

AMCoR

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

日本臨床外科医学会雑誌 (1993.08) 54巻8号:2029～2032.

顔面頰部に発生した血管平滑筋腫の1例

加藤一哉、松田 年、小野寺一彦、山下晃史、新居利英、
水戸迪郎、小林達男

症 例

顔面頬部に発生した血管平滑筋腫の1例

旭川医科大学第2外科 (主任: 水戸迪郎教授)

加藤 一哉 松田 年 小野寺 一彦

山下 晃史 新居 利英 水戸 迪郎

北見小林病院

小林 達男

56歳男性の右顔面頬部に発生し、部位的に非常に稀な血管平滑筋腫の1例を報告した。腫瘍は、自発痛、圧痛なく、組織学的には境界明瞭な線維性被膜に被われ腫瘍内部には拡張した血管腔が多数見られた。

またElastica Van Gieson 染色で黄色に、Masson 染色で赤色に染まり、M. buccinator より発生した血管平滑筋腫と診断された。本症は頬粘膜下組織に機械的因子が加わって発生したと考えられ、その発生機序に関し興味深い症例と思われた。

索引用語: 血管平滑筋腫, 頬粘膜下組織, M. buccinator

結 言

血管平滑筋腫は、多くは30~50歳の女性の下腿に好発する有痛性の良性腫瘍である¹⁾。今回われわれは、歯による頬粘膜の咬傷後に頬粘膜下に徐々に増大し部位的に非常に稀であり、かつその発生機序において非常に興味ある血管平滑筋腫を経験したので報告する。

症 例

症例: 56歳, 男性。

主訴: 右顔面頬部腫瘍。

家族歴: 特記すべきことなし。

現病歴: 初診1年前に咀嚼にて右頬粘膜を咬傷した。その後粘膜下血腫ができるも放置していたところ徐々に増大し、硬度も増し腫瘤を形成してきたため来院した。

入院時現症: 右頬部に最大径3cmの弾性硬の可動性の少ない腫瘤が存在した。腫瘤は頬粘膜とは、可動性を持っていた。頬部皮膚、頬粘膜の色調の変化、顔面の運動障害、および知覚障害等は認められなかった。

入院時検査所見: 血液、生化学、腫瘍マーカー等の異常値は認められなかった。

超音波検査 (Fig. 1): 頬部に被膜により周囲とは明瞭に境界される実質性かつ内部エコーの均一な腫瘤を認めた。

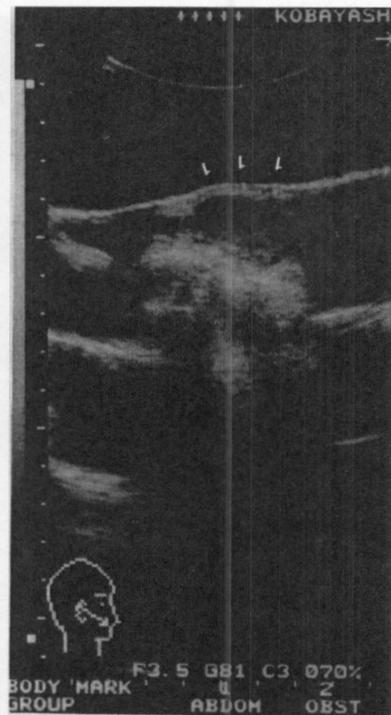


Fig. 1 Computed Tomography: The tumor located in the mandibular buccal sulcus.

