先天性ガマ腫の1例

千賀靖子・佐藤 隼・森田麻希
宮本大模・渋谷恭之

A case of congenital ranula

SENGA Yasuko · SATO Jun · MORITA Maki
MIYAMOTO Hironori · SHIBUYA Yasuyuki

Abstract: Congenital ranulas in infants have been rarely reported. We report a case of congenital ranula. The female baby, one of twins, was delivered by cesarean section. On the day after birth, a pediatrician noticed swelling of the left side in the oral floor. She was followed up without treatment because there was no sucking disorder or unusual systemic problems. Five months later, the swelling increased, and magnetic resonance imaging revealed a serpentine tube-form structure extending from the left submandibular gland to the oral floor. An exploratory puncture was performed with the patient under intravenous anesthesia in the hospital. The puncture wound was enlarged with mosquito forceps, and steroid ointment was applied to the lesion without inserting a piece of gauze or suturing the oral mucosa. Laboratory analysis of the fluid showed that 97.2% of the aspirated material was saliva-type amylase isozyme. As of 9 months after the operation, there has been no recurrence of the lesion.

Key words: congenital ranula (先天性ガマ腫), atresia of the submandibular duct (顎下腺管閉鎖症), steroid ointment (ステロイド軟膏), exploratory puncture (試験穿刺)

緒 言

ガマ腫は通常、片側口底部に生じる大きな粘液嚢胞であり、顎舌骨筋上に限局してみられる舌下型と顎舌骨筋を越えて顎下部やオトガイ下部にみられる顎下型がある。若年層に多い疾患であるが、導管損傷の機会に乏しい乳児に発生することはまれである。先天性にみられる場合もあるが、本邦においては数例の報告しかない^{1~7)}。また、ガマ腫の治療方法には切開術、開窓術、嚢胞摘出術、舌下腺摘出術などがあるが、その手術侵襲度や再発率、患者背景を考慮すると治療方法の選択には苦慮することがある。

今回われわれは、出生時から認めていたガマ腫に対して試験穿刺を行い、その後創部にステロイド軟膏を塗布することで良好な結果を得たので報告する。

症 例

患 者: 生後2日、女児。

初 診: 2015年5月。

主 訴: 左側口底部の腫脹。

家族歴: 特記事項なし。

現病歴: 妊娠37週、予定帝王切開にて出生した。双胎第一子であり、生下時2,264gと低体重であったためNICU入室となったが、その他に異常な身体所見を認めなかった。生後2日目に左側口底部の腫脹を指摘され、小児科医師から当科へ精査依頼目的で紹介となった。双胎第二子には全身、口腔内ともに特記事項はなかった。

現 症:

全身所見: 身長45.6cm、体重2,264g、哺乳状況は良好であった。

口腔外所見: 顔面は左右対称で、顎下部の腫脹や発赤などの所見は認めなかった。

口腔内所見: 左側口底部の粘膜下に直径約7mm大の境界明瞭なドーム状の腫脹を認めた(写真1)。弾性軟で波動を触知し、透明色でやや青みを帯びていた。

臨床診断: 先天性ガマ腫の疑い。

処置および経過: 腫脹により軽度の舌の挙上認められ

名古屋市立大学大学院医学研究科生体機能・構造医学専攻
感覚器・形成医学講座口腔外科学分野
(主任: 渋谷恭之教授)

Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Nagoya City
University Graduate School of Medical Sciences (Chief: Prof.
SHIBUYA Yasuyuki)

