良性の様相を呈した舌血管肉腫

小笠原健文・白川正順・坂井陳作
岩本正生・宮原康郎・田所 衛*

A case of angiosarcoma of the tongue suspected to be a benign tumor

Takafumi OGASAWARA・Masayori SHIRAKAWA・Nobuoki SAKAI
Masao IWAMOTO・Yasuo MIYAHARA・Mamoru TADOKORO*

Abstract: Malignant hemangiosarcoma is relatively rare in the oral cavity. Here we describe a case of malignant hemangiosarcoma of the tongue suspected to be a benign tumor.

Our case was a woman 72 years of age who noticed the lesion several weeks previously as a bean-sized swelling on her tongue. The tumor was dark red and measured 8 × 5 × 5 mm. The surface was smooth and elastic hard. It was tender, but not pulsating. As the tumor was partially necrotic, it was resected, with a surgical margin of 5 mm. The pathological diagnosis of the specimen was malignant hemangiosarcoma. Whole-body scintigraphy and CT scan showed no abnormalities.

At present, 2 years and 2 months after operation, there is no evidence of local recurrence or distant metastasis.

Key words: Angiosarcoma (血管肉腫), Hemangioendothelioma (血管内皮腫), Tongue (舌)

緒 言

血管腫の悪性型は、一般に血管肉腫 (Hemangiosarcoma) と呼ばれ、血管内皮細胞から発生するきわめてまれな腫瘍である。顎顔面口腔領域では頬部、上顎歯肉部の血管肉腫の報告があるが^{1, 2)}、舌はきわめて少ない^{3, 4)}。

今回、舌に生じ良性腫瘍の様相を呈した血管肉腫の1例を経験したので若干の考察を加えその概要を報告する。

症 例

患 者：72歳，女性。

初 診：平成3年6月 日。

主 訴：左側舌縁部の接触痛。

家族歴および既往歴：特記事項なし。

現病歴：約1週間前から義歯装着時に左側舌縁部に疼痛を自覚したため、某歯科を受診したところ、同医にて左側舌縁部の血管腫を指摘され、当科紹介され来院した。

現 症：全身状態は体格栄養とも中等度で特記すべき事項は認められなかった。また、所属リンパ節の腫脹は認められなかった。口腔内所見では、左側舌縁部に暗赤色、境界明瞭な直径約8mm大の半球形腫瘤を認めた。表面は滑沢、易出血性で硬さは弾性硬、圧痛を認め、腫瘍と連続した部位に一部癰瘍様の硬結を触知した。

臨床診断：舌腫瘍。

処置および経過：平成3年6月 日初診時、舌腫瘍の臨床診断のもと腫瘍摘出を予定した。6月 日手

町田市民病院口腔外科

(主任：白川正順医長)

*聖マリアンナ医科大学病理学教室

(主任：田所 衛教授)

Department of Oral and Maxillofacial Surgery,
Machida City Hospital (Chief: Dr. Masayori Shirakawa)

*Department of Pathology, St. Marianna Medical
University (Chief: Prof. Mamoru Tadokoro)

受付日：平成5年10月20日

写真1 術前口腔内写真

写真3 病理組織像 (H-E 染色 弱拡大)

写真2 切除物写真

写真4 病理組織像 (H-E 染色 強拡大)

術時、腫瘍は増大傾向を示し一部に壊死を認めたため(写真1)、5mmのサージカルマージンを設定し周囲健康組織を含め腫瘍を切除した。病理組織学的に検索したところ、血管肉腫との診断を得たためだけに全身精査を行った。Gaシンチグラムで全身および頭頸部に異常集積は認められず、また、CT所見でも明らかなリンパ節の腫脹は認められなかった。約2年2か月を経過した現在局所再発および遠隔転移の徴候を認めず経過は良好である。

