

口蓋に発生した血管筋腫の1例

奈良県立医科大学口腔外科学教室

上 林 豊 彦, 中 野 公, 岡 本 真 澄, 桐 田 忠 昭, 杉 村 正 仁

奈良県立医科大学第一病理学教室

美 島 健 二

A CASE OF ANGIOMYOMA OF THE PALATE

TOYOHICO KAMIBAYASHI, AKIRA NAKANO, MASUMI OKAMOTO,
TADAOKI KIRITA and MASAHITO SUGIMURA

Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Nara Medical University

KENJI MISHIMA

First Department of Pathology, Nara Medical University

Received December 16, 1996

Abstract: We treated a case of angiomyoma of the palate in a 16-year-old female. She was referred to our hospital with the chief complaint of spontaneous pain of the palate. A crater-like ulcer with a relatively sharp margin, measuring 10×18 mm, was found on the left side of the palate. Partial bone resorption of the palate was found in occlusal radiograph and CT scanning. Histopathological diagnosis was angiomyoma. The tumor was surgically excised under general anesthesia with partial resection of the maxilla. There has been no evidence of recurrence or metastasis for 5 years 2 months after the operation.

Index Terms

angiomyoma, palate

緒 言

血管筋腫は、血管壁平滑筋由来の良性腫瘍で、中年女性の下肢に好発し、口腔領域に発生することは、稀である。今回、16歳女性の口蓋に発生した血管筋腫の1例を経験したので、その概要を報告する。

症 例

患 者：16歳、女性
初 診：1991年10月15日
主 訴：左側口蓋部自発痛
現病歴：1991年8月頃から、左側口蓋部腫脹および自発痛を認めるも放置していた。しかし、同部の腫脹が徐々に増大し、同年9月頃からは、その中心部に潰瘍形成

を認め、自発痛も軽減しないため、通院中であった某歯科医院の紹介にて、当科を受診した。

既往歴：12歳時から喘息性気管支炎にて内科通院加療中であった。

家族歴：特記事項なし

現 症：体格は中等度、栄養状態は良好で特に、全身的に異常所見は認められなかった。また、顔貌は左右対称で、両側頸部リンパ節は触知されなかった。口腔内所見は、左側口蓋部に10×18mm大の比較的境界明瞭な楕円形のクレーター様の潰瘍を認め、潰瘍底部は、淡紅色を呈し、やや凹凸不整、易出血性で圧痛を認めた。また、潰瘍周囲には、約3mmの幅で発赤を伴う粘膜隆起を認め、正中を越え、硬口蓋後縁相当部まで達していた(Plate 1)。軟口蓋における硬結、口蓋垂の運動異常は認

めなかった。咬合法X線写真, CT写真で左側口蓋病変相当部に一致して骨吸収像を認め、一部鼻腔底にもおよんでいた(Fig. 1)。骨シンテグラムでも病変に相当する口蓋部に異常集積像を認めたが、その他全身的には異常所見は、認めなかった。また、臨床検査成績においては、若干の白血球数の上昇を認めた以外異常所見は認めなかった。

臨床診断：口蓋部悪性腫瘍の疑い

処置および経過：1991年10月15日に行った組織生検所見により血管筋腫が疑われたため、同年11月6日全身麻酔下にて、上顎骨、口蓋骨を含めた腫瘍摘出術を施行した。病変相当部に骨吸収像が認められたことから、悪性腫瘍の疑いも完全には否定できなかったため、腫瘍

辺縁から1.5 cmの安全域を確保し、上顎骨、口蓋骨と一部鼻腔底粘膜を含め切除を行った。切除後、上顎の骨欠損部に対しては、義歯を装着することにより、鼻腔との閉鎖を行った。摘出物は、38×30×23 mm大で腫瘍実質は、弾性硬、内部は充実性で被膜は認められず、周囲骨との癒着はなかったが、腫瘍の増殖による、口蓋骨の一部骨欠損が認められた(Plate 2)。術後5年2か月を経過した現在、再発、転移は認められず、義歯により構音障害もなく、経過良好である。

