口腔, 咽頭, 喉頭の血管腫

— 診断と治療法の選択 —

沼 田 勉 飯田由美子 昼 間 清
柴 啓 介 永 田 博 史 今 野 昭 義

要旨 : 当科の口腔, 咽頭, 喉頭血管腫 9 症例を対象に, 画像診断法と治療法について検討した。術前診断には, 内視鏡や肉眼的所見で血管腫の診断はほとんどの症例で可能であった。治療法の選択を考慮すると, 画像診断法では, MRI で特徴的画像所見より血管腫であることを確認し, その正確な進展範囲を把握することが重要であった。さらに, 超音波カラードプラ法を用いて, 血管腫内部の血流速度や方向などの血行動態を把握することが必要であった。治療法では, 小さい血管腫は外科的切除の良い適応であった。しかし, 出血の制御や侵襲を考慮した場合, KTP レーザーなどによる光凝固療法が, この領域の血管腫治療の第一選択であると考えられた。

キーワード : 血管腫, MRI, カラードプラ法, 光凝固療法

Summary Hemangiomas of oral cavity, pharynx and larynx —Diagnosis and choice of treatment—

Tsutomu Numata MD, Yumiko Iida MD, Kiyoshi Hiruma MD, Keisuke Shiba MD, Hiroshi Nagata MD and Akiyoshi Konno MD

Department of Otorhinolaryngology, Chiba University School of Medicine

Nine patients with hemangioma of the oral cavity, pharynx and larynx treated in our clinic from 1995 to 1998 were reviewed with attention to diagnostic imaging and choice of treatment. Pathological diagnosis was cavernous hemangioma in 8 patients and venous hemangioma in 1 patient.

As diagnostic imaging, MRI was useful to clearly demonstrate hemangiomas of these regions and color Doppler ultrasonography was also useful to evaluate the hemodynamics such as flow rate and flow direction within the tumor. Most of them showed low to iso signal intensity on T1 and high intensity on STIR and T2. They were enhanced by Gd-DTPA. The flow rate within the cavernous hemangioma was very slow measured by color Doppler ultrasonography.

As the treatment for hemangioma of these regions, surgical resection was performed in 6 patients. Photocoagulation using holmium YAG laser was performed in 3 patients. Our results indicate that photocoagulation is a very effective treatment of mucosal hemangiomas with a low flow rate, which should be confirmed by color Doppler ultrasonography.

Key words : hemangioma, MRI, color Doppler ultrasonography, photocoagulation

はじめに

口腔, 咽頭, 喉頭の血管腫は, ほとんどが粘膜表面から透見される病変であり, 肉眼的あるいは内視鏡的に血管腫の診断をつけることは困難ではない。しかし, 臨床的に血管腫と考えられる病変では, 出血を考慮すると生検は難しく, 画像診断

には, 特徴的所見より血管腫であることが診断できること, 病変の進展度を正確に評価できることなどが求められる。また近年, 超選択的塞栓術あるいはレーザーによる凝固療法が普及するに及んで, 治療法を選択するために血管腫の血行動態の評価をも求められるようになってきた。

本稿では, 口腔, 咽頭, 喉頭の血管腫の自験例を対象に, 画像診断法とその所見, さらに施行した治療について検討し報告する。

* 千葉大学医学部耳鼻咽喉科

対象と方法

対象は，平成7年から10年の4年間に，当科で診断，治療を行った口腔内血管腫4症例，咽頭血管腫3症例，喉頭血管腫2症例の計9症例である。それぞれの発生部位，年齢，性別，主訴は表1に示す通りである。

画像診断としては，MRIで，各種撮影条件下の画像より腫瘍の性状や進展範囲を評価し，超音波カラードプラ法で，腫瘍内部の血行動態を評価した。超音波機種は，東芝製超音波診断装置SSA-270A，プローブは8MHzリニア走査型である。カラー画像は表示最高流速14cm，カラーゲインはアーチファクトのでない範囲で最高にした。血管造影は，摘出術前に塞栓術を考慮した症例に施行した。

