

臨床病理検討会レポート

日時：1991年7月25日

新潟大学歯学部口腔病理学教室

福島 祥 紘 鈴木 誠

新潟大学歯学部歯科放射線学教室

岡 本 浩一郎

新潟大学歯学部第一口腔外科学教室

浜 本 尚 希

新潟大学歯学部第二口腔外科学教室

坂 井 広 也

症 例 提 示

●症例1

患 者：14才 男性

主 訴：オトガイ部の腫脹

家族歴および既往歴：特記事項なし

現病歴：小児期よりオトガイ部の皮膚に赤味があり、13歳頃には腫脹も自覚した。腫脹は徐々に増大し続けたが、疼痛等の症状はなかった。開業歯科医を受診し、抗生剤を投与されたが、症状に変化なく、同医より紹介され、1990年10月22日第一口腔外科受診。

初診時現症：体格、栄養状態ともに良好で、全身的な異常は認めなかった。顔貌所見としては、オトガイ部を中心に鶏卵大のやや境界不明瞭な腫脹があり、同部皮膚は全体に暗紫色を呈し、その中に点状の発赤が数カ所認められた。触診では腫瘍は弾性軟、熱感があり、動脈性の拍動を触知した。皮膚および下顎骨との可動性はなく、聴診にてコマ音を聴取した。口腔内所見では、 $\overline{3-3}$ の口腔前庭部に口腔外の腫瘍と連続した赤紫色の腫脹を認め、触診では弾性軟で、拍動を触れた。下顎前歯部歯牙にカリエスなく、異常所見はなかった。CT、エコー、angiographyで検索後、臨床診断は動静脈奇形（arteriovenous malformation, AVM）とした。

処置および経過：術中出血の軽減を目的として手術2日前に embolization（塞栓術）を施行した。その直後よりコマ音の消失、拍動の減弱を認め、腫瘍の大きさも縮小した。2日後、全麻下に切除術施行。腫瘍の全周を梱包後、腫瘍を覆うオトガイ部の皮膚の一部を腫瘍につけて切除し、深部は下顎骨表面より剥離し、腫瘍を一塊として切除摘出した。周囲との境界はやや不明瞭であり、術中明らかな feeder は確認できなかったが、腫瘍と連絡

する小血管内には時折塞栓物や血餅を認めた。出血は少量であった。術後、腫瘍より剥離した部分の皮膚の一部に壊死を生じたが、二次治癒し、現在まで再発および肺梗塞等の合併症もみられず、経過良好である。（浜本）

●症例2

患 者：9才 女性

主 訴：下顎前歯部からの出血

既往歴：1987年6月、交通事故（自転車で走行中、自動車と正面衝突）。その際、口腔内からの出血はなく、顔面、腕、脚に外傷を負い、某病院に約1週間入院。

現病歴：1990年7月初め頃よりブラッシング時に下顎前歯部歯肉から出血がみられるようになったため、某歯科に相談したところ、X線で異常像を指摘され、同医の紹介で1990年7月11日第二口腔外科初診。

初診時現症：全身栄養状態良好（身長120cm、体重25kg）。口腔外所見では、側貌で下口唇部の突出感あり。口腔内では $\overline{2-1}$ 歯頸部の約2mm下から歯肉頬移行部に至る横12mm縦11mmのびまん性の腫脹を認め、同部は暗紫色を呈する。圧痛があり、骨よりやや柔らかい。 $\overline{2-1}$ 舌側に肉芽様組織の増殖を認める。 $\overline{2-1}$ 近心傾斜、 $\overline{1}$ 遠心傾斜あり。 $\overline{C-C}$ に打診痛を認めず。 $\overline{2-C}$ に動揺（M₂）あり、 $\overline{1-2}$ は失活歯であった。

臨床診断：下顎前歯部中心性血管腫

治療及び経過：1990年7月13日、歯源性腫瘍の可能性を考え、生検、下顎前歯部唇側に粘膜骨膜弁を起こしたところ、一部骨欠損があり、表面暗紫色の軟組織を認め、臨床的に血管腫が疑われたため、生検中止。7月24日、CT撮影。11月7日、脳外科入院下、angiographyおよび embolization 施行。超選択的カテーテルにより右側舌動脈（主輸入動脈）、左側舌動脈、右側顔面動脈、右側下歯槽動脈より塞栓を図る。これにより tumor stain は消失。3月28日、第二口腔外科にて手術（下顎骨部分切除術）。以後再発なく、経過良好で、外来にて経過観察中である。（坂井）