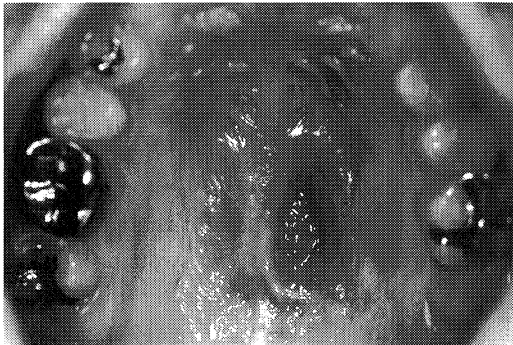


Plate 1. First clinical view: A crater-like ulcer, measuring 10×18 mm, was found on the left side of the palate.

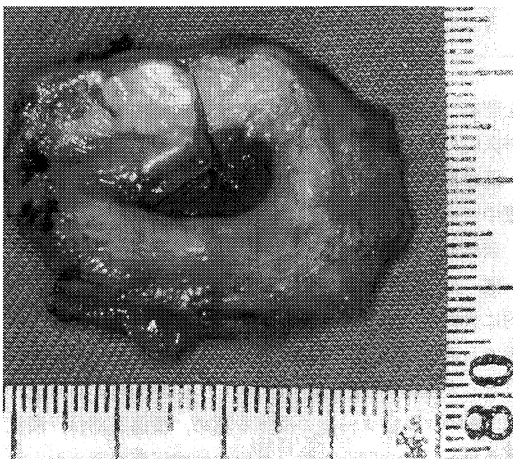


Plate 2. Resected tumor of the palate: The tumor was surgically excised with the partial resection of the maxilla, measuring 38×30×23 mm.

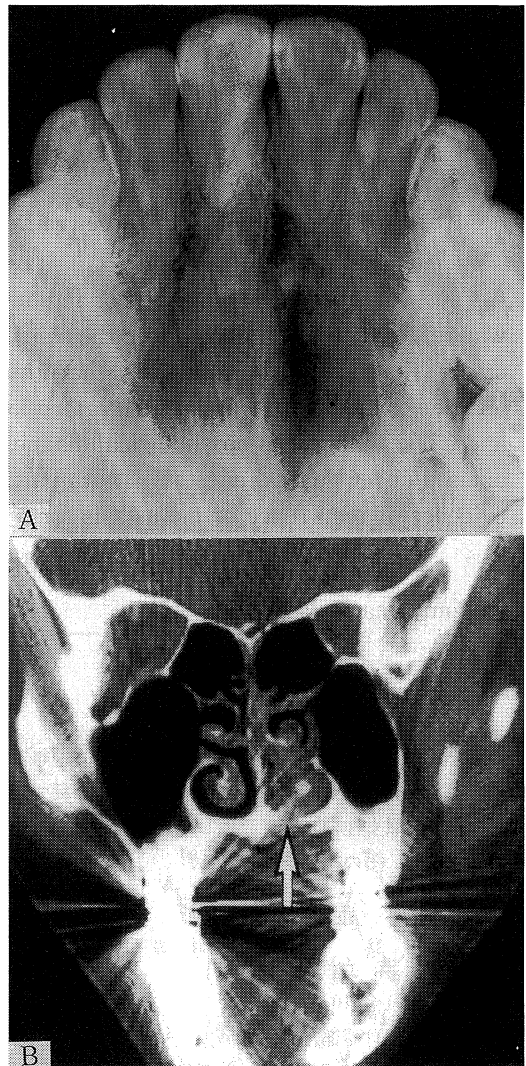


Fig. 1. A: Occlusal X-ray B: CT scanning
Partial bone resorption of the palate was found.