Computed Tomography (CT) 検査 (Fig. 2): 右頬部に M. masseter の前方, M. buccinator に接し直

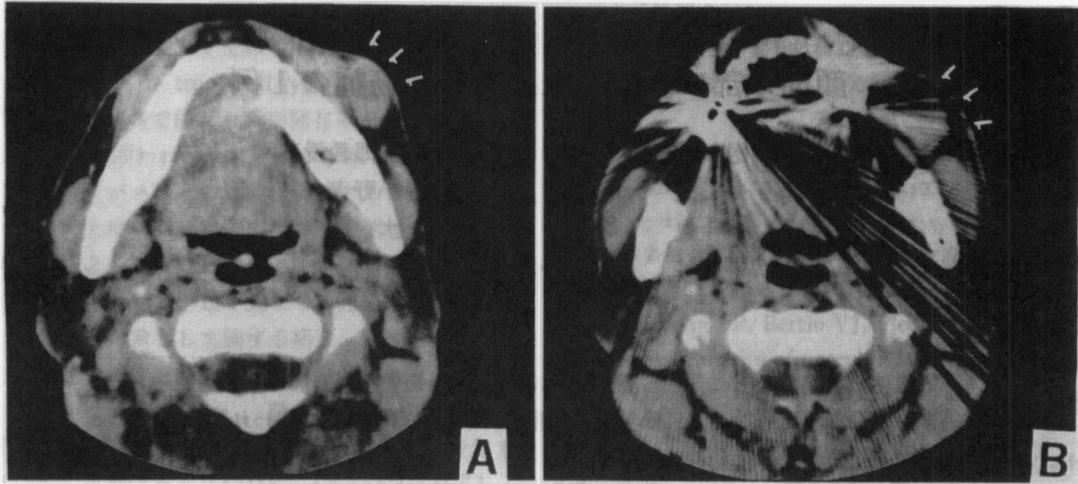


Fig. 2 Ultrasonogram : The tumor was well capsulated and was recognized as a isoechoic solid mass.

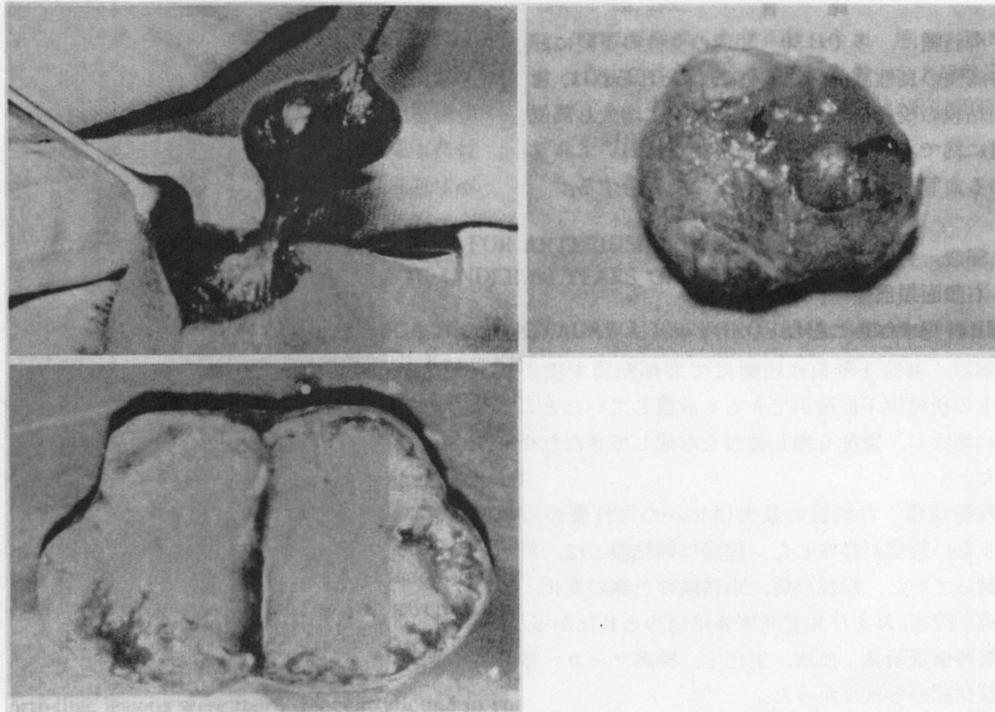


Fig. 3 A : Operative findings ; Feeding vessels were from the buccinator muscle. **B, C : Resected specimen ;** The tumor excised 3.0×2.0×2.5cm in size and was well capsulated.

