顎下部より頭蓋底部に及んだ粘液嚢胞の1例

木下 勲彦・川畑 守・岡本 清美
三隅 晴具・黒豆 照雄・志村 介三

Mucous cyst extending from the submandibular region to the base of the skull: report of a case

Yukihiko KINOSHITA・Mamoru KAWABATA・Kiyomi OKAMOTO
Harutomo MISUMI・Teruo KUROZU・Kaizo SHIMURA

緒 言

粘液嚢胞 (mucous cyst) は唾液の流出障害によって生ずる嚢胞で、粘液瘤 (mucocele), 停滞嚢胞 (retention cyst) と呼ばれ, その大部分は粘膜下の小唾液腺に発生し, 大唾液腺部に生ずることはまれである。今回, われわれは29歳, 女性の左顎下腺部に発生し, 臨床的, 病理学的に興味ある所見を示した1例を経験したので報告する。

症 例

患 者: 29歳の女性。
初 診: 1976年7月■日。
主 訴: 左顎下部の腫脹。
既往歴: 10年前, 某外科にて左側下顎角部 Atherom の摘出術を受けた。
家族歴: 特記事項なし。
現病歴: 1か月前に左側顎下部の無痛性の腫脹に気づき, 某耳鼻科にて1週間, 抗生剤の投与を受けたが縮小せず, 当科を紹介され来院した。
現 症: 体格, 栄養は良好で, 全身所見に異常はなかった。
局所所見として, 左側顎下部に鶏卵大, 境界明瞭な腫脹がみられた (写真 1)。被覆皮膚は平滑であるが, 腫脹部後方の顎角部に約2cmの癬痕状切開線が認められた。腫脹部は, 弾性軟, 可動性の腫瘍として触知され, 腫瘍と皮膚との癒着はなく, 圧痛はなかった。また顎下リンパ節は触知されなかった。

写真 1 顔貌所見

口腔内所見として, 歯牙は $\frac{51}{146}$ がC₃であり, 舌, 口腔底, 扁桃部には異常が認められず, 嚥下, 発音障害はなく, 嚥下による腫瘍の偏位もみられなかった。

腫瘍の穿刺により, 透明, 淡黄色の粘稠性内容液が認められた。

臨床検査所見: X線所見では, 顎骨に異常はなく, 顎下腺の造影撮影でも明らかな病変はみられなかった (写真 2)。また顎下腺における^{99m}Tcの摂取排泄曲線では, 患側に up take のわずかな減少がみられるが, 明らかな病的機能低下は認められなかった。一般血液, 尿検査値は正常範囲内であり, 梅毒血清反応も陰性であった。

処置ならびに経過: 顎下部嚢胞の臨床診断のもとに,

神奈川歯科大学口腔外科学教室 (主任: 志村介三教授)

Department of Oral Surgery, Kanagawa Dental College (Chief: Prof. Kaizo Shimura)

受付日: 昭和53年8月18日

写真 2 顎下腺造影像

写真 4 a : 組織全体像 (H・E 染色), b : 嚢胞壁の一部拡大像。壁内面には上皮がみられず、嚢胞壁結合組織は顎下腺被膜、小葉間結合組織と移行している。

写真 3 上 : 嚢胞の解剖学的位置関係, 下 : 摘出物肉眼所見

1976年10月■日, G.O.F 麻酔下で口腔外から嚢胞の全摘出術を行った。

手術所見として、左顎下部に皮膚切開を加え、広頸筋、深頸筋膜を切開すると嚢胞壁が露出した。嚢胞は周囲の結合組織、筋肉と比較的容易に剝離されたが、その底部は顎下腺の外側面と強固に癒着していたため、嚢胞と顎下腺は一塊として摘出された。嚢胞の解剖学的位置

関係を見ると、下半部が顎下三角隙内に位置し、上半部が外側咽頭隙を経て、頭蓋底部にまで達していた(写真3上)。

術後の経過は順調であり、2年後の現在、再発は認められない。

摘出物の肉眼所見：嚢胞表面は滑沢で、暗緑色を呈し、嚢胞の形は全体にひょうたん状で、その底部が顎下腺と癒着していた(写真3下)。剖面をみると、嚢胞は単胞性で、かなり強固な壁を有し、腺体部と広い平滑な面で密に接していた。また腔内には粘稠な液と凝固塊がみられた。

