巨舌を呈した新生児頤下部リンパ管腫 の一症例

寒川 高男・田端 敏秀

Neonatal Lymphangioma

—A Case Report—

Takao Samukawa and Toshihide Tabata

(Wakayama Medical College)

A 3-day-old girl, with tumor of the chin was examined in our clinic. The tumor grew rapidly and enlarged to occupy the floor of the mouth. Severe dyspnea was noted. Surgical removal of the tumor was planned to improve her dyspnea. However, it could not be removed completely because of widespread invasion of the adjacent tissues. The histological findings were those of lymphangioma. Local injections of bleomycin into the residual tumor eliminated the tumor and there have been no recurrences.

Key words: lymphangioma, neonate, neck

はじめに

リンパ管腫は、耳鼻咽喉科領域では比較的稀な疾患で、組織学的には良性腫瘍に分類されているが、発生部位によっては臨床治療が極めて困難な場合がある^{1)~4)}。それは、小児に多く発生し、頭頸部という解剖学的に複雑な部位に好発し、周囲の正常組織に浸潤し完全摘出がしばしば困難であること、したがって術後再発、術後神経障害、術後リンパ漏などの術後合併症が認められることや、術後管理上の困難さなどによる⁵⁾。

今回、我々は頤下部より口腔底に発生したリンパ管腫により巨舌を呈し、呼吸困難、哺乳困難を来した症例を経験したので報告する。

症 例

患者：生後3日、女児

主訴：口腔底の腫脹

現病歴：正期出産。生下時より口腔底正中部に囊腫様腫瘍が認められ、次第に増大し生後3日目に哺乳困難が生じたため当科を紹介された。

検査所見：血液その他異常を認めず。

局所所見：舌下部正中より口腔底にかけてやや蒼白の弾性軟の囊腫様腫瘍が認められた。穿刺により暗赤色の穿刺液が得られた(図1)。頤下部に軽度のびまん性腫脹があり、約1cm大の腫瘍を触知した。

経過：初診時、軽度嚥下困難があるも、呼吸困難はなく、生直後でもあり経過観察を行って

いたが、1週間後、腫瘍は増大し、舌は口腔内を充満、暗紫色にうっ血腫脹をきたし、舌と腫瘍との境界が不明瞭となった。エコーでは、 $16 \times 10\text{mm}$ の囊胞が認められた。CTでは、頤下部より口腔底にびまん性の low-iso density area が認められた(図2, 図3)。ついで巨大舌による気道閉塞が出現しはじめた。そこで、舌の壊死および腫瘍増大による窒息をも考慮し、全身麻酔下で手術を行った(図4)。

手術所見：顎下部に横切開を入れ、剝離をす

めると浅頸筋直下より口腔底粘膜に至る大小不同の多胞性の囊腫が多数認められた。囊腫は周囲正常組織に入り込み、左顎下腺にもおよんでいたため、これを含めて摘出した。しかし、各種の術後機能を考慮し不完全摘出を余儀なくされた。囊腫の内容物は淡黄色の漿液よりなっていた(図5)。術中囊腫を摘出するにしたがい舌の腫脹は漸次減少し、暗紫色が明赤色になったので、舌のうっ血は両側舌静脈圧迫によるものと考えられた(図6)。

病理組織学的所見：一部に血管リンパ管腫を

図1 矢印は、腫瘍を示す。

図2 Echo 像

図3 CT所見(矢印腫瘍)

図4 手術時における腫瘍
初診時に比し著大な増大がみられる。

認める海綿状リンパ管腫で、腫瘍は一層の内皮細胞に覆われ、内容はリンパを含み、多数の拡張したリンパ管が認められた(図7)。

図5 多胞性腫瘍を認む(矢印)。

図6

図7 多くの大小不同の腫瘍がみられる。
10×10 H.E 染色

術後経過：術後、舌の腫脹のため気管内挿管を約40日続けざるを得なかった。その後、経過良好となったので抜管し、哺乳訓練を行っていたが、術後50日目に感冒に罹患し呼吸困難が再度出現、右顎下部の残存腫瘍が増大したため再挿管の上、プレオマイシンによる硬化療法を試みた。3mg局注、2週間後に、1.8mg追加したところ腫瘍は縮小傾向を示した。しかし、その2週間後、再び感冒様症状とともに増大したため、さらに2mg、4週間後に2mg追加投与した。これにより腫瘍は縮小し、抜管も可能となり、呼吸困難も消失し、全身状態の改善を見た。術直後より認められた左口角部の麻痺はほぼ回復した。今後哺乳訓練を含め観察していく必要がある。