A	B
C	

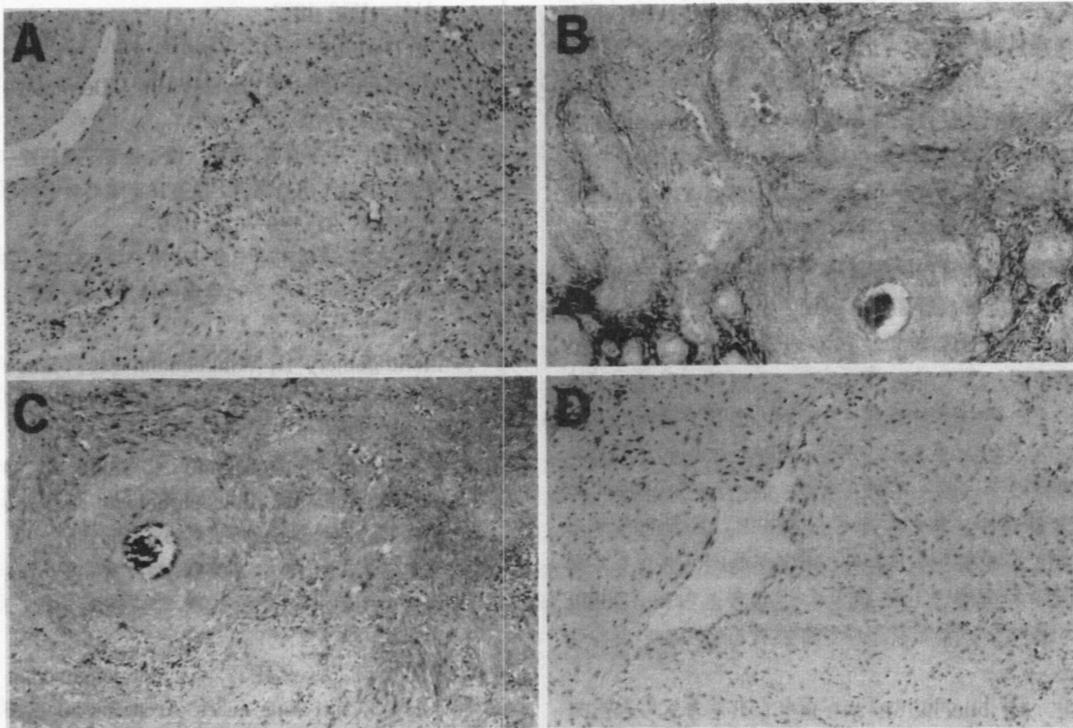


Fig. 4 Microscopic findings: A: The tumor is composed of interlacing smooth muscle fibers with elongated, cylindrical, bluntended nuclei. Numerous vascular spaces were surrounded by proliferating smooth muscle bundles (Hematoxylin and eosin stain, $\times 100$). B: Cytoplasm of smooth muscle fibers stains yellow and interspersed between groups of muscle fiber is a dense collagenous network that stained red by Elastica Van Gieson's stain ($\times 100$). C: Masson's trichrome stain supported the smooth muscle origin ($\times 100$). D: S-100 protein stain shows no nerve elements in the tumor ($\times 400$).

径3.0cmの低濃度の腫瘍を認める。内部は均一であり、石灰化等は認められない。全身麻酔下に頬部皮膚に切開を加え M. buccinator に接して存在する腫瘍を摘出した。腫瘍には、栄養血管と思われる流入血管が M. buccinator より連続性をもって存在した (Fig. 3A)。腫瘍は、表面平滑でやや凹凸不整があり $3.0 \times 2.0 \times 2.5$ cm であり、その断面は黄白色で中心性壊死等の所見は認められなかった (Fig. 3B, 3C)。

病理組織学的所見 (Fig. 4)：腫瘍は、線維性被膜に被われ大小多数の管腔とこの管腔を取り囲む錯綜する線維成分よりなっていた (Fig. 4A)。Elastica Van Gieson 染色では、腫瘍細胞は黄色に染まりまた赤く染まる膠原線維が存在した (Fig. 4B)。Masson 染色では、紅色に染まる平滑筋線維と青色に染まる膠原線維が混在していた (Fig. 4C)。また S-100 蛋白染色では腫瘍内には陽性を示す神経線維は認められなかった

(Fig. 4D)。

考 察

血管平滑筋腫は、一般に30～50歳代の女性の四肢、特に下腿に有瘤性の結節として認められる¹⁾。本邦における報告例は現在までに350例以上が報告され²⁾、その臨床所見および病理学的検討については詳細な報告がある^{3)～6)}。

発生部位については、四肢が多く顔面に発生するのは少ない⁷⁾⁸⁾とされており、本症例のように頬粘膜下組織近傍に発生するのはきわめて稀であり検索しうる限り本邦4例目の症例と思われる⁹⁾。

