骨形成を伴った上顎骨血管腫の1例

太田信介・大村　進*・露木良治
渡貫　圭・川辺良一・藤田浄秀

A case of hemangioma of the maxillary bone with osteogenesis

OHTA Shinsuke・OMURA Susumu*・TSUYUKI Yoshiharu
WATANUKI Kei・KAWABE Ryoichi・FUJITA Kiyohide

Abstract: Although hemangioma is a common soft tissue tumor in the oral and maxillofacial region, hemangioma of bone is very rare, especially in the maxilla. A 47-year-old woman was referred to our hospital because of a painless mass at the base of the right ala nasi. Panorama X-ray films showed a well-defined round radiopaque region, characterized by well-marked spoke-wheel trabeculation diverging from the center of the mass. Computed tomography (CT) revealed a mixed density mass at the base of the right ala nasi. The mass was characterized by a spoke-wheel or honeycomb pattern. We performed surgical excision, and fortunately there was no excessive hemorrhage during the operation. The lesion was diagnosed as a cavernous hemangioma with osteogenesis on pathological examination. The macroscopic and microscopic findings were characterized by a radial pattern of osteogenesis, consistent with the findings on X-ray film.

Key words: hemangioma（血管腫），maxillary bone（上顎骨），radiographic findings（画像所見），osteogenesis（骨形成）

緒　　言

口腔外科領域で発生する血管腫は，主として軟組織内に発生するが，まれに骨に発生することもある．骨に発生した血管腫の多くは骨中心性で，口腔外科領域では下顎骨が比較的頻度が高く，そのX線所見は多房性，蜂巣状のX線透過像を示す．しかし上顎骨や頬骨には，画像所見では境界明瞭なX線不透過像を示す骨形成を伴う特異な血管腫が発生することがある．今回われわれは，鼻翼基部の骨様硬の腫瘤を主訴に来院し病理組織学的に海綿状血管腫と診断されたまれな症例を経験したので，その概要を報告する．

横浜市立大学大学院医学研究科顎顔面口腔機能制御学（口腔外科学）
（主任：藤田浄秀教授）
*横浜市立大学医学部附属市民総合医療センター歯科・口腔外科・矯正歯科
（主任：大村　進助教授）
Yokohama City University Graduate School of Medicine Department of Oral and Maxillofacial Surgery（Chief: Prof. FUJITA Kiyohide）
*Yokohama City University Medical Center Oral and Maxillofacial Surgery and Orthodontics（Chief: Associate Prof. OMURA Susumu）
受付日：2004年11月8日
採択日：2005年4月26日

症　　例

患　者：47歳，女性．

初　診：1996年1月■日．

主　訴：右側鼻翼基部の無痛性腫瘤．

既往歴：1989年に甲状腺腫瘍にて甲状腺右葉切除術を受け，病理学的には濾胞型腺腫であった．

家族歴：特記事項なし．

現病歴：1994年頃より右側鼻翼部の無痛性腫瘤に気付いたが放置していた．1996年1月，原因不明の低カリウム血症にて通院中の本院内科の主治医に同部腫瘤について相談したところ，当科受診を勧められ，1996年1月■日当科を初診となった．

現　症：

全身所見；体格中等度，顔色やや不良であった．

口腔外所見；右側鼻翼部に無痛性の腫瘤を認め，右鼻唇溝は浅くなっていた．

口腔内所見；右上顎中切歯から右上顎犬歯部歯肉口唇移行部に，直径20mm大の半球状の腫瘤を触知した．腫瘤は骨様硬で，可動性はなく，表面粘膜は正常であった．他の部位の口腔粘膜には異常を認めなかった．

画像所見：パノラマX線写真では右上顎犬歯窩から梨状孔側縁にかけて，境界の比較的明瞭な球形の不透過像を呈

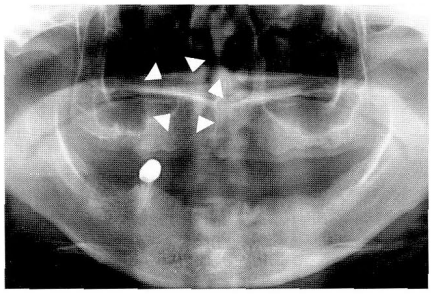

写真1　初診時パノラマX線写真
矢印で示す部分に境界明瞭な円形のX線不透過像を認める.

