口角部に発生した血管平滑筋腫の1例

桂木 明子・木下 靖朗・加藤 功

A case of angioleiomyoma of the labial commissure

KATSURAGI Akiko · KINOSHITA Yasuo · KATO Isao

Abstract: Angioleiomyoma is a benign tumor of smooth muscle originating in blood vessels. It is usually located in the lower extremities of middle-aged women and rarely occurs in the oral cavity. We report a case of angioleiomyoma developing at the mouth angle.

A 71-year-old man noticed a painless tumor at the right angle of the mouth. The tumor was thumb-head size, with a sharp border and elastic hardness. The clinical diagnosis was a benign tumor of the mouth angle. The tumor was surgically resected with the patient under local anesthesia. The resected tumor was solid, white-yellow, and measured 15 × 10 × 10mm.

Histopathologic examination showed angioleiomyoma, solid type.

Key words: angioleiomyoma (血管平滑筋腫), labial commissure (口角), oral region (口腔領域)

緒 言

血管平滑筋腫は血管壁由来の平滑筋腫で、多くは中高年女性の四肢、特に下肢の皮下に孤立性に発生するが、口腔領域での発生は比較的まれな良性腫瘍である¹⁾。

今回われわれは口角部に発生した血管平滑筋腫の1例を経験したのでその概要を報告する。

症 例

患 者: 71歳, 男性。

初 診: 2004年10月13日。

主 訴: 右側口角部の腫瘍。

既往歴: 糖尿病, 高血圧, 高脂血症で, 近医内科にて治療中。

現病歴: 2004年8月中旬から右側口角部に腫瘍を自覚していたが無痛性のため放置していた。その後, 近医内科を受診した際, 同腫瘍を指摘され, 精査目的で当科を紹介され来科した。

現 症:

全身所見: 体格は中等度。特記すべき所見は認められなかった。

口腔外所見: 顔貌は左右対称で, 特記すべき所見は認められなかった。

口腔内所見: 右側口角部に拇指頭大で正常粘膜に被覆され, 可動性を有する比較的境界明瞭で弾性硬, 無痛性の腫瘍を認めた(写真1)。

臨床診断: 右側口角部良性腫瘍。

処置および経過: 初診当日, 局所麻酔下に被覆粘膜を含め腫瘍を被膜外切除した。腫瘍は被膜で覆われており, 周囲組織との癒着は認めなかった。腫瘍切除後, 創部は真皮欠損用グラフト材であるテルダーミス®にて被覆した。

切除標本所見: 切除した腫瘍は15 × 10 × 10mm大の類球形で, 表面は薄い被膜に覆われ平滑であった(写真2)。腫瘍の内部は均一な充実性であり, 黄白色を呈していた(写真3)。

病理組織学的所見: 腫瘍は紡錘形細胞の錯綜から成る部分と硝子化が目立つ部分とから成り, 明らかな出血や壊死層はみられなかった(写真4, 5)。粘膜に近い部分では硝子化が目立ち, 細胞成分に富む紡錘形細胞の増生から成る部分では, 平滑筋束が密集し, 小血管が多く, 核の異型性や核分裂像はみられなかった。

免疫組織学的所見: Desmin および平滑筋線維のアクチンに反応する α -SMAで陽性を示した(写真6)。CD34陽性でスリット状にみえる空隙は血管成分と考えられた(写真7)。

病理組織学的診断: 血管平滑筋腫。

市立伊勢総合病院歯科口腔外科
(主任: 木下靖朗医長)

Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Ise Municipal General Hospital (Chief: KINOSHITA Yasuo)

受付日: 2005年12月8日

採択日: 2006年12月26日

写真1 初診時口腔内写真

右側口角部に拇指頭大で正常粘膜に被覆され、可動性を有する比較的境界明瞭で弾性硬、無痛性の腫瘍を認めた。

写真4 病理組織像 (H-E 染色, ×40)

紡錘形細胞の錯綜から成る部分と硝子化が目立つ部分とから成り、明らかな出血や壊死層はみられなかった。

写真2 切除標本写真

15 × 10 × 10mm 大の類球形で、表面は薄い被膜に覆われ平滑であった。

写真5 病理組織像 (H-E 染色, 強拡大 ×100)

写真3 切除標本 (剖面) 写真

腫瘍の内部は均一な充実性であり、黄白色を呈していた。

写真6 免疫染色像 (α-SMA, ×100)
α-SMA で陽性を示した。

写真7 免疫染色像 (CD34, ×200)

CD34 陽性でスリット状にみえる空隙は血管成分と考えられた。

考 察

血管平滑筋腫は WHO 軟部組織腫瘍分類¹⁾で、平滑筋細胞由来の良性腫瘍の1つとして分類されており、1937年に Stout³⁾が平滑筋腫の発生由来の1つとして血管壁の平滑筋に由来する腫瘍の存在を報告して以来、多くの症例が報告されている。そのほとんどは下肢を中心とした四肢に孤立性に発生したもので、頭頸部領域における発生頻度は比較的少ないとされている^{2, 4, 5)}。WHO の分類¹⁾によると平滑筋線維と血管の組織学的形態により充実型、静脈型、海綿型の3つの型に分類され、四肢では充実型が最も多いが、口腔領域では静脈型が多く組織型において差が認められると報告されている^{2, 4)}。しかし、本症例は平滑筋束が密集し充実しており、血管が小さいので充実型に相当すると考えられた。口腔領域に発生した充実型の血管平滑筋腫の報告例は少なく、今回われわれが渉猟し得た限りでは、本邦において本症例を含めて8例^{6~12)}であった。