病理組織所見：通法に従いパラフィン連続切片を作製し、Hematoxylin Eosin 染色、Weigert の弾性線維染色を施し検鏡した。H・E 染色による全体像をみると、嚢胞腔内には壁からの出血による凝固塊が含まれ、壁の一部では器質化が起こっているが、大部分の壁内面は平滑であり、嚢胞壁はほぼ一様の厚さのかなり密な線維性結合組織から成っていた(写真4a)。強拡大でみると、壁内面には上皮細胞は全く認められず、壁内は部分的に毛細血管の充血、小出血巣がみられるが炎症性細胞浸潤はほとんど認められなかった。嚢胞と顎下腺と接する部

写真 5 弾性線維染色, $\times 40$. 嚢胞壁自体に弾性線維はみられない。

位では嚢胞壁は顎下腺被膜と移行し、一部では小葉間結合組織とも移行していた。顎下腺は腺房、導管とも異常がなく、ワルトン氏管と嚢胞壁との間には直接の関係は観察できなかった(写真 4b)。弾性線維染色では、嚢胞壁自体には弾性線維は認められなかった(写真 5)。

確定診断：顎下部粘液嚢胞。

考 察

顎下部およびその近傍にみられる嚢胞性疾患には、鉤嚢胞、類皮嚢胞、甲状舌管嚢胞、静脈瘤、嚢胞性リンパ管腫、粘液嚢胞などがあり、臨床、病理学上、これらの鑑別がしばしば問題となる。本症例は内容液、手術時の所見、嚢胞壁の組織像などから総合的に判断して、顎下腺に関連して発生した粘液嚢胞と診断することが最も妥当と考えられる。しかも、本嚢胞の解剖学的位置、組織像、および顎下腺との関係はかなり特徴的で、その病像、成り立ちについて検討した。

1. 発生部位について

粘液嚢胞は通常、小唾液腺あるいは舌下腺に発生し、なかでも下唇が46~70%¹⁻⁶⁾で、最も多く、次いで口腔底、頬粘膜、舌などに好発する。一方、顎下部では、もとと舌下部に生じた大きな粘液嚢胞、いわゆる Ranula が顎舌骨筋を穿通、あるいはその後縁を周り、顎下部、さらに頭蓋底、頸部にまで及んだ例^{2,3,7-9)}が報告されているが、顎下部に原発した例は非常にまれである。われわれが文献を渉猟した範囲では、石川ら¹⁰⁾による下顎角部下部の迷入唾液腺に発生し扁桃上窩に伸展した先天性貯留嚢胞の報告例に類似を求めるにすぎなかった。著者らの例では、顎下腺部に発生し、口腔内に症状を現わさずに顎下三角隙より外側咽頭隙を経て頭蓋底部にまで組織抵抗の少ない筋膜隙に沿って伸長したことが特徴的といえよう。

2. 組織像について

粘液嚢胞の病理組織像に関しては、粘液と肉芽組織が

混じり合い嚢胞壁が不明瞭なものから線維性組織によって明瞭な壁が構成されるものまでさまざまである^{1,11)}。隣接する唾液腺組織は通常、種々の程度の炎症性細胞浸潤と変性がみられ、ときに腺組織や導管と嚢胞壁との連絡が認められる^{1,11,12)}。これに関し、Chaudry ら⁵⁾は66例の mucocoele の検索例で、その約80%に腺実質の萎縮と間質の線維化、導管の拡張などの組織変化がみられたと述べ、また Robinson ら¹¹⁾は小唾液腺の停滞嚢胞125例中31例(約24%)に嚢胞と導管との直接の関係がみられたと報告している。嚢胞の上皮被覆は一般に少ないとされているが、その頻度は報告者によりかなり相違がみられる。すなわち Bhasker ら⁴⁾は mucocoele 19例、Chaudry ら⁵⁾は66例の mucocoele においていずれも上皮が認められなかったと述べ、Whitlock ら⁸⁾も自験例1例を含む Ranula について同様の報告を行っている。一方、Robinson ら¹¹⁾は mucous retention cyst 125例中22例(17.6%)に部分的、完全な上皮被覆がみられたとし、Cohen⁶⁾は mucocoele 80例中7例(8.8%)に、Harrison¹²⁾は55例中10例(18.2%)に上皮被覆がみられたと報告している。さらに Shafer²⁾, Gorlin³⁾, Mandel⁷⁾ らは特に口腔底から舌骨上部、頸部や頭蓋底部にまで潜行、拡大した Type には上皮を有するものが多いと述べている。著者らの例では、嚢胞壁は厚い結合組織で、炎症性細胞浸潤がほとんどなく、上皮被覆は全く認められなかった。さらに隣接する顎下腺には機能的、形態的にも病的変化はほとんど認められず、また嚢胞と導管との直接関係はみられなかったが、嚢胞壁と顎下腺被膜および小葉間結合組織とが移行していたことが特徴的であった。これら粘液嚢胞における嚢胞壁、隣接唾液腺の組織像の相違は、嚢胞の増大に伴う2次的変化の程度あるいは嚢胞の成り立ちの違いによるものと考えられる。