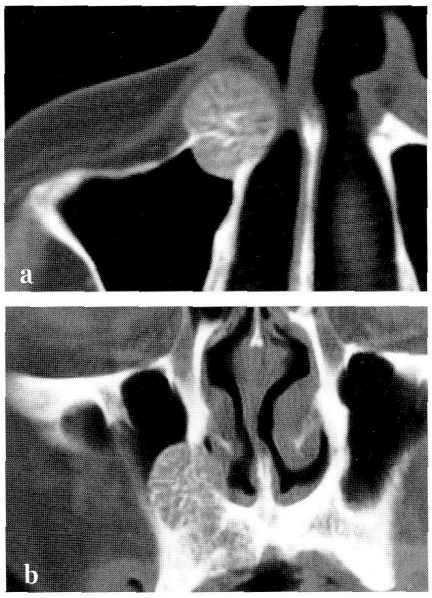

写真2　初診時CT像
a.：前額断
右側鼻翼部に上顎骨を中心に比較的高CT値と低CT値の混在を示す腫瘍を認める．腫瘍は一部上顎洞内，鼻腔内に突出している.
b：前頭断
前頭断CT所見では腫瘍は高CT値と低CT値の混在を認め，車軸様ないしは蜂巣様を呈している.

写真3　術中写真
粘膜骨膜弁を剥離翻転するとわずかに弾性を認めるほぼ骨様硬の境界明瞭な腫瘤が外向性に認められる．異常な出血は認められず，正常な骨を一部含めて容易に切除可能であった.

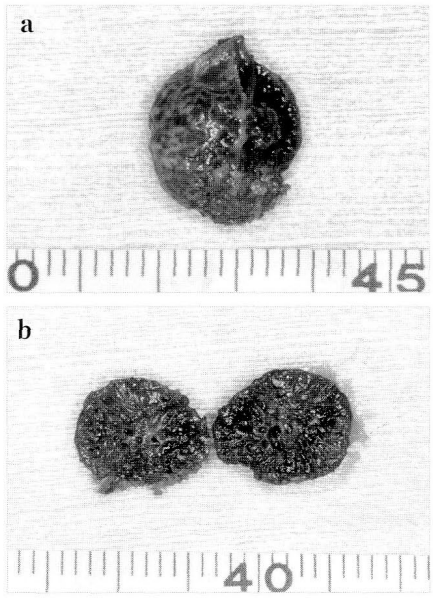

写真4　切除標本写真
a：切除標本は大きさ25×18×16mm，赤褐色，表面凹凸不整でクルミ状を呈している．硬さは，ほぼ骨様硬である.
b：切除標本割面はCT所見に類似して中心より放射状に骨梁により微細な車軸様構造もしくは蜂巣様を呈し，腔内は血餅に満たされている.

し，中心から放射状に延びた骨梁構造を思わせる所見を認めた（**写真1**）.

CT写真では右上顎骨に，内部が車軸状ないし蜂巣状を呈する球形の境界明瞭な低信号域と高信号域の混在する部分を認め，後方は一部上顎洞内に突出していた（**写真2a，2b**）.

臨床検査所見：尿検査，血液検査所見にて血中カリウム値の低下を認める以外は正常範囲内であった.

臨床診断：単純X線所見，CT所見などを併せ考え，臨床的に右上顎骨骨腫と診断した.

処置および経過：1996年5月■日，上記臨床診断のもとに，全身麻酔下に右上顎骨腫瘍切除術を施行した．手術は口腔内より右上顎中切歯部の歯肉口唇移行部から右上顎小臼歯部歯肉頬移行部に切開を行い，上顎骨骨膜を剥離し，腫瘍を明示した．腫瘍表面は比較的凹凸不整であり，クルミ状を呈していた．また周囲骨との境界は明瞭であった．フィッシャーバーにて周囲正常皮質骨にガイド孔を作製し骨ノミを用いて，口蓋側の皮質骨を一部含み切除した．一部に上顎洞粘膜と鼻腔粘膜の露出を認めたが，出血はほとんど認められなかった（**写真3**）.

