

頬部から顎下部に発生した静脈奇形の1例

川原 一郎¹ 高田 訓¹ 福元 梨沙¹
河西 敬子¹ 浜田 智弘¹ 金 秀樹¹
大野 敬¹ 遊佐 淳子² 伊東 博司²

A Case of Venous Malformation from the Cheek Region to the Submandibular Region

Ichiro KAWAHARA¹, Satoshi TAKADA¹, Risa FUKUMOTO¹
Keiko KASAI¹, Tomohiro HAMADA¹, Hideki KON¹
Takashi OHNO¹, Junko YUSA² and Hiroshi ITO²

We report a case of venous malformation from the cheek region to the submandibular region. A 66-year-old man was referred to our hospital because of swelling from the cheek region to the submandibular region.

A CT examination showed a mass with the size of 30×30mm. In T1-weighted MR images the mass showed low to middle signal intensity and in T2-weighted MR images it showed middle to high signal intensity. The mass was clinically diagnosed as a benign tumor. We performed tumor extirpation under general anesthesia.

The tumor was histopathologically diagnosed as venous malformation. The patient's postoperative course has been good with no evidence of recurrence.

Key words : venous malformation, vascular malformation, cheek region, submandibular region

緒 言

静脈奇形は血管平滑筋が単層化して異常伸展した静脈腔に血液が貯留した病態を呈し、低流量血管奇形として分類されている¹⁾。顎口腔領域において、口唇や舌に発生することが多いが²⁾、自験例のように頬部から顎下部にかけて発生することはまれである^{1,2)}。今回われわれは、頬部から顎下部に発生した静脈奇形の1例を経験したので報告する。

症 例

患 者：66歳，男性
初 診：2012年2月
主 訴：右側頬部から顎下部の腫脹
家族歴：特記事項なし
既往歴：高血圧症
現病歴：2011年11月頃より，右側頬部から顎下部の腫脹と疼痛を自覚し，近医内科受診するも原因不明と言われた。その後も症状改善せず，近医歯科にて相談したところ，当科での精査加療を

受付：平成25年8月27日，受理：平成25年12月9日
奥羽大学歯学部口腔外科学講座¹
奥羽大学歯学部口腔病態解析制御学講座口腔病理学分野²

Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Ohu University School of Dentistry¹
Division of Oral Pathology, Department of Oral Medical Sciences, Ohu University School of Dentistry²

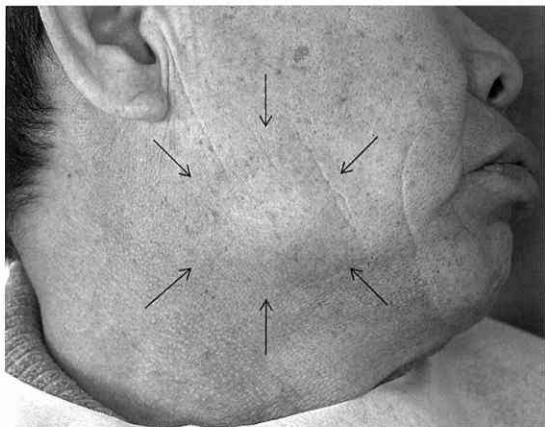


写真1 初診時顔貌写真

右側頬部から顎下部にかけて直径30mmの可動性のある弾性軟の腫瘤を認める。

勧められ紹介受診となった。

現 症：

全身所見；体格は中程度，栄養状態は良好であった。

口腔外所見；右側頬部から顎下部にかけて直径30mmの可動性のある弾性軟の腫瘤を認めた（写真1）。

口腔内所見；下顎右側臼歯部頬側歯肉の膨隆や炎症は認めなかった。また，口腔内から腫瘤は触知できなかった。

画像所見；パノラマX線写真では下顎骨に異常所見は認めなかった（写真2）。CT画像では，右側顎下部，下顎骨外側，咬筋部にかけて腫瘤を認め，病変は筋肉とほぼ同濃度であり，明らかな石灰化物は認めなかった（写真3A, B）。MR画像では，病変内部はT1強調像で低信号から中信号，T2強調像で高信号であった（写真4A, B）。また，造影T1強調像で病変内部は不均一な造影効果を呈した（写真4C）。