3. 成り立ちについて

粘液嚢胞の成り立ちに関しては、古くから異物や炎症あるいは先天性異常による導管や腺房の閉鎖、さらには梅毒性唾液腺炎が重要視されてきたが、最近ではむしろ導管の機械的損傷が重要な役割を果たすことが次第に明らかにされてきた。すなわち導管の損傷によって唾液が周囲の組織中に溢出し、これを囲むように肉芽組織が増殖、さらには線維化することによって嚢胞が形成されると考えられている。この点に関し、Bhasker¹³⁾, Chaudry ら⁵⁾はマウス、ラットの唾液腺の導管を結紮しても嚢胞は形成されなかったが、導管の切断あるいは穿孔によってヒトの粘液嚢胞にみられるごとく変化が起きることを実験的に示した。さらに Whitlock⁸⁾は Ranula 8例中5例に、Standish¹⁴⁾は粘液嚢胞のうち11%に明らかな外傷の既往があったと述べ、導管の機械的損傷説を裏づけている。しかし一部の粘液嚢胞、特に上皮被覆のあるものは異物、炎症によって導管の部分的な閉塞が起こり、

次いで唾液の持続的な分泌により内圧が高まる結果、導管が拡張して生ずる可能性も否定されていない^{1-3,7,18)}。特に Robinson¹¹⁾は嚢胞壁の明瞭な粘液嚢胞の約1/3は上皮を有していたことから、むしろ導管の閉塞を重視している。その他、口腔底や顎下部の大きな粘液嚢胞の中には先天的な排泄管の欠如や閉鎖によって生じたと思われる例^{10,16)}も報告されている。最近、Cohen⁶⁾、Harrison¹²⁾、Redpath¹⁶⁾ら、はこのように粘液嚢胞の成り立ちに相違があることを認め、本嚢胞を mucous extravasation cyst (extravasation mucocoele) と mucous retention cyst (retention mucocoele) に大別している。これは口腔の粘液嚢胞の病態を解釈するうえで、現在のところ合理的と思われる。しかし実際には臨床、病理学上、嚢胞の成り立ちを推定できないことが多い。本症例では、隣接する唾液腺および導管に病的変化がほとんど認められなかったが、嚢胞壁と顎下腺との密接な関連性および顎下部の外科的処置の既往歴からすれば顎下腺への機械的損傷が本嚢胞の成り立ちに重要な役割を果たしたと思われる。Harrison¹²⁾らの説に従えば mucous extravasation cyst と考えるのが最も妥当と思われる。

粘液嚢胞の臨床症状は一般に無症状のことが多いが、口腔底における大きなものでは舌機能障害、嚥下障害、呼吸障害を起こすことがある^{1,3,7)}。本症例では嚢胞の拡大、進展にもかかわらず自覚症状が全くなかったが、これは嚢胞が顎下部より深在性に側咽頭隙を経て頭蓋底部にまで細長く進展し、舌下部に及ばなかったためであろう。