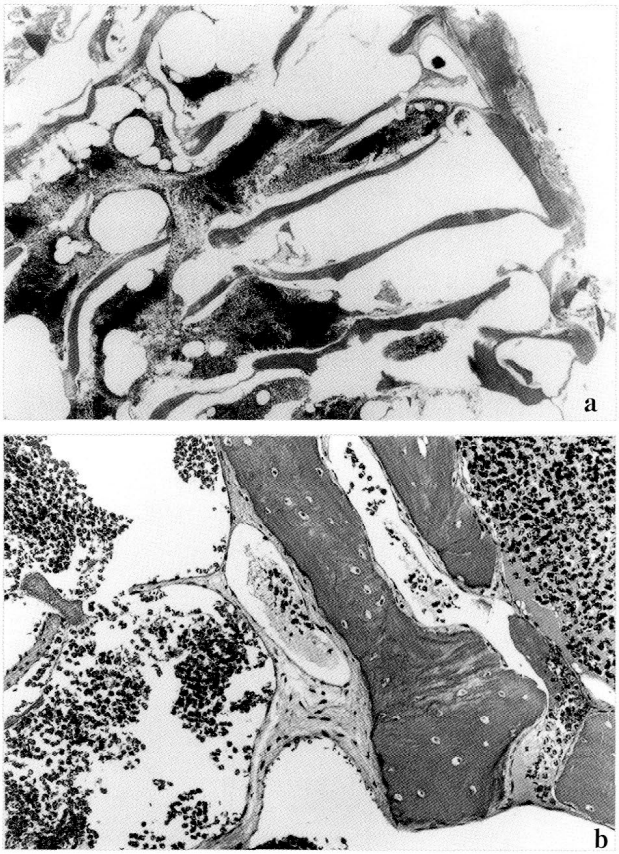

写真 5 切除標本病理組織像
a：H-E 染色，弱拡大像
腫瘤全体は薄い骨質で被殻されており，その内部は繊細な梁状の骨質が放射状に配列している．
b：H-E 染色，強拡大像
骨梁間は，線維性結合織に乏しく，一層の内皮細胞で被覆された大小の拡張した血管腔により占められている．

切除標本所見：切除標本は大きさ 25 × 18 × 16mm，赤褐色，表面凹凸不整でクルミ状を呈していた（**写真 4a**）．硬さは，ほぼ骨様硬であり，割面は骨梁により微細な車軸様構造もしくは蜂巣様を呈し，腔内は血餅に満たされていた（**写真 4b**）．また CT 所見と切除標本の割面所見は大変類似していた．

切除標本病理組織学的所見：腫瘍全体は薄い骨質で被殻されており，その内部は繊細な梁状の骨質が放射状に配列していた（**写真 5a**）．その骨梁間は，線維性結合織に乏しく，一層の内皮細胞で被覆された大小の拡張した血管腔により占められていた（**写真 5b**）．

病理組織学的診断：骨形成を伴った上顎骨海綿状血管腫．

考　　察

骨に発生する腫瘍の内，血管腫は 1％前後に過ぎず，その多くは頭蓋顎顔面および脊椎に発生する[1～3]．頭蓋顎顔面のなかで口腔外科領域の骨に発生する血管腫は，下顎骨に発生することが多く，本症例のように上顎骨に発生することは比較的まれである[1～4]．

われわれの渉猟しえた限りでは，本邦で報告されている口腔外科領域の骨に発生した血管腫のうち下顎骨に発生したものは1963年の永井ら[6]の報告以来 12 例[6～17]，上顎骨に発生したものは1964年の山中ら[5]の報告以来本症例が 2 例目であり，上顎骨に発生することは比較的まれと思われた．

骨に発生する血管腫は約二倍の頻度で女性に好発するとされ[1～4]，好発年齢は報告によってばらつきがあり，成人以下に好発するとする報告[1, 4]，全年齢層にわたって発生するとする報告[2, 3]がある．本邦における口腔外科領域の骨に発生した 14 例の血管腫に関しては，男性 5 例に対して女性 9 症例と女性に高頻度であり，50 歳台まで全年齢層にわたって発生していた[5～17]．

