下顎骨と脛骨に発生した多発性 骨原発血管腫の一例

鳥取大学医学部整形外科教室

宮 元 修 一・延 々 規夫
森 芳 紘・山 本 吉 蔵
前 山 巖

Multiple Primary Hemangiomas of Bone in the Mandible and the Tibia. A Case Report

By

S. Miyamoto, N. Teitei, Y. Mori,
K. Yamamoto and I. Maeyama

Department of Orthopaedic Surgery, Tottori
University School of Medicine

A female aged forty-eight noticed a bony mass, 2.5×2.0 cm, on the left side of the mandible, which was of a year long duration although it had not caused pain and other symptoms. A radiograph showed a coarse "honey comb" rarefaction and characteristic radiating spicules in the tumor of the mandible.

A tumor in the tibia happened to be found by radiological screening. No bony mass was palpated on the antero-medial aspect of the right tibia, but radiological picture revealed a latticed texture, so-called "corduroy cloth" appearance.

Pathologically, both specimens of the mandible and the tibia showed dilated, endothelial-lined vascular channels with red blood cells.

骨の血管性起源の腫瘍として、良性と考えられるものに骨血管腫があるが、その発生頻度は比較的まれで、全国骨腫瘍患者登録一覧表（昭和47年～51年）によると、原発性骨腫瘍4260例中、骨血管腫は36例である。さらに全身性骨原発血管腫は6例であり、非常にまれである。今回、われわれは、下顎骨と右脛骨に発生した多発性骨原発血管腫を経験したので報告する。

症 例

患者：48才，女性。

主訴：下顎部腫瘤形成

現病歴：約1年前，下顎部腫瘤形成に気付いたが，疼痛もなく放置していた。約2カ月前，某病院整形外科を受診したところ，エックス線像にて下顎骨のほか，右脛骨にも格子状異常陰影を指摘され，当科に紹

介された。

既往歴：特記すべきことなし

家族歴：特記すべきことなし

生活歴：特記すべきことなし

現症：下顎骨のオトガイ隆起右側部に母指頭大，半球状の腫瘤形成と，同部に軽度の圧痛が認められた。右下腿には外見上とくに異常は認められなかった。

エックス線像：下顎骨正面像にて，腫瘤形成部に一致して，境界不鮮明な円形の蜂窩状透明巣が認められ側面像および軸射像にて腫瘤中心部より放射状に走るsun-burst状陰影が認められた（図1）。また，右脛骨正面像にてその骨幹部中央部に格子状透亮陰影が認められた（図2）。

骨シンチグラム：下顎骨および右脛骨に^{99m}Tc-ピロリン酸の異常集積像は認められなかった。

血管造影：右下腿に新生血管の増生・蛇行・迂回・

図1 下顎骨側面像

腫瘍中心部より放射状に走る sun-burst 状陰影が認められる。

網状形成あるいは走行変化などの所見を認めることは出来なかった。

検査所見：血液一般検査には異常は認められなかった。また血清生化学検査では、蛋白分画で、アルブミン値の低下と γ -グロブリン値の増加を認めたが、総蛋白・Al-P-ase・LDH・GPT・GOT・Ca・Pなどは正常値を示した。

治療：多発性骨原発血管腫の診断のもとに下顎骨および右脛骨の病巣部切除術を施行し、下顎骨には骨セメント充填、右脛骨には自家腸骨片移植を行なった。

手術所見：下顎骨病巣部は半球状に膨隆しており、表面は赤紫色を呈していた。2×2.5×1 cmの大きさの腫瘍を切除するに、腫瘍基底部は蜂窩状を呈し、出血はほとんど認められなかった。右脛骨病巣部は表面が赤紫色を呈していたが、骨膨隆は認められなかった。3.5×1.5×2.0 cmの大きさの脛骨病巣部を切除するに、病巣内部の骨梁配列は不規則であった。また、下顎骨病巣部・右脛骨病巣部ともに表面をおおう骨膜にまで腫瘍の侵蝕は認められなかった。切除した下顎骨病巣部を水平切断すると、骨梁が腫瘍基底部より放射状に広がって

