はみられず，消炎鎮痛剤で対処できた。これら10症例中，動静脈奇形，海綿状血管腫，毛細血管腫の各1例を提示する。

症 例

症例1

患 者：44歳 男性。

初 診：1984年5月■日。

主 訴：右頬部腫脹。

既往歴：1979年頃，交通事故による頭部と顎下部に外傷。

現病歴：1980年頃，剃毛時に右頬部の腫脹に気付いたが無痛のため放置。その後しばしば摂食時や会話時に，右下顎臼後部の腫脹を自覚するようになった。さらに1984年1月頃より右頬部および下顎角部に拍動性で弾性軟の腫脹を認めるようになったため，近医の紹介により同年5月■日当科を受診した。

全身所見：右下顎臼後部歯肉からの慢性的出血による，軽度の貧血が認められた。

顔貌所見：右頬部および右下顎角部に，それぞれ直径50×50 mm の腫脹および発赤を認めた。

口腔内所見：右下顎第2小臼歯頰側歯肉部の発赤と，境界明瞭な米粒大の腫脹および漏出性出血があった。また，右臼歯部から左前歯部にかけての口底部に拍動性腫脹を認めた。

X線所見：初診時のパノラマX線写真では，右下顎骨臼歯部に多房性の透過像を示した（写真1a）。右外頰動脈 DSA では，右顔面動脈（写真1b）と右顎動脈（写真1c）の拡張および蛇行を認めた。また dynamic IRA では ^{99m}Tc は静注直後に右下顎部に高度集積し，14秒以内に早期消失したことから血管性病変部の血流が異常に速いことが示唆された（写真1d）。

診 断：動静脈奇形。

処 置：1985年6月■日，顔面動脈と顎動脈の永久塞

表 3 当科における DSA, IRA および TAE を施行した10症例の一覧. 症例 1, 2, 3 は, 供覧症例である.

症例	診 断	年 齢 性 別	部 位	臨床症状	DSA	IRA	治 療	経 過
1	AVM	44歳 男性	右頬部 下顎角部	拍動性弾性軟の 腫脹と出血	右顎動脈 右顔面動脈	静注直後に 高度集積 →早期消失	TAE	軽快したが5年後に再 出血 再度塞栓術施行→軽快
2	海綿状 血管腫	32歳 女性	左頬部	腫脹 (30×35 mm) 鈍痛	栄養動脈特 定できず→ 塞栓不適応	晩期集積 →持続傾向	冷凍外科 療法	腫脹, および鈍痛の消 退→軽快
3	毛 細 血管腫	5 歳 女性	左頬部	20×30mm の腫瘤	栄養動脈特 定できず→ 塞栓不適応	早期集積 →持続傾向	冷凍外科 療法	軽快→経過観察中
4	AVM	2 歳 女性	左上口唇 部	広範囲な腫脹 出血	右顎動脈 右顔面動脈	——	TAE	色調の低下, 腫脹の減 少→2 年半後脳内出血 により死亡
5	AVM	37歳 男性	下顎部	50×50mm の腫瘤	右顎動脈 右顔面動脈 左椎骨動脈	静注直後に 高度集積 →早期消失	TAE (左側は 行わず)	2 年 4 か月後に再出血 再度塞栓術施行 現在軽快
6	AVM	13歳 男性	左下歯肉 部	腫脹 (25×35 mm) 出血	左顎動脈 左顔面動脈	静注直後に 高度集積 →早期消失	TAE	色調の低下, 腫脹の減 少→軽快
7	AVM	40歳 男性	右頬部	腫脹 (30×30 mm)	右顎動脈 右顔面動脈	静注直後に 高度集積 →早期消失	——	適応となる治療法なく 重篤な臨床症状に乏し いため経過観察中
8	海綿状 血管腫	54歳 男性	右上歯肉 部 右頬部	約10×10mm の鮮 紅色の拍動性腫瘤 出血	右顔面動脈 右顎動脈	——	TAE	周囲組織との色調, 硬 さにおいて差異は認め られない→治療 (5 年後経過観察)
9	毛 細 血管腫	5 歳 女性	右頬部 右口角部	腫脹 (15×20 mm)	栄養動脈特 定できず→ 塞栓不適応	早期集積 →持続傾向	——	レーザー焼灼術を予定 しているが, 幼少のため 現在経過観察中
10	舌リン パ管腫	7 歳 女性	舌	舌尖部小腫瘤 (15×10 mm) 舌肥大	舌リンパ管 腫→塞栓術 不適応	異常所見 なし	レーザー 切除術	軽快→経過観察中

