下顎角下部に発生した先天性粘液貯溜嚢胞の1症例

石川武憲*・河村順一*・田中昭裕*・森沢宣生*・神谷健治*
安原弘通*・渡辺義明*・吉岡 済*・増田 屯**

A case of congenital mucous retention cyst at the inferior part of the mandibular angle

Takenori ISHIKAWA*・Junichi KAWAMURA*・Akihiro TANAKA*・Norio MORISAWA*
Kenji KAMIYA*・Hiromichi YASUHARA*・Yoshiaki WATANABE*・Wataru YOSHIOKA*
Tamuro MASUDA**

緒 言

下顎角下部に発生する嚢胞の中には、臨床的に鑑別診断の非常に困難な症例が多いことは周知のとおりである。われわれは、城西歯科大学附属病院口腔外科において、“右側先天性側頭嚢胞の疑い”と臨床診断を下し、病理組織学的には、唾液腺に起因する粘液貯溜嚢胞であった興味ある症例に遭遇し、治験する機会を得たので、その概要に加えて、その発生由来に若干の考察を加えて報告する。

症 例

患者：■■■■ 4才，男児
初診：1972（昭和46）年8月■■日。
主訴：右側下顎角下部の腫脹。
家族歴および既往歴：特記事項なし。

現病歴：生下時，右側下顎角下部に，小指頭大の柔らかい腫瘍を認めた。増大したため，生後4週目に，某病院外科を受診し，リンパ腺性斜頸と診断され，その後，腫瘍は無痛性に増大し続けたため，同外科において，生後3ヵ月頃より3度にわたって穿刺を受け，ゼリー様白色の内容物をみたとのことであった。その後，経過観察を受けていたが，腫瘍はなお徐々に増大し続け，圧迫痛を生じるようになったことと，頸部の変形をみるようになってきたため，同外科より，本院口腔外科を紹介されて

来院したものである。

現症：右側下顎角下部に，鶏卵大の無痛性，可動性腫瘍を認めた（写真1）。

写真1 術前顔貌所見

本腫瘍は全般的に弾性軟であり，皮膚直下に突出した部分は，一部軟性であり，偽波動様感が認められた。皮膚との癒着はなく，膨隆部の皮膚表面は平滑であり，境界は明瞭であった。触知される位置の関係は，胸鎖乳突筋の前縁で顎下部より顎角部にかけて，皮膚直下に腫瘍が触診され，頸を作って下顎内側に侵入していた。皮膚の知覚異常は認められなかった。口腔内所見としては，口腔底に異常はなく，舌背の高さに左右の差は認められなかった。また，舌運動，発音などの機能障害はなく，

*城西歯科大学口腔外科学第2講座（主任：吉岡済教授）

**城西歯科大学口腔診断学講座（主任：増田屯教授）

*Second Department of Oral and Maxillo-facial Surgery, Josai Dental University (Chief: Prof. Wataru Yoshioka)

**Department of Oral Diagnosis, Josai Dental University (Chief: Prof. Tamuro Masuda)

受付 昭和49年4月26日

嚥下による腫瘤の偏位も認められなかった。穿刺により、極度に粘稠なコハク色、透明な内容液を認めた(写真2)。

写真 2 術前穿刺内容液

レ線所見：mammography用フィルムを使用して、撮影したレ線所見は、右側下顎角下部に相当する部位で、皮膚直下より下顎内側にわたり、鶏卵大の均一な半不透過像が認められた(写真3)。歯牙および顎骨には、特記すべき異常は認められなかった。

写真 3 mammography用フィルムによるレ線所見。右側下顎角相当部に均一な半不透過像を認める。

臨床検査成績：表1に示すごとくであった。この結果、LDH が 690 WU と非常に高値を示し、アルカリフォスファターゼ、アシッドフォスファターゼがやや高値およびCPR が陽性であったほかは、特に異常は認められず、また梅毒血清反応も陰性であった。

臨床診断名：腫瘤の発生場所、皮膚との関係、可動性、内容液および報告された嚢胞の発生などの鑑別点(表2)¹⁾から先天性側頸嚢胞と臨床診断を下した。

処置ならびに術中所見：G.O.F. 気管内挿管麻酔のもとに、摘出手術を行った。手術所見として、この嚢胞は容易に剝離され、平滑強靱な被膜に被包され、一塊として摘出された。摘出物は表面滑沢で、いわゆるひょうたん形を呈していた(写真4)。