受付日: 2016年6月10日

採択日: 2017年1月24日

写真1 初診時口腔内写真

左側口底に波動を触知する直径約7mmのドーム状の腫脹を認める。舌の挙上は軽度みられる。

写真2 生後5か月の口腔内写真

口底の腫脹は左側舌下嚢に沿うように後方へ拡大している。

だが、吸綴障害はなく哺乳量も充分であったため経過観察を行った。生後5か月時の哺乳状況も良好で体重は7,745gに増加していたが、口底部の腫脹は左側舌下嚢に沿うように後方へ進展しており（写真2）、病変範囲の確認および処置の必要性を検討するために両親の了承を得てMRI撮像を行った。トリクロホスナトリウム300mg内服による鎮静を行ってから撮像したところ、顎舌骨筋より上方で左側口底部に拡張した顎下腺管と思われるT1強調像にて低信号、T2強調像において高信号の病変を認めた（写真3A, B）。顎下腺には左右差を認めなかった。病変が自潰せずに拡大傾向にあること、両親からは嚢胞摘出や舌下腺摘出術などの積極的治療の希望がなかったことなどを考慮し、内容液を確認して嚢胞病変と臨床診断すると同時に、病変の縮小を期待して試験穿刺を計画した。なお、ステロイド軟膏塗布によって粘液嚢胞開窓術後の再発率が低下したとの藤井らの報告⁸⁾に準じて、穿刺部にはステロイド軟膏

写真3 処置前MR写真（T2強調像）

（A：水平断 B：前額断）

顎舌骨筋より上方で左側口底および左側顎下腺管と思われる領域に高信号域を認める。

を塗布することとした。処置中の患児の体動によって操作が難渋すると予想されたため、当院小児科医師と相談のうえ、静脈内麻酔下で処置を行い、加えて処置後の創部腫脹による酸素化不良、あるいは摂食障害の危険性も考慮して入院管理とした。

2015年11月、当院小児科医師による全身管理下に試験穿刺を施行した。処置室入室前にトリクロホスナトリウム200mg内服による鎮静を行い、処置直前にはケタミン塩酸塩とジアゼパムによる静脈内麻酔を行った。18G針にて病変の最前方部を穿刺したところ、やや粘稠な淡黄色の内

写真4 内容液の写真
やや粘稠な淡黄色の内容液である。

写真5 処置中写真
穿刺創部をモスキートペンで直径約4 mm程度まで広げているところ。

容液が流出したため、これを約0.5mL吸引した（写真4）。穿刺部をモスキートペンにて直径約4 mm程度に拡大し（写真5）、それ以上の内容液の流出がないことを確認し、そのまま開放創とした。少量の出血点については電気メスにて止血した。ステロイド含有テトラサイクリン軟膏（テラ・コートリル軟膏®）を塗布した綿棒先端部を穿刺部に挿入して創に軟膏を塗布し、処置を終了した。ガーゼの留置や縫合などの処置は行わなかった。帰宅後、出血や疼痛を訴える様子はなく、哺乳や離乳食の摂取は平常通り可能であった。翌日、全身および局所状態に問題はなかったため退院とした。局所感染を認めなかったため、ステロイド含有テトラサイクリン軟膏（テラ・コートリル軟膏®）からステロイド軟膏（デキササルチン軟膏®）へ変更し、退院後3

写真6 処置後の口腔内写真
(A: 処置後3日目 B: 処置後3週目)
上皮化した小さな孔が維持されている。

日間は1日4回、処置時と同様な方法で創に軟膏を塗布するよう母親に指導した。

処置後3日目、2週目、3週目の外来受診時には創部がやや縮小していく傾向にあったが、肉眼的には上皮化した小さな孔として維持されており、口底部に再発を疑わせる所見は認めなかった（写真6A, B）。なお残存した孔からの唾液流出の有無は明らかでなかった。処置後6週目に、処置後の評価としてMRI撮像を行った。T2強調像において左側口底部および左側顎下腺管に高信号は認めず、処置前に認められた左側顎下腺管の拡張は解消されていた（写真7A, B）。処置後約9か月経った現在も、再発兆候なく経過良好である（写真8）。なお、処置中に吸引した内容液のアミラーゼアイソザイム検査結果は、唾液腺由来のS型が97.2%であったため、内容液はほぼ唾液成分と考えられた。以上より先天性ガマ腫と診断した。