骨に発生した血管腫の画像所見として，旭日状，シャボンの泡状，蜂巣状，車軸状などの表現が用いられて来た[1～4, 18]．以前の文献[3, 18]にみられるように顔面骨に発生した血管腫の単純 X 線所見は，解剖学的複雑性から典型的な像を呈しにくく，特に上顎骨でその傾向が強い．一方，下顎骨に発生した血管腫の単純 X 線所見は多房性の透過像としてシャボンの泡状，蜂巣状と表現される場合が多い[18]．本症例のパノラマ X 線所見は，境界明瞭な球形の不透過像を呈し，中心から放射状の骨梁構造を思わせる所見，すなわち旭日状の所見を認めた．またその CT 所見も特異的であり，車軸状，もしくは蜂巣状を呈していた．これらの所見は頬骨に発生する血管腫の画像所見[18, 21～24]と大変類似しており，われわれが遭遇する下顎骨の血管腫の画像所見とは異なる所見であった．

Sherman ら[18]は，頬骨に発生した血管腫について，単純 X 線所見と腫瘍の割面構造を比較し，腫瘍内部の骨梁形成の亢進が種々の画像所見を呈することを示している．本症例でも，パノラマ X 線所見や CT 所見と腫瘍の割面構造は類似しており，病理組織所見でも腫瘍内部に骨梁形成を認めた．これらの所見は頬骨に発生した血管腫の報告例と大変類似した特徴的所見であり[20～23]，山中ら[5]の報告例にも共通する点であった．

本症の診断名に関しては，腫瘍内部に骨形成を伴う所見から山中ら[5]はその症例を骨血管腫としているが，その診断基準については言及していない．また Akerson ら[24]は，下顎骨に発生し内部に骨梁構造を伴った血管腫を“ossifying angioma”と報告したが，診断基準についてはやはり言及しておらず，病理組織像を表したとのみ述べている．さらに Thoma ら[25]は，上顎骨に発生し骨形成を伴った血管腫を“osteo-angioma”と報告し，その語の使用を提唱している．われわれの渉猟しえた限りでは，口腔外科領域の骨

に発生した血管腫において骨形成性もしくは“ossifying”という言葉を冠した症例はAkersonら[24]の症例のみであった．本症例のように，骨に発生した血管腫の内部に骨組織が認められる症例も散見され[5, 6, 8, 14, 16, 17, 19, 20～25]たが，いずれも“osteo-”，“osseous”，“intraosseous”もしくは“central”という語が冠されていた．さらに骨に発生した血管腫内部の骨形成について，Batsakis[2]，Bucyら[3]は，一般的な現象であるとし，その進行過程によって，易出血性の血管の豊富な第一段階，血餅の形成を伴った胞体を形成する第二段階，骨化を認め腫瘍の硬化する第三段階の三段階に分類し，進行過程の後期には腫瘍内に骨形成を認めることを示した[2, 3]．この分類を用いると，本症例に第二から第三段階の進行過程の比較的後期のものと考えられた．さらにBucyら[3]は，血管腫内部の骨形成機序について触れており，線維軟骨からの骨化はきわめてまれであり，骨表面の骨芽細胞により骨化が進む膜性骨化に類似した骨化機構をとると述べている．

これらの点から，われわれは本症例を骨形成を伴う血管腫と表現するにとどめた．病態を明確にする診断名を確立するためには，今後の症例の積み重ねが必要と思われた．

血管腫の治療方法としては外科的切除術[5～8, 10～17]が一般的であるが，栄養動脈塞栓術[11, 15]や結紮術を併用[8]した症例が認められ，放射線療法を用いる場合もある．しかし，臨床所見が本症例に類似した血管腫では[21～24]ほとんどの症例で切除手術が行われ良好な結果を得ていた．

本症例においては，切除術を行ったが，術中の大出血もなく，良好な結果を得た．今日まで腫瘍の再発もなく良好に経過している．

結　　語

今回われわれは，上顎骨に発生し，放射状に骨形成を認める特異的な画像所見を呈し，臨床的にあたかも骨腫を思わせたまれな血管腫の症例を経験したので，その概要を報告した．

