舌に発生した血管内乳頭状内皮過形成の1例

吉川文弘・墨 哲郎・森賀 繁・加藤逸郎
岩井聡一・作田正義

A case of intravascular papillary endothelial hyperplasia

Fumihiro YOSHIKAWA · Tetsurou SUMI · Shigeru MORIGA · Itsurou KATO

Souichi IWAI · Masayoshi SAKUDA

Abstract: Intravascular papillary endothelial hyperplasia (IPEH) is an unusual, benign, non-neoplastic vascular lesion characterized histologically by papillary fronds lined by proliferating endothelium. It may occur in any blood vessel in the body but is most common in the head and neck region and the fingers.

Reports of IPEH of the oral region are rare in Japan. In this report, we describe a case of IPEH of the tongue.

Key words: intravascular papillary endothelial hyperplasia (血管内乳頭状内皮過形成), vascular lesion (血管病変), tongue (舌)

緒 言

血管内乳頭状内皮過形成 (Intravascular papillary endothelial hyperplasia, 以下 IPEH と略す) とは、血管内皮細胞が血管内で乳頭状の増殖を示したものである¹⁾。頭頸部、体幹、指などに発症する²⁾とされているが口腔領域に於ける本疾患の報告は少ない^{3, 4)}。今回われわれは、62歳の男性の舌に発症した IPEH の一症例を経験したので若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

患 者：62歳，男性。
初 診：1996年10月■日。
主 訴：左側舌尖部腫瘍。
既往歴：特記事項はない。
家族歴：特記事項はない。
現病歴：1996年9月，左側舌尖部に腫瘍を自覚したため，10月15日当科受診した。

全身所見：体格中等度，栄養状態良好，その他特記事項はない。

口腔内所見：左側舌尖部に径5mmの弾性やや硬，半球状の膨隆が認められた。自発痛および圧痛は認めなかった。同部の被覆粘膜は正常で軽度の暗紫色を呈していた(写真1)。波動および拍動は認められず，圧迫による腿色もみられなかった。周囲組織との癒着は認めなかった。

臨床診断：舌良性腫瘍(神経鞘腫の疑い)。

処置および経過：1996年11月■日，局所麻酔下に腫

写真1 初診時口腔内写真

大阪大学歯学部口腔外科学第二講座

(主任：作田正義教授)

Department of Oral and Maxillofacial surgery II,
Osaka University Faculty of Dentistry (Chirf: Prof.
Masayoshi Sakuda)

受付日：平成9年4月7日

写真2 病理組織像 (H-E 染色): 弱拡大

写真3 写真2の一部拡大像 (H-E 染色): 強拡大
硝子様基質の核を中心に乳頭状に増生する血管内皮が認められる。

表1 本邦における口腔領域の IPEH 12例の内容

著 者	年齢	性	部 位	大きさ (mm)
Miyamoto ⁸⁾	15	男	上 唇	小 豆 大
Miyamoto	16	男	頬	6×6
Miyamoto	56	女	下 唇	えんどう豆大
Miyamoto	18	女	舌	えんどう豆大
Miyamoto	31	女	頬	90×40
Miyamoto	72	女	下 唇	小 豆 大
中丸 ³⁾	72	女	顎 下 部	40×40
平川 ⁴⁾	42	男	下 唇	4×4
小幡 ⁵⁾	70	女	上 唇	8×9
奥村 ⁶⁾	18	女	咬筋附着部	く る み 大
中島 ⁷⁾	42	男	舌	7×8
自験例	62	男	舌	4×4

瘤を摘出した。腫瘍は暗紫色で径4mm、厚さ3mmの球状であり、周囲との癒着は全く認めなかった。現在、術後6か月経過しているが、再発を認めていない。

病理組織所見：硝子様基質の核を有して、乳頭状に増成する血管内皮の増殖が認められた。周囲には黄色腫細胞や異物巨細胞からなる肉芽腫形成がみられ、フィブリンを伴う血栓も認められた (写真2, 3)。

病理組織学的診断：血管内乳頭状内皮過形成。

考 察

IPEH は1923年に Masson¹⁾ が最初に報告した血管腔内の血管内皮細胞の乳頭状増成を特徴とする病変であり、当初は良性腫瘍と考えられていた。しかし、現在では IPEH の名のもとに器質化血栓の特殊型であると考えられている²⁾。

