静脈石を伴い頬脂肪体内に発生した静脈性血管腫の1例

小野 貢 伸・土井上輝夫・中村 英 司・西 方 聡
井上農夫男*・飯塚 正**

A case of venous hemangioma with phleboliths in the buccal fat pad region

Mitsunobu ONO・Teruo DOIGAMI・Eiji NAKAMURA・Satoshi NISHIKATA
Nobuo INOUE*・Tadashi IIZUKA**

Abstract: Hemangioma occurs most frequently in the head and neck region, but hemangioma in the buccal fat pad region is rare. Here, a case of venous hemangioma with phleboliths in buccal fat pad region is reported. A 22-year-old female consulted the Department of Oral Surgery, Dental Hospital, Hokkaido University with a chief complaint of swelling in her right cheek. MRI showed a mass in the buccal fat pad extending to infratemporal fossa. The lesion had mixed iso- and high-signal intensities on T2 WI, but flow voids in the lesion were not seen on proton WI. Plain CT showed the lesion with several round calcifications. Angiography did not demonstrate the feeding vessels or venous pooling of the tumor. The lesion was clinically diagnosed as a buccal hemangioma. It was removed intraorally under general anesthesia. A part of the lesion consisted of mainly small blood vessels conglomerated like a strawberry and the remaining part was a mixture of vessels and fat tissue. Soft X-ray of the extirpated material revealed several round calcified foci. Histologically, the tumor consisted mainly of numerous vessels within adipose tissue of the buccal fat pad. Mature smooth muscle fibers were observed in the outer portion of blood vessels accompanied by phleboliths in some areas. The lesion was diagnosed to be a venous hemangioma with phleboliths.

Key words: venous hemangioma (静脈性血管腫), buccal fat pad (頬脂肪体), phlebolith (静脈石)

北海道大学歯学部口腔外科学第二講座
(主任：戸塚靖則教授)

*北海道大学歯学部附属病院特殊歯科治療部
(主任：福田 博教授)

**北海道大学歯学部口腔病理学講座
(主任：雨宮 璋教授)

Second Department of Oral and Maxillofacial Surgery, School of Dentistry, Hokkaido University (Chief: Prof. Yasunori Totsuka)

*Special clinic for specific disorders, Dental Hospital in School of Dentistry, Hokkaido University (Chief: Hiroshi Fukuda)

**Department of Oral Pathology, School of Dentistry, Hokkaido University (Chief: Prof. Akira Amemiya)

受付日：平成6年2月9日

緒 言

血管腫は口腔領域、特に舌、口唇、頬粘膜部に好発するが、頬脂肪体部に発生することはまれである。また病理組織学的には海綿状血管腫と毛細血管腫がそのほとんどを占め、静脈性血管腫は比較的少ない。今回、われわれは、頬脂肪体部に発生し静脈石を伴った静脈性血管腫を経験したのでその概要を報告する。

症 例

患 者：22歳 女性
初 診：平成4年1月■日
主 訴：右頬部の腫脹
既往歴：鉄欠乏性貧血

写真1 初診時顔貌

写真3 術前の MRI (T2 強調)

写真2 術前の CT

写真4 病理組織像 (H-E 染色, ×14)

家族歴：特記事項なし

現病歴：小学校低学年の頃右頬部の腫脹を他人より指摘されたが、疼痛等の症状がないため放置した。17歳（昭和61年）頃、風邪に罹患した際に同部の腫脹が増大したが、一週間ほどで縮小した。平成4年1月より同部の腫脹の増大、皮膚の発赤、鈍痛が出現した。数日で発赤、疼痛は消失したが、腫脹は縮小したものの消失しないため、当科を受診した。