レーザーによる光凝固のみを行った2症例を除いた7症例では，切除標本より血管腫の組織型を確認した。

成績

表2に，各症例の画像診断成績を示す。MRIでは，血管腫は一般にT1強調画像で低から等信号強度であり，STIR画像では高信号を呈した。1例を除いてガドリニウム（以下Gd）による造影効果が認められた。カラードプラ法による血行動態では，全症例で腫瘍内部の血流信号はわずかに検出されるのみで，規則的拍動性に乏しく，血流速度は毎秒数cm以内であった。血流方向は一定であったものが6例，不定のものが2例認められた。

表3に，施行した手術法と組織型を示す。3症例では，ホルミウムYAGレーザー（以下Ho-YAGレーザー）による光凝固，蒸散術を選択し施行した。その他の6症例では，外科的摘出術を選択し施行した。摘出標本の組織では，舌の1症例が静脈性血管腫，6症例が海綿状血管腫（2例は筋肉内血管腫）であった。

表1 口腔・咽頭・喉頭血管腫症例

症例	発生部位	年齢	性別	主訴
1	舌	15	F	舌の腫瘍、出血
2	舌	14	F	舌の醜形
3	頬粘膜	20	M	頬部腫脹
4	咬筋	58	F	頬部腫脹
5	中咽頭	16	F	腫瘍を指摘された
6	下咽頭	59	M	咽喉頭異常感
7	下咽頭	49	F	咽喉頭異常感
8	披裂喉頭蓋嚢	72	M	胃内視鏡検査時に指摘
9	披裂喉頭蓋嚢	60	M	胃内視鏡検査時に指摘

表2 画像診断所見

症例	MRI	カラードプラ法	血管造影
1	T1 iso, STIR high, Gd (+)	血流速度 遅、 血流方向 一定	
2	T1 iso, STIR high, Gd (++)	血流速度 遅、 血流方向 一定	
3	T1 iso, STIR high, Gd (+)	血流速度 遅、 血流方向 不定	
4		血流速度 やや速、 血流方向 一定	腫瘍濃染わずかに認める
5	T1 iso, STIR high, Gd (+)	血流速度 やや速、 血流方向 不定	腫瘍濃染なし
6	T1 iso, STIR high, Gd (+)	血流速度 遅、 血流方向 一定	
7	T1 iso, T2 high, Gd (+)	血流速度 遅、 血流方向 一定	腫瘍濃染なし
8	T1 low, T2 high, Gd (+)		
9	T1 iso, STIR high, Gd (-)	血流速度 遅、 血流方向 一定	

Gd(++) 造影効果 著明

Gd(+) 造影効果 あり

Gd(-) 造影効果 なし

表 3 術式と組織学的診断

症例	術式	組織
1	腫瘍摘出術	海綿状血管腫
2	Ho:YAGレーザー 凝固、蒸散	静脈性血管腫
3	腫瘍摘出術	海綿状血管腫
4	腫瘍摘出術	海綿状血管腫 (筋肉内血管腫)
5	口腔内、頸部外切開による摘出術	海綿状血管腫 (筋肉内血管腫)
6	咽頭側切開腫瘍摘出術	海綿状血管腫
7	Ho:YAGレーザー 凝固、蒸散	——
8	Ho:YAGレーザー 凝固、蒸散	——
9	咽頭側切開腫瘍摘出術	海綿状血管腫

症例呈示

以下に腫瘍の大きさや部位に応じて、異なる治療法を選択した症例を呈示する。はじめの2症例は、舌の血管腫症例である。

症例 1: 15 歳, 女性

現病歴: 以前より舌の左側縁に硬結があるのに気付いていたが、放置していた。平成8年3月頃より時々出血するようになり、増大してきたため近医を受診し、平成8年8月当科を紹介された。

現症と画像診断: 図1-aに、初診時の舌所見を示す。舌左側縁の粘膜下に、約2×2.5cmの青紫色に透見されるわずかに隆起する病変を認めた。Gd造影T1強調MRI画像で、腫瘍には著明な造影効果が認められた。超音波B-mode法では、粘膜表面から深部に約1cm進展し、境界明瞭な低エコー領域が認められた。カラードプラ法では、腫瘍内に血流信号はほとんど認められなかったが、検出された血流は非常に低流速で、方向は一定していた。

