口腔顎顔面領域の血管腫に対するエタノール局注療法の経験

北川 善政・橋本 賢二・片山 貴之・山口 万枝
佐塚 太一郎・水野 明夫*・高橋 元一郎**

Direct ethanol injection therapy for hemangiomas in the oral and maxillofacial region

Yoshimasa KITAGAWA・Kenji HASHIMOTO・Takayuki KATAYAMA

Kazue YAMAGUCHI・Taichiro SAZUKA・Akio MIZUNO*

Motoichiro・TAKAHASHI**

Abstract: Many treatments have been recommended for the management of hemangiomas. However, postoperative esthetics and function of the organs are often the problems for lesions in the oral and maxillofacial region. Absolute ethanol is an effective agent in the treatment of hemangiomas which may not be resectable.

Two patients with hemangiomas in the oral and maxillofacial region which were treated by direct ethanol injection are described. Case 1 was an 82-year-old female with a cavernous hemangioma of the mouthfloor. Case 2 was a 64-year-old female with a venous angioma of the cheek. Both patients were admitted to our hospital because of gross swelling.

However, resection of these extensive hemangiomas would most likely lead to gross disfigurement and dysfunction. We therefore tried direct ethanol injection therapy. Initially the lesions demonstrated a reactive inflammatory edema which was followed by slow resolution over several days with subsequent mild fibrosis. The lesion in case 1 required 4 ethanol injections (2 ml $\times$ 4) during 4 months, and the lesion in case 2 was controlled solely by a single injection (5 ml). Direct ethanol injection therapy provided the greatest opportunity for preserving the surrounding normal tissue and obtaining improved cosmetic and functional results.

Key words: absolute ethanol (純エタノール), direct injection therapy (局注療法), hemangioma (血管腫)

緒 言

口腔顎顔面領域に発生した血管腫の治療には従来より種々の方法が試みられているが¹⁾, 腫瘍に対する縮小, 消

失効果と併せて, 局所の機能的, 審美的な面も考慮しなければならない。われわれは肝癌の治療法として最近注目されている経皮的エタノール局所注入療法¹⁾ (Percutaneous Ethanol Injection Therapy: PEIT) に着目し, 口腔外科領域の血管腫治療への応用を試みた。口底, 顔

浜松医科大学医学部歯科口腔外科学教室
(主任: 橋本賢二教授)

* 長崎大学歯学部第1口腔外科学教室
(主任: 水野明夫教授)

** 浜松医科大学医学部放射線医学教室
(主任: 金子昌生教授)

Department of Dentistry and Oral and Maxillofacial Surgery, Hamamatsu University School

of Medicine (Chief: Prof. Kenji Hashimoto)

* The First Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Nagasaki University School of Dentistry (Chief: Prof. Akio Mizuno)

** Department of Radiology, Hamamatsu University School of Medicine (Chief: Prof. Masao Kaneko)

受付日: 平成4年12月20日

写真 1 症例 1

矢印：暗紫色の軟らかい腫脹。

写真 2 症例 1 口腔内写真

二重舌を呈している。

面の比較的大きな血管腫に対して、純エタノールの局注療法を行い、機能・審美性を損うことなく腫瘍が消失し、非常に満足のいく結果が得られたので、その概要を報告する。

症 例

症例 1

患 者：82歳 女性。

初 診：平成 2 年 10 月 〇 日。

主 訴：口底の腫脹，義歯不適合。

家族歴：特記事項なし。

既往歴：40 歳頃より躁鬱病。

現病歴：平成 2 年 9 月より躁鬱病で他病院に入院中，1 か月半前より口底正中部の腫脹に気づき，義歯不適合となったため，当科紹介され来院した。

現 症

口腔外所見：左顎下部に直径 10 mm と 15 mm の被圧

写真 3 症例 1 MRI 像 (T2 強調画像)

口底から左頸部体表面付近に達する不均一不整形の高信号領域が認められた。

縮性の暗紫色の軟らかい腫脹が認められ，口腔内の病変と連続しているように思われた (写真 1)。また，左頸部に直径 50 mm の弾性硬，無痛性の腫脹が認められたが，これは幼少時より存在していたとのことであった。

