臨床報告

静脈石を伴う舌静脈性血管腫の1例

羽田 朱里* 中島 純子* 野澤 浩***
佐野 次夫**** 佐藤 泰則*

A Case of Venous Hemangioma with Phlebolith

SHURI HADA*, JUNKO NAKAJIMA*, HIROSHI NOZAWA***,
TSUGUO SANO**** AND YASUNORI SATO*

Abstract : Phlebolith in venous hemangioma is relatively rare and there are few reports of venous hemangioma in the tongue. We report a case of venous hemangioma with phlebolithiasis.

A 75-year-old man was referred to our department with the complaint of a tumor in the left side of the tongue. There was a red elastic hard tumor measuring 18×15×8 mm with a rough surface. Hard tissue was not palpable around the tumor. Enhanced CT showed that there was a highly enhanced lesion with a high-density area in the left posterior part of the tongue. Clinical diagnosis was tongue tumor (suspected hemangioma). Excision of the tumor was performed and the histopathological diagnosis was venous hemangioma with phlebolithiasis. The postoperative course was uneventful and no evidence of recurrence has been observed for two years until now.

Key words : venous hemangioma (静脈性血管腫), phlebolithiasis (静脈石), tongue tumor (舌腫瘍)
[Received Jun. 19, 2014]

緒 言

口腔領域において血管腫は比較的多く見られ、頻度では頬部粘膜が最も多く、口唇、舌などに好発するといわれている¹⁾。また、血管腫は静脈石を伴うことがあり、舌だけの発生頻度は10%以下と少ないが^{2,3)}、舌を含めた頭頸部領域での合併頻度は5～20%である⁴⁾。静脈石を伴うものの大部分は海綿状血管腫で、静脈性血管腫での静脈石は比較的まれであり、舌に発生する静脈性血管腫の報告も少ない³⁾。今回われわれは、静脈石を伴う腫瘤状舌静脈性血管腫の1例を経験したので報告する。

症 例

患者: 75歳, 男性。
初診: 201X年4月。

主訴: 左舌縁部の腫瘍。

既往歴: B型肝炎。

現病歴: 初診の半年位前に左舌縁に腫瘍を自覚するも特に痛みはなく、たまに誤咬して出血することはあったが放置していた。義歯作成のため近医歯科を受診した際に、精査加療目的に当科を紹介され受診した。

現症:

口腔外所見: 特記事項なし。

口腔内所見: 上下顎は無歯顎であり、左舌後縁部に18×15×8mm大で表面やや凹凸不整を呈し、暗赤色で弾性硬の腫瘍を認めた(写真1)。周囲に硬結はみられなかった。

CT所見: 造影CTにおいて、左舌後縁部に著明な高吸収域を認め、その外側部に造影後濃染される部分を認めた(写真2)。

臨床診断: 左舌腫瘍(血管腫の疑い)。

* 防衛医科大学校歯科口腔外科 (主任: 佐藤泰則教授)

** 自衛隊富士病院 (主任: 赤平亘彌部長)

*** 東京西徳州会病院 (主任: 佐野次夫部長)

* *Department of Oral and Maxillofacial Surgery, National Defense Medical College* (Chief: Prof. YASUNORI SATO) 3-2 Namiki, Tokorozawa 359-0042, Japan.

** *Self-Defense Force Fuji Hospital* (Chief: Dr. NOBUYA AKAHIRA)

*** *Tokyo Nishi Tokushukai Hospital* (Chief: Dr. TSUGUO SANO)

写真 1 口腔内写真
左舌後縁部に $18 \times 15 \times 8$ mm, 表面やや不整, 暗赤色, 弾性硬の腫瘍を認める。

処置および経過：201X年5月に入院のうえ全身麻酔下にて左舌腫瘍の切除術を行った。腫瘍周囲から約5mmの安全域を設定し、筋層部を含め周囲組織より腫瘍を切除した。術中結紮が必要な流入栄養血管は認められなかった。止血を十分に行い創面はPGAシートとフィブリン糊の併用法にて被覆した。術後15日目にはPGAシートは消失し、創面は上皮化が見られた。2年経過した現在再発無く経過良好である。

