－臨床－

睡眠呼吸障害の原因であった舌口底部動静脈奇形の１例

高田佳之，小林正治，泉　直也，船山昭典，長谷部大地，齊藤　力

新潟大学大学院医歯学総合研究科顎顔面再建学講座組織再建口腔外科学分野
（主任：齊藤　力教授）

Arteriovenous malformation of the floor of the mouth　and tongue caused sleep-disordered breathing: A case report

Yoshiyuki Takata, Tadaharu Kobayashi, Naoya Izumi, Akinori Funayama, Daichi Hasebe and Chikara Saito

Division of Reconstructive Surgery for Oral and Maxillofacial Region, Department of Tissue Regeneration and Reconstruction, Niigata University Graduate School of Medical and Dental Sciences
(Chief: prof Chikara Saito)

平成 23 年 10 月 6 日受付　　平成 23 年 10 月 27 日受理

Abstract: Arteriovenous malformations (AVMs) are structural vascular abnormalities and fast-flow lesions with persistent connections between artery and vein, bypassing the capillary bed. Most AVMs in the oral and maxillofacial region are occurred in the cheek or the ear, and the developments of the floor of the mouth and/or tongue are extremely rare. We report a case of AVM in the oral floor and tongue with severe snoring.

A 15-year-old girl was referred to our hospital by an otolaryngologist for the treatment of snoring. No abnormalities were found by physical examination, but revealed vascular malformation of the oral floor and tongue by ultrasonography and was diagnosed as AVM by MRI and angiographic images. The patient was followed carefully without teatment since she had no symptoms except for a snoring. Therefore, we considered cure by embolization alone to be difficult and complete resection to be too invasive. For the past 6 years, MRI performed annually has shown no apparent enlargement of the lesion and polysomnography tests have shown no obvious changes in sleep-disodered breathing. The patient should be followed up for a long periods carefully.

Key words: arteriovenous malformation, snoring, sleep-disodered breathing, oral cavity

抄録：動静脈奇形は毛細血管床をバイパスして，細動脈から細静脈へ血液が短絡する血管の奇形で，fast-flow 病変である。動静脈奇形の頭頸部領域での好発部位は頬部と耳部であり，舌口底部の病変は比較的まれで，わずかな報告しかない。

今回われわれは，無症状で，いびきを主訴に来院し，舌口底部動静脈奇形と診断が確定した１例を経験したのでその概要を報告する。

患者は 15 歳，女性で５歳時より過度のいびきがあるため近医耳鼻咽喉科を受診，紹介により新潟大学医歯学総合病院いびき外来を初診した。口腔内外に特に異常所見は認めなかったが，口底部の病変が疑われたため超音波検査を施行したところ，病変の存在が判明し，MRI 検査と血管造影所見より動静脈奇形との診断を得た。いびき以外は無症状であり，塞栓療法は根治性が乏しく，外科療法は侵襲が大きいことから経過観察を行うこととした。

定期的に MRI 検査による評価を行っているが，病変の大きさに著変なく６年経過している。簡易ポリソムノグラフ検査からも睡眠呼吸障害の重症化は認めなかった。今後も病変の増大に伴う悪化も考えられるため，注意深い経過観察が必要と考えている。

キーワード：動静脈奇形，いびき，睡眠呼吸障害，口底

【緒　　言】

動静脈奇形は1982年にMullikenとGlowackiにより，毛細血管床をバイパスして細動脈から細静脈へ血液が短絡する高流速血管奇形（fast-flow vascular malformation）と定義された[1)]。血管腫と異なり成熟した内皮細胞で構成されており，退縮することはなく成長とともに増大する傾向があることから早期の積極的な治療が推奨されている[1, 2)]。動静脈奇形が舌口底部に発生することは稀であり，大きな病変では治療に伴い，口腔機能の著しい低下と審美的な障害が生じる可能性があることなどから，治療法の選択に苦慮することが多い。