血液一般検査		血液化学的検査	
検査項目	検査値	検査項目	検査値
RBC	392×10 ⁴ /mm ³	総蛋白量	7.6g/dl
Hb	10.6g/dl	A/G 比	1.53
Hct	33%	GOT	27KAU
WBC	5700/mm ³	GPT	7KAU
好中球	40%	LDH	690 WU
好酸球	7%	アルカリフォスファターゼ	17.5KAU
好塩基球	1%	アシッドフォスファターゼ	5.6KAU
リンパ球	47%	TTT	3U
単球	5%	ZTT	9U
血小板	29.6×10 ⁴ /mm ³	尿素-N	25mg/dl
出血時間	2.5分	CRP	(+)
凝固時間	5.5分	RA	(-)
		梅毒血清反応	(-)

とに、摘出手術を行った。手術所見として、この嚢胞は容易に剝離され、平滑強靱な被膜に被包され、一塊として摘出された。摘出物は表面滑沢で、いわゆるひょうたん形を呈していた(写真4)。

写真 4 摘出物所見。写真上部の摘出物は顎下リンパ節。

解剖学的位置関係は、右側顎下唾液腺の近傍ではあるが、顎下唾液腺あるいは、その他の組織との癒着は認められなかった。後上方向へは、右側扁桃窩に、内側へは舌骨方向へ、また外側後部へは、右側胸鎖乳突筋の前縁部へ伸展していた(図1)。

内容液の検索：内容液は非常に粘稠で、透明コハク色を呈し(写真5)、その化学的分析の結果は表3に示すとおりである。ムチンの定量をグルクロン酸を指標として行った場合、180mg/dl で、内容液の塗沫標本ではPAS、Alcianblue および Giemsa 染色ともに強陽性であり、粘液の存在を示すものと考えられる。また、細菌検査の結果

表 2 頸部嚢胞の鑑別

	原因, 既往	腫瘤の場所	表 面	硬 度	皮膚との関係	可動性	内 容
先天性 頸嚢胞	先天性, 生後すぐ 気付かれるものも あるが小年, 女期 になって目立って くる。	側嚢胞は胸鎖乳突 筋前縁で同筋と喉 頭の間にある正中 嚢胞は舌骨部を中 心にある	平 滑	弾性, 軟, 波動性あり	癒着なし, 皮膚面 へ, 増大する傾向 あり, 瘻孔をつく ることあり	深部とはあ まり動かず	漿液性時に粘 液性内容に上 皮細胞あり, コレステリン もあること多 し
嚢胞性 リンパ管腫	先天性, あるいは 生後間もなく膨大 する	側頸上部に発生す ることが多いが, 腫大して全側頸に かかった大きな膨 隆腫瘤になる			皮膚正常 癒着なし	深部には固 定される	漿液性, 透明 水様
海面状 血管腫	先天性のことと, 生長するにつれ腫 大してくるものが ある	側頸部, 後頭, 項部	凸凹, 青紫 色時にかた く結合をふ れることあり	軟, 波動性 あり。硬性 をふれるこ とあり。	癒着することと し ないことあり	制限される	血 液
血液嚢胞		鎖骨上窩に多い	平 滑	軟, 波動性 あり			
粘液嚢胞	慢性炎で, 外傷, その他による	舌 骨 下	平 滑	弾力性軟 緊張波動性 あり	癒着せず	基底とは動 かず	粘稠な透明液
粉 瘤	ゆっくり, 大きく なる	どこにもできるこ とに項部	平 滑	波動性あり	皮膚と強く癒着	基底とはう ごかすこと ができる	粉瘤粥
類皮嚢腫		胸鎖乳突筋, 内縁 にそって多い			皮膚正常 癒着なし		同上のもの及 び毛, その他
動 脈 病	自然にあるいは, 外傷, 梅毒による	大血管内にそって できる	平 滑	緊張して搏 動する	癒着なし	横にうごか しうる	血 液
脳脊髄膜 ヘルニア	先 天 性	項 部	平滑または やや粗 凸凹	緊張して搏 動あり (軽度)	頂上の部分は羊紙 皮様皮膚となるこ と多し	な し	脳脊髄液

