成人の頬部リンパ管腫症例

矢野原邦生・加藤 昭彦・宮原 幸則

山田 弘之*

Cavernous Lymphangioma of the Cheek in an Adult Woman

—A Case Report—

Kunio Yanohara, Akihiko Katoh and Yukinori Miyahara

(Yamada Redcross Hospital)

Hiroyuki Yamada

(Mie University)

A 28-year-old female had complained of left cheek swelling since 15 year of age.

The swelling gradually increased this year, and she wanted therapy for cosmetic reasons. It was very difficult to separate the tumor from the facial nerve because of its invasive nature. Facial nerve palsy continued for two months after the operation. Prior to the operation, echograms and computed tomography were helpful in evaluating this tumor.

Key words: cavernous lymphangioma of the cheek, surgical treatment, facial nerve palsy

はじめに

リンパ管腫は、一般に乳幼児期に発症することが多く、その代表的なものが、cystic lymphangioma (cystic hygroma) として、知られている。我々は、比較的稀な成人の頬部リンパ管腫を、手術的に治療する機会を得たので、文献的考察を加えて報告する。

症 例

症例：28才，女性。

主訴：左頬部腫脹。

既往歴，家族歴：特記すべきことなし。

現病歴：15才頃より左頬部の軽度腫脹に気付いていた。腫脹は徐々に増大し，18才の時某病

院を受診し，諸検査を受けた。しかし医師より，手術に自信がないと言われたため，その後は穿刺排液をくり返していた。昭和62年に入ってから，さらに腫脹の増大をみたため当科を受診した。

現 症

初診時，左頬部に55mm×50mmの囊腫状腫脹を触知した（図1，2）。穿刺液は茶褐色透明で，少量の血液が混入していた。舌，口唇，頸部には異常所見を認めなかった。

超音波検査では，cystic pattern を示すが，内容物は均一質なものではないと考えられた（図3）。

図1 左頬部腫脹

図2 同 側面

図3

CT像では、左耳下腺前方に、咬筋と接して卵円形の腫瘍が存在した。耳下腺直前では、周囲との境界は明瞭であるが、前方鼻側になる

と、咬筋との境界が、やや不明瞭となっていた(図4)。

血管腫と鑑別するため、外頸動脈造影を行っ

図4

図5

図 6

図 7

図 8 腫瘍 (矢印短)
顔面神経本幹 (矢印長)

図 9

た結果、腫瘍は血流に乏しく、血管腫は否定された(図5)。

MRI では、本症例の場合、質的診断上の情報は得られなかった(図6)。

手術所見

口内法による摘出は不可能と考えられた。そこで、皮膚切開は、耳下腺腫瘍の手術に準じ、左耳前部から下顎正中に至るS状切開とした(図7)。型通り顔面神経本幹を露出し、それに沿って耳下腺浅葉を前方へと剝離翻転していくと、耳下腺前方に、表面平滑な円形の腫瘍を認めた(図8)。CT所見のごとく、耳下腺との境界は明瞭で、容易に剝離可能であった。しかし腫瘍を前方へ剝離していくと、顔面神経との癒着が徐々に強度となり、遂には剝離不能となったため、止むなく顔面神経頰骨枝の一部を切断し、腫瘍とともに摘出した。

組織診断(図9)

摘出した腫瘍の組織所見は、多房性で多くの隔壁を有していた。各々の房は互いに交通しており、それ程大きくはなく、cavernous lymphangioma と診断された。

phangioma と診断された。

術後経過

術直後は、顔面神経下顎枝、頰枝を中心とした広範な神経麻痺を認めた。麻痺は退院時にもほとんど不変であった。しかし1カ月後来院時に下顎枝の麻痺は改善しつつあり、2カ月後来院時には、ほぼ完全な回復がみられた(図10)。術後10カ月を経過した現在、腫瘍の再発は認めない。