手術および術後所見: 本症例は、視診所見や画像所見より外科的摘出が容易であると判断し、平成9年7月腫瘍摘出術を施行した。出血量はわずかであった。術後10日で退院した。組織は海綿状血管腫であった。術後の舌所見を図1-bに示す。

症例 2: 14 歳, 女性

現病歴: 生後8ヶ月ごろ、舌背部に腫瘤に気づき当科を受診した。以後、当科外来にて経過を観察していたが、言語の障害、味覚障害、出血などを認めなかった。平成9年ごろより、本人が舌の醜形を気にするようになり、手術を希望した。

現症と画像診断: 図2に、術前の舌所見を示す。

図 1

a. 症例 1 舌海綿状血管腫の初診時所見

b. 症例 1 術後所見

舌背部中央に、粘膜表面に著明な凹凸を伴う4×5cmの隆起性病変を認めた。図3-aにGd造影MRI所見を示す。舌背部表面近くと内部に不規則な高信号の領域が認められた。カラードプラ法では舌の内部から表面に至る樹枝状の血管を認めた。腫瘍内部の血流は定方向性で、血流速度は非常に低速であった(図3-b)。

手術および術後所見: 術後の舌機能や形態を考慮すると、腫瘍の全摘の適応はないと考えられた。また部分切除の場合、止血が困難なことが懸念さ

図 2
症例 2 舌静脈性血管腫の術前所見

図 3
a. 症例 2 Gd 造影 MRI 所見
b. 症例 2 カラー Doppler 所見
右のカラーフローイメージは，プローブを舌表面にあて撮影した。左は血流波形を示している。基線より下側にわずかに血流波形が認められ，舌表面より深部に向かう静脈性の血流である。

れた。従って平成 10 年 3 月，Ho-YAG レーザーによる凝固，蒸散を施行した。腫瘍から生検材料を採取した後，舌の形態を考慮し，外見上ほぼ正常になったところで手術を終了した。出血量はわずかであった。出力は 20W，エネルギー量は 28818J であった。術後に疼痛や出血はなく，経口摂取も問題なく，4 日目に退院した。創面は早期に粘膜で被覆された。組織は静脈性血管腫であった。術後の舌所見を図 4 に示す。

症例 6：59 歳，男性

現病歴：平成 8 年 4 月頃，咽頭痛，咳があり近医耳鼻咽喉科を受診した。左梨状窩に血管腫を指摘され，5 月当科を紹介され受診した。

画像診断：左梨状窩に桑実状を呈する血管腫を認めた。MRI 画像，超音波 B-mode 画像では，梨状窩に一致する血管腫の特徴的所見が得られた。カラー Doppler 法では，低流速の血流が腫瘍内腔に確認された。

手術および術後所見：平成 8 年 7 月，全身麻酔下に左側頸部を切開し，輪状咽頭筋及び甲状咽頭筋を切断して左梨状窩の粘膜を切開し，腫瘍を直视下に摘出した（図 5）。術中出血量は約 150ml であった。術後の喉頭浮腫を想定して気管切開術を施行した。嚥下を禁止し経管栄養とした。術後反回神経麻痺を認めず，2 週間後に気管孔は閉鎖した。手術後 3 週間で退院した。腫瘍の大きさは最大径約 12mm で，病理組織検査で海綿状血管腫であった。

症例 7：49 歳，女性

現病歴：平成 10 年 1 月ごろより嚥下痛があり，某病院の耳鼻咽喉科を受診した。左梨状窩に腫瘍

図 4
症例 2 術後所見

図 5
症例 6 左梨状窩血管腫の術中所見

図 7
症例 7 術後所見

図 6
a. 症例 7 左梨状窩血管腫内視鏡所見
b. 症例 7 カラーフローイメージでは、梨状窩に一致して低エコー領域が認められる。内部の血流は、ゆっくりとした静脈性で定方向性であった。

