

# AMCoR

Asahikawa Medical College Repository <http://amcor.asahikawa-med.ac.jp/>

耳鼻咽喉科臨床 (2006.07) 99巻7号:573~579.

顎下腺血管腫例

石田芳也, 浅野目充, 原渕保明

題名：顎下腺血管腫例

略題：顎下腺血管腫

石田芳也\*,\*\*, 浅野目充\*, 原渕保明\*\*

\* 市立稚内病院 耳鼻咽喉科

\*\* 旭川医科大学 耳鼻咽喉科・頭頸部外科外科学講座

別刷請求先：

〒078-8510 北海道旭川市緑が丘東2条1丁目1番1号

旭川医科大学 医学部耳鼻咽喉科・頭頸部外科学講座

石田芳也

Tel: 0166-68-2554

Fax: 0166-68-2559

E-mail: ishida@asahikawa-med.ac.jp

英文抄録

Title: A case of submandibular hemangioma

Yoshiya Ishida \*, \*\*, Mitsuru Asanome \*, Yasuaki Harabuchi \*\*

\*Department of Otolaryngology, Wakkanai City Hospital

\*\*Department of Otolaryngology-Head and Neck Surgery, Asahikawa Medical College

Text:

Most salivary gland hemangiomas have involved the parotid gland, and cavernous hemangioma of the submandibular gland is rare. We have treated a cavernous hemangioma, which had several phleboliths in the right submandibular gland.

A 46-year-old female was referred to our clinic with a swelling in the right submandibular triangle. The clinical features appear to be hemangioma of the submandibular gland. Computed tomography, ultrasonography and magnetic resonance imaging were useful in the diagnosis. Under general anesthesia, the tumor was removed surgically, and the histopathological diagnosis was cavernous hemangioma with several phleboliths. Since surgery, the patient has shown a favorable prognosis and there has not been any sign of recurrent.

Including our case, 25 cases of hemangioma of the submandibular gland have been reported between 1960 and 2005 in Japan. Patient ages ranged from 6 to 70 years with an average age of 31.4 years. There were 12 males and 13 females and 80% (20/25) of the cases had cavernous hemangioma. Phleboliths were found in about 70% (17/25). Most of the cases (96%, 24/25) were treated surgically.

Key words: cavernous hemangioma, submandibular gland, phleboliths

はじめに

血管腫全体の約半数は頭頸部領域に発生するとされており決してまれではないが[1-3], その大部分は鼻副鼻腔領域に発生し唾液腺に発生することは比較的少ない[2][4]. さらに唾液腺原

発の血管腫は90%以上が耳下腺に発生し[2][3][5][6]、顎下腺血管腫の報告は本邦でも数十例にとどまり比較的まれである(表1)[1][2][5][7-26]。今回我々は顎下腺に発生した血管腫の1例を経験したので、顎下腺の血管腫について文献的考察を加えて報告する。

## 症例

症例：46歳女性

主訴：右顎下部の腫脹

現病歴：2005年3月初旬より右顎下部の腫脹を自覚し、徐々に増大してきたため同年4月4日近医耳鼻咽喉科を受診した。右顎下腺腫瘍を疑われたため精査加療目的に4月13日当科紹介となった。

既往歴：特記すべき事項なし。

家族歴：特記すべき事項なし。

初診時所見：右顎下部に弾性軟、可動性良好な腫瘤を認めた。頸部リンパ節は触知しなかった。口腔底、ワルトン管、など口腔内に異常を認めなかった。その他の耳鼻咽喉科領域に異常を認めなかった。

血液生化学検査：CRP陰性で炎症反応は認めなかった。

頸部超音波検査：右顎下部に23.9mm×23.5mm×16.3mmの低エコー領域を認め、周囲との境界はやや不明瞭であった。頸部リンパ節腫脹は認めなかった。

頸部CT検査：右正常顎下腺の外側に、内部に小石灰化を伴い周囲との境界明瞭な30mm×26mmの筋肉とほぼ等吸収である腫瘍を認め(図1A)、腫瘍の中央部分は造影効果を認めた(図1B)。頸部リンパ節腫脹は認めなかった。

頸部MRI検査：右正常顎下腺の外側に境界明瞭で正常顎下腺と比較してT1強調像で低信号T2強調像で高信号の腫瘤を認めた(図2A,B)。ガドリニウム造影にて腫瘤の中心部は強い造影効果を認めた(図2C,D)。頸部リンパ節腫脹は認めなかった。

ガリウムシンチ：異常集積を認めなかった。

唾液腺シンチ：異常集積を認めなかった。

以上の所見より顎下腺の良性腫瘍を考え、6月16日全身麻酔下に外切開法にて右顎下腺摘出術を施行した。顔面神経下顎縁枝を同定保存した後、腫瘍を周囲より剥離した。周囲との癒着はほとんどなく、顎下腺に連続した暗赤色、易出血性のやわらかい腫瘍であった。顎下腺との分離は不可能であったため、顎下腺とともに一塊にして摘出した。腫瘍の内部に静脈石と考えられる白色の固い腫瘤を数個認めた(図3)。

病理組織検査：静脈主体の脈管増生を認め、細胞異型はなく海綿状血管腫との診断であった(図4A,B)。腫瘍内部の石灰化した腫瘤は病理学的にも静脈石と考えられた。

術後の顔面神経麻痺はなく経過良好で退院とした。現在外来にて経過観察中であるが経過良好であり再発の兆候は認めていない。

## 考察

血管腫は血管組織の増生を認める良性腫瘍である。血管腫全体の約40%は頭頸部領域に発生するとされており決してまれではないが[1-3]、その大部分は鼻副鼻腔領域に多く、唾液腺に発生する血管腫は比較的少ない[2][4]。さらに唾液腺原発の血管腫に限ると90%以上が耳下腺に発生するといわれている[2][3][5][6][27]。一方、顎下腺血管腫の報告は本邦でも数十例にとどまり比較的まれとされている(表1)[1][2][5][7-26]。血管腫の代表的な分類としては毛細血管性血管腫(capillary hemangioma)と海綿状血管腫(cavernous hemangioma)がある[28][29]。耳下腺血管腫の多くは幼小児に発生する毛細血管性血管腫であり、自然寛解を認めることが多いとされている[29]。一方、顎下腺血管腫の報告例は成人に発生する海綿状血管腫であり自然寛解は少ないとされている[4][5][27][30-35]。この病理学的特徴の相違は、唾液腺血管腫のほとんどが耳下腺発生である事になんらかの関連があると考えられるが、顎下腺血管腫の報告は非常に少ないため症例を集めた詳細な病理学的検討が今後必要であると考えられた。

本邦での顎下腺血管腫瘍例を我々が検索し得た範囲でまとめた(表1)[1][2][5][7-26]。本症例を含めて25例報告があり平均年齢は31.4才と比較的若い年齢の成人に多い傾向を認めた。発生頻度に性差は認めなかった。80%の症例が海綿状血管腫であった。静脈石を伴うことも多く約

