口蓋に発生した血管平滑筋腫の1例

鈴木 円・宮田 勝・岡部孝一
高木純一郎・車谷 宏*・坂下英明**

A case of vascular leiomyoma of the palate

Tsubura SUZUKI・Masaru MIYATA・Koichi OKABE
Junichiro TAKAGI・Hiroshi KURUMAYA*・Hideaki SAKASHITA**

Abstract: Vascular leiomyoma is a benign tumor of the smooth muscle that originates in the blood vessels and mainly occurs on the limbs in middle-aged to elderly women. It rarely occurs in the oral cavity. We report a case of vascular leiomyoma arising in the palate. A 36-year-old man visited our department because of a hemispherical tumor in the palate. The clinical diagnosis was a salivary gland tumor, and excision of the tumor was performed. Histopathologically, the tumor was diagnosed as vascular leiomyoma. The patient's postoperative course has been good, with no evidence of recurrence as of 1 year after the operation.

Key words: vascular leiomyoma (血管平滑筋腫), benign tumor (良性腫瘍), palate (口蓋)

緒 言

血管平滑筋腫は1937年 Stout¹⁾により最初に報告された血管壁由来の平滑筋腫で、中高年女性の下肢に好発し、口腔領域ではまれな良性腫瘍である。今回われわれは口蓋に発生した本腫瘍の1例を経験したので報告する。

症 例

患 者：36歳，男性。
初 診：2000年3月■。
主 訴：口蓋の腫瘍。
既往歴および家族歴：特記すべき事項なし。
現病歴：2000年3月上旬，口蓋正中部の腫瘍に気付き近

歯科医院受診した。内歯瘻を疑われ，6 の根管治療を受けたが症状改善しないため，当科を紹介され受診した。

現 症：6 | 6 相当部口蓋正中やや左側に12×15mm大，弾性軟の半球状腫瘍を認める。被覆粘膜は一部発赤を認めるが，圧痛は訴えない(写真1)。

X線検査所見：咬合法 X線写真にて上顎正中部に2本の過剰埋伏歯を認めるが，腫瘍相当部に骨の吸収などの異常は認めない(写真2)。

臨床検査成績：血液一般，血清生化学検査で異常は認めない。

臨床診断：上顎正中部過剰埋伏歯および口蓋唾液腺腫瘍の疑い。

処置および経過：2000年3月■，局所麻酔下に被覆粘膜を付して，骨膜を含めた腫瘍切除術を施行した。その際，大口蓋動脈(中枝)との連絡を認めたためこれを結紮切断した(写真3)。露出骨面を一層削除した後，創部には真皮欠損用グラフト材(テルダーミス®)を貼付した。同時に過剰埋伏歯2歯を抜歯したが，歯は腫瘍と離れた上顎骨内に埋伏しており，関連は認めなかった。現在術後約1年を経過したが，再発などの異常は認めない。

切除物所見：腫瘍は9×15×17mm大の類球形で，表面は平滑であった(写真4)。剖面は充実性で灰白色を呈していた。

病理組織学的所見：粘膜下に小動静脈を中心とした平滑

石川県立中央病院歯科口腔外科
(主任：宮田 勝部長)
*石川県立中央病院病理科
(主任：車谷 宏部長)
**明海大学歯学部口腔外科学第二講座
(主任：坂下英明教授)
Department of Dentistry and Oral Surgery,
Ishikawa Prefectural Central Hospital (Chief:
Masaru Miyata)
*Department of Pathology, Ishikawa Prefectural
Central Hospital (Chief: Hiroshi Kurumaya)
**Second Department of Oral and Maxillofacial Sur-
gery, Meikai University School of Dentistry (Chief:
Prof. Hideaki Sakashita)
受付日：平成13年2月5日

写真1 初診時口腔内写真
口蓋に半球状の腫瘤を認める(ミラー像)。

写真3 術中写真
腫瘍は大口蓋動脈中枝との連絡を認めた。

写真2 咬合法X線写真
2本の過剰歯の埋伏を認めるが、骨の吸収は認めない。

写真4 切除物写真
類球形で表面は平滑であった。

筋組織の増生を認める。増生平滑筋は一部で血管壁との連続性を認める(写真5)。また免疫染色では抗 desmin 抗体(抗ヒトデスミン・マウスモノクローナル抗体, DAKO 社, 日本)および抗 α -smooth muscle actin 抗体(抗ヒト平滑筋線維アクチン・マウスモノクローナル抗体, DAKO 社, 日本)に陽性を示す(写真6)。

病理組織学的診断: 血管平滑筋腫。

考 察

血管平滑筋腫は WHO による軟部組織腫瘍の分類²⁾では平滑筋腫の一亜型とされ、小静脈あるいは小動脈をかこむ平滑筋組織の結節状増殖からなる。中高年女性の下肢の

皮下に好発するとされ³⁾、口腔領域では平滑筋組織が少ないことからその発生はまれである。

森本³⁾は血管平滑筋腫を平滑筋線維と血管の組織学的形態により①毛細管型(充実型)、②静脈型、③海綿型の3型に分類し、四肢では毛細管型が多いのに対し頭頸部では静脈型が多いと報告している。また、口腔領域の血管平滑筋腫における武田ら⁴⁾の検討でも、静脈型73%、毛細管型16%、海綿型11%で静脈型が多いとされている。疼痛との関連については四肢例の約67%が有痛性であり、特に毛細管型で疼痛をきたす頻度が高い傾向にある。しかし、頭頸部領域では静脈型が多いこともあり、疼痛のある症例は10%以下であるとされている³⁾。自験例の病理組織像では筋