粘液嚢胞の処置に関しては従来より嚢胞の全摘出術、副腔形成法が行われ、さらに最近では冷凍外科手術の応用も試みられている。このうち全摘出術は一般に嚢胞壁が薄く困難なことがあり、特に口腔底部の大きなものは病巣の取り残しにより再発することがあるため、副腔形成法、あるいは舌下腺や付属唾液腺の同時摘出が推奨されている^{7,9,17-19)}。Whitlock⁸⁾は顎下、頸部に拡大し、再発を繰り返した Ranula が舌下腺を摘出することによって治癒したと報告している。副腔形成は簡便だが、開放創の急激な癒着により、再発の可能性がある。冷凍外科手術は著者らも適用しているが、侵襲がより少なく、いまのところ処置も簡便で良好な成績を得ている。本症例では、嚢胞が深部に存在していたため全摘出を行ったが、嚢胞壁が強靱であったこと、顎下腺と強固に癒着していたことから、これらを一塊として摘出し、再発はみられない。

結 語

1. 29歳女性の顎下腺部に生じた粘液嚢胞の1例を経験し、あわせて文献的に検討した。
2. 嚢胞は顎下腺より外側咽頭隙、頭蓋底に進展して

いた。組織学的に嚢胞壁は顎下腺被膜、小葉間結合組織と移行していた。

3. 本症の発生には外傷性因子が関与したと考えられた。

稿を終るに臨み、病理組織学的検査に際し、詳細な御教示を戴いた徳島大学歯学部病理学教室、小守昭教授に感謝致します。

なお本論文の要旨は第106回日本口腔外科学会関東地方会において発表した。

引用文献

- 1) 石川梧朗, 秋吉正豊: 口腔病理学Ⅱ. 第2版, 永末書店, 京都, 1969, 883頁。
- 2) Shafer, W.G., Hine, M.K., Levy, B.M.: A Text Book of Oral Pathology. ed 3, Saunders Co, Philadelphia, 1974, p 509.
- 3) Gorlin, R.J., Goldman, H.M.: Thoma's Oral Pathology II. ed 6, Mosby Co, St Louis, 1970, p 964.
- 4) Bhasker, S.N., Bolden, T.E., Weinmann, J.P.: Pathogenesis of mucocoeles. J D Res 35: 863 1956.
- 5) Chaudry, A.P., Reynolds, D.H., Lachapell, C.F., Vickers, R.A.: A Clinical Experimental study of Mucocoele (Retention Cyst) J D Res 39: 1253 1960.
- 6) Cohen, L.: Mucocoeles of the oral cavity. Oral Surg 19: 365 1965.
- 7) Mandel, L., Baurmash, H.: Ranulae. Oral Surg. 10: 567 1957.
- 8) Whitlock, R.I.H., Summersgill, G.B.: Ranula with cervical extention, Report of a case. 15: 1163 1962.
- 9) 岡山秀昭, 坂上 昇, 山下佐英, 比嘉良有, 池田邦明, 登山 弘: 巨大なガマ腫の4例, 日口外誌 19: 497 1973.
- 10) 石川武憲, 河村順一, 田中昭裕, 森沢宣生, 神谷健治, 安原弘道, 渡辺義明, 吉岡 済, 増田 屯: 下顎角下部に発生した先天性粘液貯溜嚢胞の1症例, 日口外誌 20: 375 1974.
- 11) Robinson, L., Hjørtig-Hansen, E.: Pathologic changes associated with mucous retention cysts of minor salivary glands. Oral Surg 18: 191 1964.
- 12) Harrison, J.D.: Salivary mucocoeles. Oral Surg 39: 268 1975.
- 13) Bhasker, S.N., Bolden, T.E., Weinmann, J.P.: Experimental obstructive adenitis in the mouth. J D Res 35: 852 1956.
- 14) Standish, S.M., Shafer, W.G.: The mucous retention phenomenon. J Oral Surg 17: 15

- 1959.
- 15) Tiecke, R.W.: Oral Pathology. ed 1, Mac-Graw-Hill Co, New York, 1965, p 198.
- 16) Redpath, T.H.: Congenital ranula. Oral Surg 28: 542 1969.
- 17) Archer, W.H.: Oral Surg. ed 4, Saunders Co, Philadelphia, 1966, p 481.
- 18) Kruger, G.O.: Text book of Oral Surgery ed 4, Mosby Co, St Louis, 1974, p 238.
- 19) 中村平蔵, 上野 正, 伊藤秀夫編: 最新口腔外科学, 第2版, 医歯薬出版, 1975, 835頁,
-