7割の症例で静脈石を認めた。静脈石は腫瘍血管内皮細胞が石灰化した像と言われており、一般にRibbertの説が支持されている[23][26][36-38]。それによると、海綿状に増殖した血管内では血流速度が低下することにより血管内に付着した血栓が、同心状に壊死に陥り石灰が沈着し静脈石となるとされている[1][20]。また、血栓形成には、不規則に拡張、彎曲した血管内腔の血流の低下、停止が必要なことから表在性の血管腫よりも、深在性の血管腫特に海綿状血管腫に多く発生すると言われている[39][40]。静脈石を伴った顎下腺血管腫の報告例の中には唾石を伴った慢性顎下腺炎との鑑別が困難であった症例もあり注意する必要があると考えられた[5][30][32]。両者の病歴上の鑑別点としては食事と関連した唾疝痛があるかが重要と考えられる[8]。また、画像所見による鑑別には単純レントゲン像と唾液腺造影が有効と報告されている[11]。唾石の場合、単純レントゲンにて不均一な不透過像で、唾液腺造影では導管の拡張・狭窄・閉塞を呈する。静脈石の場合は、層状の不透過像で時に中心部が透過性を呈する事もあり、唾液腺造影では導管の拡張・狭窄・閉塞がなく導管と石灰化部分が交差するとされている[23]。またCTにて、導管から離れた位置に存在する石灰化は血管腫の静脈石を疑う所見と考えられる[5][30][32]。

診断には臨床症状、局所所見、とともに画像診断が有用であった。初診時の局所所見からは顎下腺腫瘍、慢性顎下腺炎、あるいは側頸嚢胞を鑑別診断として考えた。本症例ではCT検査にて数カ所の小石灰化を認めたことから、唾石あるいは血管腫における静脈石と判断するのは比較的容易であった。また、MRI検査における血管腫の典型的な像としては、T1強調像で低～等信号、T2強調像で高信号を呈すとされており[1]、本症例でも血管腫の像に一致していた。さらにCT、MRIともに強い造影効果を認めたことも腫瘍内部の豊富な血流を示しており、血管腫を第一に考える結果であった。血管腫に対しては血管造影が有効との報告もあるが[41]、有用でないとする意見もある[42][43]。その理由として、腫瘍内部の血液貯留腔容積に対して流入血管面積が小さいため造影剤の注入量が少なく、造影剤が希釈されてしまうため有効な造影効果が得られないとされている[43]。実際血管造影を施行している報告もあるが、造影効果に乏しく、静脈相で腫瘍が全体的に薄く造影されるのみであり[2]、血管造影自体の危険性に対して、その診断的価値は低いと考えられる。本症例でも血管造影は施行していない。また、血管腫の診断に試験穿刺が有効であったとする報告もあったが[11]、出血の危険性があるためFNAは施行しないのが一般的である[2]。

顎下腺血管腫の治療については外科的摘出が第一選択とされている[32][33]。前述したように、耳下腺に発生する毛細血管性血管腫は自然寛解する症例もあるため経過観察とすることが多く、外科的加療を必要とするのは10%程度である[28][29]。一方、顎下腺血管腫の大部分を占める成人の海綿状血管腫は自然寛解の可能性は低く、外科的摘出が第一選択とされている[5][32][33]。我々が検索し得た範囲でまとめた本邦の報告例も25例中24例が外科的摘出を施行されており、いずれも経過良好で再発例の報告はなかった。本症例は外科的摘出を選択し良好な経過であったが、腫瘍の大きさ・進展範囲によっては出血の危険性を考慮して、術前の塞栓術や硬化剤による治療を追加する必要があると考えられた[7]。

本症例は、顎下腺との剥離・分離が不可能であったことから、顎下腺原発の血管腫であると考え顎下腺血管腫として報告したが、報告者によっては、顎下部血管腫あるいは顎下部深在性血管腫と表現している報告もある[14][19][20]。それらの報告によると、耳下腺血管腫は病理学的にも耳下腺実質内に血管腫構造が混在する所見が多く認められるのに対し[44]、顎下腺血管腫は肉眼的に顎下腺との境界を判定可能であり、組織学的にも混在する所見が乏しいため、真の顎下腺由来の血管腫とは断言できないとしている[2]。報告文献の記載から判断するに限りにおいては、顎下腺血管腫あるいは顎下部血管腫いずれも、肉眼的に顎下腺と区別可能であるが顎下腺自体との剥離は困難であるとする報告が多く[1][2][5][7]、両者の所見に大きな差は認められなかった。顎下腺腫瘍における血管腫の報告は少ないが、この点に関しては今後の症例を集めた病理学的な検討が必要と考えられた。

## まとめ

1. 比較的まれな顎下腺血管腫の症例を経験した。
2. 静脈石を伴った海綿状血管腫であり、顎下腺と一塊に摘出し経過良好であった。
3. 本邦での顎下腺血管腫報告例を集計し検討した。