栓を目的として polyvinyl alcohol sponge (以下 PAS) と金属コイルにて TAE を施行した. 塞栓後 DSA では, 2 つの動脈とも完全に永久塞栓されていた (写真 1e). 右頬部, 下顎角部病変部の拍動は完全に消失した. 術後 24 時間目に一時閉塞部位の疼痛を訴えたが, 同部は壊死とならず 1 週間後に退院した.

経 過: 塞栓後約 5 年間腫脹, 拍動および出血を認めなかったが, 1989 年 12 月 日 夜から右下顎臼歯部の歯肉

出血が翌日昼まで間歇的につづき, 意識低下のため緊急入院となった. 止血処置と輸血 1, 200 g にて対処した. 同年 12 月 21 日の右外顎動脈の DSA にて顎動脈の再開通が確認されたため再度 TAE を施行し, 1990 年 2 月 日 軽快退院した. 1992 年 1 月現在異常は認められず経過観察中である.

症例 2
患 者: 32 歳 女性.

a

b

c

d

e

写真 1

- a : (症例 1) 初診時パノラマX線写真
 b : (症例 1) TAE 前の右外頸動脈造影像、顔面動脈の拡張。
 c : (症例 1) TAE 前の右外頸動脈造影像、顎動脈の拡張。
 d : (症例 1) dynamic IRA (2 秒間隔)
 e : (症例 1) TAE 後の右総頸動脈造影像、矢印は金属コイルを示す。

写真 2 症例 2 : static IRA

初 診 : 1986年 6 月 ■ 日.

主 訴 : 左頬部腫脹.

既往歴 : 特記事項なし.

現病歴 : 1978年頃より, 左頬部および左頬粘膜に腫脹を認めた. 1986年 5 月より, 同部腫脹の増大と鈍痛を認め, 紹介により同年 6 月 ■ 日当科を受診した.

全身所見 : 特記事項なし.

顔貌所見 : 左頬部から左口唇にかけて, 30×35mm の腫脹および発赤を認めた.

口腔内所見 : 左頬粘膜より上唇粘膜にかけて 20×25 mm の赤紫色の腫脹を認めた.

X線所見 : 左外頸動脈の DSA では左顔面動脈末梢に血管腫と思われる濃染像を認めたが, 左顔面動脈を含め周囲の動脈の拡張および蛇行などの所見は認められなかった. static IRA では, ^{99m}Tc は静注直後の早期相では集積は認められず, 15~30分後の晩期相で徐々に集積

写真 3 症例 3 : dynamic IRA (2 秒間隔)

を示した (写真 2).

診 断 : 海綿状血管腫.

処置と経過 : 1986年 7 月 ■ 日に, 冷凍外科療法を施行した. 術後 5 年半たったが, 経過は良好である.

症例 3

患 者 : 5 歳 女児.

初 診 : 1987年 9 月 ■ 日.

主 訴 : 左頬部粘膜腫脹.

既往歴 : 特記事項なし.

現病歴 : 生下時に左頬粘膜の暗紫色膨瘤を認め, 某総合病院にて血管腫と診断されたが放置していた. その後近医の紹介にて1987年 9 月当科を受診した.

全身所見 : 特記事項なし.

顔貌所見 : 同上.

口腔内所見 : 左頬粘膜に20×30mm の暗紫色の腫瘍を認めた.

X線所見 : 左外頸動脈の DSA では左顔面動脈末梢に毛細血管腫を思わせる濃染像を認めたが, 顔面動脈を含めた周囲の拡張および蛇行などの所見は認められなかった. また dynamic IRA では, ^{99m}Tc は静注 6 秒後に高度集積し 32 秒経過後も比較的強い集積を示した (写真 3).

診 断 : 毛細血管腫.

処置と経過 : 1991年 8 月 ■ 日に 冷凍外科療法を 施行し, 経過は良好である.