を指摘され、当科を紹介された。

画像診断：図 6-a に、ファイバースコープ所見を示す。MRI では、造影効果のある病変が梨状窩から一部喉頭内に広がっていた。カラードプラでは、腫瘍内腔に非常に低流速で定方向性の血流を認めた（図 6-b）。頸動脈造影も施行したが、栄養血管は同定できなかった。

手術および術後所見：本例では、全身麻酔下に食道直達鏡を用いて下咽頭腔を展開し、Ho-YAG レーザーにて凝固、蒸散した。レーザー照射部位は、粘膜がやや白色に変化し、腫瘍は順次縮小した。粘膜をできる限り温存したため出血は認められなかった。腫瘍が十分に小さくなったところで、蒸散した。レーザーの出力 10W、エネルギー量は 11280J であった。術後、胃管を挿入し経口摂取を禁止したが、気管切開は施行しなかった。術後 1 週で経口摂取を許可し、10 日で退院した。術後所見を図 7 に示す。

考 察

血管腫は、組織学的に腫瘍を構成する血管成分より毛細血管、海綿状、静脈性、動静脈性に分類される。また、血管腫は胎生期の發育障害に基づく組織奇形あるいは過誤腫であるとも考えられている。これらの従来よりの分類とは別に、病理組織学的に血管内皮の増殖を伴う小児期の腫瘍のみを血管腫とし、これ以外の内皮細胞の増殖がなく異型な血管が集合したものを血管奇形（あるいは脈管奇形）とする定義も近年提唱されている¹⁾。さらに、この定義による血管奇形について、血行動態の観点より high flow, low flow の血管奇形に分類し、それぞれに適した治療法も検討され報告されている²⁾。

本疾患の診断は粘膜表面から透見され、暗赤色から紫色を呈し、粘膜表面は平滑な隆起または桑実状の形態をとり、肉眼的あるいは内視鏡的診断は比較的容易である。組織の確定診断のための穿刺吸引細胞診（FNA）は、血管腫が考えられる症

例では出血の危険性を考慮すると必ずしも有用ではないと考えられている³⁾。

画像では，単純 X 線写真や CT で，海綿状血管腫症例に静脈石による石灰化が証明される場合も少なくない。しかし，この所見のみでは，適切な治療法を選択していく上で不十分であることは否めない。

Yakes ら^{4,5)}は，近年の血管腫や血管奇形の定義に基づく診断や，血行動態や進展範囲を考慮した治療法を選択する上で，最も有用であるのは MRI とカラードプラ法であると述べている。自験例においても同様であった。MRI では，STIR 画像と Gd 造影画像が病変の性状や進展度を把握するために有益であった。一方，カラードプラ法では，血管腫内部の血行動態を評価することが可能であった。静脈性血管腫 1 例，海綿状血管腫 7 例の経験に過ぎないが，腫瘍内部に低流速で拍動性のとばしい静脈性の血流が確認された。このことは，静脈性血管腫や海綿状血管腫を静脈系の血管奇形とみなす分類を支持するものであった。さらに血流方向より，腫瘍内部の血流方向が一定の症例では主たる流出静脈が決まっており，血流の一定しない症例では，主たる流出静脈がないか，あるいは複数あるものと考えられた。頸動脈造影は，血流速度の早い病変には適しているが，海綿状血管腫では病変が比較的大きくなっても，栄養動脈の確認や，腫瘍の濃染も確認できないことが案外多く，有用性はあまり認められなかった。自験例の第 5 症例などは，副咽頭間隙に広く進展する海綿状血管腫であったが，頸動脈造影で栄養動脈を確認することができず，塞栓療法を断念せざるをえなかった。

血管腫の治療に当たって，いかに侵襲を少なく有効な治療を行うかを考慮する必要がある。口腔や中咽頭の小さい血管腫は，MRI や超音波画像で深達度を確認し，切除するのが最も確実な治療法であろう。下咽頭や喉頭に発生した血管腫では，咽頭側切開術などを行い，腫瘍を明視下において摘出するのが一般的であった^{6,7)}。この場合，頸部の切開創が残ることはまぬがれず，反回神経，上喉頭神経麻痺を起こさない注意が必要である。