この論文の要旨は第192回日本耳鼻咽喉科学会北海道地方部会（札幌）で口演した。

## 参考文献

- 1) 中村一博, 藤田博之, 萩原晃: 顎下腺血管腫の1例. 耳鼻咽喉科・頭頸部外科 69: 386-389,1997.
- 2) 村上匡孝, 神谷勝久, 西村秀夫: 顎下部海綿状血管腫の一例 顎下部血管腫の文献的考察. 耳鼻咽喉科臨床 80: 617-625,1987.
- 3) Batsakis JG: Vascular tumors of the salivary glands. Ann Otol Rhinol Laryngol 95: 649-650,1986.
- 4) Nussbaum M, Tan S, Som ML: Hemangiomas of the salivary glands. Laryngoscope 86: 1015-1019,1976.
- 5) 澤津橋基広, 高木誠治, 溝上宏幸, 他: 顎下腺海綿状血管腫症例の検討. 耳鼻と臨床 47: 261-266,2001.
- 6) Ellis GL, Auclair PL: Tumors of the salivary gland.. In: Ellis GL, Auclair PL, Eds. Nonlymphoid Mesenchymal Neoplasms. Washington D.C.: AFIP, 1996: pp 375-376.
- 7) 塚本高久, 早瀬智広, 河野友美, 他: 顎下腺血管腫の1例. 日本口腔診断学会雑誌 12: 517-520,1999.
- 8) 村井紀彦, 山本悦生, 篠原尚吾: 静脈結石を伴った顎下部海綿状血管腫例. 神戸市立病院紀要: 103-105,1998.
- 9) 岡部孝一, 坂下英明, 宮田勝: 画像診断が困難であった顎下部血管腫の1例. 日本口腔診断学会雑誌 10: 438-445,1997.
- 10) 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. 日本口腔診断学会雑誌 5: 185-189,1992.
- 11) 大沢幸世, 早津良和, 篠崎文彦: 顎下腺唾石症が疑われた血管腫の1例. 日本口腔科学会雑誌 39: 527-531,1990.
- 12) 薬師寺登, 西尾順太郎, : 妊娠中に発症した顎下腺海綿状血管腫の1例 大阪警察病院医学雑誌 13: 165-170,1989.
- 13) 滝波修一, 鈴木一史, 呉明仁: 巨大な血腫を伴った顎下部血管腫の1例. 臨床放射線 33: 613-616,1988.
- 14) 山本伸介, 吉川文弘, 安東利文: 顎下部に生じた静脈石を有する血管腫の1症例. 日本口腔外科学会雑誌 33: 403-407,1987.
- 15) 野口誠, 割田雄司, 曾田忠雄: [頭部疾患の臨床] 顎下部血管腫の2例. 医療 40: 1161-1164,1986.
- 16) 東野純也, 中川清昌, 藤元栄輔: 顎下部に発生した静脈性血管腫の1例. 日本口腔外科学会雑誌 32: 2059-2063,1986.
- 17) 寺井陽彦, 小野克巳, 中野良信: 顎下部および頬部に多数の静脈石の発生をみた1例. 日本口腔外科学会雑誌 32: 1244-1248,1986.
- 18) 空閑祥浩, 葉いく夫, 国谷好高: 静脈石を伴った顎下部海綿状血管腫の1例. 日本口腔外科学会雑誌 31: 1222-1227,1985.
- 19) 水田康雄, 大槻晃直, 吉松政喜: 静脈石を伴った頭頸部血管腫の3例. 耳鼻咽喉科臨床 78: 203-210,1985.
- 20) 川中敏正, 滝元徹, 杉盛恵: 頬部および顎下部静脈石2症例について 頭頸部静脈石の文献的考察. 耳鼻咽喉科臨床 77: 29-38,1984.
- 21) 峰松洋一郎, 石川武憲, 伊達岡陽一: 顎下部および頤下部にわたる深在性海綿状血管腫の1症例. 広島大学歯学雑誌 14: 57-62,1982.
- 22) 泉廣次: 顎下部に発生した静脈性血管腫の1症例 日口外誌 25: 152-156,1979.
- 23) 菱沼文彦, 藤崎隆三: 左顎下部静脈石の1例 耳喉 43: 469-472,1971.
- 24) 滝川富雄: 口腔外科領域のいわゆる血管腫に関する臨床病理学的研究 日大歯学 44:

489-501,1970.

25) 松田登: 顎下腺内結石の二型について 口外誌 9: 231-236,1963.

26) 長尾善景: 両側顎下部に発生した多数の静脈石を有する海綿状血管腫の一例 歯科学報 60: 390-397,1960.

27) McFarland JH: Congenital capillary angioma of the parotid. Consideration of similar cases in the literature. Arch Path 9: 820-827,1930.

28) 本名敏郎: II 疾患 5. 頭頸部腫瘍 2) リンパ管腫, 血管腫. In: 川城信子, Ed. 耳鼻咽喉科診療プラクティス 9. 小児の耳鼻咽喉科診療. 東京: 文光堂, 2002: pp 180-182.

29) 甲能直幸: 良性腫瘍 3. 血管腫. In: 犬山征夫, Ed. CLIENT21, 17 頭頸部腫瘍. 東京: 中山書店, 2000: pp 282-289.

30) Chuang CC, Lin HC, Huang CW: Submandibular cavernous hemangiomas with multiple phleboliths masquerading as sialolithiasis. J Chin Med Assoc 68: 441-443,2005.

31) El-Hakim IE, El-Khashab MM: Cavernous haemangioma of the submandibular salivary gland. Int J Oral Maxillofac Surg 28: 58-59,1999.

32) McMenamin M, Quinn A, Barry H et al: Cavernous hemangioma in the submandibular gland masquerading as sialadenitis: case report. Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod 84: 146-148,1997.

33) Son PM, Curtin HD: Head and neck Imaging.. In: Son PM, Brandwein M, Eds.. Salivary glands. 3rd ed. St. Louis: Mosby, 1996: pp 900-903.

34) Bowerman JE, Rowe NL: Haemangiomas involving the submandibular salivary gland. Br J Oral Surg 7: 196-201,1970.

35) Stevenson EW: Hemangioma of the salivary gland: review of the literature and report of a rare lesion in the submaxillary area. South Med J 59: 1187-1190,1966.

36) 久野吉雄, 東俊雄, 東野十三雄, 他: 静脈石を有した口腔底部血管腫の1例 口腔外会誌 15: 116-120,1969.

37) 高橋庄二郎, 渡辺甚一, 小宮善昭, 他: 静脈石を有する舌血管腫の一例 歯科学報 60: 390-397,1961.

38) Ribbert H: Die Phlebolithen. Virchows Arch 223: 339-350,1917.

39) 滝川富雄, 寺間正昭, 中島敏之, 他: 口腔外科領域のいわゆる血管腫に関する臨床病理学的研究 日大歯学 44: 489-501,1970.

40) 中井俊夫, 小島重信, 緒方芳郎, 他: 結石を有する深在性血管腫の1例 臨外 18: 1340-1342,1963.

41) 堂坂善弘, 酒井昇, 佐藤信清: 喉頭・下咽頭に発生した巨大な海綿状血管腫の2症例. 日本気管食道科学会会報 46: 318-322,1995.

42) 友田幸一, 岩井大, 中川浩伸: 耳鼻咽喉科と血管性病変 口腔・咽頭・唾液腺血管腫の診断と治療. JOHNS 11: 724-728,1995.

43) 天野康雄, 玉井仁, 片山信仁: 下咽頭血管腫の1例 MRI所見を中心として. 臨床放射線 35: 1427-1430,1990.

44) 桜井栄, 石坂敏男, 他: 耳下腺血管腫の一例 耳喉 46: 797-802,1974.

## 図表説明

### 図1 : 頸部CT検査

A : 単純CT 右正常顎下腺の外側に, 内部に小石灰化を伴い周囲との境界明瞭な30mm×26mmの筋肉とほぼ等吸収である腫瘍を認めた.

B : 造影CT 腫瘍の中央部分は造影効果を認めた. 頸部リンパ節腫脹を認めない.

