顔面巨大単純性血管腫上に生じた基底細胞癌の1例

皆川 知広 佐々木 了 山本 有平 堤田 新
杉原 平樹

北海道大学大学院医学研究科機能回復医学講座形成外科学分野

Basal cell carcinoma arising in the Large hemangioma simplex on the face

Tomohiro MINAGAWA, Satoru SASAKI, Yuhei YAMAMOTO, Arata TSUTSUMIDA, Tsuneki SUGIHARA

Department of Plastic and Reconstructive Surgery, Hokkaido University Graduate School of Medicine

A hemangioma simplex (HS) or a port-wine stain has a tendency to darken in color and to become thickened gradually in its natural history. But it is uncommon for a skin cancer to develop inside an HS.

We report a case of a 64-year-old female, who had a large HS on her face from birth, in which a basal cell carcinoma (BCC) developed. At first an excisional biopsy was done to define the histological diagnosis of the nodule which developed on her lower lip, and the diagnosis was BCC. Then a wide local excision of the nodule with 5mm surgical margin and plasty of the enlarged lip and tongue were performed under general anesthesia. At 11 months after the final operation, no sign of loco-regional recurrence was observed.

There have been reported 19 cases of BCC developing inside HS in the literature. Eleven of these cases had some previous treatments for HS, such as thorium-X irradiation or cryotherapy. The etiological significance of the therapy is still unknown but is discussed in this article. [*Skin Cancer (Japan)* 2004; 19: 198-202]

Key words : Basal cell carcinoma, Hemangioma simplex, Port-wine stain

はじめに

形成外科ならびに皮膚科の日常診療において単純性血管腫の診断・治療にあたる機会は比較的多いものと思われるが、血管腫上に悪性腫瘍を併発する症例を経験することは極めて少ない^{1)~16)}。今回我々は顔面の巨大な単純性血管腫上に基底細胞癌（以下BCCと略す）を生じた1例を経験したので報告する。

症 例

患 者：64歳，女性
初 診：2002年7月24日
主 訴：下口唇および舌の腫大，下口唇の黒色腫瘍
家族歴：特記すべきことなし。
既往歴：30歳代から高血圧症
現病歴：生下時より右顔面に赤色斑が存在し，0歳時より4，5歳頃までドライアイス圧抵療法を受けていたが病変の改善が得られない

ため治療を中断し、その後無治療で経過していた。加齢とともに下口唇および舌の腫大が顕著となり、また下口唇に黒色腫瘍が出現し増大してきたため当科を受診した（図1）。

現 症：下口唇に35×20×10mm、境界明瞭、表面は平滑で光沢があり黒色ないし灰青色の不均一な色素沈着を伴う隆起性病変を認めた（図2）。腫瘍と下床組織との癒着は認められず可動性は良好であった。触診上、オトガイ下ならびに両側顎下および頸部領域にリンパ節を触知しなかった。

手 術：同腫瘍の組織学的診断を確定する目

的で2002年8月19日に腫瘍の切除生検を行い、BCCであることが判明した。同年9月9日全身麻酔下に生検時の手術瘢痕より5mm離して拡大切除を行うとともに口唇・舌の形成術を同時に行った。創はすべて一期的に縫合閉鎖した。

病理組織学的所見：腫瘍細胞は一部表皮と連続し主に真皮内に存在する（図3 a）。核が濃染し胞体に乏しい細胞が間質を伴って結節状に増殖している。腫瘍胞巣の最外層の細胞は柵状配列をなし、胞巣と間質の間に裂隙の形成がみられる（図3 b, c）。

図1. 臨床像。手術前の状態

図2. 臨床像。下口唇に隆起性病変を認めた

図3. a. 病理組織像（H.E.染色，肉眼所見）
b. 病理組織像（H.E.染色，弱拡大像）

a|b

図3. c. 病理組織像 (H.E.染色, 強拡大像)

術後経過：手術後，補助療法は行わず経過観察を行っている。術後11カ月の現在腫瘍の再発および転移の所見を認めていない。口唇および舌の形態・機能ともに改善しQOLの改善も得られている（図4）。

