唾石摘出術を契機に生じた咽頭側隙まで及ぶ 巨大な唾液貯留の1例

大橋 祐生¹⁾・熊谷 章子¹⁾・三田 綾子¹⁾
泉澤 充²⁾・星 秀樹¹⁾・杉山 芳樹¹⁾

A patient with massive salivary retention in the parapharyngeal space occurring after sialolithotomy

OHASHI Yu¹⁾・KUMAGAI Akiko¹⁾・MITA Ayako¹⁾
IZUMISAWA Mitsuru²⁾・HOSHI Hideki¹⁾・SUGIYAMA Yoshiki¹⁾

Abstract: We encountered a patient in whom it was difficult to discriminate between a ranula and salivary retention in the parapharyngeal space after sialolithotomy. The patient was a 19-year-old woman who visited our hospital because of swelling of the left submandibular region. The patient had noticed swelling and pain of the left submandibular region 7 months earlier, visited an otorhinolaryngology clinic, and was given a diagnosis of a salivary stone in the left Wharton's duct. Excision of the sialolith through an intraoral approach was attempted, but it could not be removed. Swelling of the region increased after several days, and the patient was instructed to press the submandibular region by an otorhinolaryngologist. Swelling and pain of the region repeatedly occurred for 6 months thereafter. The patient consulted a dental office about the swelling of the left submandibular region, and she was referred to our department. She was given a diagnosis of massive salivary retention and a salivary stone in the submandibular region, and imaging was performed. The massive salivary retention extended from the submandibular to parapharyngeal space. When the sublingual gland was removed, and fenestration was performed with the patient under general anesthesia, a large volume of fluid flowed out of the salivary retention space, with which swelling of the submandibular region markedly regressed. As of 1 year 6 months after exteriorization and compression, fluid retention extending to the parapharyngeal space has disappeared, and no recurrence has occurred. The current condition is favorable without any clinical signs or symptoms of sialolithiasis.

Key words: salivary retention (唾液貯留腔), ranula (ラヌーラ), parapharyngeal space (咽頭側隙), sialolithotomy (唾石摘出術), treatment (治療)

緒 言

顎下腺管の損傷や顎下腺管開口部の閉塞は、頭頸部の深部組織間隙への唾液漏出の原因となる可能性があるが、その臨床的経過による組織間隙への唾液漏出に関する報告はみられない。

今回われわれは、他院にて口内法による顎下腺管内唾石摘出術を試みた後に、咽頭側隙まで広範囲に波及したと考

えられた唾液貯留腔の1例を経験したので報告する。

症 例

患 者: 19 歳, 女性.
初 診: 2012 年 11 月下旬.
主 訴: 左側顎下部の腫脹.
家族歴: 特記事項なし.

¹⁾ 岩手医科大学歯学部口腔顎顔面再建学講座口腔外科学分野
(主任: 杉山芳樹教授)

²⁾ 岩手医科大学歯学部口腔顎顔面再建学講座歯科放射線学
分野
(主任: 小豆島正典教授)

¹⁾ Division of Oral and Maxillofacial Surgery, Department of
Reconstructive Oral and Maxillofacial Surgery, School of

Dentistry, Iwate Medical University (Prof.: SUGIYAMA
Yoshiki)

²⁾ Division of Dental Radiology, Department of Reconstructive
Oral and Maxillofacial Surgery, School of Dentistry, Iwate
Medical University (Prof: SHOZUSHIMA Masanori)

受付日: 2014 年 12 月 3 日

採択日: 2015 年 7 月 28 日

現病歴：2012年4月に左側顎下部の腫脹と疼痛を認めたため、近在の耳鼻咽喉科を受診した。左側顎下腺内唾石の診断にて、口内法による顎下腺管内唾石摘出術を受けた。しかし、唾石は発見されず摘出されなかった。術後数日経過したところで同部の腫脹が増悪し、同耳鼻咽喉科医から、腫脹が軽快するまで顎下部を後方から前方へ押し上げるように圧迫することを指示された。その後6か月間、顎下部の腫脹と疼痛を繰り返し、その度に同様の圧迫を行うよう指示され実行していた。同年11月初旬、歯科治療のために通院していた歯科医院に左側顎下部の腫脹について相談したところ、当科での加療をすすめられ、紹介受診となった。