考 按

小児リンパ管腫の治療法には、大別して手術療法と保存的療法がある。手術療法では、手術時期が問題となる。山本ら⁵⁾は、局所の安静、手術野の確保、術後に残るであろう手術瘢痕の消長、患児および家族の精神面への影響を考え、幼児期が最適としている。しかし、由良ら⁶⁾は、放置するほど腫瘍は増大し周囲組織に強く浸潤してますます切除が困難になるばかりか、嚢胞の感染、呼吸障害等が発生したときの危険性を考えると早期摘出が望ましいが、同時に年少であればあるほど微細な嚢腫の切除は困難で、特に新生児や未熟児では手術に際して副損傷、感染性合併症が容易に起こるので、可能ならば、生後4～6カ月に手術することが望ましいとしている。また、Grabb⁷⁾は、自然治癒も認められることが多いので症状のないリンパ管腫は4才以降まで手術をせずに吸引を行ったりして経過を見るべきであるとしている。本症の自然治癒に関しては、ほとんど認められないとされていたが、最近、中篠⁸⁾は、観察を行った25例中、不変が4例、縮小14例、ほとんど治癒4例、完全治癒3例であったとし、自然治癒する例も有り得るとしている。

著者らは、基本的には浸潤傾向が強く、増大

傾向の著しい頸部リンパ管腫では、手術手技の困難さを考慮しても1才までには摘出した方がよいと考えている。中篠⁸⁾は、手術の絶対適応として、1) 開眼不能の眼瞼病巣、2) 気管内挿管の困難な舌下部病巣、3) 血管、気管を圧迫する危険性の高い縦隔病巣を挙げている。

次いで、保存的療法には、ブレオマイシンの局注療法がある。本法としては、本剤を水溶性として用いる方法と、エマルジョンとして用いる方法⁹⁾の2つがあり、前者がよく用いられている¹⁰⁾。この療法は、嚢胞内やその周囲組織にブレオマイシンを注射して、その消失を計ったり、呼吸困難や嚥下困難のある症例に一時的に気管内挿管や胃チューブを挿入し、気道や栄養を確保しつつ、本剤で腫瘍の縮小を計り、手術適応を再検討する方法である。本法は通常、本剤を生食で1 mg/mlの濃度に溶解し、1回投与量は1 mg/kg以内にし、部位を決めて週1~2回を数回に分割して局注する。注射時の疼痛に対しては、予め同部に局麻剤を浸潤させてから行うこともある。投与総量は5 mg/kg以内にすべきとの意見が多い。しかし中篠⁸⁾は、6 mg/kgで本剤の副作用である肺線維症がみられ、その後1年休業して再開できた症例を報告している。その他の副作用としては、世良¹¹⁾は、本剤による神経損傷を指摘している。本療法を行うに際し充分留意すべき点であろう。しかし、喉頭、咽頭、食道付近に浸潤のみられる症例では、手術による反回神経麻痺をきたす可能性が高く、本療法が極めて有用であるとする考えもある。さらに、由良⁶⁾は、ブレオマイシンの術後使用例で、創からのリンパ漏の早期停止をみたと報告している。

以上、本疾患に対しては、完全摘出が期待できる症例や前述の中篠らの絶対的手術適応の場合は、手術療法が優先すると考えているが、完全摘出が期待できない症例や不幸にして不完全摘出に終わった症例に対してはブレオマイシン局注療法¹²⁾は試みるべき療法の1つと考えてい

る。

結 語

著者らは、新生児の頤下部に発生したリンパ管腫で、手術を行うも、完全摘出が不能で術後ブレオマイシン局注を行い、奏効を得た症例を経験したので、その詳細について報告した。

文 献

- 1) 世良好史, 他: 頸部巨大嚢胞状リンパ管腫の治療とその成績. 小児外科 16: 945~951, 1984.
- 2) 長谷川史郎, 他: 頸部巨大嚢胞状リンパ管腫の治療とその成績. 小児外科 16: 953~959, 1984.
- 3) 鶴賀信篤, 他: 嚢胞状リンパ管腫の治療とその成績. 小児外科 16: 939~943, 1984.
- 4) 前田華郎, 他: 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.
- 5) 山本真由美, 他: 小児リンパ管腫の臨床, 病理学的検討. 日小外誌 19: 511~515, 1983.
- 6) 由良二郎, 他: 小児の頸部腫瘍, 特に嚢胞状リンパ管腫と Bleomycin の効果について. 小児外科・内科 8: 279~285, 1976.
- 7) Grabb WC et al: Facial hamartomas in children, neurofibroma, lymphangioma and hemangioma. Plast Reconstr Surg 66: 509~527, 1980.
- 8) 中篠俊夫, 他: 嚢胞状リンパ管腫の治療とその成績. 小児外科 16: 931~938, 1984.
- 9) 猪股裕紀洋, 他: ブレオマイシンエマルジョン注入による小児嚢胞状リンパ管腫の治療. 小児外科 16: 919~924, 1984.
- 10) 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.
- 11) 世良好史, 他: 嚢胞状リンパ管腫の診断と治療の要点. 小児外科 12: 1587~1591, 1980.
- 12) 池田恵一, 他: 呼吸困難を伴う小児の頸部浸潤性リンパ管腫の治療. 外科 38: 675~680, 1976.

(原稿採択: 昭和62年10月29日
別刷請求先: 寒川高男
〒640 和歌山市七番町1
和歌山県立医科大学耳鼻咽喉科学教室)