臨床診断：右側頬部および顎下部良性腫瘍

処置および経過：2012年3月，全身麻酔下にて腫瘍摘出術を施行した。顎下部より皮膚切開を行い，広頸筋直下に暗紫色の腫瘤を確認した（写真5A, B）。顎下腺や咬筋などの周囲組織より鈍的剥離を進め，一塊として摘出した（写真5C, D）。術後，一時的な顔面神経麻痺を認めたが，感染所見もなく経過良好であった。現在，術後1年半で

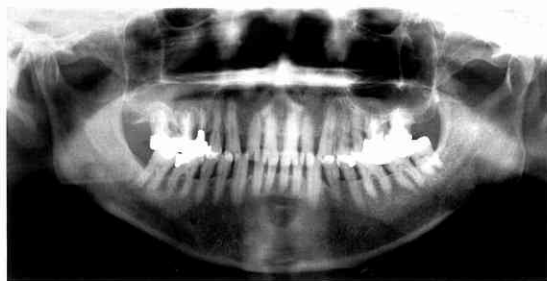


写真2 初診時パノラマX線写真

下顎骨に異常所見は認められない。

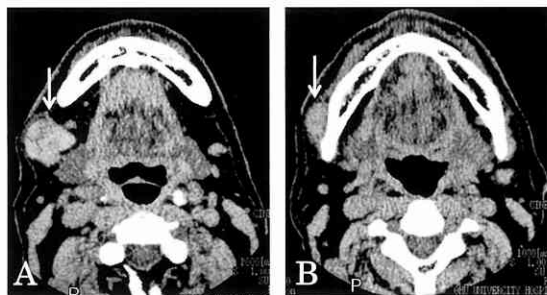


写真3 CT画像

右側顎下部，下顎骨外側，咬筋部にかけて腫瘤を認め，病変は筋肉と同濃度であり，石灰化物は認められない。

あるが再発の所見は認めていない。

病理組織学的所見：嚢胞状の拡張した静脈腔をもつ血管を認め，静脈奇形の像を呈していた（写真6）。

病理組織学的診断：静脈奇形

考 察

血管・リンパ管系腫瘍のうち血管成分が主体となるものについて，慣例的に血管腫の名称が用いられてきたが，その定義や分類については様々な議論があった。しかし，現在ではISSVA分類に従い，血管内皮細胞の異常増殖と自然退縮を認める血管腫と，血管構造の異常と自然退縮を認めない血管奇形に分類されている³⁾。さらに，血管奇形は血行動態により毛細血管奇形，静脈奇形，リンパ管奇形などの低流量血管奇形と，動静脈奇形などの高流量血管奇形に分類される^{4,5)}。低流量血管奇形である静脈奇形は，血管平滑筋が単層化して異常伸展した静脈腔に血液が貯留した病態を呈しており，従来は海綿状血管腫と呼ばれていた。

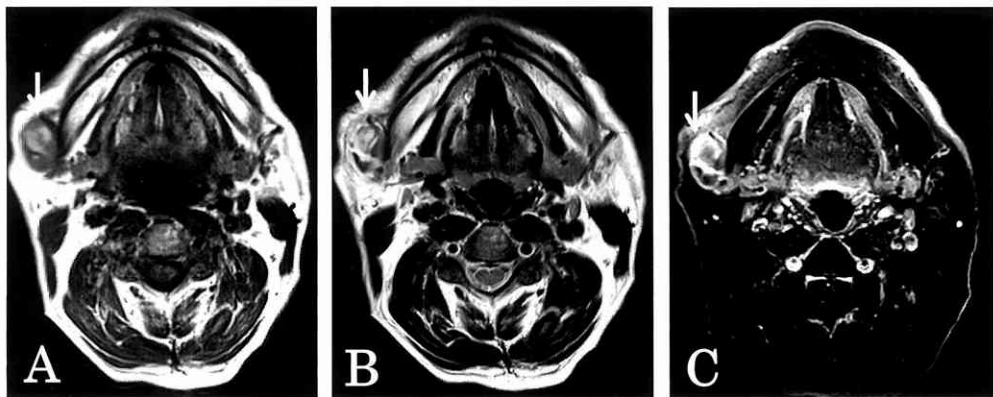


写真4 MR画像(A：T1強調像 B：T2強調像 C：造影T1強調像)