現 症：

全身所見；身長 157cm, 体重 48kg. 栄養状態は良好であった。

口腔外所見；初診時、左側顎下部に鶏卵大で弾性軟の腫脹と同部の圧痛および波動を認めた(写真1)。

口腔内所見；左側口底部の腫脹を認め、波動を触れた。左側顎下腺管開口部からの唾液の流出は認められなかった。双手診にて、左側顎下腺部の唾石は触知できなかった(写真2)。

画像所見：

CT 所見；左側顎下隙、舌下隙から咽頭側隙を上方へ沿って、上縁は左側下顎頸部の高さに及ぶ液体の貯留を認めた。顎下腺は外方へ圧排されており、液体貯留内部後方に唾石

と思われる直径 2.5mm の高濃度陰影を認めた(写真3)。

MRI 所見；T2 強調像で、左側顎下隙、舌下隙から咽頭側隙にわたって境界明瞭な高信号域を認め(写真4A)、液体の貯留が疑われた。顎下腺は外側へ圧排されていた(写真4B)。

写真3 初診時の CT 写真(水平断)
液体貯留によって顎下腺は外方へ圧排されている(矢頭)。
液体貯留内部後方に唾石と思われる直径 2.5mm の高濃度陰影を認める(矢印)。

写真4 初診時の MR 写真

- A：前頭断；T2 強調像で、左側顎下隙、舌下隙から咽頭側隙にわたって境界明瞭な高信号域を認める。顎下腺は外側へ圧排されている(矢頭)。
B：水平断；液体の貯留は、舌下腺から顎下腺管、さらには顎下隙にむかって進展しており、顎下腺は外側へ圧排されている(矢頭)。

写真9 術後1年のCT写真(前頭断)

左側顎下腺は著明に萎縮している(矢頭)。また、左側顎下腺の後方に点状の高濃度域を認める(矢印)。

写真10 術後1年のMR写真(前頭断)

術前に認めていた咽頭側隙の液体貯留は消失している。

臨床検査所見；特記事項は認めなかった。

臨床診断：左側顎下部から咽頭側隙に及ぶ唾液貯留，左側顎下腺管損傷による唾石の迷入。

処置および経過：唾液貯留の原因となった唾液腺として，顎下腺と舌下腺が考えられたため，顎下腺と舌下腺の摘出術を計画したが，顎下腺摘出術は顎下部の皮膚切開が入り，侵襲が大きくなるため，口内法で可能な舌下腺摘出術と液体貯留の開窓術を行い，顎下腺摘出術と唾石摘出術は経過をみて行う方針とした。2013年3月，全身麻酔下に，口内法による液体貯留の開窓術，左側舌下腺摘出術を行った。まず，口腔外の波動を触れる部位から穿刺吸引したところ，褐色で粘糊性の高い内容液が吸引された(写真5)。この内容液の成分を検査したところ，アミラーゼが5,529 IU/Lと高値であった。次いで，舌下腺摘出のために舌下ヒダの内側に切開を行い，顎下腺管，舌神経を剖出し，舌下腺を摘出した。舌下腺摘出後，顎舌骨筋後方に，液体貯留の被膜を認めたため，これを切開した(写真6)。切開を加えると，勢いよく内容液が流出し，それと同時に左側顎下部の腫脹は著明に縮小した。その後，創部から舌下隙にシリコンペンローズドレーンを留置し，術直後から左側顎下部の圧迫を行った。ドレーンは術後2日目に抜去した。また，顎下部の圧迫は術後13日間行った。術後感染や舌神経障害などの合併症は認められなかった。