写真5 病理組織像 (H-E 染色, ×100)
血管周囲に平滑筋組織の増生を認める。

写真6 病理組織像 (免疫染色, ×100)
desmin (上) および α -smooth muscle actin (下) に
陽性を示す。

線維束が血管壁を同心円状に取り囲んで静脈の形態をとり、さらに血管の間にも錯綜する線維束がみられることから、静脈型と考えられるものであり、疼痛は認めなかった。

年齢別では40～50歳台に好発し、約半数を占めるとされている⁴⁾。一方、性別は四肢では1:1.7で女性に多いとされている³⁾が、口腔領域では2.3:1で男性に多い傾向にある^{4, 5)}。自験例は30代の男性に生じたものであった。

口腔領域の発生部位については口唇、舌、口蓋、頬粘膜に好発するとされている⁶⁾が、島田ら⁷⁾は本邦においては口唇54.5%、口蓋24.2%、歯肉12.1%、舌および頬粘膜が4.6%ずつであるとしている。自験例は口蓋部にみられたものであり、口腔領域でも比較的にまれな部位であった。

発生原因については中年女性に好発することからエストロゲンの影響⁸⁾を考えるものがあるが、ほかに外傷などの機械的刺激の関与^{3, 9)}がいわれている。またその本態についても真の腫瘍³⁾、過誤腫¹⁰⁾、平滑筋組織の増生を伴った血管奇形⁸⁾などの説があるが、いまだに明らかではない。口腔領域では男性に発生することが多いため、エストロゲンの影響は考えにくく、その発生部位から外傷の関与も否定できないが、歯による機械的刺激を受けやすい舌や頬粘膜には少ないことから、単一の原因ではなく、多様な要因が関連して発生するものと思われる。

口腔領域に生じた本腫瘍を術前に確定診断することは困難であり、多くの場合唾液腺腫瘍などの良性腫瘍の疑いの臨床診断の下に切除がなされている。自験例でも唾液腺腫瘍を疑い、切除術を施行した。切除標本の免疫染色では筋原性腫瘍の鑑別に有用な desmin と平滑筋線維のアクチンに反応する α -smooth muscle actin に陽性であることから、それらの染色は本腫瘍の診断の一助となると思われる。予後は良好とされている⁷⁾が、不適切な切除により再発したとの報告もある^{11, 12)}ことから、適切な切除が必要で

あると同時に今後も長期にわたる経過観察が重要と思われる。

結 語

今回われわれは、36歳男性の口蓋に発生した血管平滑筋腫の1例を経験したので報告した。

引 用 文 献

- 1) Stout, A.P.: Solitary cutaneous and subcutaneous leiomyoma. Am J Cancer 29: 435-469 1937.
- 2) Enzinger, F.M., Lattes, R., et al.: Histological typing of soft tissue tumours. 1st Ed, WHO, Geneva, 1969, p.30-31.
- 3) 森本典夫: 血管筋腫(血管性平滑筋腫)の臨床病理学的研究. 鹿大医誌 24: 663-683 1973.
- 4) 武田 康, 佐々木研一, 他: 上唇に発生した血管平滑筋腫の1例. 日口外誌 41: 76-78 1995.
- 5) 布袋屋智朗, 林 英司, 他: 頬粘膜部に発生した血管平滑筋腫の1例. 日口外誌 43: 52-54 1997.
- 6) Mills, S.E., Gaffey, M.J., et al.: Tumors of the Upper Aerodigestive Tract and Ear. 3rd Ed,

- Armed Forces Institute Pathology, Washington, D.C., 2000, p322.
- 7) 島田 学, 石川義人, 他: 下顎歯槽粘膜に生じた血管平滑筋腫の1例. 日口外誌 44: 60-62 1998.
 - 8) Duhing, J.T. and Ayer, J.P.: Vascular leiomyoma. A study of sixty-one cases. Arch Pathol 68: 424-430 1959.
 - 9) 岡田由美, 亀山洋一郎, 他: 口唇血管筋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.
 - 10) Hachisuga, T., Hashimoto, T., et al.: Angioleiomyoma a clinicopathologic reappraisal of 562 cases. Cancer 54: 126-130 1984.
 - 11) Savage, N.W., Adkins, K.F., et al.: Oral vascular leiomyoma: review of the literature and report of two cases. Austr Dent J 28: 346-351 1983.
 - 12) Ragbeer, M.S. and Stone, J.: Vascular leiomyoma of the nasal cavity: report of a case and review of the literature. J Oral Maxillofac Surg 48: 1113-1117 1990.
-