考 察

1. DSA について

当科において過去 8 年間で入院を要した血管性病変患

者46例中、今回呈示した10例に DSA を施行した。いわゆる血管造影は、生検や試験穿刺に比較して出血の危険性がなく手技が比較的簡単であり、病変の診断とその大きさ、範囲を推定する上で、重要な情報資料となる⁴⁾。今回施行した DSA は造影剤の注入量、注入速度が従来フィルム・スクリーン法に比較してはるかに少ないため、より径の小さいカテーテルを用いることが可能で、外来で動脈造影を行うこともできるようになった。最近出現した高分解能 DSA 装置によって画像的にもフィルムによる血管造影とはほとんど遜色ない段階に達している⁵⁾。

2. IRA について

IRA は、血管性病変の血流動態を診査する上で有効と考え、今回呈示した10例中8例に施行した。従来の血管造影では得ることのできない血管性病変の血流の状況の判断に有効であり、その病態により特徴的なパターンが認められた。すなわち塩入⁶⁾の報告のように血流動態から推定して毛細血管腫では静注直後から患部に比較的強い集積が出現し持続傾向を示すのに対し、動静脈奇形では静注直後に高度集積が出現し早期に消失する。また海綿状血管腫では早期集積は認めず、30分以降の晩期像で集積が出現すると考えられた。したがって IRA を施行した8症例では症例1、5、6、7は動静脈奇形、症例2は海綿状血管腫、症例3、9は毛細血管腫と診断された(表3)。なお症例10は dynamic image, static image とともに異常所見は認められず、舌生検より舌リンパ管腫と診断された。

3. TAE について

1) 栓子の決定

栓子として報告されている材質は多数あるが、代表的なものとしてはゼルフォーム、シリコン小球、PAS、金属コイル、メチルメタクリート、筋肉片などである¹⁾。塞栓後の手術を前提とする場合もしくは塞栓の効果を一時的に知りたい場合にはゼルフォームを使用するが、永久的な塞栓を期待する場合には用いない。いずれの栓子を用いるにしても、目的は機械的塞栓によりその部位での血栓形成を促進し、血流を遮断することにあるので症例に応じ最適の栓子を選択することが重要である^{6,7)}。

著者らの症例では、Seldinger 法により先ず外頸動脈 DSA を施行し、病巣部への栄養動脈を確認し可能な限りカテーテルを進め、PAS (径 200 μ) あるいはゼルフォーム細片 (約 1×1 mm 大) および金属コイルを用いて、TAE を施行した。

2) 外科的結紮の限界について

顎顔面領域の動静脈奇形の栄養血管は、従来考えられたよりはるかに複雑な血管の関与が示されてきており、外頸動脈の各枝のみならず内頸動脈、椎骨動脈の枝および反対側外頸動脈の吻合枝などが関与する場合もある。このことは従来の動静脈奇形の治療法としての外頸動脈

結紮が、過去において多くの症例で結果的に無効であったことの原因と考えられる^{8,9,13)}。さらに応急処置としての外頸動脈結紮がやむを得ず行われたとしても、そのために血流動態に変化を与え、さらに複雑な側副血行路の拡大を招く危険性が考慮されなければならない^{8,13)}。著者らの経験した症例5(表3)の場合も、初診より10年前に左外頸動脈結紮の既往があり、その後たびたび出血をくり返していた症例であり、左外頸動脈結紮が結果的には左側の TAE を不可能にし、血流動態の変化および側副血行路の拡大化に関与した可能性は否定できない。このように複雑な血管の関与は従来の外科的結紮の限界を示唆するものであり、超選択的に塞栓する TAE の有効性は、この点にもあると考えられる。

3) 合併症および禁忌

外頸動脈領域の TAE では超選択的塞栓術がなされない限り、外頸動脈と内頸動脈の吻合がある場合や外頸動脈と椎骨動脈の吻合がある場合は、TAE は禁忌となる^{3,9)}。術前に完全な血管造影を行い血管系解剖を詳細に検査する必要がある。また術中に最も注意すべきことは、塞栓子の内頸動脈への逆流および閉塞である。Manelfe は27例中5例と高率に内頸動脈への栓子の迷入を認め、塞栓後これを確かめる意味で内頸動脈造影をすることをすすめている^{3,9)}。著者らも症例1において内頸動脈に一部塞栓物質(PAS)が閉塞し、頸部より外科的に総頸動脈を露出切開し摘出した合併症を経験した。また期待される塞栓効果が得られない場合は塞栓術を中止すべきである。栓子が静脈側へ通過し、肺塞栓の起こる可能性も考慮する必要がある^{3,10~12)}。術後の合併症として患部周囲の正常組織の潰瘍形成、疼痛、浮腫および発熱などがある。著者らの症例では疼痛4例、浮腫2例および発熱2例がみられた以外に特に重篤な合併症はみられず、消炎鎮痛剤で対処できた。