現症：体格は中等度、栄養状態良好で全身的に異常所見は認めなかった。顔貌は左右非対称で、右頬部にびまん性、弾性軟の腫脹を認めたが、同部の皮膚に発赤はなく、運動障害、知覚異常、熱感、拍動、血管雑音は認めなかった（写真1）。腫脹の一部に、周囲組織よりやや硬く圧痛を伴う小指頭大の腫瘤を触知した。口腔内所見では、右頬粘膜に腫脹、発赤は認めず、右耳下腺乳頭からの唾液流出は良好であった。触診で口腔外から触れた小指頭大の腫瘤を右耳下腺乳頭の約10mm 下方に触知した。

臨床検査所見：超音波断層像においては右頬部皮下の頬脂肪体部に複数の類円形、境界やや不明瞭な径5mm から12mm の低エコー像が互いに隣接して認められた。内部エコーはほぼ均一で弱く、底面エコーの

増強はみられなかった。CT 所見では、右頬部から右側頭下窩に辺縁比較的明瞭な腫瘍性病変を認め、病変内には小さな石灰化像が認められた（写真2）。耳下腺造影像では右耳下腺に異常所見はなく、腫瘍との関連性は認められなかった。MRI 所見では、右頬部から側頭下窩の頬脂肪体部に境界明瞭な腫瘍性病変を認め、T1 強調像で筋肉より低～等信号、T2 強調像で等～高信号を呈した（写真3）。Gd-DTPA で enhance されず、また、プロトン強調像で flow void の所見は認めなかった。血管造影では、動脈相、静脈相とも腫瘍濃染および血管の拡張等の所見は認めず、また異常な血管は認められなかった。

臨床診断：頬部血管腫の疑い

処置および経過：平成4年9月日、全身麻酔下にて口内法にて腫瘍摘出術を行った。耳下腺乳頭の下で頬粘膜、頬筋に横切開を加えると、頬脂肪体部に脂肪組織と混在する細い血管に富んだ組織を認めた。腫瘍は翼突筋静脈叢付近におよんでおり、同部への侵襲により大出血の可能性があったため周囲の健康な脂肪組織より可及的に剥離し、摘出した。摘出物は比較的細い血管が脂肪組織と混在し、一部では血管が集合し莓状を呈していた。摘出物内には静脈石と思われる径2mm 大の硬固物を2個触知した。また摘出物の軟 X

線写真では多数の静脈石と思われる石灰化像が認められた。術後の経過は良好で、顔貌は左右対称となり、開口障害や顔面神経の麻痺は認められない。術後に撮影したMRIで側頭下窩に腫瘍の残存を認めたが、経過観察することとし、術後1年が経過した現在、増大等の所見は認められていない。

病理組織学的所見：成熟した脂肪組織内に大小不規則な血管の増生が認められた（写真4）。血管の多くは不規則に拡張し、腔内は血球で満たされており、壁には平滑筋が存在し、静脈様の構造を呈していた。また一部には類円形、層板状を呈する静脈石が認められた。

病理組織学的診断：静脈性血管腫

考 察

血管腫は良性腫瘍のなかで最も頻度の高いものの一つといわれており、顔面、口腔はその好発部位とされている。とくに舌、口唇、頬粘膜に多くみられるが¹⁾、頬脂肪体部に発生するもの²⁾は少なく、われわれが渉猟しえた限りでは本邦において頬脂肪体部に発生したと記載がある血管腫は森ら³⁾と Ikegami ら⁴⁾が報告しているのみである。他に臨床所見、手術所見等から頬脂肪体部に発生したものと推測されるものは寺井ら⁵⁾が1例、また陳ら⁶⁾が頬部深在性血管腫として2例報告している。本症例は、CT所見で集簇した血管構造を思わせる陰影と石灰化物を認め、MRI所見では血液の自由水の豊富さを反映してT2強調像で高信号を呈していたため、海綿状血管腫が最も疑われた。しかしMRIにおいてGd-DTPAによる造影効果はなく、海綿状血管腫とは異なる所見であった。Gd-DTPAによる造影では、わずかな自由水でも造影効果があり、血管腫において血流がある部分は増強されるが、血栓では逆に自由水がないため造影されない⁷⁾。したがって本症例の場合、血管造影で病変が全く造影されず、静脈石が認められたことより、血流が完全に遮断されていたと思われる。