画 像 所 見

●症例1

1) 超音波検査（1990年10月26日、1990年12月5日）

オトガイ下部に25（前後）×17（上下）×30（左右）

mm の大きさを示す境界の比較的明瞭な high echoic な軟組織病変を認める。この病変内には動脈ほどではないが、拍動を有する数ミリメートル径の血管腔が認められ、互いに連絡している。病変の後部からは後方に向かう血管が皮下を走行して前頸静脈に流入しているのが認められる。

2) X線CT (軸位像)

①Pre-embolization X線CT (1990年11月9日)

下方に突出するような下顎正中部の腫脹に一致して、病変が下顎骨正中下縁からオトガイ部皮下組織内に軟部影として認められる。この軟部影は筋と同程度の濃度を示し、辺縁には小結節状影が多数認められるが、石灰化はみられない (図1A)。この軟部影は造影後のCTでは全体に筋よりやや強く造影され、病変後部から後方へ向かう血管影と考えられる索状影も認められた。3 相当部には広頸筋の内外に進展する軟部影が認められた。骨条件の表示では、下顎正中部の軟部影に接する部分の下顎骨には変化を認めないが、3-1 まで cortical rim に囲まれた境界明瞭な溶骨性変化が認められ、3 相当の頬側骨皮質が消失していた。

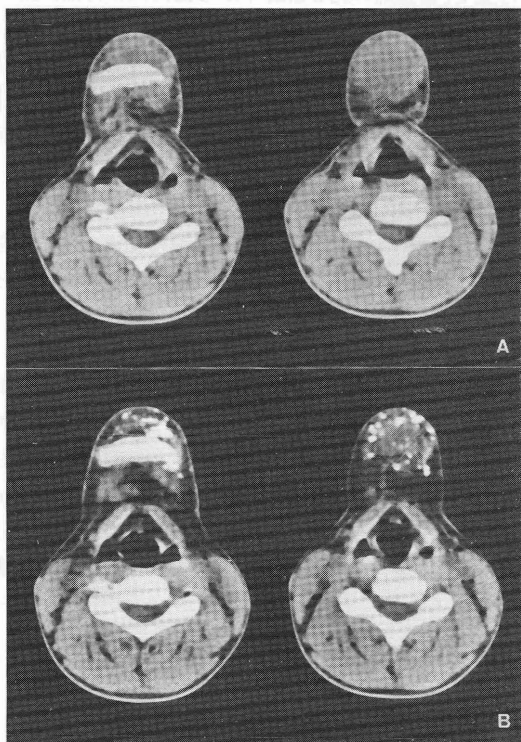


図1 症例1。X線CT像。A: pre-embolization CT、B: post-embolization CT。

②Post-embolization X線CT (1990年12月20日)

下顎正中部に認められる軟部影に、栓子による点状高濃度影が多数認められるようになっており (図1B、図1Aと同じレベル)。この病変部以外にも左鼻翼、上唇部、左咬筋部、左顎下部などにも僅かながら同様の点状影が認められる。

3) 血管造影 (1990年12月10日)

①両側外頸動脈造影: 腫脹したオトガイ下部には両側の顔面動脈 (とくにオトガイ下動脈) から異常に拡張、蛇行した血管が集合するようになっており、濃染像も認められる。動脈相後期には前頸静脈に向かう流出静脈が病変後部から描出される (図2)。しかし、静脈相にはこれらの異常血管影や濃染像は消失してしまう。他の外頸動脈の分枝である動脈からの関与は認められなかった。

②両側鎖骨下動脈造影: 頸部に分布する血管からのオトガイ下部病変への関与は認められなかった。

4) Embolization (1990年12月19日)

両側のオトガイ下動脈に超選択的にカテーテル (Tracher®18) を挿入し、4-0 絹糸を約1cmに切ったものを左右それぞれ16、18本ずつと、polyvinyl alcohol (PVA) particles (Ivalon®, 53-149 μ m) を塞栓物質として embolization を行った。embolization 後に引き続き血管造影を行い、オトガイ下部の異常血管影などは描出されなくなったことを確認した。

5) 放射線学的診断: 血管腫 (動静脈奇形の成分を有す

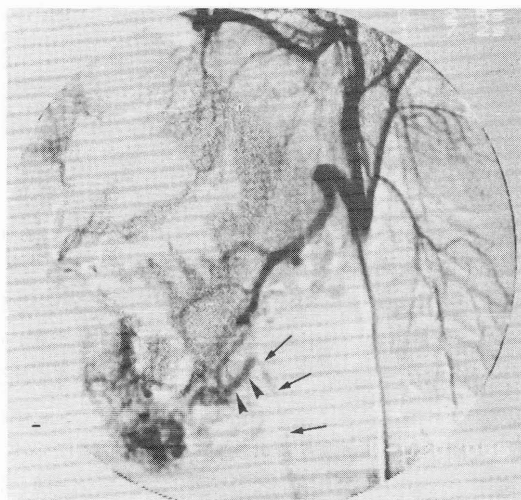


図2 症例1。血管造影像。動脈相後期。病変からの流出静脈(▲印)が前頸静脈(←印)に流入している。

る毛細血管腫)