今回われわれは，いびきを主訴に来院し諸検査を行ったところ，舌口底部の動静脈奇形が原因であった１例を経験したのでその概要を報告する。

【症　　例】

患　者：15歳，女子
初　診：2004年４月
主　訴：いびき
家族歴：特記事項なし
既往歴：在胎29週で出生（生下時体重：1,352g）
現病歴：５歳ごろからいびきがあったが放置していた。最近になり，いびきが強くなってきたため，近医耳鼻咽喉科を受診した。咽喉頭ならびに鼻に異常を認めなかったため，精査，加療目的で紹介により新潟大学医歯学総合病院いびき外来を初診した。
現　症：
全身所見：身長161cm，体重51.6kg
顔貌所見：顔貌は左右対称でオトガイ下部に腫脹や紅斑などは認めず，嚥下，および発音障害もなかった。
口腔内所見：左側の舌背部に軽度の膨隆を認めた（図1A）が，舌や口底部粘膜は正常色で口底部を触診するも硬結や振戦はなく(図1B)，扁桃腺肥大もみられなかった。
画像検査：側面頭部X線規格写真では，咽頭気道径は広く，骨格的な異常は認めなかった（図２）。舌口底部の超音波検査では，舌体は大小の複雑な管状構造により占められていた。MRI検査ではT2強調画像において舌表面直下から口底前方部ならびに両側舌下隙にかけて高信号の造影初期から強く造影される不均一な病変を認めた。病変内部には右側顎下隙内側，左側顎下隙内外側から径３mmから５mm大の太い血管が流入しており，舌内部で樹枝状に枝分かれし，血管の蛇行像を認めた（図3A，B）。
睡眠呼吸障害検査：終夜パルスオキシメトリー検査で