口腔内所見：舌下，口底部に 40×25×15 mm の境界不明瞭，暗紫色の軟らかい腫瘍が認められた。舌は前方突出不能で，二重舌状を呈していた (写真 2)。腫脹は無痛性，被圧縮性で波動は触れなかった。

臨床検査所見：特に異常所見は認められなかった。

X線所見：パノラマ X 線写真では，患者は無歯顎で，直径 2～7 mm 大の静脈石と思われる多数の石灰化物が認められた。

処置および経過：平成 2 年 11 月 〇 日入院し，MRI 検査，血管造影を施行した。

MRI 所見：T2 強調横断像では，口底から左頸部体表面付近に達する不均一不整形の高信号領域が認められた。この領域はわずかに造影され，辺縁が不明瞭であることや信号強度が不均一なことより，通常認められる血管腫とはやや異なるように思われた。動静脈奇形 (AVM) を思わせる流入動脈や灌流静脈は認められず，また，静脈瘤のような所見でもなく，他の血管奇形が考えられた (写真 3)。

血管造影所見：右大腿動脈より Seldinger 法による血管造影を施行した。左外頸動脈からのデジタルサブトラクションアンギオグラフィー (DSA) 像では，これらの末梢に明らかな血管の豊富な病変は認められなかった (写真 4)。次に，左舌動脈の超選択的血管造影を施行したが，動脈相，静脈相とも，明らかな流入動脈や灌流静脈は認められず，AVM は否定された。右側もほぼ同様の所見であった。そこで，左右の舌動脈をスポンゼルの小片により動脈塞栓術を施行した後，再び血管造影を施

写真 4 症例 1 血管造影像

左外頸動脈からのデジタルサブトラクションアンギオグラフィー (DSA) 像では、明らかな血管の豊富な病変は認められない。

写真 5 症例 1 血管造影像

左右舌動脈塞栓術後の DSA 像：良好に塞栓されている。

行し、良好に塞栓されていることを確認した(写真5)。次に口底の血管病変に23G針で直接穿刺したところ、少量の血液の逆流をみたので、それを吸引後、直接造影剤を注入した(写真6)。これらの所見より、海綿状血管腫と診断されたので、局所麻酔下にて99.5%エタノール(以下エタノール)を左右に1mlずつ注入した。穿刺部位は約10分間圧迫を行い、出血は認められなかった。注入後局所の疼痛を訴えたが、鎮痛剤は不要であった。エタノール注入24時間後には、口底部は著明に浮腫性に腫脹し、発赤が認められた。2日間38度台の発熱が認められたが、3日目には平熱に戻った。その後、腫脹は消退せず、11月■日、同部に23G針にて穿刺したところ、約1

写真 6 症例 1

口底の血管病変に直接造影剤を局所注入し造影した。

写真 7 症例 1

エタノール局注療法後義歯装着可能になった。

mlの血液が吸引できたので、左右に各の1mlエタノールを局注した。その後、外来にて同年12月■日と平成3年3月■日に同様に左右に各1mlのエタノールを局注した。合計4回のエタノール局注で、腫脹は著明に縮小し、わずかな線維性の硬結を残して完全に消失した。舌は突出可能となり義歯が装着できるようになった(写真7)。

症例 2

患者：64歳 女性。

主訴：左頬部～側頭部の腫脹。

初診：昭和57年2月■日。

家族歴・既往歴：特記事項なし。

現病歴：新生児期より左頬部に腫脹が認められ、1歳時、穿刺吸引により、腫脹消失。その後、腫脹、穿刺、吸引、消退を十数回繰り返していた。平成2年12月■日、当科に入院した。