深在性の血管腫の治療としては、摘出術や硬化療法が用いられている。本症例では、血管腫が翼突筋静脈叢付近に及んでおり、同部への侵襲により大出血の可能性があったため可及的に剥離し摘出した。術後に撮影したMRIで側頭下窩に腫瘍の残存を認めたが、追加切除は行わず、経過観察することにした。術後2年を経過した現在、増大等は認めていない。

病理組織学的には石川¹⁾は血管腫を毛細血管腫、良性血管内皮腫、海綿状血管腫、静脈性血管腫、蔓状血管腫に分類しているが、海綿状血管腫と毛細血管腫がそのほとんどを占めている。静脈性血管腫は脳や脊髄、四肢に多いとされているが口腔領域では坂下ら⁸⁾が咬筋前縁部の1例、佐々木ら⁹⁾、若森ら¹⁰⁾が勃起性咬筋血管腫においてそれぞれ2例と1例、泉ら¹¹⁾

が顎下部の1例、杣山ら¹²⁾が顎下部の1例を報告しているのみできわめてまれである。また、口腔領域で静脈石を伴った血管腫はそれほど多くはなく、土井田ら¹³⁾は本邦において1982～1986年の5年間に45例の報告があったと集計している。この45例の病理組織学的診断は海綿状血管腫がほとんどで、静脈性血管腫はわずか1例のみであった。本症例のように静脈石を伴い、頬脂肪体部に発生した静脈性血管腫はわれわれが検索した限りにおいて報告はなく、初めての症例であると思われる。

結 語

静脈石を伴い頬脂肪体部に発生した静脈性血管腫の1例を経験したので、その概要を報告した。

本論文の要旨は、第38回日本口腔外科学会総会（平成5年10月、新潟市）において発表した。

引 用 文 献

- 1) 石川梧朗監修：口腔病理学II。改訂版、永末書店、京都、1982、572-577頁。
- 2) Deighan, W.J., Bangor, et al.: Hemangioma of the buccal pad with phlebolithiasis. J oral Surg 14: 228-234 1956.
- 3) 森 士朗、松田耕策、他：頬脂肪体内に発生した血管腫の1例。口科誌 35: 365-369 1986.
- 4) Ikegami, N. and Nishijima, K.: Hemangioma of buccal pad with phlebolithiasis: Report of a case. Acta Med Okayama 38: 79-87 1984.
- 5) 寺井 宏、堀部 紘：静脈石を伴った頬部海綿状血管腫の1例。口科誌 20: 105-108 1971.
- 6) 陳 慶勲、大屋高德、他：小児にみられた頬部深在性血管腫の2症例。口科誌 35: 289-294 1986.
- 7) 箕輪和行、大森桂一、他：頭頸部海綿状血管腫のMRI診断。日口外誌 37: 1802-1809 1991.
- 8) 坂下英明、宮田 勝、他：咬筋前縁部に発生した静脈性血管腫の1例。日口外誌 34: 72-76 1988.
- 9) 佐々木研一、野間弘康、他：勃起性咬筋血管腫の4例。日口外誌 34: 1619-1626 1988.
- 10) 若森 実、川野芳春、他：咬筋部に発生した勃起性血管腫の2例。日口外誌 35: 217-220 1989.
- 11) 泉 廣次、追川哲雄、他：顎下部に発生した静脈性血管腫の1症例。日口外誌 25: 152-156 1979.
- 12) 杣山安弘、西端慎一、他：頭頸部領域の血管腫25症例。耳鼻臨床 81: 1327-1332 1988.
- 13) 土井田誠、奥富 直、他：静脈石を伴った上唇部血管腫の1例。日口外誌 34: 2502-2507 1988.