摘出物所見：腫瘍は直径12×7mmで暗赤色、一部薄い被膜に覆われていた。硬さは弾性硬で表面は軽度凹凸がみられた(写真2)。

病理組織学的所見：弱拡大では腫瘍細胞が大小多数の血管腔を形成し、異型性の強い細胞を認めた。強拡大では、腫瘍細胞は密に増殖し、散在する核分裂像が認められた。また、腫瘍組織は核質が一様に分布した類円形の核と、好酸性のやや豊富な胞体を有する腫大した内皮細胞よりなっており、不規則に吻合する血管腔を形成していた(写真3、4)。

考 察

血管肉腫は血管内皮細胞から発生するきわめてまれな腫瘍である。発生部位は頭皮をはじめとして肝、脾、肺、腸管など脈管の存在するいかなる組織からも発生しうる⁵⁾。顎顔面口腔領域では上下顎骨、上顎洞、歯肉、口唇、皮膚などの報告が散見された程度で⁶⁾、特に舌は稀少である^{3, 4)}。元来口腔領域における肉腫の発現頻度そのものが癌腫に較べてはるかに少なく、

口腔悪性腫瘍全体の10%程度といわれている⁶⁾。また口腔領域に発現する肉腫の特徴として、発生部位は顎骨が主で軟組織に少ないこと、組織学的には、悪性リンパ腫、骨原性肉腫、線維肉腫が大部分を占めている⁷⁾。

血管原性悪性腫瘍の分類法は、統一した見解がなく、諸説がある。Stout⁸⁾は主たる構成細胞から、血管内皮腫、血管周皮腫、Vascular form of Leiomyosarcoma、カポジ肉腫の4つに分類し、木村⁹⁾は、血管系腫瘍を組織像から、5つの型に分類している。すなわち、1) 細管性：腫瘍主成分が細血管像が明らかなもの、2) 豊細胞型(血管芽腫)：細管像不明で腫瘍細胞大部分が不規則集合状、3) 血管肉腫：細胞形が乱雑化し、多形性強い、4) 蔓状血管腫：やや大きい動静脈管の迂曲集合状のもの、5) 特異型：血管は多いが、他の組織や細胞成分が混在しあるいは組織像も血管腫としてやや例外的なもの、としている。また石川⁷⁾は、悪性血管内皮腫、悪性血管周皮腫、カポジ肉腫の3つに分類している。一方猿田¹⁰⁾は、脈管肉腫を血管肉腫と、リンパ管肉腫(悪性リンパ管内皮細胞腫)に大別し、そのうち前者を悪性血管内皮細胞腫、悪性血管外皮細胞腫、カポジ肉腫、その他のものに細分類した。

本腫瘍の発生原因は明らかでないが、先天性のもの¹¹⁾と外傷性のもの¹²⁾が考えられ、外傷部位の肉芽の毛細血管から発生したり^{8, 13, 14)}、血管腫に外傷または感染を生じ、悪性化するとも考えられている¹⁵⁾。この点について前山¹⁶⁾は外傷は直接原因とは考えがたくむしろ腫瘍の悪性化を誘発、促進する一因と考

えた方が妥当であると述べている。自験例では同部は義歯の刺激が長期に加わっていた痕跡があり、腫瘍と連続する一部に若干硬結を伴っていたことなどから癰疽肉芽組織内の内皮細胞が悪性化し血管肉腫に変化したものと推察した。

本腫瘍は鑑別診断が困難といわれている。その理由は臨床病態像が単発性で、境界が明瞭でいかにも良性の様相を呈するからである。そのうえ、生検で非悪性腫瘍と診断されても良性と悪性とが混在する場合が少なくなく、全切片ではじめて血管肉腫と病理診断された例がある。そのため全切除によって最終診断を委ねるべきである。これらの点から電子顕微鏡の診断を勧めるものもいる¹⁷⁾。

