口腔領域に発生した血管筋腫の3例

小林正治・本間克彦・新垣 晋
佐藤直幸*・鈴木 誠**・中島民雄

Three cases of angiomyoma of the oral region

Tadaharu KOBAYASHI・Katsuhiko HONMA・Susumu SHINGAKI
Naoyuki SATOU*・Makoto SUZUKI**・Tamio NAKAJIMA

Abstract: Three cases of angiomyoma arising in the oral cavity are reported. The first case was in a 24-year-old man with a hemangiomatic swelling of the hard palate. The second case was in a 55-year-old woman with an elastic hard mass in the buccal mucosa. The third case was in a 64-year-old man with a slightly reddish swelling of the hard palate. The clinical diagnosis in the first case was hemangioma, whereas benign tumor was the clinical diagnosis in the two other cases. The tumors were completely excised under local anesthesia. Histological examination revealed well-demarcated nodular tumors consisting of smooth muscle-like tumor cells, which proliferated perivascularly in all cases. The histopathological diagnoses were angiomyoma.

Key words: angiomyoma (血管筋腫), hard palate (硬口蓋), buccal mucosa (頬粘膜)

緒 言

血管筋腫は、四肢の皮下に好発し、口腔領域では比較的まれな良性腫瘍とされている。今回著者らは、口蓋および頬粘膜下に発生した血管筋腫の3例を経験したので報告する。

症例1

患 者：24歳 男性。

初 診：昭和60年11月■日。

主 訴：口蓋部の腫瘍。

家族歴および既往歴：特記事項無し。

新潟大学歯学部口腔外科学第一教室
(主任：中島民雄教授)

*ゆきぐに大和総合病院歯科
(主任：星野琢之)

**新潟大学歯学部附属病院臨床検査室

First Department of Oral and Maxillofacial Surgery, School of Dentistry, Niigata University
(Chief: Prof. Tamio Nakajima)

*Division of Dentistry, Yukiguni Yamato General Hospital (Chief: Dr. Takushi Hoshino)

**Clinical Laboratory Division, Niigata University Dental Hospital

受付日：平成8年4月12日

現病歴：3か月ほど前に口蓋部の腫瘍に気付いたが、放置していた。某皮膚科を受診したところ、当科を紹介されて来院した。

現 症：体格は中等度、栄養状態は良好で、全身的に特に異常は認めなかった。顔貌は左右対称で、顎下リンパ節にも異常は認めなかった。口腔内所見では、硬口蓋正中後方部やや右側に、大きさ約11×10mmの半球状で境界明瞭な暗紫色の腫瘍を認めた。腫瘍の表面は平滑、硬さは弾性軟で圧痛は認めなかった(写真1)。

臨床診断：硬口蓋血管腫。

処置および経過：昭和60年11月■日、局所麻酔下に周囲粘膜および骨膜を含めて一塊として摘出した。露出した骨面には特に異常を認めなかった。術後経過は良好で、再発等の異常は認められない。

病理組織学的所見：ヘマトキシリン・エオジン染色では、薄い被膜に被われた辺縁明瞭な結節状腫瘍が認められ、長円形ないし紡錘状の核を有し、平滑筋の性格を示す細胞が増殖して管腔を取り囲み、その間を筋線維が錯綜していた(写真2)。マッソントリクローム染色では、結節構造がより明瞭となり、全体では血管や赤染された平滑筋線維が多くみられ、一部において青染された多量の膠原線維を認めた(写真3)。エラスチカ・ワンギーソン染色でも、赤染された膠原線維は

写真1 症例1 初診時口腔内写真

写真3 症例1 病理組織像
(マッソントリクローム染色, ×100)

写真5 症例2 摘出物所見

写真2 症例1 病理組織像
(H-E染色, ×40) 写真4 症例1 病理組織像
(第Ⅷ因子関連抗原染色, ×100) 写真6 症例2 病理組織像
(H-E染色, ×100)

多量に認められたが、弾性線維に乏しく、管腔は静脈に類似した構造をとっていた。免疫組織化学的所見では、第Ⅷ因子関連抗原陽性を示す血管内皮様細胞が腫瘍内の管腔内面を裏装しており、一部では明らかな管腔形成を示さず、索状に増殖していた(写真4)。

病理組織学的診断：血管筋腫。

症例2

患者：55歳 女性。

初診：昭和63年5月。

主訴：右側頬粘膜下の腫瘍。

家族歴および既往歴：特記事項無し。

現病歴：8年ほど前に、右側頬粘膜下の腫瘍に気づき、某外科を受診するも、良性の腫瘍で心配ないといわれ、放置していた。その後も特に変化は認めなかったが、気になり当科を受診した。

現症：体格は中等度、栄養状態は良好で、全身的に特に異常は認めなかった。顔貌は左右対称で、顎下リンパ節にも異常は認めなかった。口腔内所見では、右側頬粘膜下に直径約10mmの境界明瞭な弾性硬の腫瘍を認めた。腫瘍は可動性で周囲組織との癒着はなく、被覆粘膜も正常で、圧痛も認めなかった。

臨床診断：右側頬粘膜下良性腫瘍。

処置および経過：昭和63年10月13日、局所麻酔下に腫瘍直上の粘膜に切開を加えて摘出した。摘出腫瘍は、12×6×6mmの大きさで卵円形を呈し、表面平滑で被膜に囲まれていた(写真5)。術後経過は良好で、

