成人耳下腺嚢胞状リンパ管腫の一症例

西平 茂樹¹⁾・山内 博幸¹⁾・眞崎 雅和²⁾
松崎 全成³⁾・江戸 雅孝³⁾

Cystic Hygroma of the Parotid Gland in
an Adult Man ; Report of a Case

Shigeki Nishihira and Hiroyuki Yamauchi
(Okachi Chuo Hospital)

Masakazu Masaki
(Akita City Hospital)

Zensei Matsuzaki and Masataka Edo
(Akita University School of Medicine)

A 23 year old man with cystic hygroma of the left side parotid gland was treated surgically. Two years after operation, there was no evidence of recurrence. Because of its invasive nature, it is very difficult to separate the tumor from the facial nerve macroscopically. In order to avoid unnecessary expenses in surgery use of a surgical microscope is recommended.

Key words: cystic hygroma, adult, parotid gland, surgical treatment

はじめに

頭頸部領域における脈管系腫瘍の中で、リンパ管腫の56%~90%は出生時から5歳未満に発見され¹⁾²⁾, 成人の発症例は比較的稀^{3)~8)}である。今回、成人耳下腺に発症した嚢胞状リンパ管腫症例を外科的に治療する機会を得た。文献的考察を加えて報告する。

症 例

患者: ■■■■■, 23歳, 男性。

現病歴: 平成元年9月, 左耳下部から顎角部におよぶ腫脹に気付いたが放置。4ヵ月後腫脹

が増大したため当科受診。過去に同様な腫脹の既往無く, また同部の外傷歴および上気道感染の前駆もなかった。

現症: 初診時, 左側耳下部から上頸部にかけ, 境界不明瞭で脈管系腫瘍を思わせる様な柔らかさの腫瘍が約70×50mm大で触知された(図1a, b)。顔面皮膚および表情筋の動きに変化を認めず, 炎症所見, 腫瘍の圧縮, バルサルバや逆立ちによる大きさの変化等も認められなかった。

単純Xp: 腫瘍に一致する石灰化。

1) 秋田県厚生連雄勝中央病院耳鼻咽喉科
2) 秋田市立総合病院耳鼻咽喉科
3) 秋田大学医学部耳鼻咽喉科学教室

CT：耳下腺深葉部分より頸部にかけ、エンハンスされないひょうたん型の腫瘍が先端を咽頭側に向け存在した。腫瘍内容は均一であり嚢腫を思わせた（図1 c）。

シアロ CT：耳下腺との境界は、耳下腺下方では明瞭であったが、深部やや上方では複雑に耳下腺内に進入しているような所見が得られた（図1 d, e）。

図1

a, b ; 初診時顔貌

d, e ; シアロ CT 前額断および水平断像

c ; CT 水平断像

f ; 超音波検査像

超音波検査: cystic パターンおよび隔壁の存在が確認された (図 1 f)。

血管造影: 外頸動脈造影を行った結果, 腫瘍は血流に乏しい事が確認された。

穿刺による腫瘍内容の確認は行わなかった。

〈手術所見〉

皮膚切開は標準的な S 状切開とした。耳前部からの顔面皮膚剥離は腫瘍の前縁近くまでにとどめた。腫瘍の周囲組織との癒着は、胸鎖乳突筋の前縁で軽度に認められたのみで、顎二復筋からの剥離は容易であった。型⁹⁾ 通り顔面神経本管を露出、それに沿って顔面神経分枝の露出につとめた。上主枝は前頭枝、頬骨枝の分岐部分まで剥離されたが、下主枝は腫瘍壁との境界が不明瞭であり、頬枝の分岐さえ確認し得なかった。腫瘍は波動を有し、軟らかく (図 2 a), 顔面神経本幹の深部から下主枝をまたぐように存在していた。頸部からの剥離は容易であったため下方、後方から前上方へ徐々に剥離をすすめ、下顎縁枝の末梢側からの剥離を試みたが、先に中枢側からの剥離が困難になった部位で同様に腫瘍壁との境界が不明瞭になり、腫瘍を一部破損した (内容は透明なリンパ液様であった。この時点で腫瘍壁の薄さが確認された)。裸眼による剥離の限界と考え、手術用顕微鏡下の剥離に切り替えた。顕微鏡下では (図 2 b, c), 神経と腫瘍壁間に僅かに存在する結合組織を切断することが可能であり、裸眼では剥離不能と思われた部分であったが比較的容易に神経剥離・保存が行えた。神経上膜と腫瘍壁が癒着した様に見えた一部分でも神経上膜を切除して神経そのものを露出させながら、顔面神経下主枝の裏面から腫瘍を剥離、下方に翻転させながら分枝する頬枝を保存することができた。上主枝方向に向かう頬枝間の吻合枝は切断した。下主枝末梢枝は腫瘍により引き延ばされかなり細くなっていた。顕微鏡下の剥離を進めていたところ、残念なことに、先に裸眼で末梢側から神経を剥離していて腫瘍を破損した部分の近くで下顎縁枝が結紮切断されていた。その時点で同神経の