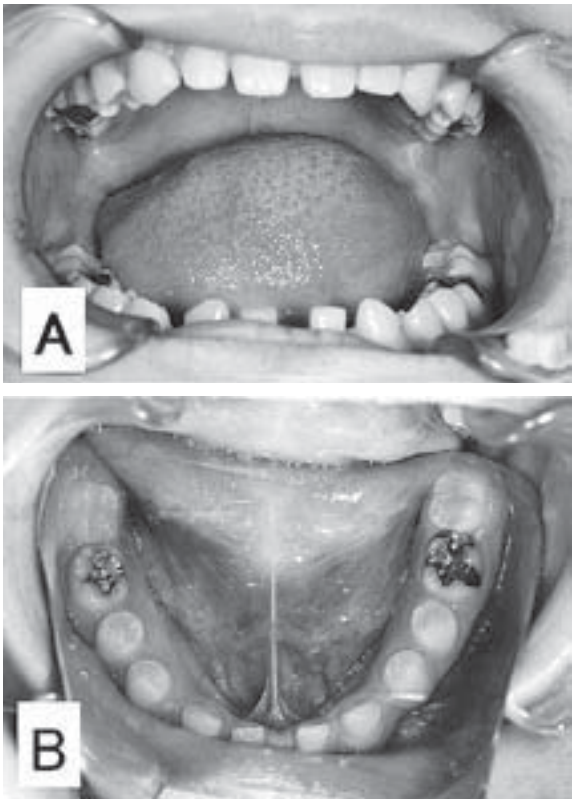


図１：初診時口腔内写真
A：舌粘膜に異常はなく，わずかに左側舌背部に腫脹を認めた。
B：口底粘膜に異常は認めなかった。



図２：初診時側面頭部X線規格写真
舌根，咽頭部に狭窄は認めなかった。

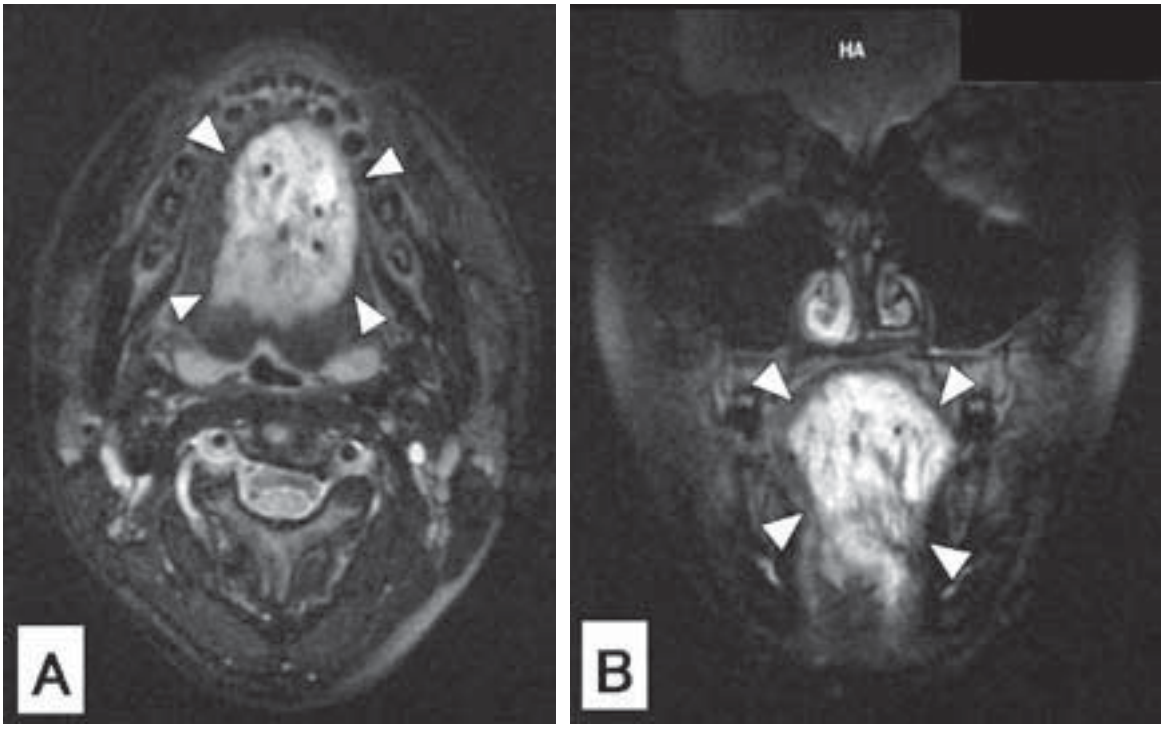


図３：初診時 MR 画像（T2 強調画像）
Ａ：冠状断
Ｂ：前額断
１層の舌表面を除く舌全体から口底前方部，両側舌下隙にかけて病変が存在し，同部へは太い血管が進入し，樹枝状に枝分かれしていた。

は，４% ODI（４% oxygen desaturation index）が 0.6 回／時，最低血中酸素飽和度が 92%，CT90（cumulative percentage time at SpO2 below 90% during the measurement period）が０%であり，血中酸素飽和度の変化はわずかで，睡眠呼吸障害は軽度であった。

診　断：舌口底部動静脈奇形

経　過：本院脳神経外科を対診し，血管造影検査を施行したところ，両側の舌動脈を流入血管とする動静脈奇形の診断を得た（図 4A-D）。脳神経外科担当医と治療法を検討した結果，現在無症候性であり，塞栓療法では根治は望めず，外科療法は舌口底部の全摘出と組織再建が必要で，機能ならびに審美障害が大きいことから経過観察の方針となった。増大傾向が認められた場合に再度治療法を検討することとし，外来での経過観察とした。その後，年１回の MRI 検査を施行しているが，現在まで病変の大きさ，構造，形態，および周囲組織との関係について画像診断上で特に変化を認めていない。

2009 年９月の簡易ポリソムノグラフ検査（パルスリープ LS-120：FUKUDA DENSHI）結果では，無呼吸・低呼吸指数（AHI: １時間当たりの無呼吸＋低呼吸回数）が 1.1，４% ODI が 0.9 回／時と睡眠呼吸障害の増悪を認めていない。いびきについては睡眠時の姿勢を側臥位にすることで対応している。

【考　　察】

頭頸部領域における動静脈奇形の発生頻度について詳細な報告はみられないが，頭蓋内に発症する頻度に比べはるかに低い。頭蓋外の頭頸部領域の好発部位は頬部と耳部であり[4]，舌口底部の病変は稀で，われわれが渉猟し得た報告は表１に記載したもののみであった[3－11]。