### 図2 : 頸部MRI検査

A : T1強調像水平断 右正常顎下腺の外側に境界明瞭で正常顎下腺と比較して低信

号の腫瘍を認めた。

B：T2強調像水平断 右正常顎下腺の外側に境界明瞭で正常顎下腺と比較して高信号の腫瘍を認めた。顎下線との境界は明瞭であった。

C：ガドリニウム造影像水平断 ガドリニウム造影にて腫瘍の中心部は強い造影効果を認めた。顎下線との境界は明瞭であった。

D：ガドリニウム造影像前額断 ガドリニウム造影にて腫瘍の中心部は強い造影効果を認めた。頸部リンパ節の腫脹は認めない。

### 図3：摘出物

腫瘍は顎下腺に連続した暗赤色、易出血性のやわらかい腫瘍であった。周囲との癒着はほとんどなく顎下腺とともに一塊にして摘出した。腫瘍は顎下線と連続しており分離は不可能であった。腫瘍の内部に静脈石と考えられる白色の固い腫瘍を数個認めた。

### 図4：病理組織検査

静脈主体の脈管増生を認め、細胞異型はなく血管腫との診断された。腫瘍内部の石灰化した腫瘍は病理学的にも静脈石と考えられた。

A：弱拡大

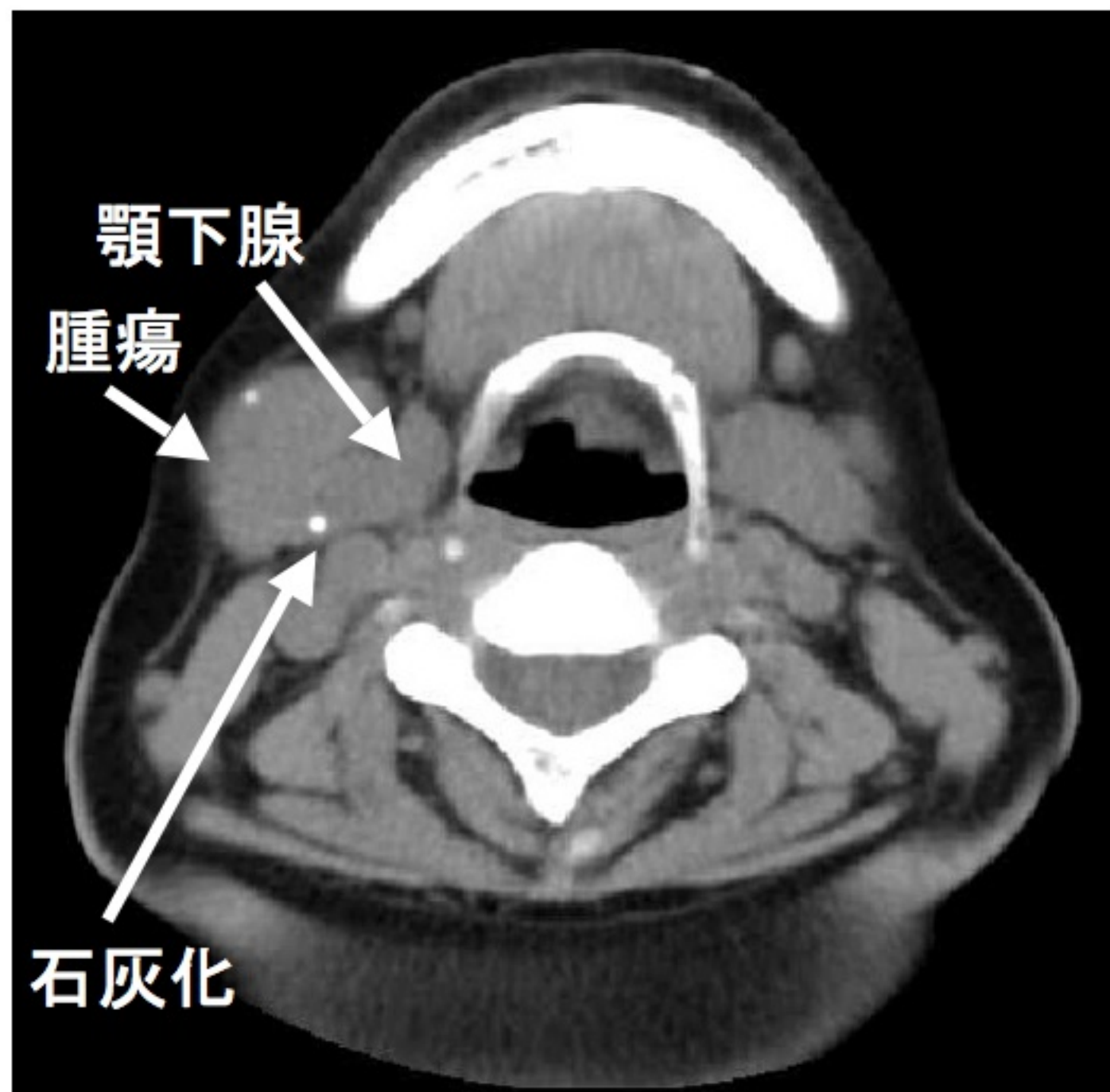
B：強拡大

顎下腺血管腫。旭川医大，石田芳也ほか Updated in 2006年 2月 16日

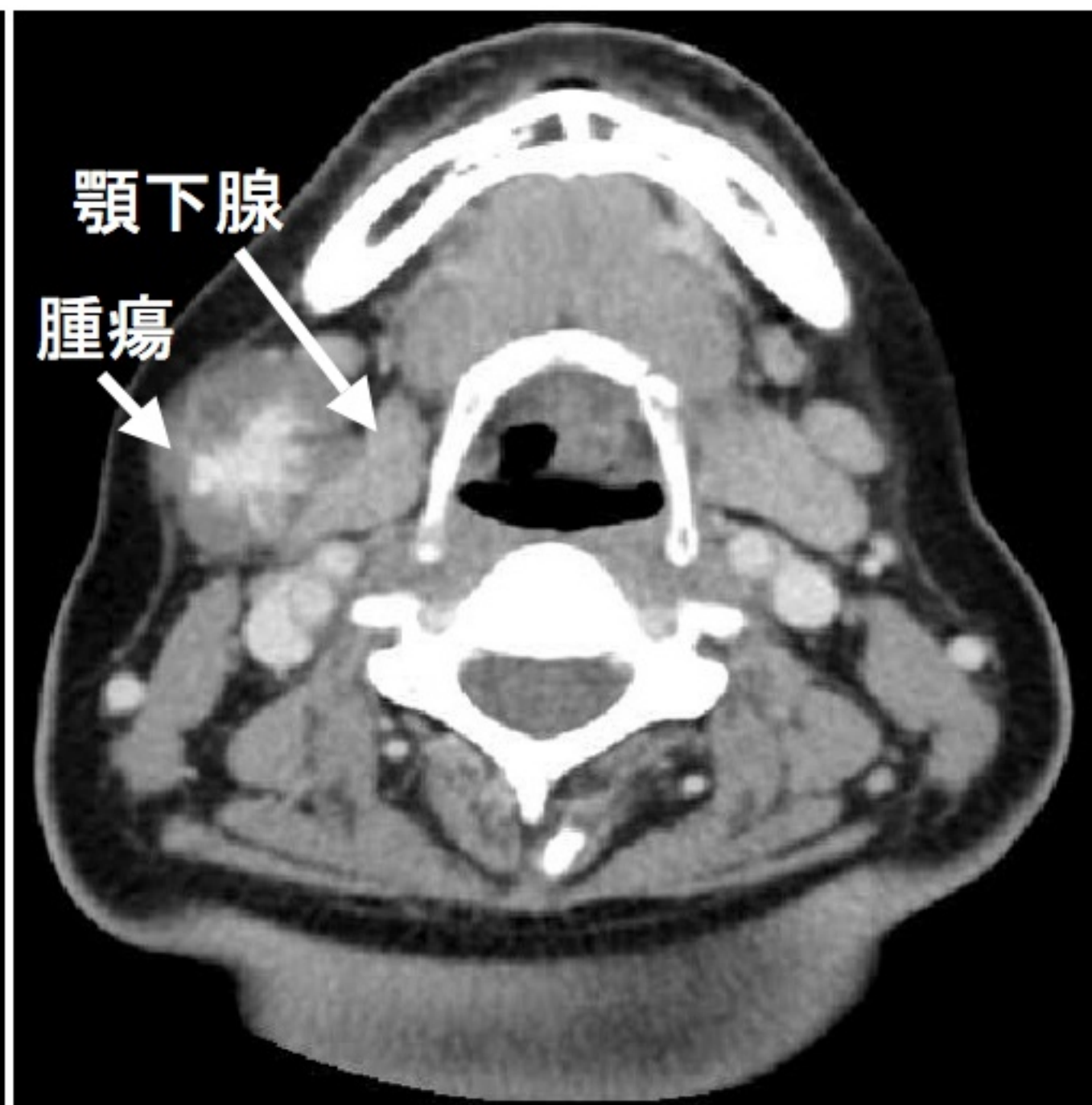
- 16 -



図1: 頸部CT検査



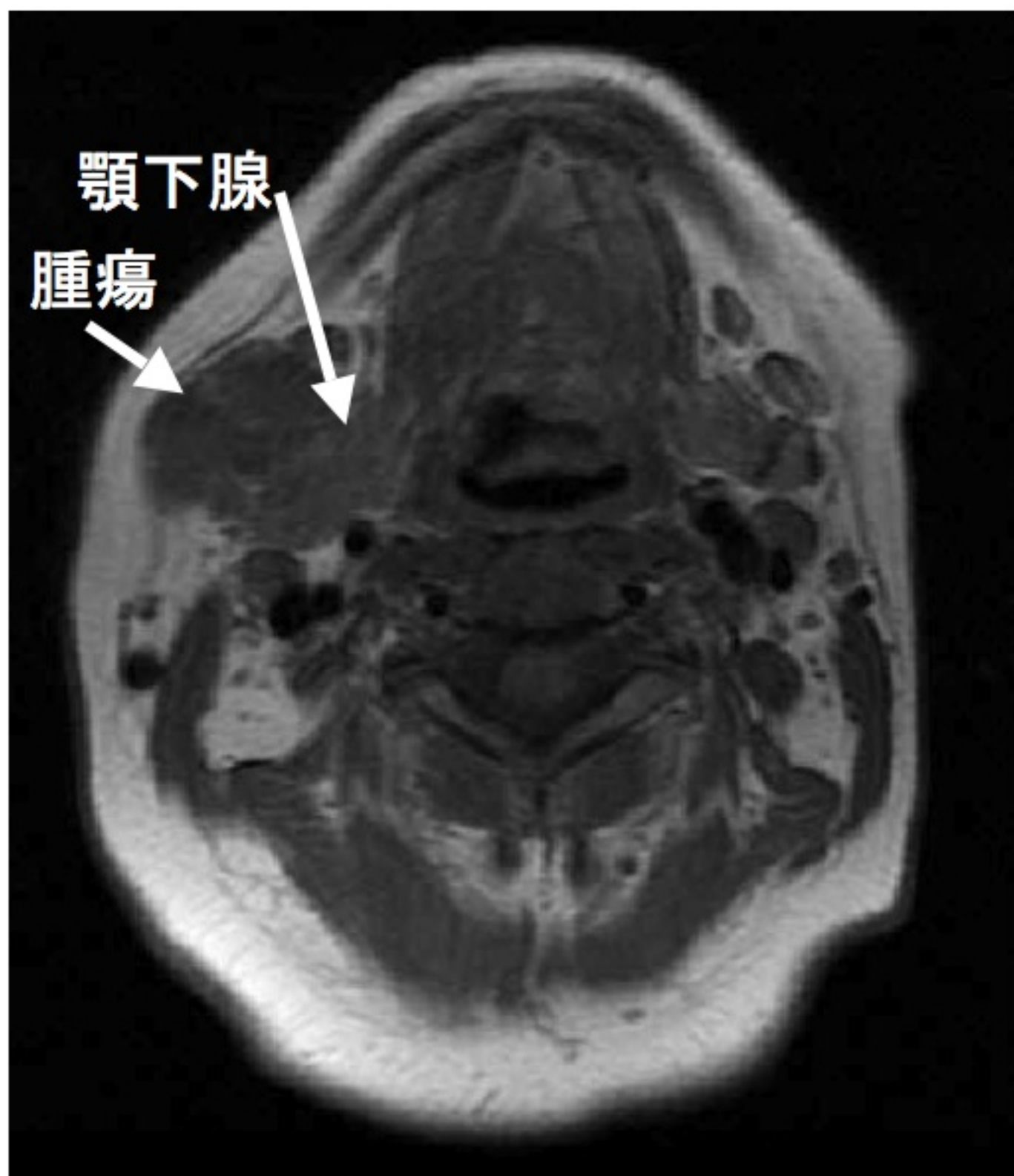
A: 単純CT