病変内部はT1強調像で低信号から中信号，T2強調像で高信号であり，造影T1強調像では不均一な造影効果を呈する。

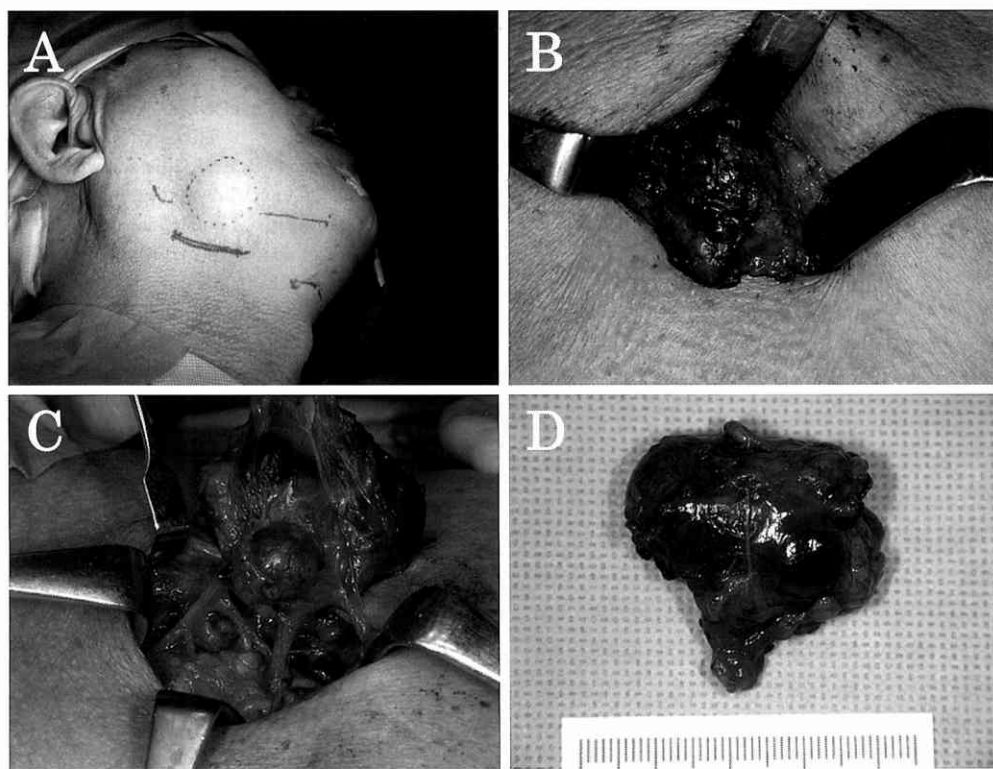


写真5 術中写真

A：顎下部より皮膚切開を行う。

B：広頸筋直下に暗紫色の腫瘍を認める。

C：周囲組織より鈍的剥離を進める。

D：一塊として摘出する。

一般的に顎口腔領域では口唇や舌に発生することが多い¹⁾。藤宮ら²⁾の血管腫78例の臨床統計によると，発生部位では舌（25例），頬粘膜（24例），

口唇（19例）が多く，顎下部は1例のみであり，自験例のように，頬部から顎下部にかけて発生することはまれである。

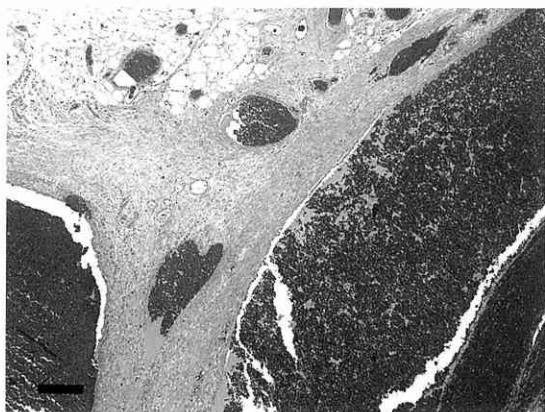


写真6 病理組織像 (H-E染色 スケールバー100 μ m)
 嚢胞状の拡張した静脈腔をもつ血管を認める。

血管奇形の診断において、CT 検査、MRI 検査、カラードップラー検査、血管造影検査などが用いられる¹⁾。特に、病変部の血行動態を評価することが重要であり、flow void の原理より、MR 画像にて動静脈奇形などの高流量血管奇形では無信号から低信号、静脈奇形などの低流量血管奇形では高信号を呈する。また、臨床症状は一般的に無痛性で発育緩徐であるが、咬筋に発生した血管奇形では咀嚼時の疼痛を認めることがある。腫瘍の流入血管が圧迫され、腫瘍が一過性に増大して周囲組織を圧排することで疼痛が生じると考えられている^{6,7)}。また、顎下部や頸部に発生した血管奇形においても、顎部の屈曲や舌骨上筋群の伸縮によって、咬筋部のものと同様に一過性に増大することがある⁸⁾。本症例では、臨床診断で血管奇形と判断できず、切除生検を兼ねた腫瘍摘出時に暗紫色の腫瘍を確認して血管奇形を疑い、病理組織像にて静脈奇形の診断を得た。しかし、MR 画像と一過性の腫脹や疼痛を認めた現病歴から、血管奇形を疑うこともできたのではないかと考える。

血管奇形の治療法については、外科的切除、レーザーを用いた凝固療法、オレイン酸モノエタノールアミンを用いた硬化療法、塞栓術などがある¹⁾。最近では低侵襲である凝固療法や硬化療法が行われることもあるが、顎口腔領域では外科的切除が選択されることが多い。本症例では、病変が限局的であったことや、硬化療法は低侵襲であるが治療が複数回になること、再発の可能性が低くない

こと、皮膚壊死や末梢神経麻痺の合併症があることより、外科的切除を選択した。術後は感染所見もなく経過良好であったが、再発の報告もあり経過観察が必要である。

結 語

今回われわれは、頬部から顎下部に発生した静脈奇形の1例を経験したので、その概要について若干の文献的考察を加えて報告した。

文 献

