副耳を伴う先天性耳下腺管瘻の1例

名倉 英明・宮沢 正純・小笠原祥二

堀越 勝

A case of congenital salivary fistula associated with aurial appendix.

Hideaki NAGURA・Masazumi MIYAZAWA・Shōji OGASAWARA

Masaru HORIKOSI

緒 言

耳下腺管瘻はその成り立ちから先天性と後天性に分けられているが、そのほとんどは炎症、腫瘍あるいは外傷などによる後天性のもので、先天性発生機序のものは横顔面の破裂縁にみられる程度できわめてまれである。われわれが渉猟した範囲では、豊田、丹羽、坂口、Pommrich, Küttner, Cherini, Rosen および Falaguinerらの症例報告がみられただけである¹⁾²⁾³⁾。

最近われわれは、左頬部からの唾液流出を主訴として来院した先天性耳下腺管瘻の症例に遭遇し、その瘻孔を粘膜に移動してほぼ満足すべき結果を得たので報告する。

症 例

患者：[] 2才 女

初診：昭和 42 年 4 月 [] 日

主訴：左側頬部皮膚面への唾液流出

家族歴：両親は健康で、外見上奇形はなく、母親によれば両系の家族に遺伝性疾患はないとのことであった。なお妊娠中にも特に異常はなかったが、約 1 カ月の早産であった。患児は一卵性双生児で、姉に異常はなかった。

既往歴：患児の出生時体重は 1,800g (姉は 2,200g) の未熟児で、約 25 日間保育器で保育された。また生後 6 カ月目に下痢および栄養障害で約 1 カ月間入院した。その後は特別の疾患に罹患したこともなく、発育も概して良好であった。

現病歴：生後約 1 カ月目に母親が左頬部の小さな瘻孔より少量の唾液様のものが出るのに気づいたが、あまり気にもとめずそのまま放置しておいた。現在にいたるまで瘻孔附近の炎症性疾患および外傷の既往歴はない。

現症：栄養、体格は中等度で、左外耳前方に副耳が認められたが、先天性耳瘻孔や外耳道閉鎖などの異常所見はなく、その他の部分にも先天異常は認められなかった(写真 1)。

局所所見：左口角より約 8mm の頬部皮膚面に半粟粒大の小瘻孔があり、透明な唾液様の液体が流出してい

写真 1

写真 2

東京医科歯科大学第2口腔外科教室(主任:伊藤秀夫教授)
Second Department of Oral Surgery, Tokyo Medical
and Dental University (Chief: Prof. Hideo Ito)
受付 昭和 46 年 12 月 8 日

写真 3

写真 4

た。耳下腺部を前方に向けて圧迫すると流量量の増加がみられた(写真 2)。

瘻孔から消息子を挿入すると, stenson 管の走行にそって約 30mm 入った(写真 3)。また瘻孔に内径 1mm のポリビニール管を挿入してウログラフィン(76%)1ml を注入し, sialography を行なった。その所見では瘻管は stenson 管に連続しており, 咬筋の部分で多少屈曲し, その後はほとんど水平に後方にのび, 腺体に入ってから樹枝状に分岐して腺体部に斑状の陰影像が認められた(写真 4)。

処置および経過: 上記の局所所見から本例は耳下腺の先天性唾液瘻と診断し, Delore 法により手術を行なった。すなわち全身麻酔下に, 頬部皮膚の瘻孔周囲に長径 5mm の楕円形の皮切を行ない, 瘻孔に皮膚片をつけた状態で瘻管を周囲から約 10mm 剥離した。つぎにその創底から頬粘膜に達する切創を作り, 瘻孔を頬粘膜面に出して, その部分の皮膚片と粘膜とを縫合した(写真 5-a~e)。

経過は良好で, 術後 10 日目に退院した。唾液は頬粘膜に移動した瘻開口部から流出し, 耳下腺部の腫脹および皮膚面への唾液流出はみられなくなった。

考 察

耳下腺唾液瘻はその発生機序から先天性と後天性とに分類される。頻度別にみるとそのほとんどが後天性のもので, 先天性耳下腺瘻はきわめてまれなものである。

人体顔面および頸部の胎生初期形成過程をみると, 胎生第 7 週ごろまでに内外胚葉面に鰓弓, 鰓裂が出現し, 胚芽の頸部には左右条の鰓裂と 5 対の鰓弓が見られる。さらに各鰓弓の成長に伴い鰓弓は短期間で頂点に達し消失する。この鰓弓構造が消失すると, 鰓弓は相互に結合すると共に鰓弓由来の臓器は分化しはじめる。