剥離を中止し、保存し得た神経に注意しながら腫瘍を完全摘出した。切断された神経は、引き延ばされた部分を切断し、最短距離で縫合した。神経縫合は、10-0 ナイロン糸を用い、顕微鏡下に神経上膜縫合で 2 針縫合後、フィブリン糊で補強した¹⁰⁾。保存し得た一部の浅葉で神経の

図 2

上; 手術時肉眼所見

腫瘍の耳下腺浅葉部分および顔面神経本管 (⇐)。

中; 手術時顕微鏡下所見

顔面神経枝および、腫瘍の深葉部分 (⇐)。

下; 手術時顕微鏡下所見

薄い腫瘍壁および近接する顔面神経枝。

露出部分を被覆し、下顎角部の陥凹部に胸鎖入突筋の一部を翻転させ、ペンローズドレーンを

図3 病理組織所見

上；正常耳下腺組織内に陥入した薄い腫瘍壁
下；腫瘍内容の細胞はほとんどリンパ球であった

図4

左；手術直後表情運動
下口唇部分麻痺。
右；神経縫合術3ヵ月後
下口唇の麻痺は完全に回復した。

留置後手術を終了した。

組織所見：耳下腺組織内に複雑に入り組んだ、繊維性結合組織に覆われた嚢胞が認められた。内面は薄い一層の内皮で被われており、内容物の細胞成分のほとんどがリンパ球であった。拡張したリンパ管が嚢胞の周囲に多数存在しており、リンパ管由来の病変と考えられた。病理診断は嚢胞状リンパ管腫であった（図3a, b）。

術後経過：術後、下口唇にごく軽度の麻痺が認められた。顕微鏡下に処理した頬枝の支配領域に麻痺はなかったが、口角部分に軽度の麻痺が認められた（図4a）。術後10日目に退院し、外来にて経過観察中であるが、下口唇部分の麻痺は術後3ヵ月目で完全回復した（図4b）。手術より1年10ヵ月後の現在再発をみない。

考 察

Redenbacher (1828) によって最初に記載された“嚢胞状リンパ管腫”はその後 Werner (1843) により“hygroma”と命名され、腫瘍と考えられた。一時期 Rokitsansky (1863) らにより、漿液性の滲出液の正常組織間での貯留に過ぎないと考えられたが、Virchow (1863) が Werner の発見を支持して以来、再び腫瘍として扱われるようになった³⁾。しかし、その他血管腫、過誤腫あるいは胎性異常としての奇形と考える報告があり¹⁾ 現在に至るも、その発生に関する結論は得られていない。成人症例における発症機序に関しても同様に不明だが、幼児期までに発症しなかった原始リンパ嚢がなんらかの機転で急激に増大するとの考え方が¹¹⁾。

1. 発生頻度

発生頻度に関しては、北村は1980年から1983年の千葉大学退官後の4年間で扱った耳下腺腫瘍170例中2例(1.2%)¹²⁾、金子は、32年間(1951年～1983年)608例の耳下腺腫瘍中18例(2.9%)、非上皮性腫瘍中2.3%のリンパ管腫瘍を報告している¹³⁾。成人の（顔面、口腔内、耳下腺を除いた）頸部リンパ管腫に関する Mayo clinic の報告によると、1950年～1982年の32年間で32例³⁾であった。その他、報告の母体が一定して

いないことから比較は困難であるが、発症年齢に関係無く15年間に経験された良性腫瘍768例中リンパ管腫28例 (3.6%)¹⁴⁾, 10年間に経験された2519例の頸部腫瘍中21例 (0.8%)¹⁵⁾, 4054例の出生に対して1例の割合¹⁶⁾, 25年間に経験された小児耳下腺良性腫瘍63例中2例¹⁷⁾, 9年間に経験した大唾液腺腫瘍300例中耳下腺に生じた2例 (小児)¹⁸⁾などと報告されている。