B: 造影CT



図2: 頸部MRI検査



A: T1強調像 水平断



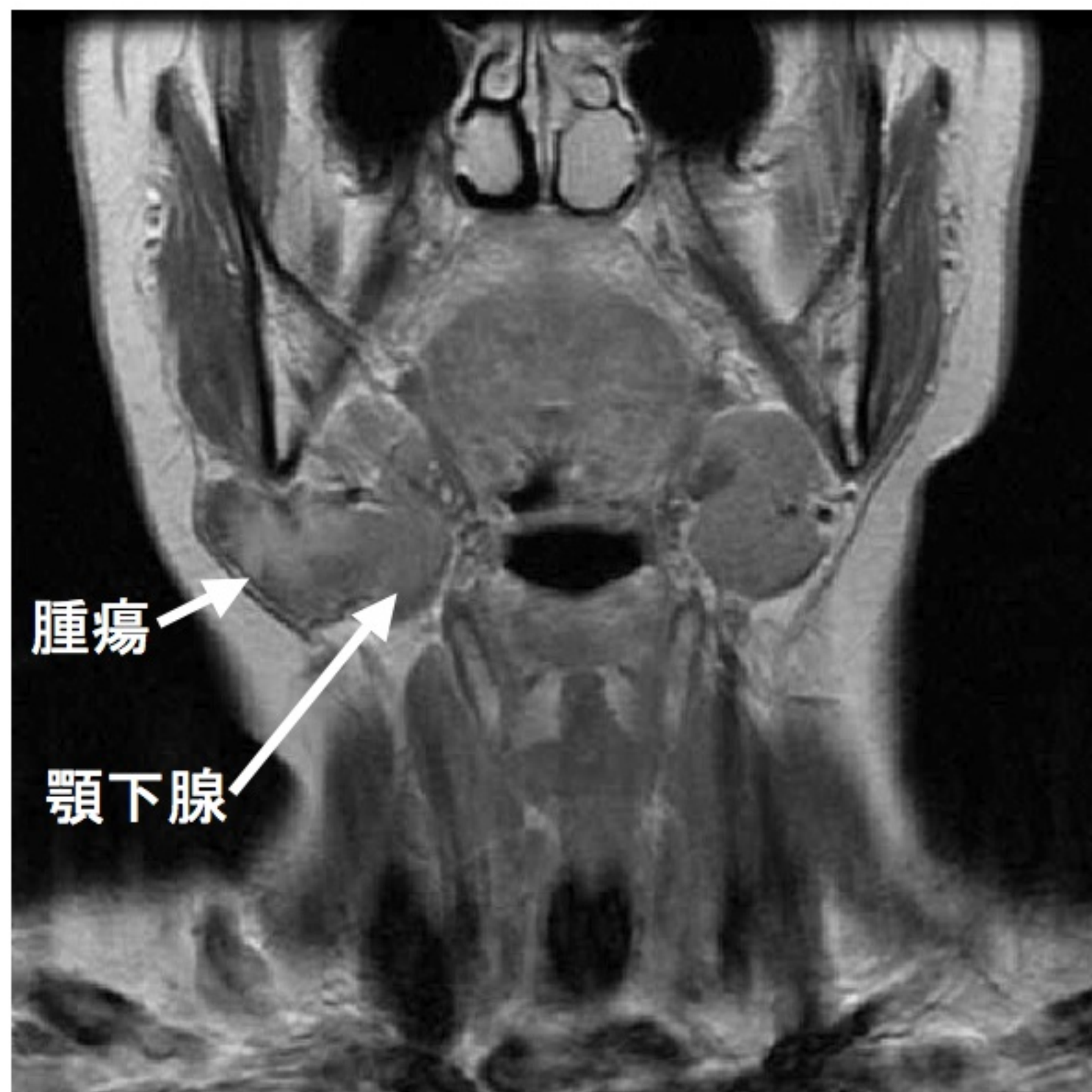
B: T2強調像 水平断

図2: 頸部MRI検査



C: ガドリニウム造影像 水平断

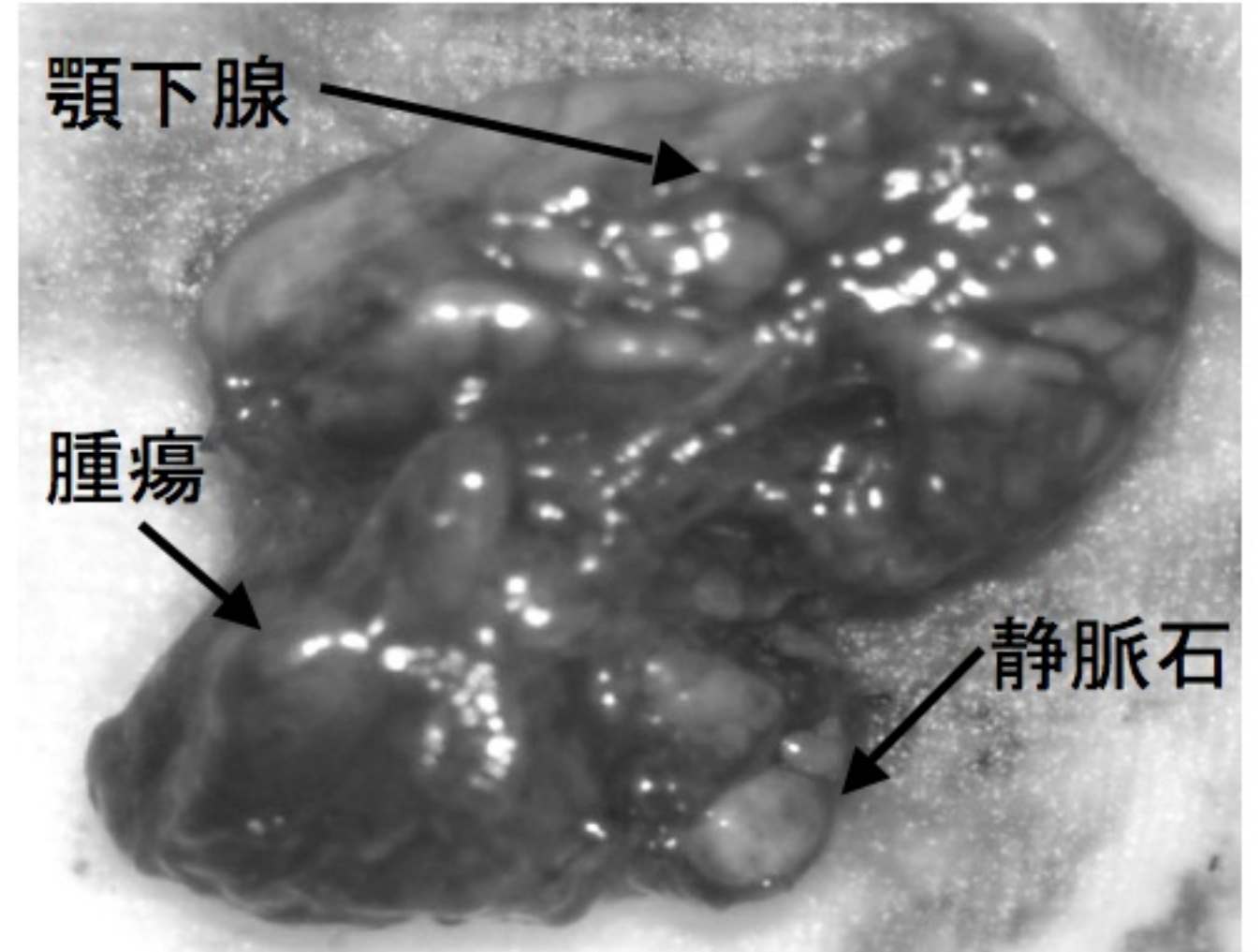
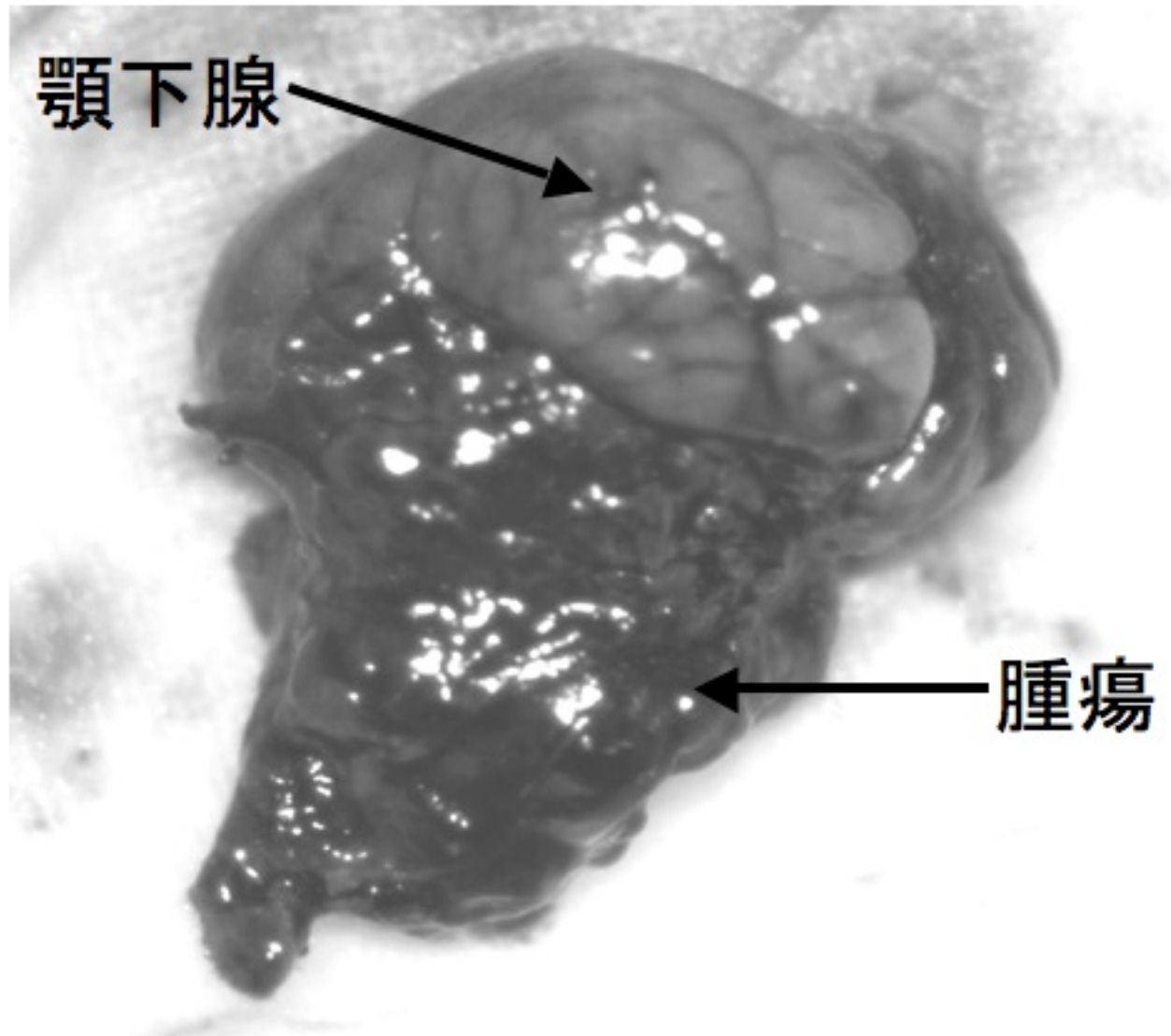
図2: 頸部MRI検査



