側頭筋に発生した筋肉内血管腫の1例

鶴見 徹・鯨岡裕晃・堤 将治
難波竜児・大石桃江・秋葉正一

Intramuscular hemangioma of the temporal muscle

Tohru TSURUMI・Hiroaki KUJIRAKA・Masaharu TSUTSUMI
Ryuji NAMBA・Momoe OHISHI・Masakazu AKIBA

Abstract: A rare case of an intramuscular hemangioma of the temporal muscle is reported.

A 34-year-old woman presented with swelling and spontaneous pain in the right temple. On MRI, T1-weighted images showed a low-signal-intensity lesion. T2-weighted images and T1-Gd weighted images to eliminate the effect of fat showed a high-signal-intensity lesion. The lesion measured 34×31×8 mm. These findings suggested a diagnosis of hemangioma. The tumor was totally excised, and histological examination confirmed the diagnosis of an intramuscular, cavernous type of hemangioma. One year after operation, the cosmetic result is excellent, and the patient remains free of symptoms and recurrence.

Key words: intramuscular hemangioma (筋肉内血管腫), temporal muscle (側頭筋), magnetic resonance image (磁気共鳴画像)

緒 言

血管腫は粘膜や軟組織中ときに組織内深部や顎骨中心性に発生するが、咬筋や耳下腺部に生ずることはまれで、さらに側頭筋部に発生したという報告は少ない。著者らは当該部皮膚に過敏な接触痛を訴えた側頭筋膜下に生じた血管腫の1例を経験したので報告する。

症 例

患 者：34歳、女性。

初 診：平成12年12月。

主 訴：右側頭部の腫脹および疼痛。

既往歴および家族歴：特記事項なし。

現病歴：10年前よりときどき右側頭部の腫脹と疼痛を自覚していたが、2、3日で消失するために放置していた。平成12年11月、同部に腫脹および疼痛が生じいつまでも消失しないため当院内科を受診したところ、顎関節疾患との関連を疑われ精査目的に当科を紹介され受診した。

現 症：

全身所見：体格中等度、栄養状態良好。その他特記事項

総合病院国保旭中央病院歯科・歯科口腔外科

(主任：秋葉正一部長)

Department of Dentistry and Oral Surgery, Asahi

General Hospital (Chief: Masakazu Akiba)

受付日：平成14年2月20日

なし。

口腔外所見：顔貌は左右ほぼ対称で、右側頭部にわずかにびまん性の腫脹を認め、同部に軽度の自発痛と過度な接触痛を訴えた(写真1)。また顎運動や開口量には異常を認めないものの顎運動時に右側頭部の違和感を訴えた。

口腔内所見：口腔内に特記すべき所見は認められなかった。

画像所見：超音波ドップラー法検査にて、皮下に直径15mm×5mmの低エコーレベルの楕円形のmassとそれに連続するかのよう直径31mm×4mmの長形状の低エコーレベルのmassを認めた。また造影CT像にて側頭筋と側頭筋膜の間約5×4cmの範囲に筋肉のdensityと同等で筋肉よりやや強く造影される厚さ最大1.1cmの層状に広がる軟部陰影が認められた(写真2)。MRIでは、側頭筋と側頭筋膜の間に層状に広がるT1強調画像では低信号、T2強調画像で高信号、T1-Gd脂肪抑制画像では高信号を呈す3.4×3.1×0.8cmの病変が認められた(写真3)。

臨床診断：側頭筋部血管腫の疑い。

処置および経過：平成13年1月生検を施行し、海綿状血管腫の診断を得た。生検の後は痛みが消失し、自覚症状も軽減したため経過観察を勧めたが、本人の強い希望があり同年3月全身麻酔下に血管腫摘出術を施行した。手術は耳前側頭切開で行い、側頭筋膜上で皮膚を剥離翻転

写真1 初診時の顔貌写真
右側頭部にわずかにびまん性の腫脹を認める。

し側頭筋膜下に腫瘍の存在を確認の後、腫瘍上の側頭筋膜を切開剥離して筋膜直下で側頭筋上にある腫瘍を露呈した。腫瘍には放射状に細い血管が分布していたが、腫瘍と筋との剥離は容易で周囲の血管を凝固・結紮し側頭筋上で腫瘍を剥離摘出した(写真4)。出血量はわずかであった。術後、側頭筋腫脹のため下顎が偏位し軽度の運動障害が出現したが徐々に改善し、下顎の偏位は2週間で消失、術後1か月にて運動障害も消失した。また術後3週の造影MRIでは、T1-Gd 脂肪抑制画像において右側頭部皮下に手術の侵襲によると思われる境界不明瞭な高信号像を認めたが、4か月後においては消失しており術後再発を示す所見は認められなかった(写真5)。術後1年の現在、顔貌は左右対称で、右側頭部の自発痛および接触痛は消失し、経過良好である。