2. 診断について

成人例では腫瘤触知以外ほとんど無症状に経過するため診断が困難な場合がある。術前正診率がわずか12.5% (4/32) との報告もある³⁾。最近では、超音波診断¹⁹⁾, CT 検査²⁰⁾²¹⁾, MRI 検査²²⁾²³⁾, 血管造影などを駆使してより正確な鑑別診断が行えるようになってきた。自験例ではMRIの情報は得られなかったが、発生部位が耳下腺であったことも幸いしてシアロCTが施行され、耳下腺内に複雑に入り込んだ腫瘍の形態を術前に把握することができた。血管造影の結果およびエンハンスCTの結果よりリンパ管腫が予想され、超音波検査でcysticパターンと隔壁の存在が確認されたことから、耳下腺内嚢胞状リンパ管腫の診断に迫ることができた。

3. 嚢胞穿刺の診断的価値

それを積極的に推奨する報告と⁶⁾⁸⁾, どうしても診断があいまいな場合に勧められるとする報告²⁾とがある。初回の穿刺吸引においては吸引内容物の性状と細胞診から確診が得られ、その診断的価値は大きいと考えられるが、嚢内に出血があった場合や2回目の穿刺からは血液の混入が多くなりその診断価値は減少する。世良ら²⁴⁾は、巨大嚢胞状リンパ管腫の55%, その他のリンパ管腫の36%に血清内容を認めている。出血や感染の危険を考慮して術直前に施行することを勧める報告²⁵⁾もある。実際の手術に際しては、腫瘍と周囲組織との関係および易出血性か否かの情報が最も重要であり、自験例に関しては確診を得るための穿刺を必須なものとは考えなかった。

4. 治療について

成人の場合、手術摘出が第一選択となる。腫瘍は比較的よく被包化されているが神経血管系に癒着する傾向があり、注意深い剝離操作が要求される³⁾。自験例のように耳下腺組織内で複雑な形態をとるような症例の場合、顕微鏡下の手術がより確実な成果を生むと考える。手術成績に関しては、成人症例の長期経過観察報告によると、28症例中6例 (21%) に再発がみられ、その再発時期はほとんどの症例で1年以内であった³⁾⁴⁾。再発の生じる頻度は一般に高い。根治を目的としたと思われる手術後の再発率でも、27%²⁾, 8%³⁾である。不完全あるいは切除症例の再発率はより高率²⁾である。

小児症例では、摘出手術を第一選択治療法とし、その完全摘除が困難な場合や手術に伴う損傷を避けるために保存的治療を行うとするものと、プレオマイシンやOK-432の局所投与による治療を第一選択として推奨するものとに分かれている²⁶⁾²⁷⁾。今後OK-432局注療法のように、重篤な副作用が無く、完全消退率が高く、治療期間が短く、治療部位に障害を残さない侵襲度の低い優れた治療法の適応が、成人のリンパ管腫にも検討されるものと考えられる。

おわりに

本症例では肉眼的に処理した範囲で複雑に引き延ばされた下顎縁枝を切断してしまった。幸いなことに顕微鏡下に処理した頬枝が保存され顔面神経麻痺は下口唇の一部分のみで日常生活に支障なく、患者も下顎縁枝の神経縫合の結果を待つことを了解したが、この失敗は比較的早い時期から顕微鏡下の手術に切り替えておけば防げたものであろうと反省している。手術の正確さと完全摘出が特に要求された本症例では顕微鏡の使用は不可欠の物であった。顕微鏡下の手術は時間がかかるものであるが、不必要な血管の損傷が未然に防げ、耳下腺手術に特有の視野を妨げる出血に悩まされる事もなく、場合に依じて神経上膜の切除さえ容易に行えた。縫合した下顎縁枝の麻痺は術後3カ月で完全に回復

した。術後1年10カ月を経た現在、腫瘍の再発は認められない。

ま と め

1) 成人の耳下腺嚢胞状リンパ管腫症例について報告した。

2) 本腫瘍は軟部組織への進入傾向が強く顔面神経の保存が困難になる場合が多いとされているが、手術用顕微鏡を用いることにより、裸眼では剥離不可能と思われた部分でも比較的容易に剥離が行える。