過去10年間に本邦において、口腔領域に発症した

IPEH で、症例報告がなされていたものは検索し得た限りにおいては5例³⁻⁷⁾であった。その発症部位は顎下部、舌、上唇、下唇、咬筋附着部それぞれ1例であった。また、1988年の Miyamoto らの報告⁸⁾ では口腔領域に発症した IPEH は6例であり、その内容は上唇1例、下唇2例、舌1例、頬部2例であった。これらに自験例を含めた12例の詳細をまとめたものが表1である。年齢でみると、15歳から72歳まで幅広く発症していたが、10歳代に4例、70歳代に3例と多く発症していた。平均年齢は42.8歳であった。12例中では男性5例、女性7例であり特に性差はみられなかった。部位でみると、舌3例、上唇3例、下唇3例、頬2例と各部位に平均的に発症していた。これらの部位は外傷を受けやすい場所であり、IPEH の原因は外傷であろうという意見²⁾ とよく合致している。大きさでみると、頬部や顎下部に発症したものは相当の大きさにまで増大

しているが、舌、上唇、および下唇に発症したものはすべて最大径が10mm程度であった。なお、性差および平均年齢に関しては全身に発症したIPEHのそれ⁸⁾と同様であった。

IPEHは悪性血管内皮腫とその組織像が類似している場合があり、その鑑別が重要である、という報告⁹⁾があるが、その鑑別点としては、IPEHの場合は、1)血管内皮細胞の乳頭状の増殖が血管内に限定していること、2)ほとんどの乳頭状組織が血栓と関連していること、3)血管内皮細胞には異型性や分裂像はほとんどみられないこと、4)血管内皮細胞は基本的に一層であること、5)壊死部分がないこと、があげられている²⁾。自験例においてもこの5条件をすべて満たしており、IPEHであることが組織学的に確認された。また、悪性血管内皮腫は境界不明瞭な腫瘤を形成する⁹⁾、とされているが、自験例では腫瘤は境界が明瞭であり、周囲組織との癒着も全く認められなかったために、臨床面からも悪性腫瘍は考えにくかった。自験例がIPEHの典型的なものであると断定はできないが、すくなくとも今回検索した口腔領域に発症したIPEHの多くが同様の臨床所見を示していたという点から考えると、口腔領域に発症したIPEHは臨床的に悪性腫瘍を疑わせる所見を示すことは少ないのではないと思われる。

IPEHは基本的に良性の病変であり、外科的切除によって良好な成績がえられるとされている²⁾。今回の症例も、処置後からの期間は短いが発症を見ず、経過良好である。

結 語

われわれは62歳の男性の舌に発症した血管内乳頭状過形成の1症例を経験したので、その臨床的特徴およ

び病理組織学的特徴を報告するとともに、同症例に対する文献的考察を行った。

引 用 文 献

- 1) Masson, p.: Hemangioendotheliome végétant intravasculaire. Bull Soc Anat 93: 517-523 1923.
- 2) Hashimoto, H., Daimaru, Y., et al: Intravascular papillary endothelial hyperplasia. A clinicopathological study of 91 cases. Am J Dermatopathol 5: 539-546 1983.
- 3) 中丸裕爾, 飯塚桂司, 他: Intravascular papillary endothelial hyperplasia の一症例. 耳鼻咽喉科臨床 86: 1747-1751 1993.
- 4) 中島潤子, 福屋武則, 他: 舌にみられた Intravascular papillary endothelial hyperplasia の一症例. 日口外誌 38: 1899-1900 1992.
- 5) 平川佳代子, 古川隆代, 他: 下唇に発症した intravascular papillary endothelial hyperplasia. 臨皮 44: 1222-1223 1990.
- 6) 小幡和郎, 桐田 淳, 他: 上唇粘膜に発生した intravascular papillary endothelial hyperplasia の一例(抄). 口科誌 35: 1138 1986.
- 7) 奥村英彦, 篠原慶治, 他: 咬筋附着部にみられた希有なる intravascular papillary endothelial hyperplasia の一症例(抄). 日口外誌 29: 2521 1983.
- 8) Miyamoto, H., Nagatani, T., et al: Intravascular papillary endothelial hyperplasia. Clin Exp Dermatol 13: 411-415 1988.
- 9) 牛込新一郎, 町並陸生, 他: 取扱い規約に沿った腫瘍鑑別診断アトラス「軟部」. 文光堂, 東京, 1993, 138-145 頁.