- 1) 林堂安貴, 岡本哲治: 3 血管・リンパ管系腫瘍および腫瘍類似病変. 口腔外科学 (白砂兼光, 古郷幹彦編) 第3版; 232-239 医歯薬出版 東京 2010.
- 2) 藤宮克則, 向井 洋, 杉原一正, 国芳秀晴, 内山秀樹, 山下佐英: 当科における過去13年間の血管腫の臨床統計的観察. 日口外誌 41; 327-329 1995.
- 3) Mulliken, J. B. and Glowacki, J.: Hemangiomas and vascular malformations in infants and children: a classification based on endothelial characteristics. Plast. Reconstr. Surg. 69; 412-422 1982.
- 4) Kaban, L. B. and Mulliken, J. B.: Vascular anomalies of the maxillofacial region. J. Oral Maxillofac. Surg. 44; 203-213 1986.
- 5) Jackson, I. T., Carreño, R., Potparic, Z. and Hussain, K.: Hemangiomas, vascular malformations, and lymphovenous malformations: classification and methods of treatment. Plast. Reconstr. Surg. 91; 1216-1230 1993.
- 6) 米本和弘, 牧田浩樹, 玉置也剛, 加藤恵三, 畠山大二郎, 柴田敏之: 咬筋内から顎下部に陥頓した血管奇形の1例. 日口診誌 25; 22-24 2012.
- 7) Martin, R. J., Carter, J. B., Halpern, L. R. and Schimmele, S. R.: Intermittent facial swelling. J. Oral Maxillofac. Surg. 59; 196-199 2001.
- 8) 鈴木 明, 神谷祐二, 大谷端夫: 嚥下時にいわゆる勃起症状を呈した顎下部血管腫の1例; 勃起発生機序についての考察. 日口診誌 5; 185-189 1992.

著者への連絡先: 川原一郎, (〒963-8611) 郡山市富田町字三角堂31-1 奥羽大学歯学部口腔外科学講座

Reprint requests: Ichiro KAWAHARA, Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Ohu University School of Dentistry

31-1 Misumido, Tomita, Koriyama, 963-8611, Japan