恩師、秋田大学医学部耳鼻咽喉科学教室戸川 清教授の御指導・御校閲に感謝致します。尚、本論文の要旨は第52回日耳鼻秋田県地方部会学術講演会において講演された。

参考文献

- 1) 勝俣慶三：先天性嚢腫。リンパ管腫。外科 Mook 7 : 15~29, 1979.
- 2) Kennedy TL : Cystic hygroma-lymphangioma ; a rare and still unclear entity. Laryngoscope 99 suppl 49 : 1~10, 1989.
- 3) Schefter RP, Olsen KD and Jaffey TA : Cervical lymphangioma in the adult. Otolaryngol Head Neck Surg 93 : 65~69, 1985.
- 4) Karmody CS : Lymphangiomas of the head and neck in adults. Otolaryngol Head Neck Surg 90 : 283~288, 1982.
- 5) Baer S : Cystic hygroma presenting in adulthood. J of Laryngol Otol 103 : 976~977, 1989.
- 6) 矢野原邦生, 加藤昭彦, 宮原幸則, 他 : 成人の頰部リンパ管腫症例. 耳鼻臨床 81 : 1477~1482, 1988.
- 7) 加藤雄一, 夜久有滋, 網 幸一, 他 : 成人にみられた上咽頭嚢状リンパ管腫例. 耳鼻臨床 83 : 415~419, 1990.
- 8) 大津一弘, 中野豊道, 東 信隆, 他 : 成人の頰部嚢腫性リンパ管腫の1例. 広島医学 42 : 1312~1314, 1989.
- 9) 戸川 清 : 耳下腺腫瘍手術の要領と顔面神経の処理. 耳下腺腫瘍の臨床 (奥田 稔編). 142~159頁, 医学教育出版社, 東京, 1984.
- 10) 西平茂樹 : 運動神経修復に関する実験的研究—フィブリン糊とナイロン糸による修復法の比較検討—. 日耳鼻 91 : 1208~1212, 1988.
- 11) 沼田 稔, 安里 進, 細江志郎, 他 : 成人女子にみられた頰部嚢腫性リンパ管腫の1例. 外科 43 : 1500~1504, 1978.
- 12) 北村 武 : 耳下腺腫瘍の臨床像. 耳下腺腫瘍の臨床 (奥田 稔編). 61~86頁, 医学教育出版社, 東京, 1984.
- 13) 金子敏郎, 石毛俊行 : 耳下腺腫瘍の治療. 医学のあゆみ 153 : 77, 1990.
- 14) Anderson DH : Tumors of infancy and childhood. Cancer 4 : 890~906, 1951.
- 15) Skandalakis JE : Embryology for surgeons (Ch. 22). pp 960~970, WB Saunders Co., Philadelphia, 1953.
- 16) Gupta B : Incidence of congenital malformation in Nigerian children. West Afr Med J 18 : 22, 1969.
- 17) Wright GL : Benign parotid diseases of childhood. Laryngoscope 95 : 915~920, 1985.
- 18) Crawford AP : Lymphangioma of the parotid gland. Med J Aust 2 : 141~142, 1981.
- 19) Ferguson MM : Ultrasonography in the diagnosis of a cystichygroma. Int J Oral Surg 6 : 229~232, 1977.
- 20) Bill AH Jr and Sumner DS : A unified concept of lymphangioma and cystichygroma. Surg Gynecol Obstet 120 : 79~86, 1965.
- 21) Sarno RC : Cystic lymphangiomas ; CT diagnosis and thin needle aspiration. B J Radiol 57 : 424~426, 1984.
- 22) Stenson KM, Mishell J and Toriumi DM : Cystic hygroma of the parotid gland. Ann Otol Rhinol Laryngol 100 : 518~520, 1991.
- 23) Som PM : Salivary Gland. Head and Neck Imaging (ed by Som PM and Bergeron RT). pp 277~347, Mosby Year Book, St Louis, Missouri, 1991.
- 24) 世良好史, 吉村実信, 池田信二, 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.
- 25) 戸谷拓士 : 巨大な側頸部腫瘤をもつ新生児. 小児外科 20 : 1543~1546, 1988.

- 26) 高戸 毅: プレオマイシン注入による嚢胞状リンパ管腫の治療. 形成外科 **31**: 752~756, 1988.
- 27) 荻田修平, 伝 俊秋, 出口英一, 他: リンパ管腫の治療 —外科切除, Bleomycin 局注療法, OK-432 局注療法の比較検討—. 日本外科学会

雑誌**90**: 1389~1391, 1989.

(別刷請求先: 西平茂樹
〒012 湯沢市表町3-3-15
雄勝中央病院耳鼻咽喉科)