●症例 2

1) X線写真 (1990年7月11日): Orthopantomography、
口内法デンタル写真および咬合法

2 I の歯根間開離が認められ、同部には皮質骨の消失を伴う蜂巢状の溶骨性変化がみられる。病変の境界は必ずしも明瞭ではなく、病変に接する歯の歯槽硬線の消失や歯根膜腔の拡大を認める。しかし、歯根や埋伏歯に吸収性変化は認められない (図3)。

2) X線CT、軸位像 (1990年7月24日)

X線写真で指摘された病変は、X線CTでは下顎骨の腫脹を伴う溶骨性変化として捉えられ、とくに頬側への膨隆、皮質骨の不整な菲薄化や皮質骨の一部欠損などが明瞭に描出されている (図4)。

3) 全身麻酔下での血管造影ならびに embolization
(1990年11月7日)

①血管造影所見 (両側外頸動脈造影および舌動脈造影、右顔面動脈および右下歯槽動脈造影): 病変に関与する血管として舌動脈の分枝である内側下顎枝 (両側)、右顔面動脈の分枝である右オトガイ下動脈、それに右下歯槽動脈が認められた。これらのうち、両側内側下顎枝が主に下顎骨内の病変部に分布しており、骨の蜂巢状所見に一致するように斑状濃染像が出現し、静脈相まで残存していた (図5)。

②Embolization: 病変部に関与する個々の血管に超選

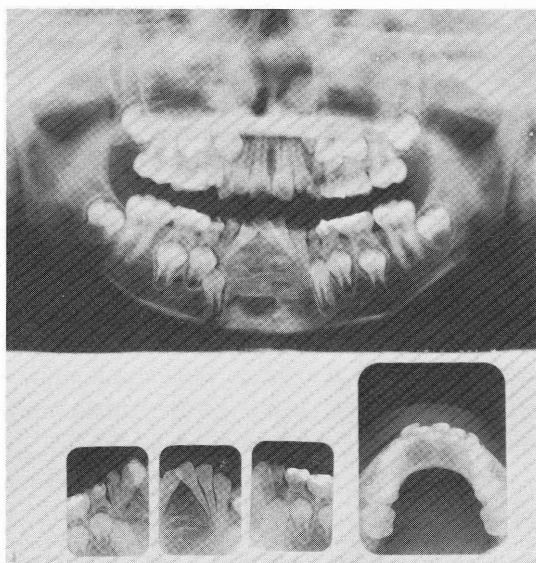


図3 症例2。単純X線写真。



図4 症例2。単純X線CT軸位像。

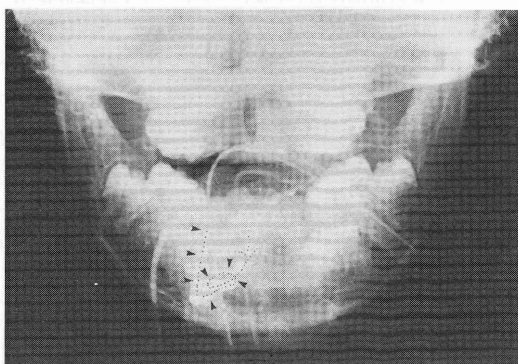


図5 症例2。右舌動脈造影、正面像。内側下顎枝: ▲印と点線。

択的にカテーテル (Tracher®18) を挿入し、PVA particles (Ivalon®, 53-149 μ m) を塞栓物質として embolization を行い、濃染像が出現しなくなったことを確認した。

4) 放射線学的診断: 顎骨中心性血管腫 (岡本)

病 理 所 見

●症例1 (図6)

摘出物の断面は肉眼的に皮下から筋組織内にかけて黄褐色、境界不鮮明な小結節が散在し、また、血栓や灰白色の塞栓を含む拡張した血管がみられた。組織学的には病変は主として小さな管腔をもつ血管の増殖と膠原線維性の間質からなり、毛細血管腫の像を呈した。この中に不規則に走行する動脈、静脈および動静脈の中間型の血管が存在し、その壁はしばしば輪郭の不整を示した。動脈性血管の内膜は肥厚し、弾性線維および膠原線維の増生を伴い、中膜は平滑筋線維の走行の乱れや膠原線維の