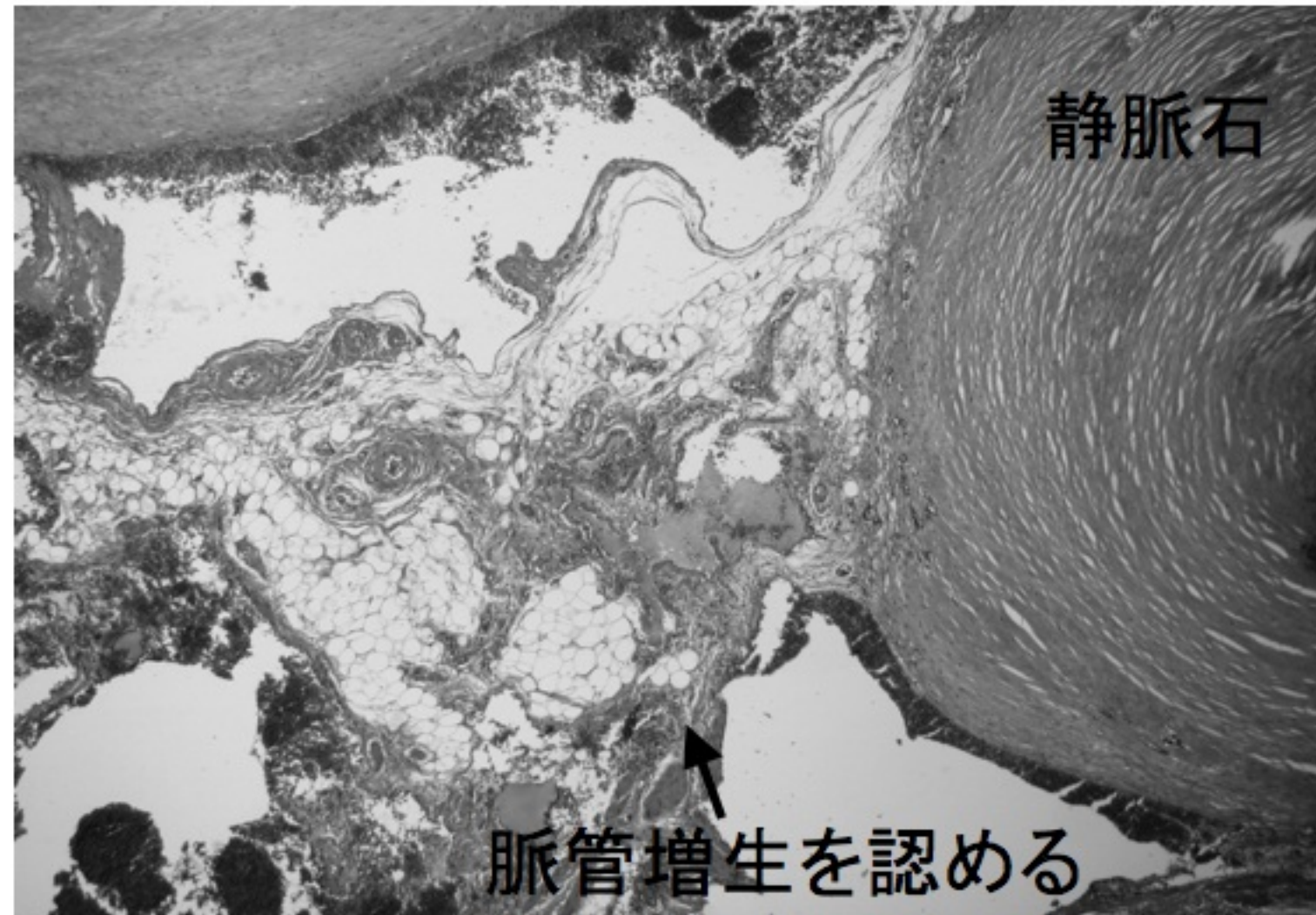
D: ガドリニウム造影像 前額断



図3: 摘出物



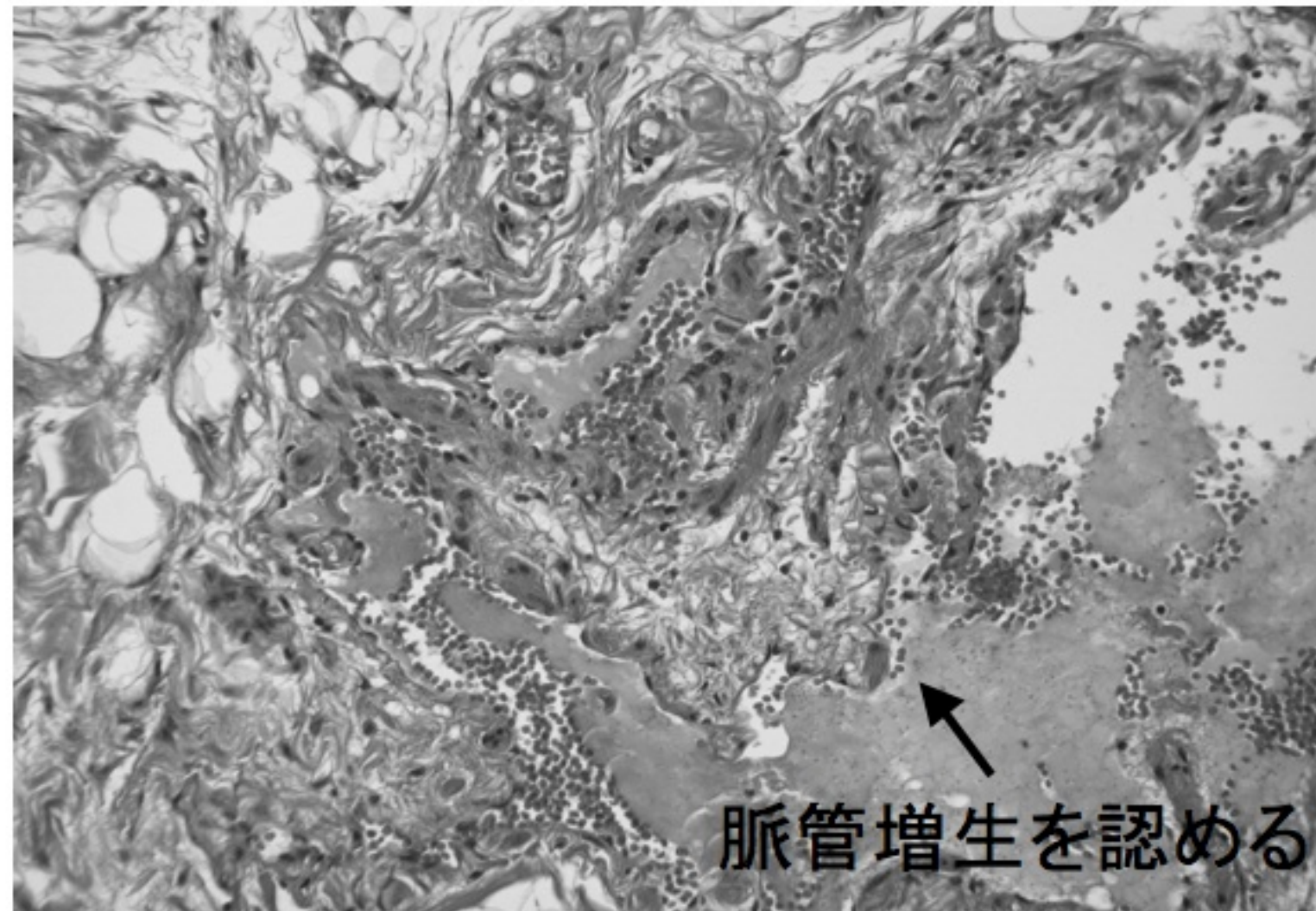
## 図4: 病理組織検査



A: 弱拡大



## 図4: 病理組織検査



B: 強拡大

表1: 顎下腺血管腫症例

番号	年齢	性別	病理組織	静脈石	治療	報告年	報告者
1	36	男性	海綿状血管腫	+	外科的摘出	1960	長尾
2	27	女性	單純性血管腫	+	外科的摘出	1963	松田
3	19	男性	海綿状血管腫	+	外科的摘出	1970	滝川
4	26	男性	海綿状血管腫	+	外科的摘出	1971	菱沼
5	24	男性	海綿状血管腫	—	外科的摘出	1979	泉
6	20	女性	海綿状血管腫	+	外科的摘出	1982	峰松
7	70	女性	海綿状血管腫	+	外科的摘出	1984	川中
8	16	女性	海綿状血管腫	+	外科的摘出	1985	水田
9	46	女性	海綿状血管腫	+	外科的摘出	1985	空閑
10	22	男性	血管腫	+	外科的摘出	1986	寺井
11	19	女性	海綿状血管腫	—	外科的摘出	1986	野口
12	54	男性	海綿状血管腫	+	外科的摘出	1986	野口
13	6	女性	静脈性血管腫	—	外科的摘出	1986	東野
14	16	女性	海綿状血管腫	+	外科的摘出	1987	山本
15	28	男性	海綿状血管腫	+	外科的摘出	1987	村上
16	16	女性	海綿状血管腫	+	無治療	1988	滝波
17	34	女性	海綿状血管腫	—	外科的摘出	1989	薬師寺
18	17	男性	静脈性血管腫	+	外科的摘出	1990	大沢
19	28	女性	海綿状血管腫	—	外科的摘出	1992	鈴木
20	42	女性	海綿状血管腫	+	外科的摘出	1997	村井
21	17	男性	海綿状血管腫	—	外科的摘出	1997	岡部
22	62	男性	海綿状血管腫	—	外科的摘出	1997	中村
23	43	男性	血管腫	+	外科的摘出	1999	塚本
24	50	男性	海綿状血管腫	—	外科的摘出	2001	澤津橋
25	46	女性	海綿状血管腫	+	外科的摘出	本症例	石田