図2 右脛骨正面像

脛骨中央内側部に格子状陰影が認められる。

図3 下顎骨病巣部水平切断断面

粗な骨梁が腫瘍基底部より放射状に広がっている。

り放射状に広がっており、ソフテックス像にて、sun-burst 状陰影として認められた(図3)。

また、切除した右脛骨病巣部を縦切断すると、骨梁の配列が不規則であり、ソフテックス像にて、格子状陰影として認められた(図4)。

組織学的所見：下顎骨病巣部、水平切断標本をH・E染色弱拡大にてみると、太い骨梁と拡張せる血管腔との集合よりなり、血管腔内は多数の赤血球により充満されていたが、器質化した血栓は認められなかつ

図4 右脛骨病巣部縦切断断面

た。また、骨膜には腫瘍組織の侵襲はなく、血管腔内膜を被っている内皮細胞の異型性などもなく、悪性像は認められなかった。強拡大にしてみると、うすい血管壁を有する多数の血管腔よりなる hemangioma cavernosum の像を呈していた(図5)。

次に、右脛骨病巣部、横切断標本をみると、多数の血管を形成する腫瘍組織が認められ、下顎骨病巣部と同様の所見を呈していたが、骨質は腫瘍組織により破壊吸収されていた。

考 察

原発性骨血管腫の発生頻度は、全国骨腫瘍患者登録一覧表(昭和47年～51年)によると、原発性骨腫瘍4,260例中36例(0.8%)であり少なく、その大部分は単発性であり、多発性に発生したものは36例中6例だけで、きわめてまれである。欧米の文献では、骨外病変をとみなわぬ多発性骨原発血管腫は Gutierrez ら(1972)が自験例1例と文献上10例を報告し、その後 Karlin ら(1977)が1例を報告しているにすぎない。

一方 Töpfer らの報告によると、2,000椎体以上の剖検例中、267椎体(約12%)に骨血管腫を認めており、無症状で、臨床的になんらの異常を訴えないまま経過する症例が多数あるものと推察される。

原発性骨血管腫の男女別発生頻度は、全国骨腫瘍患者登録一覧表(昭和47年～51年)によると、男15例、女21例であり大差はない。また、諸家の報告においても男女別発生頻度に大差はない。

年令別発生頻度は、各年令層に著明な変動は認められなく、幼小児から高令者まで一様に分布している。

病因としては現在のところ、vascular tumor the-

図5 組織像(H・E染色×40)

骨梁間に拡張した血管腔を多数みとめる。

ory と malformation theory の2つがあるが定説はない。

治療法は、外科的病巣部切除術、放射線療法、化学療法などが行なわれているが、文献上放射線療法と化学療法はさほど効果が認められていない。

骨外病変をとみなわぬ多発性骨原発血管腫の予後はよく、Gutierrez らの報告によると11例中死亡例は1例のみで、その1例も死因は本腫瘍とは関連のないものであった。

結 語

以上、最近経験した骨外病変をとみなわぬ多発性骨原発血管腫を報告し、若干の文献的考察を加えた。

(本研究は厚生省がん研究助成金の補助による。)

文 献

- 1) Karlin, C. A., and Brower, A. C.: Multiple primary hemangiomas of bone. Am J. Roentgenol. 129: 162-164, July 1977.
- 2) Gutierrez, R. M., and Spjut, H. J.: Skeletal angiomatosis: report of three cases and review of the literature. Clin. Orthop. 85: 82-96, 1972.
- 3) Wallis, L. A., Asch, T., and Maisel, B. W.: Diffuse skeletal hemangiomatosis: A report of two cases and review of literature. Am. J. Med. 37, 545-563, 1964.
- 4) Sherman, R. S., and Wilner, D.: The roentgen diagnosis of hemangioma of bone. Am. J. Roentgenol. 86: 1146-1159, 1961.
- 5) Brower, A. C., Culver, J. E., and Keats, T. E.: Diffuse cystic angiomatosis of bone: report of two cases. Am. J. Roentgenol.

- 118: 456-463, 1973.
- 6) Boyle, W. J. : Cystic angiomatosis of bone. J. B. J. S. B-54: 626-636, 1972.
- 7) Unni, K., and Ivins, J. C., Beabout, J. W., and Dahlin, D. C. : Hemangioma, hemangiopericytoma and hemangioendothelioma (angiosarcoma) of bone. Cancer, 27: 1403-1414, 1971.
- 8) 松野誠夫・他：骨の primary haemangioma について. 北北海道整災誌. 6: 186-192, 1960.
-