4) TAE と外科的切除術の関連について

TAE を単独での根治療法とするのか、または外科的切除術の補助療法とするのかの選択は、病態によると考える。Djinjian らは TAE の適応として、外科的切除の範囲を越えるか致命的大出血の予想される巨大病変、あるいはハイリスクなどのため外科手術の禁忌である場合をあげており、その適応の拡大を強調している^{10,13,14)}。著者らの症例では、結果的には5例とも塞栓術の単独療法であったが、その中で症例6、症例8の2例は術後の切除手術を前提として TAE を施行した。しかし、2例とも結果がきわめて良好であり、切除術による外科的侵襲を望まない患者および家族の希望を考慮して手術は行わなかった。一方、症例1と症例5は巨大病変であり、症例4はハイリスクのため外科手術の禁忌であると判断して塞栓術の単独療法を施行した。

顎顔面領域の血管性病変に対する TAE の適応や長期間にわたる予後に関しては今後の問題点と思われるが、

著者らの経験した症例では、有効かつ比較的安全な治療法と考えられた。

結 語

1. 顎顔面領域の血管性病変46例中10例に対し DSA, IRA を施行し、その内5例に TAE を施行した。
2. 全症例に重篤な合併症はなく、診断精度の向上および臨床症状の改善がみられた。
3. 外頸動脈領域の血管性病変に対する DSA, IRA および TAE は比較的安全で有効な検査および治療法であり積極的に応用していくべきであると考えられた。

引 用 文 献

- 1) Hashimoto, Y., Matsuhiro, K., et al.: Therapeutic embolization for vascular lesions of the head and neck. *Int J Oral Maxillofac Surg* 18: 47-49 1989.
- 2) 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.
- 3) 高橋伸明, 菊地晴彦, 他: 脳外科疾患における経大腿カテーテル塞栓術. *脳外* 11: 591-602 1983.
- 4) 田村 稔, 桜井精人, 他: Catheter embolization を応用した下顎骨中心性血管腫の1治療例. *口科誌* 33: 474-485 1984.
- 5) 八代直文: 血管造影の変遷. *医学のあゆみ* 139: 495-497 1986.
- 6) 塩入重彰, 大西正俊, 他: カテーテル塞栓法の顎骨血管腫治療への応用. *日口外誌* 27: 748-756 1981.
- 7) Longacre, J.J., Benton, C., et al.: Treatment of facial hemangioma by intravascular embolization with silicone spheres. *Plast Reconstr Surg* 50: 618-621 1972.
- 8) 佐竹幸雄, 田代英雄, 他: 下顎骨中心性血管腫の1例. *日口外誌* 21: 170-175 1975.
- 9) 山田雅文, 最上 博, 他: 動脈塞栓術を施行した口腔外科領域の血管腫. *臨放* 34: 967-971 1989.
- 10) Djindjian, R., Cophignon, J., et al.: Embolization by superselective arteriography from the femoral route in neuroradiology: review of 60 cases: I technique, indications, complications. *Neuroradiology* 6: 20-26 1973.
- 11) Manelfe, C., Espango, J., et al.: Therapeutic embolization of cranio-cerebral tumors. *J Neuroradiol* 2: 257-274 1975.
- 12) Bentoson, J., Rand, R., et al.: Unexpected complications following therapeutic embolization. *Neurosurgery* 16: 420-423 1978.
- 13) 坂下英明, 東野純也, 他: 下顎骨に発生した動静脈奇形の1例. *日口外誌* 32: 2336-2353 1986.
- 14) Djindjian, R.: Indications, contraindications and complications in embolization of the external carotid artery. *J Neuroradiol* 2: 173-200 1975.