現症：左側側頭部と頬部に波動を伴う腫脹が認めら

写真 8 症例 2 顔貌写真

左側側頭部と頬部に波動を伴う腫脹が認められた。

写真 9 症例 2

直接造影剤を注入し造影された。左耳介前方と頬部の異常血管腔は連続しており、静脈性のうっ滞が認められた。

写真 10 症例 2

エタノール局注療法後、顔貌は左右対称で審美的にも満足のいく結果が得られた。

れた。圧縮性はなく、色調は正常皮膚色であった。側貌写真では、著明に頬部が腫脹していた(写真 8)。

X線所見：特に異常所見は認められなかった。

臨床検査所見：特に異常所見は認められなかった。

処置および経過：平成 3 年 12 月 日、右大腿動脈より Seldinger 法による血管造影を施行した。左外頸動脈からの DSA では、動脈相での腫瘍濃染や静脈相での造影

剤貯留像は認められなかった。動脈造影では造影されず、20G 針にて直接穿刺により静脈血様穿刺液 17 ml を採取後、造影剤を注入しはじめて造影された。左耳介前方と左頬部の異常血管腔は連続しており、静脈性のうっ

滯が認められた(写真9)。以上の所見より静脈性血管腫と診断され、局所麻酔後エタノール5mlを異常血管腔の中に直接注入した。エタノール注入直後から反応性浮腫が認められたが、痛みも軽度で全身状態に異常は認められなかった。翌日には、顔面部が腫脹したため圧迫を行った。また、口腔内は頬粘膜と顎間皺壁部に粘膜下血腫と思われる発赤が認められた。腫脹や発赤は4日目より徐々に軽減し、10日目には完全に消退し、顔貌は左右対称になった。エタノール注入は1回のみで副作用はなく、退院後嚴重な経過観察を行っているが、1年以上経過した現在まで再発の傾向はなく、知覚障害、運動障害もなく、顔貌は左右対称で審美的にも大変満足のいく結果が得られた(写真10)。

考 察

血管腫の治療には従来より数多くの方法が試みられている。しかし、口腔顎顔面領域に発生した血管腫に対しては機能的、審美的障害を残さないように考慮しなければならず、治療法の選択には苦慮することも多く、やむをえず放置されている症例も多いと思われる。そこでわれわれは、肝細胞癌の治療法として最近注目されているPEIT¹⁾に着目し、口腔外科領域の血管腫治療への応用を試みた。

エタノールは、ペインクリニックで種々の神経ブロックをはじめ、内科領域でも食道静脈瘤^{2,3)}に対し経カテーテル的に用いられており、腎細胞癌⁴⁾に対するエタノール塞栓術、肝囊胞⁵⁾・腎囊胞縮小術^{6,7)}等への応用の報告もある。最近では、肝細胞癌¹⁾に対し応用されており、臨床面で広く用いられている。血管奇形に対しては、佐々木ら⁸⁾、Takebayashi ら⁹⁾は腎の動静脈奇形に、Yakes ら¹⁰⁾は大腿部の動静脈奇形にエタノールを使用した症例を報告している。頭頸部の血管腫に対しては、Tress ら¹¹⁾は海綿状血管腫に、Berenstein¹²⁾は上唇の静脈性血管腫に、本邦では Muto ら¹³⁾により上唇の動静脈性血管腫と毛細管性血管腫に対し、エタノール塞栓療法が報告されている。

エタノールの作用としては、①脱水、固定作用により腫瘍細胞を変性壊死に至らせる直接作用と、間接作用としての、②エタノールの脱水、凝固作用により血球成分が凝集し血栓を形成する。③タンパクの変性と凝固。④動脈のスパズムと血流低下。⑤血管の内皮細胞の損傷による血小板血栓の形成。⑥血管透過性の変化により生ずる周囲組織の浮腫と、それに伴う循環障害などによる阻血効果などが考えられている。

血管奇形にはいろいろな分類が試みられているが、治療の観点からみれば、血管造影所見に基づいた血行動態による分類が望ましいと思われる。石田¹⁴⁾の分類によると、血管奇形は動静脈瘻と血管腫の2つのタイプに分け

られ、血管腫はさらに毛細管性、海綿状、静脈性、動静脈性に分類される。これを血行動態により分類すると動静脈血管腫、動静脈瘻などの high-flow タイプと、毛細管性、静脈性、海綿状血管腫などの low-flow タイプに分類される¹⁵⁾。

