口蓋に発生した血管筋脂肪腫の1症例

宮崎千佳・水木信之・川辺良一・藤田浄秀

A case of angiomyolipoma of the palate

Chika MIYAZAKI・Nobuyuki MIZUKI・Ryoichi KAWABE・Kiyohide FUJITA

Abstract: Angiomyolipoma is a rare tumor in the oral region. This paper describes an angiomyolipoma arising in the palate of a 66-year-old male. Only three oral angiomyolipomas have been reported in Japan. Distinctions between angiomyolipomas and angiomyomas were discussed.

Key words: angiomyolipoma (血管筋脂肪腫), hamartoma (過誤腫), palate (口蓋)

緒 言

血管筋脂肪腫は、血管・平滑筋・脂肪組織の3成分により構成されている良性腫瘍であり、通常腎に発生し、他臓器には少なく、子宮・下肢に生じた少数の報告^{1, 2)}がみられるのみであり、口腔領域でもきわめてまれな腫瘍である。今回われわれは、口蓋に発生した血管筋脂肪腫の1症例を経験したので報告する。

症 例

患 者：66歳，男性。

主 訴：口蓋正中部の無痛性腫脹。

初 診：1989年9月■日。

既往歴・家族歴：特記事項なし。

現病歴：1989年7月■，某歯科治療時に硬口蓋の腫瘍を指摘されるもそのまま放置していた。しかし同部腫瘍が徐々に増大してきたため、1989年9月■日当科を紹介され受診した。

現 症

全身所見：体格は中程度，栄養状態良好で全身的に異常所見はみられなかった。

局所所見：顔貌は左右対称性で，所属リンパ節は触知されなかった。口腔内所見では，硬口蓋正中部やや左側に15×10×5mm大の半球状で，表面粘膜は滑沢

で暗紫色を呈する弾性軟の境界明瞭な腫瘍を認めた。被圧縮性は認められなかった(写真1)。

臨床診断：口蓋血管腫

処置および経過：1989年10月■日，局所麻酔下に腫瘍切除術を施行した。腫瘍周囲粘膜に切開を加え骨膜を含めて一塊として切除し，創を抗菌剤含有ガーゼにて被覆して手術を終えた。術後4年余り経過しているが再発なく，経過良好である(写真2)。

切除物所見：切除物は，大きさ20×16×5mmであった(写真3)。腫瘍は，暗紫色で円盤状隆起を呈し弾性が認められた。剖面では，腫瘍は結合組織様被膜に包まれ，黄色で分葉状を呈していた。

病理組織学的所見：腫瘍は，線維性被膜に包まれ，内部は脂肪細胞が多数集簇し明るく抜けた部分と小血管と平滑筋が不明瞭な結節を形成しながら増生している部分より構成されていた。一部には血液を有する血管が認められ，集簇した小血管に混じって，やや太い血管も散在性に認められた。これらの血管壁は比較的粗で厚い平滑筋により構成されており，一部の平滑筋は血管の周囲に増生していた。また，一部に成熟脂肪細胞がみられた。なお，細胞の異形成は認められなかった(写真4, 5)。

病理組織診断：血管筋脂肪腫

考 察

血管筋脂肪腫は，血管・平滑筋・脂肪組織の3成分により構成されている良性腫瘍で，一種の過誤腫と考えられている。通常腎に発生し，中高年齢層の女性に好発する腫瘍で，脳の結節性硬化症に合併することもある^{1, 2)}。

血管筋脂肪腫の口腔領域での発生例は，われわれが

横浜市立大学医学部口腔外科学講座

(主任：藤田浄秀教授)

Department of Oral and Maxillofacial Surgery,
School of Medicine, Yokohama City University
(Chief: Prof. Kiyohide Fujita)

受付日：平成5年12月24日

写真1 初診時の口腔内写真

写真4 病理組織写真 (H-E 染色, 弱拡大)

写真2 術後5か月目の創部治癒状態の写真

写真5 病理組織写真 (H-E 染色, 強拡大)