発症時期は出生時にみられたものが 59%で，小児期が 10%，思春期が 10%，成人では 21%との報告[5]があるが，先天的に存在していた無症候性の深部病変が増大し，成人してから発見される例も珍しくない。本症例も 15 歳までその存在が認識されておらず，現在もいびき以外は無症候性であることから，当外来を受診しなければ診断に至っていない可能性があった。

本症例は側面頭部 X 線規格写真で咽頭気道部に狭窄は認めず，パルスオキシメトリー検査結果でも無呼吸は否定的であった。肥満の無い若年者の女性の場合，いびきなど睡眠呼吸障害は鼻閉や扁桃腺肥大に起因することが一般的で，それら所見が欠落している場合，口底部の病変を疑う必要性があると考えられる。

舌口底部の動静脈奇形の病態の特徴は病変からの出血，疼痛，充満感，嚥下障害，構音障害（麻痺性），お

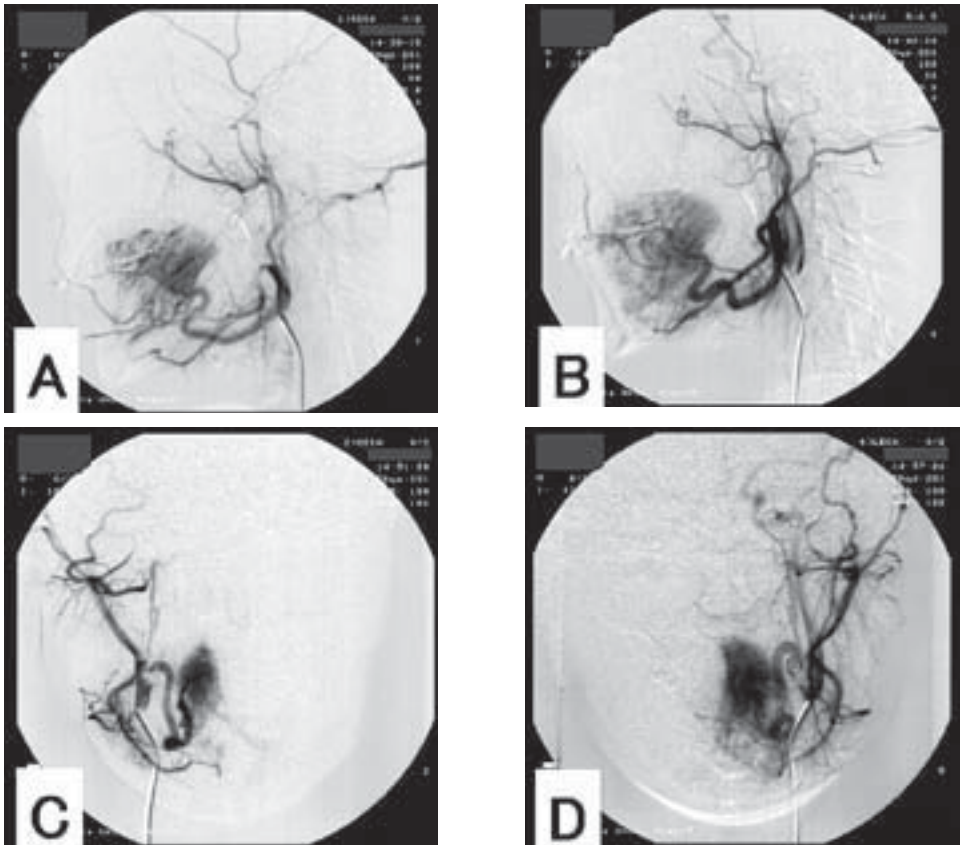


図４：頭部血管造影画像
A：側面像（右側舌動脈より造影）
B：側面像（左側舌動脈より造影）
C：正面像（右側舌動脈より造影）
D：正面像（左側舌動脈より造影）

表１　舌・口底部の動静脈奇形の報告例

報告者	性比	年齢	主訴				治療					
（報告年）	（M/F）	（平均）	出血	病変の増大	疼痛	上気道閉塞	塞栓術	塞栓術＋手術	手術単独	その他	経過観察	不明
Righi ら（1996）[11]	0/1	34	1					1				
Slaba ら（1998）[8]	8/4	19.3	4	4	4		10	2			(13)*	
Khong ら（2003）[4]	2/2	16	4					4				
Chimona ら（2005）[6]	0/1	52			1			1				
Cappabianca ら（2006）[3]	3/0	30.7	3									3
Richter ら（2007）[9]	1/10	12.4	3	6		2		5	6			
Honda ら（2007）[10]	1/0	52		1				1				
Saito ら（2009）[5]	1/0	56		1						1		
Martines ら（2009）[7]	0/1	32	1				1					
Gharaibeh ら（2010）[12]	1/0	11		1					1			
total	16/19		16	12	5	2	11	14	7		13	3

＊：内容は詳細に記載なし。

よび閉塞型睡眠呼吸障害など，医療機関を受診した理由は出血（35 名中 16 名：45.7%）と病変の急速な増大（35 名中 12 名：34.3%）であり，これらが 80% を占めていた（表１）。