考 察

我々が文献を渉猟した範囲で単純性血管腫上にBCCが生じた報告例は1948年のScottの報告¹⁾以来過去に19例存在した（表1）。血管腫に対して何らかの治療が行われた部位にBCCを発症した症例は19例中11例あり，10歳代で発症した3例が含まれる^{2) 3) 5)}。この11例のBCC発症年齢は10～88歳，平均37.4歳であった。一方，血管腫に対して全く治療を受けていない症例あるいは非治療部位にBCCを生じた症例は8例であり，38～69歳，平均56.8歳であった。以上のように血管腫に対する何らかの治療歴を有する群でBCCの発症年齢が低い傾向にあり，これは過去の報告⁸⁾とほぼ同様であった。組織学的に慢性放射性皮膚炎の所見が認められた報告例¹¹⁾やドライアイス圧抵療法に起因すると考えられる組織変性のみられた例⁶⁾も存在した。また，ドライアイス圧抵療法およびアルゴンレーザー治療後にBCCを発症した例⁷⁾も報告されている。従って，単純性血管腫の存在自体がBCC発症のリスクファクターというよりも，むしろ血管腫の治療に伴う

図4. 臨床像. 手術後11カ月の状態

組織障害がBCCの発症に大きく関与している可能性が示唆された。

一方，欧米の報告では男性の症例が圧倒的に多く，これは女性と比較し日光暴露の機会が多いことによるものとする考え¹⁰⁾もある。また，未治療の顔面単純性血管腫上にBCCが多発した報告⁹⁾があり，このような症例では血管腫の存在そのものがBCC発症の誘因になっている可能性を否定できないが，同様の報告は他に存在せず極めて稀な症例であったと考えられる。

単純性血管腫上にBCCを発症した報告例そのものが国内外を問わず非常に少なく，各症例BCC発症に至るまでの背景も様々である。また，さらに少数ながら単純性血管腫上に扁平上皮癌を発症した報告^{13)～16)}もある。主な発生母地や組織型の差違についての考察であるが，まず慢性放射線皮膚炎上に生じた皮膚悪性腫瘍に関しては従来有棘細胞癌（以下SCC）が大半を占める¹⁸⁾とされてきたが近年SCCの比率が低下し，BCCが増加傾向である¹⁹⁾という報告がなされている。その理由について詳細は述べられていないが，照射される線源の違いが発症する悪性腫瘍の組織型に何らかの関係がある¹⁹⁾とされている。また，ドライアイス療法に伴う皮膚障害を背景とする皮膚悪性腫瘍について

表1. 単純性血管腫上に生じた基底細胞癌 (報告例)

症例 報告者	報告年	年齢	性別	部位	治療歴(BCC発症部位に対する)
1 Scott	1948	38	M	腹部	なし
2 Rogers	1954	10	M	耳前部	トリウムX
3 Courtemanche	1961	16	M	眼瞼, 頬部	トリウムX, 雪状炭酸療法
4 Sarkany et al	1965	40	M	側頭部	なし
5 Honda et al	1966	74	M	眼瞼, 頬部	なし
6 本間ら	1970	41	M	頬部	ラジウム
7 酒井ら	1981	17	F	上嘴唇	ラジウム
8 大原ら	1982	20	F	頬部	雪状炭酸療法
9 Sagi et al	1984	44	M	頬部	境界線照射
10 若松ら	1984	34	F	上嘴唇	雪状炭酸療法, レーザー療法
11 堀ら	1985	37	F	側頭部	不明
12 水谷ら	1985	51	F	額部	放射線治療(線源不明)
13 高橋ら	1987	65	F	額部	なし
14 Magana-Garcia et al	1988	49	M	頬部, 下顎	なし
15 Duhra et al	1991	63	M	外眼角	なし
16 田中ら	1992	32	F	前胸部	³² P
17 松本ら	1997	59	M	耳前部	³² P
18 松本ら	1997	88	F	眉毛部	ラジウム
19 松本ら	1997	69	F	下眼瞼	なし