術後1年経過し，左側顎下部，左側口底部の腫脹は認めない(写真7, 8)。またCTでは，左側顎下腺は萎縮し

ており，その後方に唾石の残存を認めたが，周囲に炎症所見は認めなかった(写真9)。MRIでは，咽頭側隙まで波及していた唾液貯留は消失しており再発は認めなかった(写真10)。

現在，術後1年6か月経過しているが，唾液貯留の再発や唾石の迷入による臨床症状は認めず，外来にて経過観察中である。

今後，唾石や顎下腺による臨床症状を認める場合には摘出の予定である。

考 察

自験例は画像所見にて顎下腺，舌下腺から咽頭側隙まで連続して液体貯留腔を形成していた。内容液の主成分は，アミラーゼが高値を示していたことから唾液と考えられた。この唾液貯留腔は，顎下腺や舌下腺の排出導管の損傷により発生したものであるか，顎下腺や舌下腺の直接損傷によって唾液漏出が頭頸部の組織間隙へ波及したものであるのか，臨床経過や画像所見からは鑑別が困難であった。

われわれが渉猟したかぎり，咽頭側隙まで波及した唾液貯留腔の報告は国内外で17例^{1~7)}であるが，それらの報告は，すべてラヌーラであり，自験例のように顎下腺管内唾石摘出術後に継発して生じた唾液貯留腔の報告はみられなかった。

咽頭側隙は，咽頭の外方で頭蓋底から舌骨まで広がる主に脂肪組織から成る領域である⁸⁾。前上方は翼突下顎縫

写真1 初診時口腔外写真（正面頸部伸展時）
左側顎下部の腫脹を認め、波動を触れる（矢頭）。

写真2 初診時口腔内写真
左側口底部の腫脹を認める（矢頭）。左側顎下腺開口部からの唾液の流出を認める。

写真5 術前に穿刺・吸引した内容液
内容液はやや暗赤色を呈している。液体成分はアミラーゼが5,529 IU/Lであった。

写真6 術中写真
開窓直前の術中写真。開窓によって、内容液が勢いよく流出した。液体貯留腔を示す（矢頭）。

写真7 術後1年の口腔外写真（正面頸部伸展時）
左側顎下部に認めていた腫脹は消退している。

写真8 術後1年の口腔内写真
左側口底部の腫脹は認めない。

線に到達し、その下方では顎下腺や舌下腺に連続する。内側は上咽頭収縮筋を覆っている深頸筋膜中層、外側は内側翼突筋と耳下腺深葉を覆っている深頸筋膜浅層とされている⁹⁾。自験例の発症については、症状の経過から、まず、前医で顎下腺管内唾石に対して口内法による唾石摘出術を試みたが、唾石は摘出されずに経過した。顎下腺管は唾石摘出術により損傷したと思われるが、術中操作により舌下腺そのものが損傷を受けた可能性もある。術中の損傷部位は不明であるが、その後、顎下部を過度に圧迫したため、顎下腺や舌下腺に貯留していた唾液が、徐々に上方へ波及し咽頭側隙まで進展したと推察される。唾石の所在部位については、顎下腺管内に存在するのか顎下腺管外に存在するのか、いずれの可能性もあるが、画像所見からの断定は困難であると考えられた。