舌口底部の動静脈奇形の診断は病歴，および画像検査によって行われることが多く，MRI 検査と血管造影画像検査により診断を行っている報告が多い[2, 5, 7, 8, 11]。MRI 検査での動静脈奇形の所見は，T1，T2 強調画像で蛇行血管像が典型的であり，T2 画像で病変部が高信号化されることが知られている[3]。血管造影検査からは病変の流量，流入血管，および排出血管などを確認することができ，病巣の中核である血管塊や動静脈のシャント像より

他の血管系の病変と鑑別することが可能である[8－11]。

口腔領域の動静脈奇形の治療は，治療時の大量出血の危険性や治療後の組織欠損に伴う口腔機能障害，審美障害や，血管の側副路形成に伴う再発の危険性などから難渋することが多く，いまだ明確なコンセンサスが得られていない[9]。現在は，超選択的カテーテル術によって流入血管を塞栓し，24 ～ 48 時間以内に切除する方法が多く行われている[4, 6, 8－12]。塞栓術は Polyvinil alcohol や金属コイル，および N-butyl-2-cyanoacrylate glue（NBCA）が用いられることが多く，塞栓術を単独で行うこと[7, 8]もあるが，病変の制御が難しく外科療法が不可欠と考える報告もみられる[4]。その他に，巨大化した再発症例へのサイバーナイフによる治療報告[5]もある。本症例のように無症候性の舌口底部動静脈奇形の治療を行うべきかについては意見が分かれている。本疾患は自然退縮することは無く，徐々に増大することから，診断がついた時点で積極的に治療を行うことを推奨するもの[2, 6]と無症候性の場合は，治療が２次的に病変の増大進展を引き起こす可能性があることや，著しい機能や審美障害を引き起こすことから，外科的治療は避けるべきとの意見がある[7, 8, 10]。本症例について本院脳神経外科医と対診したところ，動静脈奇形の流入血管は両側の舌動脈で排出血管が左側の内頸静脈であり塞栓術は可能ではあるが，単独での根治は難しく，塞栓術後の外科的切除が必要とのことであった。外科的切除により口腔機能ならびに審美障害の発現が考えられ，現在は無症候であること，および 15 歳の女子であることを考慮して経過観察中である。

動静脈奇形が急速に増大する因子として，思春期や妊娠時のホルモンの変化，外傷，感染などが報告されている[6－12]。本症例は思春期は経過したが，今後妊娠などを契機として病変の増大が危惧される。舌口底の粘膜に病変が存在せず，口腔内外の所見のみでは病変の大きさの変化を評価することは難しいことから，定期的な画像診断が必要と考えている。MRI 検査（T2 強調画像）は病変の範囲の描出性が高く有用と考えられることから[3, 4]，画像検査は１年毎としている。病変の増大に伴う機能障害として嚥下障害，構音障害，および睡眠呼吸障害などの増悪が報告されており，これら評価が病変の増大の指標になりうると思われる。本症例はいびきを主訴に来院していることから，パルスオキシメータや簡易ポリソムノグラフ検査が有用であると考える。