病理組織学的所見：脂肪組織、線維組織、骨格筋の間に内腔が嚢胞状に不規則に拡張した大小の血管腔が認められ、一部では骨格筋と直接接していた。血管の内腔を被う内皮細胞は、一層の異形の乏しい細胞からなり、内腔への乳頭状増殖、核異形、核分裂像などは認められなかった(写真6)。

病理組織学的診断：海綿状血管腫。

考 察

筋肉内血管腫はすべての血管腫の中で1%に満たず^{2,3,6~8)}、頭頸部領域では咬筋や僧帽筋にみられ側頭筋に生じた報告は少なく、国内外と自験例を合わせてわずか10例であった^{1~8)}(表1)。

筋肉内血管腫について、その診断は難しく90%以上が術前は誤診されるとの報告がある^{1,6,9)}。診断にはうっ血による腫脹、静脈石の存在、造影CT、MRI、血管造影、超音波ドップラー法などを手掛かりとして用いる⁸⁾が、本症例で

写真2 初診時のCT写真
A：造影なし
B：造影あり

側頭筋と側頭筋膜の間約5×4cmの範囲に筋肉よりやや強く造影される厚さ最大1.1cmの層状に広がる軟部陰影が認められる。

写真3 初診時のMR像
A：T2強調画像
B：T1強調画像
C：T1-Gd 脂肪抑制画像

はうっ血による腫脹の増減はなく、静脈石も存在しなかった。また、初診時には右側頭部に対して超音波ドップラー法検査を施行し、皮下に低エコーレベルのmassを認めたもののmass内部は後方増殖を伴う液状エコーは呈さず、color flow モードでmass内に血流シグナルも検出されず病変としての同定は困難であった。これは血液の貯留がなかったこと、栄養血管が細かったことなどによるものと考えられた。造影CTにおいても造影効果は著明でなく腫瘍が疑われたものの診断の決め手とはならなかった。一方、MRIは頭頸部の腫瘍性疾患を診断する際、CTに比してはるかに多くの情報をもたらすことが多く¹⁰⁾、本症例もMRIにて血管腫と診断されており、MRIが血管腫の診断に非常に有効であると考えられた。

一般に血管腫は疼痛を伴わないが、Scott¹¹⁾は骨格筋に生じた血管腫の約半数に周囲組織への圧迫や伸展による痛

写真4 術中写真(A)・切除標本(B)

A: 腫瘍の周囲に放射状に細い血管が認められる。

B: 切除標本は弾性軟で脂肪組織が混在する。

写真6 病理組織写真

A: 不規則に拡張した大小の血管腔が認められ、一部では骨格筋と直接接している (H-E 染色, $\times 10$)。

B: 血管の内皮細胞は、一層の異形の乏しい細胞からなる (H-E 染色, $\times 200$)。

写真5 術後のMR像

A: 術後3週のT1-Gd 脂肪抑制画像

B: 術後3週のT2強調画像

C: 術後4か月のT1-Gd 脂肪抑制画像

D: 術後4か月のT2強調画像

T1-Gd 脂肪抑制画像において、手術の侵襲によると思われる境界不明瞭な高信号像は、4か月後においては消失している。

みがあるとしており、自験例においても軽度の自発痛と過度の接触痛の訴えがあった。

治療法は、手術による外科的切除術のほか、非観血的治

療法として塞栓療法や硬化療法、放射線療法などがあり、これらの治療法を単独にまたは併用して施行する。根治的に行うには外科的切除術が必要となるが、部位によっては困難で、また腫瘍の完全摘出が不可能なものは再発の可能性をもつため術前に十分検討する必要がある。また塞栓療法については栄養血管のすべてを塞栓することが不可能なため一時的な縮小は可能であるが放置すると細い流入血管が太くなり、他の血管も増大するため再び腫瘍は大きくなる。しかし切除術の前に出血を減少させる目的で塞栓術を行うことは有効な手段といわれている¹²⁾。ブレオマイシンなどの薬剤を用いた硬化療法も病変の再増大や、組織壊死、肺塞栓、腎障害などの合併症の可能性があるといわれ¹³⁾、放射線療法は血管腫が悪性転化する危険性を含むとされている¹⁴⁾。側頭筋内血管腫の治療法についてわれわれが知り得た報告のほとんどが切除術であった。そして切除の場合、正常な筋をも含んで切除する方法が一般的とされる^{1, 2, 8)}が、Cappabianca ら⁴⁾は審美性、および側頭筋が咀嚼機能の中枢であることから機能性を重視し、できる限り残すべきとしておりわれわれも同様に考える。本症例については腫瘍と周囲の筋との剥離が容易であったため Cappabianca ら⁴⁾と同様に側頭筋膜下に存在する腫瘍のみを摘出し正常な筋肉の切除は行わなかった。