摘出物所見：血管に富んだ腫瘍性病変で、腫瘍内部に硬固物を1個触知した（写真3）。

摘出物 X 線所見：腫瘍の中央付近に静脈石と思われる楕円形の小豆大の高吸収域を認めた（写真4）。

病理組織所見：HE 染色弱拡大像では表面の重層扁平上

写真 2 造影CTと単純CT（水平断）
左舌後縁部に著明な高吸収域を認め、その外側部に造影濃染される部分を認める（矢印）。

写真 3 切除物写真
血管に富んだ腫瘍で、腫瘍内部に硬固物を1個触知する。

写真 4 切除物 X 線写真
腫瘍の中央付近に楕円形の小豆大の高吸収域を認める。

写真 5 病理組織写真(腫瘍部) HE × 40
粘膜下に平滑筋による血管壁の形成が見られる静脈性血管が認められる。

写真 6 病理組織写真(静脈石) HE × 40
筋層組織と粘膜下の結合組織中の静脈性血管の中に層状の静脈石が形成されている。

皮下の結合組織中に静脈性血管が認められ、その中には平滑筋による血管壁の形成が認められた(写真5)。静脈石を含む周囲のHE染色強拡大像では、筋層組織と粘膜下の結合組織との間に静脈性血管が見られ、その中のひとつに層状の静脈石が形成されていた(写真6)。

病理組織学的診断：静脈石を伴う静脈性血管腫。

考 察

頭頸部領域では血管腫は比較的多くみられ、口腔領域に限っては頬粘膜、口唇、舌などに好発するといわれている¹⁾。従来血管性腫瘍と血管奇形を含めて血管腫と呼んでいたが、1982年にMullikenとGlowacki^{5,6)}によって自然経過と治療の観点を重視し、これまで血管腫と呼ばれてきた病態が血管腫(hemangioma)と血管奇形(vascular malformation)に分類された。更にMullikenとGlowackiの分類を基本に国際血管腫・血管奇形学会がISSVA分類⁷⁾(ISSVA: The International Society for the Study of Vascular Anomalies)として血管性腫瘍と血管奇形に分類し、この分類は国際的に標準化されつつあり⁵⁾、近年本邦でも本分類が使用されるようになっていく。血管奇形は動脈、静脈、毛細血管、リンパ管といった構成要素により細分され、その混合型も存在する^{5,7)}。従来血管腫とされた海綿状血管腫、静脈性血管腫、筋肉内血管腫、滑膜血管腫がISSVA分類の血管奇形に分類され^{5,7,8)}、自験例の静脈性血管腫は血管奇形に分類される。口腔領域の慣用的に「血管腫」と呼称される血管奇形としての血管腫病変の報告例は、海綿状血管腫がそのほとんどを占め、自験例の様な静脈性血管腫は少ない。

静脈石の頭頸部における発生頻度は5～20%⁴⁾と報告されており、静脈石を有するものは海綿状血管腫に多く、自験例の様な静脈性血管腫には少ないとされている³⁾。静

脈石の成因についてはさまざまな見解があるが、一般に何らかの原因で循環血液の速度低下により、血管壁に付着した血栓が同心円状に繊維化し器質化され、その後中心部が壊死に陥り石灰沈着をきたし、続いて血栓と血管壁との間の組織が暫時萎縮して索条となり、静脈石が血管内に遊離するという説が一般に支持されている^{9,10)}。舌での静脈石は比較的珍しいとされているが^{2,11)}、数においては種々報告されており、多いものでは50個以上のものも報告¹²⁾されている。またの頬部症例に対するX線的検索において、約20個の静脈石が9年後に約40個を数えることができたとの報告¹³⁾や、X線上で2個発見されたものが3年後同じくX線上で7個認められたとの報告¹⁴⁾は、静脈石の発育過程を考える上で興味深い。静脈石の発生機序に関する詳細は、多発機序を含め不明な点が多いとされている¹⁵⁾。従って発育経時的に静脈石の数が増加することが示唆され、今回の自験例では病変がそれ程大きく発育していないため、静脈石の数も1個であったと考えている。