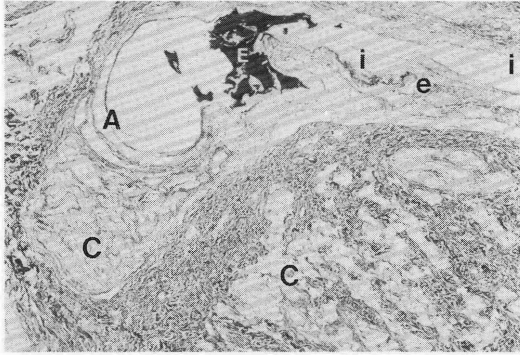


図6 症例1の病理組織像(エラスチカ・ワンギーソン染色)。毛細血管腫の増殖(C)。動脈(A)に移行する異常な血管は内膜の肥厚(i)や弾性線維増殖(e)を示す。移行部にPVAの塞栓(E)がある。

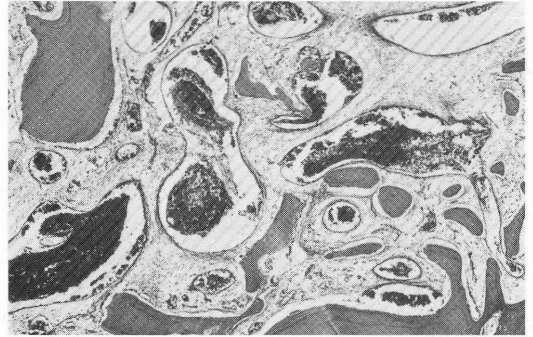


図7 症例2の病理組織像(ヘマトキシリン・エオジン染色)。下顎骨体内部は血液を容れた大小の血管腔と線維性組織からなる。

介在等を示して厚さは不均一であった。内弾性板には厚さの不均一や分裂等がみられた。主として動脈ないし動静脈短絡部と思われる部分にしばしばPVAの塞栓と血栓形成を認め、塞栓部血管の変性と炎症性細胞浸潤を伴っていた。また、静脈の一部は筋層の肥大により動脈にやや類似する形態を示した。

病理学的診断：動静脈奇形を伴う血管腫 (鈴木)

●症例2(図7)

下顎骨体内の骨髓相当部から歯槽骨内にかけて骨が不規則に吸収され、血管腫により置換されていた。すなわち、著しく拡張したものを含む大小の血管と浮腫性の間質からなる増殖が主体であったが、一部には毛細血管性の小型の血管の増殖や内皮細胞の充実性増殖もみられた。大きな血管の壁も毛細血管様の薄いものであり、明らかな筋性壁は認められなかった。腔内にはしばしば血液が停滞していた。また、明らかな内皮細胞を欠き、拡張して血流静止を伴う腔もあった。小型の血管腔内にはときにPVAの塞栓を認めた。間質は所により巣状の出血、軽度の炎症性細胞浸潤、線維化等を伴っていた。また、反応性の骨梁新生もみられた。

病理学的診断：顎骨中心性海綿状血管腫 (福島)

コ メ ン ト

血管腫の一部は生下時ないし若年時から皮膚や粘膜に斑状、腫瘤状等の病変として認められ、奇形的発生の結果と考えられる場合がある。胎生期の血管発生は、Rappaport (1977) によれば(1) endothelial stage、

(2) retiform stage、(3) gross differentiation stageの3段階を経るといわれる。これらの発達段階の血管組織の遺残がある場合、出生後に奇形的な血管として残る。早い発生段階に異常を生じた場合には毛細血管腫ないし海綿状血管腫となり、比較的後期の発生異常では動静脈間の短絡(AVM)が生じ、中間段階での異常では血管腫と動静脈間短絡の両者が併発しうるとされる。第1例は毛細血管腫とともに動静脈間の短絡と思われる血管がみられることから、retiform stageを中心とする段階の血管遺残に基づくと考えられる。一般にこのような短絡路やそれに続く静脈には毛細血管を介することなしに血液が流れ、高い圧負荷がかかるため、血管壁は肥厚や線維化をきたすことが多い。

第2例のような顎骨中心性の血管腫はまれであるが、このような病変の存在部で不用意な抜歯や生検を行うと大出血をきたし、止血困難に陥ることがある。本例の場合、発症に外傷が関与したか否かは明らかでない。出血、血液の貯留を伴う腔の存在(hemorrhagic bone cystに類似する)、および骨梁新生等の所見は摘出前の塞栓術に対する反応と考えられる。

治療効果については、第1例では病変部への栄養血管がある程度限られており、また、同部での血流が速かったため、塞栓術が奏効したが、第2例では増殖した血管の内腔が広く、血流が緩徐であったため、塞栓効果は不十分であった。塞栓術の適応の判定には術前の造影検査等により病的血管の太さ、分布、血流状態等を正しく把握することが必要である。(福島、鈴木)