本法の施行に当たっては high-flow タイプと low-flow タイプとで若干の差異があるので、それぞれの術式と留意点について述べる。

1. low-flow タイプ

まず第一に処置前に血管造影を行い、血管の動態を知ることが肝要である。動静脈性血管腫であれば、おおよそ腫瘍の大きさを推定できるが、静脈性あるいは海綿状血管腫では、症例1や症例2のように血管造影ではよく造影されないことが多い。そのような時には、直接経皮的あるいは経粘膜的に血管腫の中心部に注射針を刺入し、内容液を吸引し、次に造影剤を直接注入することにより腫瘍が描出される。これにより腫瘍の大きさを推定し、局所麻酔下にエタノールを腫瘍の大ききの約50%を目安に局注する。症例によっては少量ずつ日を変えて繰り返し局所注入する。症例1では腫瘍は比較的大きいにも拘らず、穿刺で少量の血液しか吸引できなかったこと、82歳と高齢であったこと、腫瘍が口底部にあり舌根沈下の可能性があったことなどより、エタノール注入は1回左右1mlずつとし、計4回の処置で完全に腫瘍は消失した。症例2では7mlの血液が穿刺吸引できたので、エタノールを5ml局所注入した。その後、経過をみてエタノールを追加する予定であったが1回の処置で完全に腫瘍は消退した。投与間隔に定説はないが、注入量が少ない場合でも2週間、多い場合は1〜3か月経過してから追加するほうが良いと思われる。静脈性や海綿状血管腫で、はっきりした流入動脈や灌流静脈がない場合はエタノールの注入量は少なくとも効果が高いと思われる。

2. high-flow タイプ

動脈性血管腫は血管造影で腫瘍は明白に描写される。流入動脈まで超選択的にカテーテルを進め、そこでエタノールを血液の逆流がなくなるまで、または腫瘍の大ききの30%ぐらいまでを目安に血管内に注入する。血管内に注入することによりエタノールは塞栓物質として作用し、先に述べた脱水、固定、凝固、血栓形成等の作用により腫瘍は縮小壊死すると考えられる。症例によっては、日を変えて数回処置を繰り返す必要があることもある。しかし、一度主要血管がエタノールで塞栓されると血管造影操作は不可能なことが多い。この場合、直接腫瘍の中心部に注射針を刺入し、内容液を吸引後、造影剤を直接注入することにより造影できる。エタノールは大変危険な塞栓物質であるので、標的組織以外の損傷は最小限にとどめなければならない。造影により腫瘍の広がり、大きさを推定し、その病変の大ききの50%以下の量

のエタノールを直接局所注入する。その後、静脈性あるいは海綿状血管腫に対する処置と同様に行う。

3. 術後処置について

術後早期に発赤を伴う著明な浮腫が必発するが、これはエタノールによる化学的炎症や毛細血管の破壊に伴う血漿成分の漏出によるものと思われる。舌や口底にエタノールを注入する場合は気道閉塞の危険があり、気管切開の準備など厳重な注意が必要である。また、偶発症として組織壊死があげられる。標的組織以外の正常組織に、高濃度で多量のエタノールが漏洩すると、部位によっては壊死を生ずるおそれがある。顔面皮下の表在性の血管腫や皮下に軟骨の存在する鼻部の血管腫では組織壊死の可能性が高く慎重に対処すべきである。また、眼窩周囲など重要臓器の近くの血管腫では漏洩に細心の注意を払う必要がある。しかし、Tress ら¹¹⁾の報告にあるように、眼瞼の血管腫に対しても慎重に本療法を適用することにより、良好な結果が得られている。エタノール注入による痛みも考慮すべき問題である。エタノール注入は激烈な痛みを伴うので血管造影と併せて全身麻酔下での処置を推奨する意見もある。しかし、本報告例では局所麻酔のみで注入でき、術後の疼痛も軽度であった。1回 5 ml 以内の量をゆっくり注入すれば、局所麻酔下でも十分処置可能であると思われた。