本腫瘍の多くは有痛性であり、口腔領域も含め全身に発生した219例中147例(67.1%)に疼痛がみられたとの報告がある²⁾。これらの疼痛は突発的なし間歇的で、気候の変化や精神状態の失調により生じたことから、交感神経により血管の平滑筋が攣縮され、血管腔が乏血状態に陥り疼痛が生じると推測されている²⁾。これは血管腔の狭小な充実型に強い疼痛を伴うことが多いことから推測される。口腔領域の大多数は静脈型であり、疼痛を認めることがほとんどなく、本邦においては2例^{2, 13)}にのみ疼痛が認められたと報告されている。しかし本症例は充実型ではあったが過去の報告と同様に疼痛はみられなかった。その理由として本腫瘍は静脈の血管に由来する^{2, 3)}と考えられており、口腔領域は他部位に比べると静脈圧が低くその

変動も小さいため、疼痛が生じにくいと推測される¹⁴⁾。またその他の疼痛の機序としては、腫瘍内に神経線維が存在し、これが圧刺激を受けて生じるとする報告¹⁵⁾や、知覚神経の関与を示唆する報告¹⁶⁾もあるが、未だ明確な機序の解明が得られていないのが現状である。

口腔領域の発生部位については口唇、口蓋、頬粘膜に好発するとされている¹⁷⁾。口角付近の頬粘膜に発生した本症例は、口腔領域でも比較的頻度の高い部位に発生した症例であった。

本腫瘍の発生原因として、中年女性の既婚者に多く発生し、この年代の女性に子宮筋腫の発生が多いことよりエストロゲンの影響が考えられる^{2, 18)}。また比較的長時間立位をとる職業の人に生じやすく、頭部や軀幹は四肢の1/7にすぎないため静脈性鬱血の関与²⁾がいわれている。さらに口唇、口蓋、頬粘膜など外傷を受けやすい部位に発生するので外傷などの機械的刺激に対する血管組織の反応性増殖^{7, 19)}がいわれている。しかしながら、現在のところ明確な発生誘因は見いだされておらず詳細は不明である。本症例においては男性であるためエストロゲンの影響は否定的である。しかし明らかな外傷の既往はないものの機械的刺激を受けやすい部位に発生しており、さらに病理組織学的に粘膜に近い部分で硝子化がみられたことにより、慢性機械的刺激により発生したものとする。

治療法としては、本腫瘍は被膜に包まれている境界明瞭な良性腫瘍であることから、四肢および口腔領域においても外科的切除がほとんどの症例に行われている。本症例においても被覆粘膜を含め被膜外切除を行った。本腫瘍の再発例は比較的まれで、経過は良好であるといわれている。しかし、不適切な切除に起因した再発例も報告²⁰⁾されているので、術後も慎重な経過観察が必要であると考えられた。

結 語

今回われわれは口角部に発生した血管平滑筋腫の1例を経験したので、その概要を報告した。

本文の要旨は第48回日本口腔科学会中部地方部会(2005年10月、岐阜)にて発表した。

引 用 文 献

- 1) Christopher, D.M., Fletcher, K., et al.: Pathology and genetics of tumors of soft tissue and bone. World Health Organization Classification of Tumours, IARC Press, Lyon, 2002, p128-129.
- 2) 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: 663-668 1973.

- 3) Stout, A.P.: Solitary cutaneous and subcutaneous leiomyoma. *Am J Cancer* 29: 435-469 1937.
- 4) Hachisuga, T., Hashimoto, H., et al.: Angioleiomyoma. A clinicopathologic reappraisal of 562 cases. *Cancer* 54: 126-130 1984.
- 5) 梶山 稔, 重住十成, 他: 口蓋に発現した血管筋腫の1例. *日口外誌* 29: 910-915 1983.
- 6) 木下鞠彦, 川畑 守, 他: 口腔平滑筋腫の2例. *日口外誌* 24: 1141-1146 1978.
- 7) 橋本昌典, 山口 敏, 他: 血管筋腫の1例 (抄). *日口外誌* 28: 964 1982.
- 8) 覚道健治, 虫本浩三, 他: 下唇に発生した血管筋腫の1例. 光学顕微鏡的および電子顕微鏡的観察. *日口外誌* 29: 343-351 1983.
- 9) 山崎 裕, 都 温彦: 頬粘膜に発生した血管筋腫の1例. *日口外誌* 32: 87-91 1986.
- 10) 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.
- 11) 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: 840-842 1997.
- 12) 稲葉裕明, 仁木 寛, 他: 頬粘膜部に発生した平滑筋腫の1例. *日口外誌* 45: 512-514 1999.
- 13) 高山泰男, 横川 正, 他: 上顎前歯部に生じた vascular leiomyoma の1例. *日口外誌* 29: 1107-1112 1983.
- 14) 西村律男, 松矢篤三, 他: 上唇部に発生した血管筋腫の1例. *日口外誌* 31: 1241-1245 1985.
- 15) 桜根弘忠, 須貝哲郎: 血管平滑筋腫について. *皮膚* 10: 372-377 1968.
- 16) 田中 光, 蜂須賀裕志, 他: Angioleiomyoma における疼痛と神経分布との関係. *西日皮膚* 49: 678-682 1987.
- 17) Brooks, J.K., Nikitakis, N.G., et al.: Clinicopathologic characterization of oral angioleiomyomas. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 94: 221-227 2002.
- 18) Duhig, J.T. and Ayer, J.P.: Vascular leiomyoma. A study of sixty-one cases. *AMA Arch Pathol* 68: 424-430 1959.
- 19) 富田汪助, 永井哲夫, 他: 上唇部に発生した血管筋腫の1例. *日口外誌* 24: 362-365 1978.
- 20) Savage, N.W., Adkins, K.F., et al.: Oral vascular leiomyoma: review of the literature and report of two cases. *Australian Dental J* 28: 346-351 1983.