治療法については、顎下腺管損傷による顎下腺や舌下腺、咽頭側隙まで波及した唾液貯留腔の報告がみられなかったため、顎下腺に由来した唾液貯留に対する治療法、および、これまで報告されている咽頭側隙まで波及しているラヌーラの治療法を参考にした。顎下腺からの漏出唾液が顎下腺に貯留した場合については、顎下腺を含めての全摘出、または顎下腺を摘出せずに貯留液を穿刺吸引し、約1週間の圧迫を行う穿刺吸引圧迫療法がある¹⁰⁾。また、これまでに報告されている咽頭側隙まで波及したラヌーラ17例に対する治療法を文献的にみると、舌下腺摘出術・開窓術が2例^{2,6)}、舌下腺摘出術・顎下腺摘出術・嚢胞摘出術が2例^{4,7)}、OK-432による硬化療法が7例^{1,3)}、治療法が不明なものが6例⁵⁾であった。自験例においては、唾液の口腔内への流出がみられなかったため、まずは低侵襲な治療法として、口腔内から唾液貯留の開窓術と圧迫療法の併用を行った。また、手術時点で舌下腺由来のラヌーラである可能性が完全に否定できなかったため、同部位まで波及したラヌーラに対する治療法も併用した。OK-432による硬化療法については、発熱や一過性の腫脹から嚥下、呼吸障害といった危険性が指摘されている¹¹⁾ため、今回は選択しなかった。

自験例では、治療後に顎下腺が萎縮していた。唾石による顎下腺管の閉塞や感染により唾液の分泌機能は低下し、最終的に顎下腺の萎縮や脂肪変性がみられるといわれる¹²⁾。自験例においては、萎縮した顎下腺と唾石は、今後、感染源となる可能性があるため、厳重な経過観察が重要である

と思われる。経過をみて患者の了解が得られた時点で、萎縮した顎下腺と迷入した唾石の摘出を予定している。

結 語

唾石摘出術を契機に発生した咽頭側隙まで及ぶ唾液貯留腔に対して、唾液貯留の開窓術、舌下腺摘出術、圧迫療法を行い、良好な結果を得たので報告した。

本論文の要旨は、第40回（公社）日本口腔外科学会北日本支部学術集会（2014年6月21日、秋田市）において発表した。

本論文に関して、開示すべき利益相反状態はない。

引用文献

- 1) Ohta N, Fukase S, et al : OK-432 treatment of ranula extending to the parapharyngeal space. *Acta Otolaryngol* 134: 206-210, 2014.
- 2) Seong-Ha K, Kyung-Hoe H, et al : Giant plunging ranula: a case report. *Imaging Science in Dentistry* 43: 55-58, 2013.
- 3) Kinoshita M, Kida W, et al : Plunging ranula intruding into the parapharyngeal space treat with OK-432. *Am J Otolaryngol* 33: 345-348, 2011.
- 4) Virginia LC, Jacob ES, et al : Ascending and plunging ranula in a pediatric patient. *Otolaryngology-Head and Neck Surg* 140: 948-949, 2009.
- 5) Andre JM, Karen LS, et al : Giant ranula of the neck: differentiation from cystic hygroma. *Am Neuroradiol* 24: 757-761, 2003.
- 6) 梅田裕生, 安里 亮, 他 : 副咽頭間隙まで伸展した顎下型ガマ腫例. *耳鼻臨床* 93: 565-568, 2000.
- 7) Takimoto T, Katoh H, et al : Plunging ranula localized in the parapharyngeal space. *J Otorhinolaryngol Relat Spec* 52: 202-204, 1990.
- 8) 多田信平, 黒崎喜久 : 頭頸部のCT・MRI. 第1版, メディカル・サイエンス・インターナショナル, 東京, 2004, 301-311頁.
- 9) Neil S. Norton : ネットワーク頭頸部・口腔顎顔面の臨床解剖学アトラス. 第1版, 医歯薬出版, 東京, 2012, 459-472頁.
- 10) 塩田重利, 富田喜内 : 最新口腔外科学. 第4版, 医歯薬出版, 東京, 2000, 832-834頁.
- 11) 工藤典代, 小林由美, 他 : OK-432による硬化療法が著効したガマ腫の幼児4症例. *耳喉頭頸* 74: 61-64, 2002.
- 12) 有末 眞 : 顎下腺唾石症に関する病理組織学的研究. *日口外誌* 34: 8-34, 1985.