上記の各鰓弓が顔面および頸部のいずれの部分形成するか, 鰓裂がいずれの部分に相当するかについては一応の模型(図 1)が考えられているが, 実際は非常に復

図 1 胚芽と成人頸部における鰓弓組織の発布状態
Bill, A.H. Jr. and Vadheim, J.L. の論文より転載。

雑なため図示することは困難である。しかしこの胎生期における第 1, 第 2 鰓弓などの異常により, 口腔内では唇顎口蓋裂などの裂奇形が発生し, また外耳部においては小耳症, 副耳, 耳瘻孔および外耳道閉鎖などが招来されるといわれている⁴⁾⁵⁾⁶⁾。

一方この時期における耳下腺原基は, 胎生 8 週目に充実性上皮索として口角部に発生し, これが次第に中胚葉の中に沈下し, 将来の位置へと向ってのび耳下腺を形成するといわれている⁷⁾⁸⁾。

この耳下腺原基および耳下腺形成途上の異常についてはいろいろ報告されている。たとえば, 耳下腺内にリンパ組織が迷入したもの(William F. Cunningham, M.D. Elmer Hoffman, M.D.), 両側耳下腺の欠如しているもの(Becco U, Poirier, Singr), 一側耳下腺の欠如したもの(Poirier U, Lejars), また位置の異常として耳下腺が正常な位置に存在せず, 顎角部に大きく発育したもの(Gruber)などの報告がある。

先天性耳下腺瘻については, Stenson 管が横顔面裂の

写真 5-a

写真 5-b

写真 5-c

写真 5-d

写真 5-e

破裂縁に開口したもの (Prommrich), 胸鎖乳突筋前縁に開口したもの (Bochdaleck) (丹羽), 耳後部に開口したもの (坂口), 外耳道に開口したもの (Küttner など) および Stenon 管が犬歯の高さに開口したもの (豊田) などがある。私達の経験した症例は、本来の Stenon 管開口部とは正反対の頬部皮膚に開口していたもので、同側に副耳の合併がみられた。

耳下腺瘻はその開口部により外耳下腺瘻と内耳下腺瘻とに区別されている。前者はたえず唾液が外皮を通して顔面部に流出されるために皮膚が湿潤し、皮膚炎などがおこりやすく、治療の対象となるが、後者は唾液が Stenon 管以外の経路で口腔内あるいは咽頭に流出するだけで、その病的意義はない。

外耳下腺瘻の処置法としては、瘻孔部より頬粘膜に2つの穴をあけ、強い絹糸あるいは銀線を口腔内で結び、この間の組織を壊死におちいらせて口腔内に新しい瘻孔を形成させる方法 (Degniose 法)、瘻孔部より太い絹糸を口腔内に通し、4~6 週間放置し新瘻管を口腔内に作る方法 (Kausch 法)、瘻孔周囲に皮膚縁をつけ、瘻管を剥離したのち、これを直接頬部粘膜に移植する方法 (Delore 法) などの多くの処置法が報告されている

が⁹⁾¹⁰⁾¹¹⁾、実際にはそれぞれの症例に最も適した処置法を選ぶことが大切で、本症例は、Delore 法によって良好な結果を得たものである。

文 献

- 1) 丹羽七次郎：先天性唾液瘻の1例。北越医法 37 年2号 99.
- 2) 豊田邦二：耳下腺排泄口位置異常の1例。大日本耳鼻 37:1 1931.
- 3) 坂口敏之：先天性耳下腺唾液管瘻の1例。耳喉科 22:9 1950.
- 4) 横屋安夫：人胎児の発育段階。日医大誌 23:1 1956.
- 5) 相見賢二：先天性側頭部瘻管及び嚢腫に関する考察。日本耳鼻咽喉科学会会報 69:1919 1966.
- 6) 高橋庄二郎：先天性下唇瘻を伴う唇顎口蓋裂の1例。歯科学報 66:630 1966.
- 7) 津崎孝道：人体発生学。p.65, 金原出版.
- 8) Hoffman, E.: Bronchial cysts within the parotid gland. Ann Surg 152:290 1960.
- 9) John R. Wallace, : Method for menagement of Parotid duct transection in war wound. J oral surgery 27:882 1969.
- 10) Osamu Chinara: Chirurgische Betrachtungen der Äusseren Parotid fistel. Yonago Acta medica 10:202 1966.
- 11) 笹木 実：耳下腺唾液管瘻。耳喉 12:685 1939.