考 察

ガマ腫は10～20歳の比較的若年層に多い疾患^{1～3,9)}であり、大唾液腺に由来する粘液貯留嚢胞である¹⁰⁾。顎下

写真7 処置後6週目のMR写真(T2強調像)
(A:水平断 B:前額断)
顎下腺拡張様の病変はみられない。

腺に由来するという報告例¹¹⁾もまれにあるものの、その多くは舌下腺摘出後に再発しないことから舌下腺との関連が強いと言われており¹⁾、舌下腺の導管損傷によるものと言われている。しかし、生後まもなく認められるガマ腫は、外的刺激による導管損傷の機会に乏しいことから、導管の何らかの先天異常の可能性¹²⁾が指摘されている。また、田中ら¹³⁾やKawabaraら¹⁴⁾は、生後まもなく認めたガマ腫の嚢胞壁に唾液腺導管上皮の被覆が病理学的に認められたことから、顎下腺開口部の先天性閉鎖による導管内の唾液の貯留が原因となって生じた顎下腺管閉鎖症として

写真8 処置後4か月の口腔内写真
口底の腫脹は認められない。

報告している。顎下腺管閉鎖をガマ腫の一要因として考慮した場合、顎下腺管閉鎖症はガマ腫に含まれる病態と考えられるが、現在のところ統一した見解はなく、用語の使い方については今後の検討課題と思われた。

本症例では、18G針で試験穿刺を行い嚢胞性疾患であることを確認した後、侵襲を最小限にすると同時に内容液が継続して排出できることを期待して穿刺部位をモスキートペアンで拡大した。処置中に吸引した内容液は検査結果からほぼ唾液成分と考えられた。MR画像所見からは、先天性顎下腺管開口部狭窄あるいは閉鎖による導管内唾液貯留病変が疑われたが、嚢胞壁の病理検体を採取していないために本疾患を顎下腺管閉鎖症と診断することができず、最終的に先天性ガマ腫と診断した。

本邦において先天性ガマ腫、または顎下腺管閉鎖症として報告された例は、われわれが渉猟し得た限り、それぞれ7例^{1~7)}と2例^{13,14)}の計9例であった(表1)。先天性ガマ腫として報告された症例の初回治療は経過観察1例³⁾、開窓術4例^{1,5~7)}、嚢胞摘出および舌下腺摘出術2例^{2,4)}であり、顎下腺管閉鎖症として報告された症例においては、舌下腺摘出術のみで治療が期待できないため、2例とも初回治療で開窓術が選択されていた^{13,14)}。開窓術が行われた上記6例のうち2例^{1,7)}では術後再発を認めており、再発なく経過している4例^{5~6,13,14)}では、開窓部粘膜の早期癒着を防止し唾液の排出路を保持するため、周囲粘膜と縫合あるいは軟膏ガーゼの挿入が行われていた。本症例では、顎下腺管閉鎖病変が疑われていたため開窓術を提案したが、両親から処置時間の短い低侵襲な処置の希望があり、縫合などの細かな手技を回避することが求められると同時に、誤飲のリスクを考慮し軟膏ガーゼの留置も推奨できないと判断した。そこで内容液を確認する目的で試験穿刺を行った後に、藤井ら⁸⁾の報告に準じて穿刺部へのステロイド軟膏塗布を行った。藤井ら⁸⁾はステロイド軟膏の基