本症例は，第30回日本口腔科学会関東地方部会（平成8年10月，栃木県河内郡）において発表した．

引　用　文　献

1) Lund, B.A. and Dahlin, D.C.: Hemangioma of the mandible and maxilla. J Oral Surg 22: 234-242 1964.
2) Batsakis, J.G.: Tumors of the head and neck, clinical and pathological considerations. 2nd Ed, Baltimore, M.D., Williams & Wilkins, 1979, p390-395.
3) Bucy, P.C. and Capp, C.S.: Primary hemangioma of bone. With special reference to roentgenologic diagnosis. Am J Roentogenol Rad Ther 23: 1-33 1930.
4) 石川梧朗監修：口腔病理学．改訂版，永末書店，京都，1982, 572-575頁.
5) 山中弘之，淵端　孟，他：上顎骨に発生した骨血管腫の1例．口科誌 13: 54-60 1964.
6) 永井　巌，山中弘之，他：下顎骨中心性血管腫の1例．臨床歯科 242: 21-25 1963.
7) 佐竹幸雄，田代英雄，他：下顎骨中心性血管腫の1例．日口外誌 21: 18-23 1975.
8) 河合　幹，立松　充，他：下顎骨に発生した顎骨中心性血管腫の1例．日口外誌 22: 373-381 1976.
9) 山田隆一，小島正明，他：下顎骨中心性血管腫の1例．日口外誌 22: 49-52 1976.
10) 松田　登，小川　卓，他：多血球血症に生じた下顎骨中心性血管腫の症例．日口外誌 26: 1263-1268 1980.
11) 田村　稔，桜井精人，他：Catheter embolizationを応用した下顎骨中心性血管腫の一治験例．口科誌 33: 474-485 1984.
12) 坂下英明，東野純也，他：下顎骨に発生した動静脈奇形の1例．日口外誌 32: 152-169 1986.
13) 領家仁美，領家和男，他：下顎骨に発生した硬化性血管腫の1例および文献的考察．日口外誌 34: 1426-1432 1988.
14) 小笠原　健，竹之下康治，他：下顎角部に突起状骨隆起のみられた中心性血管腫の1例．The Quintessence 9: 457-460 1990.
15) 高橋　哲，斉藤哲夫，他：超選択的液体塞栓術施行後摘出した下顎骨中心性血管腫の1例．日口外誌 39: 996-998 1993.
16) 柴田慶郎，内山健志，他：椎骨動脈・後頭動脈吻合を来していた下顎骨中心性血管腫の1例．歯科学報 95: 419-423 1995.
17) 竹田奈津子，岩渕博史，他：下顎骨正中部に発生した顎骨中心性血管腫の1例．日口外誌 46: 793-795 2000.
18) Sherman, R.S. and Wilner, D.: The roentogen diagnosis of hemangioma of bone. Am J Roentogenol 86: 1146-1159 1961.
19) Smith, R.A.: Central hemangioma of the maxilla: case report. Aust Dent J 17: 117-119 1972.
20) Leibovitch, L. and Dray, J.P.: Primary intraosseous hemangioma of the zygomatic bone. Plast Reconstr Surg 111: 519-521 2003.
21) Koybasi, S., Saydam, L., et al.: Intraosseous hemangioma of the zygoma. Am J Otolaryngol 24: 194-197 2003.
22) Gil, M.C. and Navarro-Vila, C.: Intraosseous hemangioma of the zygomatic bone. Int J Oral Maxillofac Surg 21: 287-291 1992.
23) Savastano, G., Russo, A., et al.: Osseous hemangioma of the zygoma: A case report. J Oral Maxillofac Surg 55: 1352-1356 1997.
24) Akerson, H.A., Allen, G.W., et al.: Ossifying angioma: an unusual mandibular lesion in an infant. J Oral Surg 39: 954-957 1981.
25) Thoma, K.H. and Harris, M.H.: Osteo-angioma. Oral Surg 18: 223-226 1964.