口腔領域の動静脈奇形は顎骨内に発生する頻度が高く，齲蝕や歯周病などに関連する出血や，外傷による病変の増大を引き起こすことが考えられ，治療の必要性に迫られることが多い[12, 13, 14, 15]。本症例は比較的深部にあり，また顎骨への進展もみられないことから，出血はおこしにくいものと考えられるが，舌口底部に外傷を受けないように注意を促しており，歯科治療を受ける際には必ず申告するよう指導している。

【結　　語】

今回，我々は，いびきを契機に発見された舌口底部の動静脈奇形の１例を経験した。

いびきなどの睡眠呼吸障害が，口底部病変の初発症状になりうることが示された。無症候性であったため経過観察とし，約７年が経過したが，病変の急激な増大の可能性が否定できないことから，今後も注意深い経過観察が必要である。

【引 用 文 献】

1）Mulliken JB and Glowacki J: Hemangiomas and vascular malformations in infants and children: a classification based on endothelial characteristics. Plast Reconstr Surg, 69: 412-422, 1982.

2）Van Aalst JA, Bhuller A and Sadove AM: Pediatric vascular lesions. J Craniofac Surg, 14: 566-583, 2003.

3）Cappabianca S, Del Vecchio W, Giudice A and Collela G : Vascular malformations of the tongue: MRI findings on three cases. Dentomaxillofac Radiol, 35: 205-208, 2006.

4）Khong PL, Burrows PE, Kozakewich HP and Mulliken JB: Fast-flow lingual vascular anomalies in the young patient: is imaging diagnostic? Pediatr Radiol, 33: 118-122, 2003.

5）Saito K, Imate Y, Fukuda T, Kajiwara K, Ishihara H, Suzuki M and Sato K: Successful Stereotactic Radiosurgery with the CyberKnife of a Giant Arteriovenous Malformation of the Tongue: A Case Report. Stereotact Funct Neurosurg, 87: 182-190, 2009.

6）Chimona TS, Papadakis CE, Hatzidakis AA and Velegrakis GA: Arteriovenous malformation of the floor of the mouth: a case report. Eur Arch Otorhinolaryngol, 262: 939-942, 2005.

7）Martines F and Immordino V: Arteriovenous malformation of the base of tongue in pregnancy: case report. Acta Otorhinolaryngol Ital, 29: 274-278, 2009.

8）Slaba S, Herbreteau D, Jhaveri HS, Casasco A, Aymard A, Houdart E, Aoun N and Riche MC: Therapeutic approach to arteriovenous malformations of the tongue. Eur Radiol, 8:280-

285, 1998.
9）Richter GT, Suen J, North PE, James CA, Waner M and Buckmiller LM: Arteriovenous malformations of the tongue: a spectrum of disease. Laryngoscope, 117: 328-335, 2007.
10）Honda K, Tanaka S, Nakazawa K and Ohta T: Surgical treatment of a rare sublingual intramuscular arteriovenous malformation. J Craniofac Surg, 18: 1496-1499, 2007.
11）Righi PD, Bade MA, Coleman JJ and Allen M: Arteriovenous malformation of the base of tongue: case report and literature review. Microsurgery, 17: 706-709, 1996.
12）Kohout MP, Hansen M, Pribaz JJ and Mulliken JB: Arteriovenous Malformations of the Head and Neck: Natural History and Management. Plast Reconstr Surg, 102:643-54,1998.
13）Sakkas N, Schramm A, Metzger MC, Berlis A, Schmelzeisen R, Otten JE and Hohlweg-Majert B: Arteriovenous malformation of the mandible: a life-threatening situation. Ann Hematol, 86:409-413, 2007.
14）Seehra J, Horner K and Coulthard P: Arteriovenous malformation of the mandible -A case report. Br Dent J, 201: 25-27, 2006.
15）小鹿典雄，杉崎正志，齊藤 力，木村利男，井上 孝，広瀬 勇：下顎骨内側に発生した巨大な動静脈瘻の1例．日口外誌 26：195－201, 1980