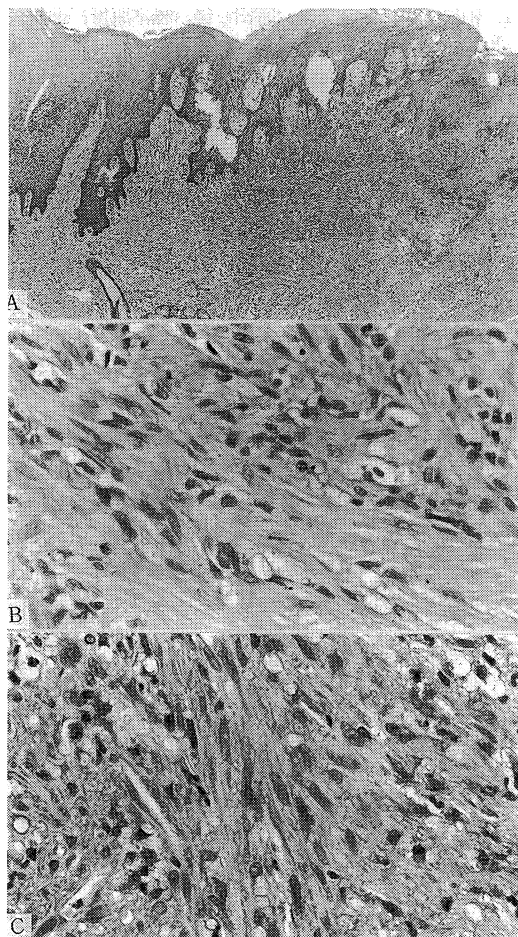


Fig. 2. Histopathological examination: (A) H-E staining $\times 40$, (B) H-E staining $\times 400$, (C) immunohistochemical staining of actin $\times 400$: Smooth muscle fibers were shown among the blood vessels. Immunohistochemical staining was positive only for actin.

摘出物病理組織学的所見：H-E染色では、潰瘍底部から周囲口蓋粘膜下に、紡錘形あるいは混棒状の核を有した、紡錘形の細胞が束状を成して錯走し、スリット状に形成された血管腔を多数認めた。細胞密度は中等度で、核の異型性、あるいは核分裂像はほとんど認められなかった。また、免疫組織染色所見では、アクチンに陽性を示し、ミオグロビン、ゲラチン、S-100、NSEに陰性を示した(Fig. 2)。

病理組織学的診断：血管筋腫

考 察

血管筋腫(angiofibroma)は Stout¹⁾によって、1937年にはじめて総括的に報告された、30~60歳の女性の下肢に孤立性に好発する良性腫瘍である。本疾患は、血管壁に由来する平滑筋腫の一種とされるが、平滑筋組織の豊富な子宮、消化器に好発する平滑筋腫(leiomyoma)とは病理組織学的に異なり、疫学的にも特徴を異にすることから、区別して述べられることが多い。口腔領域における平滑筋組織は少なく、血管壁の平滑筋組織、あるいは舌の有郭乳頭および異所性の筋組織が考えられるに過ぎないため、血管筋腫、平滑筋腫ともに口腔領域に発生することは稀である^{2,3,4)}。口腔領域における血管筋腫の発生頻度は森本⁴⁾によると全身における約3%とされるが、平滑筋腫と比較すると約2:1の割合で多いと報告されている^{5,6)}。また、口腔領域での好発部位としては、口唇、口蓋があげられており、好発年齢は50歳代で、性差については2:1と男性に多発する傾向がある^{4,7)}ことから、本症例のような、女性若年者の発症はきわめて稀である。また、本疾患の誘因ないしは原因としては、Duhig⁸⁾ら⁹⁾が、性ホルモン(エストロゲン)の影響あるいは機械的刺激を指摘しており、実際、上唇を噛む癖のある人に本疾患が発症したという報告⁹⁾は、彼らの指摘を支持するものであるが、本症例においては、その原因になる因子は不明であった。病理組織学的には、多数の小血管を取り囲む平滑筋線維の結節状の増殖からなり、周囲組織との境界は明瞭であるとされる⁶⁾が線維腫、線維血管腫、神経線維腫などの鑑別診断がしばしば困難であり^{1,4)}、H-E染色に加えて、特殊染色(免疫組織化学的検索)所見、電顕所見が病理組織学的診断に有効である。本症例においても、H-E染色所見および免疫組織所見により、その特徴から血管筋腫の病理組織学的確定診断を得た。臨床症状では、四肢においては自発痛、圧痛を主症状とすることが多いが口腔内においては発育緩慢な、無痛性で限局性の腫瘤を粘膜下にふれることが多い^{8,10)}。しかし本症例のように、病変の中心部に潰瘍を形成し、自発痛を伴う症例は、きわめて稀であり^{4,10)}、われわれが渉猟し得た限りでは本症例が本邦では、最初であった。むしろ腫瘤に潰瘍を伴う症例は平滑筋肉腫においてしばしば報告^{11,12)}されており、Stoutは本腫瘍は良性であり、外科的に全摘出することでほとんど再発はないが、一部に悪性に準ずるものもあると指摘している¹⁾。本症例は術後5年2か月を経過し、再発、転移は認められず経過良好であるが、病変相当部に骨吸収が認められた点や、病変の発育も比較的急速であった点、あるいは平滑筋肉腫が平