適用にあたっては、患者の年齢、全身状態、血管腫の種類、部位、大きさなどを十分に考慮し、1回に大量に注入せず、経過をみながら少量ずつ複数回にわけて行うほうが安全である。以上の注意事項を守れば本療法は口腔顎顔面領域の、あらゆる部位に適応可能であり、きわめて優れた治療法であると考えられた。

結 語

口腔顎顔面領域の血管腫の治療には、腫瘍に対する効果と併せて、局所の機能的、審美的な面も考慮しなければならず、治療法の選択に苦慮することも多い。今回われわれは、82歳女性にみられた口底の海綿状血管腫と、64歳女性にみられた顔面の静脈性血管腫に対して、純エタノールの局所注入療法を行い、機能・審美性を損うことなく腫瘍が消失し、非常に満足のいく結果が得られた。本療法は口腔顎顔面領域の、どの部位でも適応可能と思われ、きわめて優れた治療法であると考えられた。純エタノールの作用機序、本療法の術式、留意点、副作用等についても検討を加え報告した。

本論文の要旨は平成3年6月9日、第16回日本口腔外科学会中部地方会（名古屋）において口演発表した。

引 用 文 献

- 1) 杉浦信之, 高良健司, 他: 超音波映像下経皮的腫瘍内エタノール注入による小肝細胞癌の治療. 肝臓 24: 920 1983.
- 2) Yune, H.Y., Klatte, E.C., et al.: Absolute ethanol in thrombotherapy of bleeding esophageal varices. *AJR* 138: 1137-1141 1982.
- 3) Yune, H.Y., O'Connor, K.W., et al.: Ethanol thrombotherapy of esophageal varices; further experience. *AJR* 144: 1049-1053 1985.
- 4) Ellman, B.A., Parkhill, B.J., et al.: Ablation of renal tumors with absolute ethanol: A new technique. *Radiol* 141: 619-626 1981.
- 5) Bean, W.J. and Rodan, B.A.: Hepatic cysts: Treatment with alcohol. *AJR* 144: 237-241 1985.
- 6) Bean, W.J.: Renal cysts: Treatment with alcohol. *Radiol* 138: 329-331 1981.
- 7) 川村寿一, 目裏 勝, 他: 経皮的腎嚢胞穿刺による95%エタノール注入療法; 第2編: 臨床成績の検討. 泌尿紀要 30: 589 1984.
- 8) 佐々木光信, 田所 茂, 他: 腎動脈奇形に対する absolute ethanol 使用選択の血管栓塞術. 泌尿紀要 30: 295-298 1984.
- 9) Takebayashi, S., Hosaka, M., et al.: Arteriovenous Malformations of the Kidneys; Ablation with Alcohol. *AJR* 150: 587-590 1988.
- 10) Yakes, W.F., Pevsner, P., et al.: Serial Embolizations of an Extremity Arteriovenous Malformation with Alcohol via Direct Percutaneous Puncture. *AJR* 146: 1038-1040 1986.
- 11) Tress, B.M., Wilson, J.L., et al.: Ablation of Head and Neck Cavernous Haemangiomas by Direct Alcohol Injection. *J Intervent Radiol* 2: 147-150 1987.
- 12) Berenstein, A.: Discussion for "The Treatment of Capillary-Venous Malformations Using a New Fibrosing Agent." *Plast Reconstr Surg* 71: 613-614 1983.
- 13) Muto, T., Kinohara, M., et al.: Therapeutic Embolization of Oral Hemangiomas with Absolute Ethanol. *J Oral Maxillofac Surg* 48: 85-88 1990.
- 14) 石田 修: 動脈瘤, 血管奇形. 重松 康, 星野文彦, 他; 放射線医学大系. 16, 中山書店, 東京, 1986, p 76-84.
- 15) Akker, H.V.D., Kuiper, L., et al.: Embolization of an Arteriovenous Malformation of the mandible. *J Oral Maxillofac Surg* 45: 255-260 1987.