は、本邦では6例の報告があり全例BCCであった⁶⁾という。なお、ドライアイス療法終了後BCC発症までの潜伏期間は3～22年¹⁷⁾であった。

自験例では過去のドライアイス圧抵治療部位や治療回数についての詳細がはっきりとしないものの、視診上皮膚の萎縮や瘢痕化を認めず、組織学的にも腫瘍周囲の組織に変性所見を認めなかった。またBCCの発症年齢が60歳代と比較的高齢で一般的なBCCの好発年齢と同等であること、ならびにドライアイス療法終了後約50年と過去の報告¹⁷⁾と比較して長期にわたる潜伏期間があることから、本症例ではドライアイス圧抵療法によりBCC発症が誘発されたと考えるよりも、むしろ加齢に伴い偶然に血管腫上にBCCを併発したものととらえる方が適当であると考えている。

最後に、レーザー治療が汎用される現在の単純性血管腫の診療において、過去に長期間にわたり複雑な治療歴を有する症例も少なからず存在すると思われ、また頻度は低いながらも若年者、高齢者を問わず悪性腫瘍の合併例があることを踏まえ、画一的な診断・治療パターンに陥らないよう個々の症例ごと詳細な問診を確認す

ること、および腫瘍性病変を認めた場合組織学的確認を徹底することが必要であると考えられた。

文 献

- 1) Scott IM : Basal cell epithelioma on the site of an angioma. Br J Dermatol, 60 : 69-70, 1948
- 2) Rogers J : Rodent ulcer following thorium X therapy. Br J Dermatol, 66 : 31, 1954
- 3) Courtemanche AD : Thorium X-induced basal-cell carcinoma : a case report. Br J Plastic Surg, 14 : 254-257, 1961
- 4) Sarkany I, Caron GA : Basal-cell epithelioma on a portwine stain. Br J Dermatol, 77 : 16-19, 1977
- 5) 酒井和彦, 野元 茂, 田中隆光, 他 : 放射線皮膚癌の2例. 西日皮膚, 43 : 514, 1981
- 6) 大原国章, 尹 弘一, 関 利仁, 他 : 雪状炭酸圧抵治療を受けたPortwine stain上に生じた基底細胞上皮腫の1例. 臨皮, 36 : 77-79, 1982
- 7) 若松信吾, 佐々木健司, 野崎幹弘, 他 : 雪状炭酸圧抵療法およびアルゴンレーザー治療を受けた単純性血管腫上に発生した基底細胞癌の1例. 形成外科, 27 : 45-50, 1984
- 8) 高橋秀東, 星野 稔, 藤澤裕志, 他 : Portwine Stain Nevus上に生じた基底細胞腫. 皮膚臨床, 29 : 23-26, 1987
- 9) Magana-Garcia M, Magana-Lozano M : Multiple basal cell carcinomas arising in port-wine

- haemangiomas. Br J Dermatol, 119:393-396, 1988
- 10) Duhra P, Foulds IS : Basal-cell carcinoma complicating a port-wine stain. Clin Exp Dermatol, 16:63-65, 1991
- 11) 田中 智, 齋藤和哉, 山本美保, 他 : 32P アイソトープ外面照射療法による血管腫治療部位に発生した基底細胞上皮腫の1例. 臨皮, 46:947-950, 1992
- 12) 松本和也, 浦野芳夫, 榑 哲彦, 他 : 単純性血管腫上に生じた基底細胞癌. 形成外科, 40:873-878, 1997
- 13) 橋本裕之, 倉田莊太郎, 寺師浩人, 他 : ポートワインステイン上に発生した下口唇癌. 形成外科, 34:399-403, 1991
- 14) 田中 聡, 田嶋定夫, 上田晃一, 他 : 下口唇扁平上皮癌を発症した顔面血管腫の1例. 形成外科, 41:875-880, 1998
- 15) Fredrickson JM : Hemangioma and squamous cell carcinoma. Otolaryngol, 86:187, 1978
- 16) Mikhail GR : Squamous cell carcinoma in hemangioma of lip. J Dermatol Surg Oncol, 12:524-525, 1986
- 17) 山路和彦, 吉江治彦 : 雪状炭酸圧抵療法を受けた太田母斑上に生じた基底細胞上皮腫. 臨皮, 35:249-252, 1981
- 18) 岡崎美知治, 井上勝平, 緒方克己 : 本邦における放射線皮膚悪性腫瘍の統計. 西日皮膚, 44:824-831, 1982
- 19) 加瀬佳代子, 松岡芳隆, 漆畑 修, 他 : 慢性放射線皮膚炎上に生じた基底細胞上皮腫の1例. 皮膚臨床, 31:661-665, 1989