表1 乳児に発生した先天性ガマ腫または顎下腺管閉鎖症の本邦における報告例

報告者	初診 年齢	性	部位 大きさ (mm)	哺乳 状態	手術 年齢	最終診断	初回の処置 麻酔	再発	根治に至った処置 麻酔
黒米ら ⁴⁾ (1991)	4 か月	女	舌下 20×15×10	良好	1 歳	先天性ガマ腫	嚢胞・舌下腺摘出 全身麻酔	—	
中條ら ¹⁾ (2000)	2 か月	女	舌下 20×15×15	良好	2 か月	先天性ガマ腫	開窓術 (開放) 表面麻酔	3 回	嚢胞・舌下腺摘出 全身麻酔
Kawabara ら ¹⁴⁾ (2000)	1 歳 10 か月	男	舌下 15×10	良好	不明	顎下腺管 閉鎖症	開窓術 (縫合) 全身麻酔	—	
佐藤ら ²⁾ (2001)	3 か月	女	舌下 不明	不明	不明	先天性ガマ腫	嚢胞・舌下腺摘出 不明	—	
山田ら ³⁾ (2004)	4 か月	男	舌下 10×6	不明	—	先天性ガマ腫	経過観察	—	
Wada ら ⁵⁾ (2004)	出生 直後	男	舌下 23×14	困難	不明	先天性ガマ腫	OK-432 注入 + 開窓術 (縫合) 局所麻酔	—	
森川ら ⁶⁾ (2005)	4 か月	男	舌下 30×25×25	母乳は難 哺乳瓶は可	7 か月	先天性ガマ腫	開窓術 (タイオーバー) 全身麻酔	—	
勝見ら ⁷⁾ (2006)	生後 13 日	男	舌下 30×30	良好	5 か月	先天性ガマ腫	開窓術 (開放) 全身麻酔	4 回 以上	嚢胞・舌下腺摘出 全身麻酔
田中ら ¹³⁾ (2016)	5 か月	女	舌下 15×15	良好	7 か月	顎下腺管 閉鎖症	開窓術 (縫合) 全身麻酔	—	
自験例	生後 2 日	女	舌下 7×7	良好	6 か月	先天性ガマ腫	試験穿刺 + ステロイド軟膏 静脈内麻酔	—	

剤が創面に付着することで創の早期閉鎖を防ぐと同時に、ステロイドの抗炎症作用により粘液嚢胞開窓術後の再発率が明らかに低下したと報告している。ステロイドには肉芽形成抑止効果も期待できるため、本症例での試験穿刺部の早期閉鎖を抑制した可能性も考えられた。ただし処置後の経過に問題は認めず、処置後約9か月経過した現在も再発の兆候はない。今後も注意深く経過観察を行う予定である。

結 語

今回われわれは臨床的に先天性ガマ腫と思われる病変に対し、試験穿刺を行った後にステロイド軟膏塗布を応用したところ良好な結果を得たので報告した。

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) 中條智恵, 泉 健次, 他: 新生児に発生した舌下型ガマ腫の1例. 日口外誌 46: 536-538, 2000.
- 2) 佐藤美樹, 佐藤孝幸, 他: 小児にみられたガマ腫の臨床的研究. 日口外誌 47: 803-806, 2001.
- 3) 山田桂子, 砂川 元, 他: 小児のガマ腫に関する臨床的検討. 小児口外 14: 18-22, 2004.
- 4) 黒米俊哉, 松田光司, 他: 乳幼児の口腔内に生じた

ガマ腫, 若年性黄色肉芽腫の症例. 北関東医 41: 227-233, 1991.

- 5) Wada T, Yamamoto H, et al: Congenital ranula. J Oral Maxillofac Surg Med Pathol 16: 63-66, 2004.
- 6) 森川 暁, 矢郷 香, 他: 先天性ガマ腫の1例. 日口外誌 51: 618-621, 2005.
- 7) 勝見祐二, 飯田明彦, 他: 先天性ガマ腫の1例. 日口外誌 52: 453-456, 2006.
- 8) 藤井亜矢子, 新垣敬一, 他: 粘液嚢胞の臨床的検討. Hosp Dent (Tokyo) 23: 23-27, 2011.
- 9) 篠原正徳, 左坐春喜, 他: 顎下型ガマ腫 (plunging ranula) の臨床的, 組織学的検索. 日口外誌 30: 222-230, 1984.
- 10) 竹川政範, 井形伸弘, 他: 顎下型ガマ腫の1症例. 日口外誌 33: 1962-1965, 1987.
- 11) 山本康一, 山内浅則, 他: コンピューターグラフィックスによる3次元再構成ならびに3次元画像解析の口腔外科領域への応用. 日口外誌 34: 2544-2554, 1988.
- 12) Pownell PH, Brown OE, et al: Congenital abnormalities of the submandibular duct. Int J Pediatr Otorhinolaryngol 24: 161-169, 1992.
- 13) 田中秀生, 竹内啓人, 他: ガマ腫様の口底部腫脹を呈した顎下腺管閉鎖症の1例. 日口外誌 62: 232-237, 2016.
- 14) Kawabara K, Hotta F, et al: Congenital dilation of the submandibular duct: report of a case. J Oral Maxillofac Surg Med Pathol 58: 1170-1172, 2000.