術後1年を経過した現在、再発の徴候は認められていないが本腫瘍の再発率は9%~20%といわれており^{1~4, 8)}、その再発率は無視できない。Cappabianca ら⁴⁾は臨床的、放射線学的に少なくとも2年間は経過観察が必要と述べており、著者らも長期にわたり経過観察を行う予定である。

表1 側頭筋に生じた筋肉内血管腫

発 表 者	発表年	年齢	性別	病理組織	大 き さ	石灰化	治療法
Sharma ら ¹⁾	1991	21	男	毛細血管性	5 cm	(×)	切除
Murakami ら ²⁾	1991	51	男	海 綿 状	3.5×2.5×1.5cm	(×)	切除
Hughes ら ³⁾	1993	28	女	海 綿 状		(×)	切除
Cappabianca ら ⁴⁾	1996	13	女	海 綿 状		(○)	摘出
Lopez-Cedrun ら ⁵⁾	1996	41	男	海 綿 状	3 cm	(×)	切除
Tada ら ⁶⁾	1996	14	女	静 脈 性		(×)	切除
Sharma ら ⁷⁾	2001	5	女	海 綿 状	3 cm	(×)	切除
		27	男	毛細血管性	4 × 2 × 1 cm	(×)	切除
Sherman ら ⁸⁾	2001	1	男	海 綿 状	5 × 4 × 1.5cm	(×)	切除
自験例	2001	34	女	海 綿 状	3 × 2 × 0.7cm	(×)	摘出

引 用 文 献

- 1) Sharma, B.S., Chari, P.S., et al.: Hemangioma of the temporalis muscle. Ann Otol Rhinol Laryngol 100: 76-78 1991.
- 2) Murakami, M., Nonaka, N., et al.: Hemangioma of the temporalis muscle: case report and review of the literature. Surg Neurol 36: 388-393 1991.
- 3) Hughes, C. and Hutchison, I.: Temporalis haemangioma presenting as temporomandibular joint pain dysfunction syndrome. Br J Oral Maxillofac Surg 31: 21-22 1993.
- 4) Cappabianca, P., Cirillo, S., et al.: Hemangioma of the temporal muscle. Head Neck 18: 197-200 1996.
- 5) Lopez-Cedrun, J.L., Fernandez, J.U., et al.: Hemangioma of the temporalis muscle: a case report and review of the literature. J Oral maxillofac Surg 54: 1130-1132 1996.
- 6) Tada, M., Sawamura, Y., et al.: Venous hemangioma of the temporalis muscle—case report—. Neurol Med Chir (Tokyo) 36: 23-25 1996.
- 7) Sharma, R.R., Netalkar, A.S., et al.: Congenital and late-onset primary haemangiomas of the temporalis muscle: case report. Br J Oral Maxillofac Surg 39: 52-54 2001.
- 8) Sherman, J.A. and Davies, H.T.: Intramuscular hemangioma of the temporalis muscle. J Oral Maxillofac Surg 59: 207-210 2001.
- 9) Wolf, G.T., Daniel, F., et al.: Intramuscular hemangioma of the head and neck. Laryngoscope 95: 210-213 1985.
- 10) 多田信平, 荒木 力: 誰にもわかる MRI. 秀潤社, 東京, 1995, 74-89頁.
- 11) Scott, J.E.S.: Haemangiomata in skeletal muscle. Br J Surg 44: 496-501 1956.
- 12) 保阪善昭, 佐藤兼重, 他: 深在性血管腫の治療. 形成外科 42: 723-732 1999.
- 13) 加地展之, 脇田 進, 他: 血管腫・血管奇形の硬化塞栓療法—硬化療法の安全性と確実性について—. 形成外科 42: 685-694 1999.
- 14) Li, F.P., Cassady, J.R., et al.: Cancer mortality following irradiation in infancy for hemangioma. Radiology 113: 177-178 1974.