血管腫の画像診断ではMRIは血管腫をT1強調画像で等信号または低信号、T2強調画像で高信号を示すため、造影なしでも血管腫の広がりや評価を評価できることより有用である¹⁶⁻²⁰⁾とされている。さらにGd-DTPA造影ではT1強調画像で造影効果を認める高信号の腫瘍として描出することができるため、ダイナミックMRIを併用することにより血行動態も評価することができ、診断には最も有用である^{18,21,22)}とされている。しかしながら自験例の様に明らかな栄養血管や流出静脈が見られない場合には血行動態や造影効果は定かでない。CTでは特に海綿状血管腫は大きな血液貯留腔を持ち、輸入血管は細く血管内の血流が遅いためヨード造影剤は希釈されて造影効果が十分に発揮されない恐れがある²³⁾が、腫瘍内に静脈石が存在する場合には高吸収域が点在することがあり、これにより診断が可能

になることもある²⁴⁾。自験例では局所臨床所見より血管腫を疑いCTを実施し、病変部の範囲形態が把握でき内部に静脈石と考えられる高吸収域が認められ、静脈石の存在より血管腫としての診断が可能^{19, 24)}と考えMRI検査を実施しなかった。

血管腫の治療法としては、種々の方法が報告されているが、外科的療法、凍結療法、組織硬化剤の注入等²⁴⁻²⁷⁾が一般に用いられ、その選択に際しては腫瘍の発生部位・性状・大きさ・組織型・深部への浸潤度および患者の年齢などを考慮して決定されなければならない¹³⁾。最も確実な治療方法は外科的切除であり、特に栄養血管や流出静脈が存在せず、大きさが比較的小さい症例においては切除術が最適とする報告もあり²⁸⁾、自験例も切除術を行い現在まで約2年を経過したが再発無く経過良好である。