外科診断学（浜口・石川編集）より抜粋

図 1 嚢胞の解剖学的位置

果, 内容液に一般細菌は検出されなかった。
病理組織学的所見: 通法により作製された切片標本に,
H.E染色を施したものを検鏡した。嚢胞壁は線維性肉芽

組織からなり, 内面上皮は認められなかった。隣接する唾液腺組織には, 導管の拡張, 腺細胞の変性, 萎縮および間質の線維増性が認められると同時に, 一部には粘液の貯溜と思われる所見が確認された(写真6, 7)。
また, 腺組織の大部分は漿液腺であり, 一部粘液腺の混じった混合唾液腺であった(写真8)。
病理組織学的診断: 唾液腺由来の粘液貯溜嚢胞。
術後経過: 術後約1年6カ月を経た現在も, なんら異常を認めていない(写真9)。

考 察

顎下部および頸部にみられる嚢胞は, 表2に示すよう

写真 5 内容液所見。生卵の白味を思わせる牽引性内容液を呈している。

表 3 内容液の分析

化学的分析	
検 査 項 目	検 査 値
グルコース	140.8mg/dl
ムチン (グルクロン酸として)	180mg/dl
蛋白	6.71g/dl
Na	251.0Eq/l
K	2.2Eq/l
Cl	9.0Eq/l
Ca	0.96Eq/l
アミラーゼ活性	32U
リバルタ反応	(-)
ルネベルク反応	(+)
線維素	(-)
ヨード澱粉反応	(-)
塗 抹 染 色	
塗 抹 染 色 項 目	結 果
Alcian-blue 染色	(卅)
PAS 染色	(卅)
ギムザ染色	(卅)
細 菌 検 査	
検 査 項 目	結 果
塗 抹	(-)
培 養	(-)

写真 6 嚢胞壁は線維性肉芽組織からなり、腺細胞の変性、萎縮が認められる。上部は嚢胞腔を示す。H. E. 染色 (×100)

写真 7 粘液性物質の貯溜。右側上下部に唾液腺組織が認められる。H. E. 染色 (×100)

写真 8 嚢胞壁中または隣在する唾液腺は主として漿液腺、一部粘液腺が混在している。H. E. 染色 (×200)

に、臨床的に鑑別診断の困難なものが多い¹⁾。鑑別診断のための術前検索も困難を伴うことが多く、とくに本症例のごとく、年令的に唾液腺造影法の施行および嚢胞の

写真9 術後1年6ヵ月時の顔貌所見

造影^{2,3)}など困難をきわめ、たとえば唾液腺由来の粘液貯溜嚢胞、舌甲状残遺嚢胞および先天性側頸嚢胞などの鑑別が要求されるにもかかわらず、単に穿刺による内容液をもって、ただちに診断を確定しがたい例もある。ムチンの定量には、確定的検査法はなく、種々の検査の組み合わせが必要であり、鑑別診断の根拠とするには、いまだ疑問点を残すものといわざるを得ない⁴⁾。

唾液腺由来の嚢胞を考える場合、部位的観点より、顎下型ガマ腫⁵⁾が考えられたが、本症例では、口腔底の特徴的なガマ腫としての膨隆はなく、また外側からの圧迫による舌下部および口腔底の変化が認められなかったこと、右側口蓋扁桃部にやや膨隆性変化をみたこと、および自然開口時に Mackenzie の分類⁶⁾2度に相当する肥大が認められ、左側の扁桃に比してやや大きいことなど、さらに舌運動に無関係などの点から、一応臨床的に“先天性側頸嚢胞の疑い”と診断を下した。しかるに、本症例の嚢胞は、病理組織学的に唾液腺に由来する貯溜嚢胞⁶⁾であり、その発生由来を考察することは、診断学上意義深いことといえる。

唾液腺由来の粘液貯溜嚢胞は、排泄管の部分的または完全な閉塞によって生じると一般的に言われてきた。しかし、Bhaskar らや Standish らは、マウスやラットの排泄管結紮によって、人間に見られるがごとき病変は起らず、排泄管を切断して、唾液が周囲の結合織中に漏出すると嚢胞が発生することを実験的に証明した。すなわち、排泄管の外傷によって、嚢胞が形成される可能性があることを示唆するものとして、Lucas は彼の著書⁷⁾にとりあげている。いずれにせよ、先天性^{8)~10)}および後天的原因^{8)~7)}が考えられるが、本症例は、生下時すでに、その嚢胞が発見されていることから、先天性な唾液腺の閉