再発等の異常は認められない。

病理組織学的所見：ヘマトキシリン・エオジン染色では、線維性被膜に被われた辺縁明瞭な腫瘍で、赤血球を入れた大小の血管を多数認め、この血管壁周囲に平滑筋の増生を認めた。血管は静脈に類似した構造を示したが、不規則な形態に拡張して海綿型血管筋腫に移行している部分も認められた(写真6)。また、辺縁部では一部硝子化を認めた。免疫組織化学的にも、平滑筋ミオシンが血管周囲のみならず、腔から離れた部分にも多量に認められ、平滑筋の増生が確認された(写真7)。

病理組織学的診断：血管筋腫。

症例3

患者：64歳 男性。

初診：平成2年11月。

主訴：口蓋部の腫瘍。

家族歴および既往歴：特記事項無し。

現病歴：平成2年11月初旬に某歯科にて歯科治療時に口蓋部の腫瘍を指摘され、ゆきぐに大和病院歯科を紹介され、来院した。

現症：体格は中等度、栄養状態は良好で、全身的に特に異常は認めなかった。顔貌は左右対称で、顎下リンパ節にも異常は認めなかった。口腔内所見では、硬口蓋左側後方に境界明瞭で大きさが約10×10mmの半球状に隆起した腫瘍を認めた。腫瘍の表面は平滑で、周囲粘膜に比べやや赤味を帯びており、硬さは弾

写真7 症例2 病理組織像
(ミオシン染色, ×200)

写真8 症例3 初診時口腔内写真

写真9 症例3 病理組織像
(エラスチカ・ワンギーソン染色, ×200)

性軟で圧痛は認めなかった(写真8)。

臨床診断：硬口蓋良性腫瘍。

処置および経過：平成2年11月21日、局所麻酔下に周囲粘膜および骨膜を含めて一塊として摘出した。露出した骨面は平滑であったが、皿状にわずかに吸収されていた。術後経過は良好で、再発等の異常は認められない。

病理組織学的所見：ヘマトキシリン・エオジン染色では、粘膜下に線維性被膜に被われた結節状腫瘍が認められ、平滑筋線維が増生して渦巻状ないし柵状に配列し、筋線維束の間に径の小さな血管を多数認めた。アザンマロリー染色では、一部に退行性変化によると思われる平滑筋細胞の減少を認め、部位によって平滑筋と膠原線維の占める割合に差があった。エラスチカ・ワンギーソン染色では管腔周囲に弾性線維が乏しく、血管は静脈様の構造を呈していた(写真9)。

病理組織学的診断：血管筋腫。

考 察

血管筋腫は、血管平滑筋細胞由来の良性腫瘍と考えられ、1937年Stout¹⁾により報告がなされて以来多くの症例が報告されているが、口腔領域に生じるものは少ないとされている。また、口腔領域においては、口唇あるいは口蓋に発生することが多いといわれているが、いずれの組織にも発生するようである^{2,3)}。発生年齢は、生後1か月から84歳までと幅広く認められるが、30歳台から60歳台に多い³⁾。また、口腔領域では男女比1.7:1と男性にやや多い³⁾。

自験例の臨床診断は、症例1が血管腫、症例2と3が良性腫瘍であったが、口腔領域に生ずる本腫瘍は臨床的に特徴のある症状を示さず、本邦における報告例の臨床診断も多彩で、病理組織検査において血管筋腫と診断される例が多い²⁾。

本腫瘍の病理組織像は、腫瘍周囲に結合織の被膜を有し、腫瘍本体は平滑筋線維の増殖により筋線維が縦横に交錯して走行し、線維束間には大小の血管が種々の程度に混在しているのが特徴である^{2,4)}。また、森

本⁵⁾は本症を筋線維と血管の組織学的形態にしたがって、毛細管型あるいは充実型、静脈型、海綿型の3型に分類している。自験例では、3例とも血管腔が明瞭で、この周囲を増生した筋線維が取り巻いて静脈に類似した構造を示しており、血管間を錯綜する筋線維の増生も認め、静脈型に分類されるものと思われるが、血管腔の形態や平滑筋と膠原線維の占める割合などに差を認めた。特に、症例2では血管腔が不規則な形態に拡張し、海綿型に移行していると思われる部位も認められた。本腫瘍の本態に関しては、真の腫瘍説、過誤腫説、血管奇形説などがあり、いまだ一致を見ない。また、本症では腫瘍の主体をなす平滑筋様細胞の増殖とともに内皮様細胞も増殖しており、本腫瘍の起源には内皮様細胞あるいは平滑筋様細胞に分化可能な幼弱な細胞の関与が考えられる⁶⁾。

結 語

今回、著者らは口腔内に発生した血管筋腫を3例経験したので、若干の検討を加え報告した。

引 用 文 献

- 1) Stout, A.P.: Solitary cutaneous and subcutaneous leiomyoma. *Am J Cancer* 29: 435-469 1937.
- 2) 和田和郎, 椎木一雄, 他: 下顎歯肉頬移行部に発生した血管筋腫の1例. *日口外誌* 33: 1156-1161 1987.
- 3) 岩間英明, 鶴町容子, 他: 硬口蓋に発生した血管筋腫の1例. *日口外誌* 39: 1072-1074 1993.
- 4) 小田泰之, 奥津誠次郎, 他: 口腔領域に発生した血管筋腫の3症例と免疫組織学的検討. *日口外誌* 37: 1348-1356 1991.
- 5) 森本典夫: 血管筋腫(血管性平滑筋腫)の臨床病理学的研究. *鹿児島医誌* 24: 663-688 1973.
- 6) 岡田由美, 亀山洋一郎, 他: 口唇血管腫の光学顕微鏡および電子顕微鏡による観察. *日口外誌* 25: 65-71 1979.