滑筋腫に由来する可能性を指摘する報告¹³⁾もあることから、今後も注意深く経過観察していく予定である。

ま と め

今回、われわれは、16歳、女性の口蓋に発生した血管筋腫を経験したので、その概要を報告した。

本論文の要旨は第16回日本頭頸部腫瘍学会(1992年6月27日、於香川)において発表した。

文 献

- 1) Stout, A. P. : Solitary cutaneous and subcutaneous leiomyoma. *Am. J. Cancer.* **29** : 435-469, 1937.
- 2) 寺山 勇, 新村真人 : 硬口蓋にみられた Angioleiomyoma. *皮膚臨床.* **11** : 975-978, 1969.
- 3) 藤沢竜一, 森川孝雄, 矢代昭夫, 鳥山 悌 : Angioleiomyoma の3例. *臨床皮.* **28** : 53-59, 1974.
- 4) 森本典夫 : 血管筋腫(血管性平滑筋腫)の臨床病理学的研究. *鹿大医誌.* **24** : 663-688, 1973.
- 5) 高山康男, 横川 正, 見崎 徹, 堀 稔, 田中博, 工藤逸郎, 草間 薫, 斎藤一郎 : 上顎前歯部に生じた vascular leiomyoma の1例. *日口外誌.* **29** : 1107-1112, 1983.
- 6) 石川梧朗 : 口腔病理学II. 改訂版, 永末書店, 京都, p 583-585, 1982.
- 7) 中村広一, 金井正雄, 時田 優, 松本康博, 瀬戸皖一, 新山真弓, 菅原信一 : 硬口蓋に現われた血管筋腫の2例. *鶴見歯学.* **4** : 123-129, 1978.
- 8) Duhig, J. T. and Ayer, J. P. : Vascular leiomyoma. A study of sixty-one cases. *Arch. Pathol.* **68** : 424-430, 1959.
- 9) 富田汪助, 永井哲夫, 中村保夫 : 上唇部に発生した血管筋腫の1例. *日口外誌.* **24** : 362-365, 1978.
- 10) 覚道健治, 虫本浩三, 植野 茂, 佐野雅昭, 白数力也, 高須 淳 : 下唇に発生した血管筋腫の1例. 光学顕微鏡的および電子顕微鏡的観察. *日口外誌.* **29** : 343-351, 1983.
- 11) 金子忠良, 千葉博茂, 小野健児, 松田憲一, 渡辺正人, 渡辺裕之, 後藤乙彦, 内田安信, 大目 亨 : 下顎両側にわたる平滑筋肉腫の1例(抄). *頭頸部腫瘍.* **20** : 373, 1994.
- 12) 佐藤麻弥子, 川口哲司, 藤井英治, 百瀬文雄, 小林明子, 吉増秀寛, 天笠光雄, 緒方俊江, 岡田憲彦 : 下顎に生じた平滑筋肉腫の1例(抄). *日口外誌.* **38** : 2117-2118, 1992.
- 13) Tang, S. O. and Tse, C. H. : Leiomyoma of the nasal cavity. *J. Laryngol. Otol.* **102** : 831-833, 1988.