塞または排泄管の欠除などの異常によるものと考えるべきであり、外傷などの外的因子は除外するのが妥当というべきであろう。この先天性粘液貯溜嚢胞に関しては、Redpath⁹⁾が、先天性のガマ腫を報告している。Thoma は排泄管の先天性閉塞によってガマ腫が発生する可能性があることを、唾液腺の先天性異常の項で述べており⁹⁾、われわれの考え方と一致するものといえる。

本症例においては、前述のごとく嚢胞が顎下唾液腺の近傍に位置したが、腺体との接触、癒着は認められず、また組織学的検索の結果、嚢胞壁中の唾液腺組織は、大部分が漿液腺で、一部粘液腺の混合したものであり、唾液腺発生過程の解剖学的位置関係を考慮すると¹⁰⁾、迷入した粘液貯溜嚢胞と考えるのが妥当であろう。特に、顎下唾液腺から分離した副唾液腺または迷入唾液腺が生じやすいことから^{6,9,10)}、さらに副唾液腺管の閉塞または異所性迷入唾液腺が本来の機能を一部維持する可能性があるとするれば、この考え方が裏づけられるかもしれない。

また、貯溜嚢胞の発生誘因の一つとして、梅毒との関連性をうんぬんする報告もあるが¹¹⁾、この説は近年否定的であり、われわれの症例においても、梅毒血清反応は陰性であった。さらに、細菌や異物などを原因とする説もみられるが、内容液の細菌検査の結果、一般細菌の検出されなかった例も多く⁹⁾、われわれの症例も同様であった。特に、本症例においては、前述のごとく解剖学的ならびに病理組織学的観点を加えて、これらの誘因は完全に除外されるものと考えられる。本患者の血清 LDH, アルカリフォスファターゼおよびアミドフォスファターゼが高値を示したことから CRP が陽性であったこと、この粘液貯溜嚢胞の直接因果関係をうんぬんするには、これら諸反応の特異性の点で種々の問題点があり¹²⁾、今後の症例を検討し、集積する必要がある。

結 語

1. われわれは、城西歯科大学口腔外科において、“先天性側頸嚢胞の疑い”と臨床診断を下し、実際には、迷入した唾液腺に由来する粘液貯溜嚢胞であると考えられる臨床的に鑑別診断の困難な一症例に遭遇し、治験する機会を得たので報告する。

2. 本症例は、生下時すでに発見され、解剖学的位置関係および組織学的検索の結果、顎下唾液腺から離れて、一部迷入した唾液腺より発生した先天性粘液貯溜嚢胞であると考えられた。

3. 嚢胞は通法により摘出され、術後経過良好で、約1年6ヵ月を経た現在、なんら異常を認めていない。

尚、本論文の要旨は第27回日本口腔科学会総会(昭和48年6月、札幌)において発表した。

文 献

- 1) 浜口栄祐, 石山俊次: 外科診断学(下巻). 第1版. 医学書院, 東京, 1959, 630~631頁.

- 2) 木村淑志, 他: 口腔底嚢腫症例のX線造影の経験. 耳喉 45: 183~189 1973.
- 3) 岡山秀昭, 他: 巨大なガマ腫の4例. 日口外誌 19: 496~501 1973.
- 4) 押鐘篤, 他: 歯学生化学. 第3版, 医歯薬出版, 東京, 1969, 397~419頁.
- 5) 武内重五郎: 内科診断学. 第3版, 南江堂, 1969, 126頁(引用)
- 6) 石川梧朗, 秋吉正豊: 口腔病理学(Ⅱ). 永末書店, 京都, 1971, 872~887頁.
- 7) Lucas, R.B. · Pathology of Tumours of the Oral Tissues. Churchill LTD, London, 1964, p 274~275.
- 8) Redpath, T. H. : Congenital ranula. Oral Surg 28: 542 1969.
- 9) Thoma, K.H., Goldman, H.M. : Oral pathology ed 5. Mosby Co., St. Louis, 1960, p 1142~1163.
- 10) Arey, L.B. : Developmental Anatomy A Text-book and Laboratory Manual of Embryology ed 7. Saunders Co., Philadelphia, 1965, p 226~227.
- 11) 高橋利貞: 蝦蟇腫病理知見補遺. 口腔病学会雑誌 13: 212 273 1939.
- 12) 金井泉, 金井正光: 臨床検査法提要 25版. 金原出版, 京都, 1971, VI-87~90頁, VII-73~79頁, XX-36~38頁.