治療法についてはまだ報告例が少なく、通例化したといえるものはない。Farrら¹²⁾は放射線治療について本腫瘍は放射線感受性が高いが、根治的放射線療法が可能ではないと述べ、化学療法ではプレオマイシン、エンドキサンなどで一時的に奏効したとの報告¹⁵⁾があるが、その有用性については言及できる段階ではない。したがって、本腫瘍の治療法は現段階では手術を第一選択とするのが最良であろう。

自験例では良性腫瘍の様相を呈していたが、急激に腫瘍が増大し一部に壊死を認めたため悪性腫瘍を疑い比較的広い範囲で切除した。その結果、血管肉腫の病理組織診断を得たため得策であったと思われた。RI、CT検査など諸検査を追加したが他部位、他臓器への転移、異常は認められなかった。また切除は5mmのサージカルマージンを設定して周囲健康組織を含め切除を行った。病理組織学的に周囲組織への浸潤を認めなかったため、術後照射、化学療法については行わなかった。約2年2か月を経過した現在、再発、転移などを認めず、経過はきわめて良好である。

以上のごとく、本腫瘍は一見良性腫瘍を思わせても悪性であることが多い。一般にはその臨床所見から看過されることがあるが、この点を十分留意しなければならない。小腫瘍であったとしても病理組織学的検索が必須と思われた。本腫瘍は血管系の腫瘍であり全身どの部位に発生しても不思議はない。したがって、自験例においても今後定期的な精査、経過観察が必須と考えられた。

結 語

今回われわれは■歳女性の舌に発生し、良性腫瘍

の様相を呈した血管肉腫の1例を経験したので報告した。

引 用 文 献

- 1) 山本祐三：右頬部に原発した悪性血管内皮腫の1症例。耳鼻臨床 78：669-674 1985。
- 2) 大島清史：過去の放射線治療に誘発されたと考えられる悪性血管内皮腫の1症例。耳鼻 89：1715 1986。
- 3) Rao, K.K., Kumar, H.N. et al: Primary haemangiosarcoma of the tongue. Int J Oral Maxillofac Surg 15: 489-491 1986。
- 4) Crymes, T., Taylor, R.G. et al: Angiosarcoma metastatic to the tongue: report of case. J Oral Surg 24: 63-66 1966。
- 5) 内田安信, 河合 幹, 他編：顎口腔外科診断治療体系, 講談社, 東京: 1991, 582。
- 6) 野谷健一, 北田秀昭, 他：舌にみられた悪性血管内皮腫の1例。口科誌 38: 477-482 1989。
- 7) 石川悟朗, 秋吉正豊：口腔病理学 II. 永末書店, 京都, 1971, 1033。
- 8) Stout, A.P.: Hemangioendothelioma. A tumor of blood vessels featuring vascular endothelial cells. Ann Surg 118: 445-464 1943。
- 9) 木村哲二：血管性腫瘍の組織像。臨床病理 6: 265-279 1958。
- 10) 猿田隆夫：Malignant Hemangioendothelioma 皮膚臨床 19: 717-722 1977。
- 11) 野坂俊次, 長田憲二郎：希有な喉頭悪性血管内皮腫の1症例。耳喉 39: 495-499 1967。
- 12) Farr, H.W., Carandang, C.M., et al.: Malignant vascular tumors of the head and neck. Am J Surg 120 (4): 501-504 1970。
- 13) McCarthy, W.D. and Pack, G.T.: Malignant blood vessel tumors. A report of angiosarcoma and Kaposi's sarcoma. Surg Gynec & Obst 91: 465-482 1950。
- 14) Shklar, G. and Meyer, I.: Vascular tumors of the mouth and jaws. Oral Surg 19: 335-358 1965。
- 15) 清水源一郎, 村上栄一郎, 他：血管内皮肉腫と考えられる1例。診療 8: 1047-1051 1955。
- 16) 前山 巖, 佐藤三郎, 他：骨の血管肉腫について。整形外科 16: 733 1965。
- 17) 鍋谷秀信, 堀田文雄, 他：上顎に発生した血管肉腫の1例。日口外誌 28: 1132-1138 1982。