手術侵襲や術後の機能や形態などを考慮すると，口腔，咽頭，喉頭の血管腫の治療法として，今後

はヘモグロビンに吸収されやすい波長をもつ KTP レーザーあるいは Ho-YAG レーザーによる光凝固療法が多用されるようになるであろうと考える⁸⁻¹²⁾。懸念されるのは術中の出血であるが，自験例では，レーザーによる光凝固中に，粘膜を損傷して出血することはほとんどなかった。さらに，レーザーによる凝固治療の優れた点は，血管腫の部分切除が可能なことであり，腫瘍の光凝固治療を一次的ではなく数次にわたって行うことも選択できる点であると考えられる。ただし，血管腫の血流が遅いものでなければ光凝固療法は不可能であり，カラードプラ法や MRI で血流速度の遅いタイプであることを確認する必要がある。

血管腫の治療には，塞栓術も考慮される。しかし，流速の遅い海綿状血管腫のように，通常の頸動脈造影で栄養血管の同定ができない場合には，超選択的塞栓術は不可能である。血管腫の直接穿刺による血管硬化剤治療も有効であると思われるが，硬化療法後の浮腫，出血，あるいは硬化剤の流出などの合併症が懸念される。従って今のところ，塞栓術はこの領域での血管腫治療の第一選択とはならないように思われる。

むすび

当科の口腔，咽頭，喉頭血管腫症例を対象に，画像診断法と治療法について検討した。この領域の血管腫の治療では，レーザーによる光凝固が第一選択となると考えられた。術前には，MRI で特徴的画像をとらえ血管腫であることを確認し，正確な進展範囲を把握することが重要であった。さらに，カラードプラ法を用いることで，血管腫内部の血流速度が十分に遅いことが確認でき，治療法の選択上有益な情報が得られた。

文 献

- 1) Mulliken JB, Glowacki J: Hemangioma and vascular malformation in infants and children; A classification on endothelial characteristics. *Plast Reconstr Surg* 69: 412-420, 1982.
- 2) Jackson IT, Carro R, Potparic Z, et al: Hemangiomas, vascular malformations, and lymphovenous malformations; Classification and methods of treatment. *Plast Reconstr Surg* 91: 1216-1230, 1993.

- 3) 古川政樹, 大石公直, 古川まどか, 他 : 頭頸部多発性血管腫例—画像診断とくに MRI の有用性について—, 耳鼻臨床 86 : 861-868, 1993.
- 4) Yakes WF, Haas DK, Parker SH, et al : Symptomatic vascular malformations : Ethanol embolotherapy. Radiology 170 : 1059-1066, 1989.
- 5) Yakes WF : Extremity venous malformations diagnosis and management. Semin Intervent Radiol 11 : 332-339, 1994.
- 6) 鈴木立俊, 粕山安弘, 馬越智浩, 他 : 静脈石を有した喉頭血管腫の 1 例. 耳喉頭頸 69 : 940-943, 1997.
- 7) 鈴木敏弘, 河田 了, 村上 泰 : 喉頭側切開および咽頭側切開で摘出した喉頭血管腫 2 症例. 日気食会報 48 : 468-474, 1997.
- 8) 庄司和彦, 大森孝一, 金地明星, 他 : 耳鼻咽喉科領域での KTP レーザーの応用. 第 13 回日本レーザー医学会大会論文集 : 431-434, 1993.
- 9) 庄司和彦, 大森孝一, 金地明星, 他 : 気管食道領域における医療器械の進歩—気管食道領域での KTP レーザーの応用—. 日気食会報 44 : 112, 1993.
- 10) 庄司和彦, 児嶋久剛, 大森孝一 : KTP レーザーによる咽喉頭血管腫の光凝固. 耳鼻臨床 87 : 298-299, 1994.
- 11) 中之坊学, 田部哲也, 松永 毅, 他 : ホルミウム・ヤグレーザー照射の生体組織に対する影響について. 日本レーザー医学会誌 17 : 11-18, 1996.
- 12) 中之坊学, 田部哲也, 松永 毅, 他 : 耳鼻咽喉科領域における Ho : YAG レーザーの使用経験. 第 17 回日本レーザー医学会大会論文集 : 163-166, 1997.