写真3 切除物写真

文献を渉猟し得た限りでは、本邦で2例、国外では1例であった。1975年のGutmann³⁾の最初の報告では、39歳の男性で第2小臼歯相当部の口蓋に直径1cmの半球状の腫瘤を認め表面は帯黄赤色のスポンジ状であった。小宮ら⁴⁾の報告例は、74歳の女性の右側頬部の4×3×3cmの腫瘍であり、腫瘍は口腔内に膨隆し、健常粘膜に被覆されていた。外形は球形で、実質性で、弾性硬であったとしている。一方岩井ら⁵⁾の報告例では、66歳の女性で、上唇正中部に22×12×12mmの境界明瞭な腫瘤があり、弾性軟で圧痛があり、圧迫により退色が認められた。自験例を含めて4例を比較してみると、良性腫瘍の一般的な性状を除き、本腫瘍に共通した性状は今のところ認め難く、これは腫瘍の発生部位、大きさ、組織構築、構成成分の割合などの違い

により異なるものと考えられる。

本腫瘍の鑑別診断としては、血管腫、血管筋腫、間葉系腫瘍、唾液腺腫瘍や粘液嚢胞があげられる。一般に臨床所見としては、血管腫や血管筋腫との共通点が多く、組織診断が決め手となる。血管腫は、血管組織の増殖からなる腫瘍であり、血管筋腫は血管腔を囲む平滑筋細胞の増殖による腫瘍⁶⁾で、血管筋脂肪腫は、血管、平滑筋と脂肪組織の3成分より構成されている腫瘍であり、他の腫瘍との鑑別は比較的容易ではある。一般に間葉系の2成分以上を含む良性腫瘍は良性間葉腫 (benign mesenchymomas) として扱われることもあるが、現在では、その成分名が優先されることが多く、また、口腔領域での良性間葉腫においては、通常その構成要素として線維腫成分を含むものとして扱われている⁷⁾。本症例においては、前述しているごとく、血管、平滑筋と脂肪組織の3成分よりなる血管筋脂肪腫を診断名とした。本腫瘍の顎口腔領域における発生部位は報告例より頬部、上唇、口蓋であり、血管筋腫のそれと一致する。また、好発年齢を比較してみると、血管筋腫では、40歳から50歳台の女性に多く、血管筋脂肪腫は、30歳台から40歳台の女性に多いとされている。自験例を含めた4例の報告例は、それぞれ74歳の女性、66歳の女性、68歳の男性、66歳の男性であった。また、随伴病変は、血管筋脂肪腫には、結節性硬化症が認められているが、血管筋腫には随伴症は、一般にない。このように若干の相違点はあるもの

の、病理所見および臨床所見はかなり類似しており、この点に関しては、今後の症例の集積と詳細な検索を期待したい。

本腫瘍の治療については、良性腫瘍であることから、切除手術が施行されている。小宮の報告例では手術後4か月、岩井の報告例では手術後3年再発は認められていない。われわれの症例でも手術後4年余り経過しているが再発なく、経過良好である。

結 語

66歳の男性の口蓋に発生した血管筋脂肪腫を経験したので報告した。

参 考 文 献

- 1) 相沢 幹, 菊池浩吉編: 新病理学総論. 第10版. 南山堂, 東京, 1985, 729頁.
- 2) 石川栄世, 遠城寺宗知編: 軟部腫瘍アトラス. 第1版, 分光堂, 東京, 1989, 144頁.
- 3) Gutmann, J., Cifuentes, C. et al: Intraoral angiomyolipoma. Oral Surg 39: 945-948, 1975.
- 4) 小宮善昭, 岩本昌平, 他: 頬部に発生した血管筋脂肪腫の1例. 日口外誌 29: 1761-1764 1983.
- 5) 岩井正行, 池田寿人, 他: 上唇に発生した血管筋脂肪腫の1例. 口科誌 40: 454-459 1991.
- 6) 森本典夫: 血管筋腫(血管性平滑筋)の臨床病理学的研究. 鹿児島医誌 24: 663-688 1973.
- 7) Bures, C. and Barnes, L.: Benign mesenchymomas of the head and neck, Arch Pathol Lab Med 102: 237-241 1978.