血管平滑筋腫の特徴的な臨床症状は、疼痛であるが顔面に生じるものは無痛性のことが多いとされ、本症例の場合も無痛性であった。疼痛の原因については諸説¹⁰⁾があり、腫瘍内の神経線維の有無が関係するとされる報告もある¹¹⁾。本症例では S-100 淡白染色を施

行したところ、腫瘍内に神経線維は認められなく本症例が無痛性腫瘍であったことと一致する所見であった。

病理組織学的には、その構築の違いから、①毛細管型、②静脈型、③海綿型と分類され¹⁾、四肢発生例では、静脈型が多いとされている。本症例の場合は、血管腔が大きくこれを筋線維が厚く取り巻き、血管壁を構成する筋線維と血管の間を錯綜する筋線維とが明らかに区別でき典型的な静脈型と診断された。

また本症の本体については、一般に、①真性腫瘍説、②過誤腫説、③平滑筋増殖を伴った血管奇形説などがあり、その発生母地は皮下の静脈の血管平滑筋に由来することが多いとされる¹¹⁾¹⁰⁾。さらにその発生誘因として静脈のうっ血、外傷、感染、血栓などの機械的因子が影響すると考えられている¹¹⁾¹⁰⁾。本症例の場合は、歯による頬粘膜下組織の損傷が発端でありその機械的因子を契機として発生したと考えられ、Duhigら¹⁰⁾の報告を支持するもので興味をもたれるところであった。

以上、M. buccinatorより発生したと考えられた非常に稀有な血管平滑筋腫の1症例を報告した。

文 献

- 1) 森本豊夫：血管筋腫(血管性平滑筋腫)の臨床病理学的研究。鹿児島大医誌 24: 663—688, 1973
- 2) 柿沼 寛, 徳橋和子：血管平滑筋腫の2例。皮の臨 28: 549—552, 1986
- 3) 石川千鶴子, 北村則子, 野波英一郎：Angio Leiomyomの8例と本邦例の総括。皮の臨 19:

1111—1118, 1977

- 4) McDonald DM, Sanderson KV: Angioleiomyoma of the shin. Br J Dermatol 91: 161—168, 1974
- 5) 木村俊次, 甲原資秀, 篠野 倫：血管平滑筋腫—血管腔に富む1例の報告と最近18年間の教室例の検討。臨放 33: 619—625, 1979
- 6) 宮入宏之, 諸橋正昭：血管平滑筋腫—特異な組織像を呈した1例とその電顕的検討。皮の臨 26: 431—436, 1984
- 7) Montgomery H, Winkelmann RK: Smooth-muscle tumors of the skin. Arch Dermatol 79: 32—41, 1959
- 8) Hachisuga T, Hashimoto H, Enjoji M: Angioleiomyoma: A clinicopathologic reappraisal of 562 cases. Cancer 54: 126—130, 1984
- 9) 波床光男, 井上健夫, 設楽幸伸他：頬粘膜下に生じた血管平滑筋腫の稀な1例。形皮外科 34: 395—398, 1991
- 10) Duhig JT, Ayer JP: Vascular leiomyoma. A study of sixty-one cases. Arch Pathology 68: 425—430, 1959
- 11) Manger D, Hill DP: Encapsulated angioleiomyoma of the skin and subcutaneous tissue. Am J Clin Pathol 35: 137—141, 1961
- 12) Stout AP: Solitary cutaneous and subcutaneous leiomyoma. Am J Cancer 29: 435—469, 1937

A CASE REPORT OF ANGIOLEIOMYOMA IN THE MANDIBULAR BUCCAL SULCUS

Kazuya KATO, Minoru MATSUDA, Kazuhiko ONODERA, Akifumi YAMASHITA,
Toshihide ARAI and Michio MITO

Second Department of Surgery, Asahikawa Medical College

Tatsuo KOBAYASHI

Kobayashi Hospital

Angioleiomyomas are usually found in the extremities, and those on the face are infrequently encountered. A 56-year-old man presented with a tumor in the mandibular buccal sulcus. The tumor slowly enlarged after buccal submucosal injury and elevated as a nodule without pain. The tumor was well encapsulated and was composed of smooth muscle fibers and many vessels. Pathological diagnosis was angioleiomyoma by Elastica Van Gieson's stain and Masson's stain. No nerve fibers were found in the tumor by S-100 protein stain. Interestingly, the tumor might arise from the buccinator muscle after the mechanical injury of buccal submucosal tissue.