結 論

今回われわれは、静脈石を伴う腫瘤状舌静脈性血管腫の1例を経験したのでその概要を報告した。

患者からのインフォームドコンセントは防衛医科大学校病院における個人情報保護に関する規則により得ている。

謝辞ならびに利益相反 本論文について利益相反はありません。

なお本論文の要旨の一部は、第193回日本口腔外科学会関東地方会学術集会(2012年6月, 所沢市)において発表した。

引用文献

- 石川 梧朗: 口腔病理学 II. 改訂版, 永末書店, 京都, pp. 572-577, 1982.
- 金田 式世, 富久尾 明德, 吉田 文昭, 他: 静脈石を伴った頬部血管腫の1例と文献的考, 臨床歯科, 304: 35-40, 1982.
- 土井 田誠, 藤塚 秀樹, 坂井 隆之, 他: 静脈石を伴った舌およびオトガイ下部血管腫の2症例と文献的考察, 日口外誌, 33: 2032-2040, 1987.
- 粕山 安弘, 西端 慎一, 藤野 明人, 他: 頭頸部領域の血管腫 25 症例, 耳鼻臨床, 81: 1327-1332, 1988.
- Mulliken, J.B. and Glowacki, J.: Hemangiomas and Vascular malformation in infants and children: a classification based on endothelial characteristics. Plast Resnstr Surg, 64: 412-422, 1982.
- 難治性血管腫・血管奇形についての調査研究班, 血管腫・血管奇形診療ガイドライン作成委員会編: 血管腫・血管奇形診療ガイドライン, 第1版, pp. 6-8, 2013.
- Enjolras, O. and Mulliken, J.B.: Vascular tumors and vascular malformations (new issues). Adv Dermatol, 13: 375-423, 1997.
- 松原 真美, 庄司 和彦, 高橋 二人, 他: 甲状腺血管腫の1例, 天理医学紀要, 11: 92-99, 2008.
- Ribbert, H.: Die Phlebolithen. Virchows Arch, 223: 339-350, 1917.
- 紀平 浩之, 田川 俊郎, 平野 吉雄, 他: 口腔内多発性血管腫の1例, 日口外誌, 34: 1693-1700, 1988.
- 川中 敏正, 滝元 徹, 杉盛 恵: 頬部および顎下部静脈石2症例について—頭頸部静脈石の文献的考察—, 耳鼻臨床, 77: 29-38, 1984.
- 坂上 公一, 杉山 芳樹, 石橋 修, 他: 多数の静脈石を伴った巨大な舌血管腫の1例, 岩医大歯誌, 28: 228-233, 2003.
- 上野 正, 山崎 正宏, 清水 正嗣, 他: 多数の静脈石を伴った頬部血管腫の1例, 日口外誌, 19: 202-207, 1973.
- 日比野 修, 大西 正俊, 佐藤 和子, 他: 初回手術後に静脈石の形成をみた頬部血管腫の1例—その臨床経過ならびに静脈石の物理化学的性状について—, 日口外誌, 26: 1300-1307, 1980.
- 寺井 陽彦, 小野 克己, 中野 良信, 他: 顎下部および頬部に多数の静脈石の発生をみた1例, 日口外誌, 32: 1244-1248, 1986.
- Yonetsu, K., Nakayama, E., Miwa, K., et al.: Magnetic resonance imaging of oral and maxillofacial angiomias. Oral Surg Oral Med Oral Pathol, 76: 783-789, 1993.
- 豊田 圭子, 小林 雅夫, 多田 信平: 口腔領域血管腫のMRI, 日磁医報, 15: 290-297, 1995.
- 竹村 栄毅, 窪田 哲昭, 松井 和夫, 他: 咽頭側切開で摘出した喉頭血管腫の2症例, 耳鼻臨床補, 109: 86-90, 2002.
- 河野 聖美, 斎藤 慶子, 吉原 俊雄: 咬筋内血管腫の3症例, 口咽科, 14: 293-298, 2002.
- 服部 玲子, 清水 猛史, Alok Bhandari, 他: 喉頭蓋嚢胞と術前診断された血管腫例, 耳鼻臨床, 97: 977-981, 2004.
- 関口 裕子, 児野 喜穂, 岸 廣彦, 他: 術前診断にダイナミックMRIが有用であった咬筋内血管腫の1例, 日口外誌, 46: 790-792, 2000.
- 伊藤 亨, 西村 一雅, 富樫 かつお: 頸部・顔面の海綿状血管腫に対する超電導MRI, 臨放, 31: 1497-1502, 1986.
- 君島 裕, 佐藤 泰則, 安藤 俊史, 他: ベーチェット病とシェーグレン症候群を合併した患者の耳下腺に生じた海綿状血管腫の1例, 口腔腫瘍, 15: 65-73, 2003.
- 水田 康雄, 大槻 晃直, 吉松 政喜, 他: 静脈石を伴った頭頸部血管腫の3例, 耳鼻臨床, 78: 203-210, 1985.
- 斎藤 晃一, 茂木 健司, 本多 善孝, 他: 頬嚢胞を疑った口底部血管腫の症例: 日口外誌, 29: 1651-1655, 1983.
- 飯田 武, 松本 晃一, 松村 隆司, 他: 血管腫に対するcryosurgery, 日口外誌, 23: 513-520, 1977.
- 浜田 駿, 円道 紀三郎, 尾崎 登喜雄, 他: 組織硬化剤による血管腫の治療について, 日口外誌, 20: 524-529, 1971.
- 坂下 英明, 宮田 勝, 荒川 昌子, 他: 咬筋前縁部に発生した静脈性血管腫の1例: 日口外誌, 34: 72-76, 1988.