考 按

リンパ管腫は現在のところ、先天性の腫瘍と考えられており、その50~65%は出生時すでに存在し、80~90%は2才までに発見される¹⁾。我々の症例は15才から18才頃に腫脹が現われており、発症時期の上からも稀な症例である。従来報告されてきた諸家の報告も、そのほとんどが乳幼児期についてのもので、成人について述べた報告は極めて稀である²⁾。先天性疾患と考えられる腫瘍が、なぜ突然ある年齢になって増大するのかは不明である。Schefter²⁾らの32例の報告では、腫瘍が急に増大する原因と考えられるような、外傷、感染は認められていない。

lymphangioma は病理組織的に、capillary lymphangioma, cavernous lymphangioma, cystic lymphangioma (hygroma) の3つのグループに分類されることが多い。しかしEnzinger ら³⁾は、capillary lymphangioma の存在そのものを疑問視するとともに、cavernous lymphangioma と cystic lymphangioma についても、これらは単に cyst の大きさによる名称であり、両者は本質的には同一のもので、両者は混在することも多いと述べている。また Bill ら⁴⁾によれば、両者の差は、その存在する部位の解剖学的差異により生じる。つまり首、腋窩などの結合組織が疎な部位に出来た場合、cyst は大きくなり、口腔、口唇、頰部、舌などのような、結合組織が密な場所に出来た場合は、cyst の増大は阻害され小さいまま止まると言う。

図10

診断法としては、超音波診断が質的診断法として有用であった。病歴、発生部位、超音波による **cystic pattern** の確認、茶褐色透明の穿刺液を認めれば診断は比較的容易である。本症例の場合CT検査は、腫瘍の周囲組織への浸潤を知る上で役立った。血管造影は、血管腫を否定するために行ったが、上記諸検査を行っておれば、診断上さほど有用な情報をもたらすものではない。MRI は本症において、診断上の有用性は認められなかった。

治療法には、手術療法とブレオマイシンによる硬化療法がある。硬化療法は確実な効果は得られないが、ブレオマイシンの量に注意すれば副作用も少ないため、**risk** の高い乳幼児に対し試みることを勧める意見もある⁵⁾。リンパ管腫、特に頰部に発生したリンパ管腫の手術療法を行う際に、最も重要かつ頻度の高い合併症は、顔面神経麻痺である⁵⁾⁶⁾。とりわけ **cavernous lymphangioma** は軟部組織に侵入する傾向が強く、本症例のようにやむなく神経を切断して、腫瘍の全摘出を計らねばならない場合も起り得る。成人のリンパ管腫を摘出する主たる目的は、美容上の問題である点を考えれば、術後の永久的顔面神経麻痺は、絶対起してはならない合併症である。しかし、本腫瘍の性質上、麻痺の発生頻度が他の良性腫瘍に比べて極めて高いことを念頭におき、術前に充分な患者の了解を得ることが必要である。

まとめ

- 1) 比較的稀な、成人の頰部リンパ管腫症例を報告した。
- 2) 術前検査では、超音波検査、CTが有用であった。
- 3) 本腫瘍は軟部組織への侵入傾向が強いため、術後性顔面神経麻痺を発生する可能性が高い。

本論文の要旨は第50回日耳鼻東海地方部会連合講演会で発表した。

参考文献

- 1) Emery PJ, et al : Cystic hygroma of the head and neck—a review of 37 cases—. J Laryngol Otol 98 : 613~619, 1984.
- 2) Schefter RP, et al : Cervical lymphangioma in the adult. Otolaryngol Head Neck Surg 93 : 65~69, 1985.
- 3) Enzinger FM, et al : Soft tissue tumors. pp 482~491, Mosby, 1983.
- 4) Bill AH, et al : A unified concept of lymphangioma and cystic hygroma. Surg Gynecol Obstet 120 : 79, 1965.
- 5) 秋山 洋 : 嚢胞状リンパ管腫の治療における合併症. 小児外科 17 : 483~487, 1985.
- 6) 前田華郎 : 顔面、口腔内リンパ管腫の治療とその成績. 小児外科 16 : 961~965, 1984.

(原稿採扱：昭和63年2月24日
別刷請求先：矢野原邦生
〒516 三重県度会郡御園村大字高向810
山田赤十字病院耳鼻咽喉科)