嚢胞性ヒグロームの2症例

藤本 誠一・野代 忠宏*・山田 長敬*・空閑 祥浩

Two cases of cystic hygroma

Seiichi FUJIMOTO・Tadahiro NODAI*・Nagayoshi YAMADA*

Yoshihiro KUGA

Abstract: Cystic hygroma is an uncommon benign tumor which may grow so large as to make serious symptoms. The most common site for cystic hygroma is neck. Many reports about its treatment had been presented up to date, but we consider surgical excision the best treatment. Recently we experienced two cases of cystic hygroma in which surgical excision was made which had yet no recurrence.

Key words: cystic hygroma, hygroma colli

緒 言

嚢胞性ヒグローム (Cystic hygroma) は頸部を中心に発育するリンパ性起源の腫瘍で、一般に新生児、小児に先天性または早発性にみられる比較的まれな疾患である。最近では一般外科や小児外科を受診する場合が多く、本症に口腔外科領域で遭遇する機会は少ないようである。

今回、われわれは小児および乳児に発生した嚢胞性ヒグロームの2症例を経験したので報告する。

症 例

症例1

患 者：[]歳 男性。

初 診：昭和59年4月[]日。

主 訴：右側顎下三角部および舌下部の腫脹。

既往歴および家族歴：特記事項なし。

長崎大学歯学部口腔外科学第1講座

(主任：佐々木元賢教授)

* 九州歯科大学口腔外科学第1講座

(主任：山田長敬教授)

The First Department of Maxillofacial and Oral Surgery, Nagasaki University School of Dentistry (Chief: Prof. Motomasa Sasaki)

* The First Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Kyushu Dental College (Chief: Prof. Nagayoshi Yamada)

受付日：昭和62年7月27日

現病歴：生後半年頃より右側顎下三角部に腫脹を認め某耳鼻科医院を受診するも診断不明のまま、何ら処置を受けることなく放置されていた。昭和59年3月[]日、発熱(37.8°C)を伴う同部腫脹の増大を認め、発音ならびに嚥下障害をきたすようになったため、同年4月3日同医院の紹介により九州歯科大学[]を受診した。

現 症：体格、栄養状態は中等度で、眼瞼結膜において貧血は認められない。顔貌は非対称で、右側顎下三角部にびまん性の腫脹を認め、同部の皮膚は一部発赤し自発痛を認めた。同部は下組織に対しやや可動性を有し、弾性軟であった(写真1)。

口腔内所見として、舌下部から口底にかけ発赤を伴った腫脹を認め、舌が左側に挙上されていた。

CT 検査にて、右側口底から右側顎下部にかけての部に cystic soft tissue mass を認め、気道が左側に大きく圧排されていた(写真2)。

臨床検査所見：RBC 465万/mm³, WBC 9,200/mm³, Hb 12.3g/dl, Ht 36.5%, その他血清蛋白、肝機能、血清電解質とも異常は認められなかった。

臨床診断：嚢胞性ヒグローム。

処置および経過：入院当夜より急激に腫脹が増大し、舌根沈下に伴う咽頭腔の狭窄を引き起こし、著しい呼吸困難をきたすようになったため、翌日GOE気管内麻酔下にて手術を行った。

右側口底および右側顎下部に横切開を加えると、小児手拳大の淡黄透明色と暗赤色の内容物の混在した多房性の嚢胞が認められた(写真3)。嚢胞は上部は下顎骨に癒着し、その後部は口底にまで及んでいた。下部は胸鎖乳突筋中央部前縁からオトガイ舌筋後方に発育し、一

写真1 術前顔貌：症例1

写真3 術中写真：症例1

写真2 CT像：症例1

写真4a 病理組織像：症例1 (H-E染色, ×2)

写真4b 病理組織像：症例1 (H-E染色, ×100)

部外頸動脈と癒着しており、可及的に神経、血管を損傷しないよう注意しつつ周囲リンパ節および顎下腺を含めて摘出した。摘出後、口腔内よりガーゼドレーゼを施し創を閉鎖した。術後舌尖部の右側への彎曲偏位と右側口角下垂を認めた。

術後4か月頃より右側顎下部に再び腫脹が認められたため、昭和59年10月■日第2回目の手術を行った。顎二腹筋前腹前縁部に嚢胞様組織を認めたため摘出し、小嚢胞の残存する可能性のある部に凍結療法を試みた。

現在、舌尖部の右側偏位が残っているが機能的にはほとんど障害を認めず、右側口角下垂もほぼ改善され、再発傾向は認められない。

摘出物の肉眼的所見：摘出物は5×5×3cmの小児手拳大腫瘤で多房性を呈しており、表面を薄い結合組織性被膜で覆われ、黄色を帯びた透明液と暗赤色を呈した内

溶液とが混在して認められた。

摘出物の病理組織学的所見：腫瘤は比較的薄い結合組織の壁を有する大小不同の嚢胞腔からなり、嚢胞内には漿液を含んでいるが部分的に出血巣も認められる(写真4a)。嚢胞壁は扁平な内皮細胞で被われており、嚢胞間の結合組織間質はリンパ球の浸潤を認め、lymphoid follicleを形成する部も存在していた(写真4b)。

写真5 術前顔貌：症例2

写真7 術中写真：症例2

写真6 CT像：症例2

写真8 術後顔貌：症例2

病理組織学的診断：嚢胞性ヒグローム。

症例2

患者：■■■■月 女性。

初診：昭和59年9月■■日。

主訴：右側頸部の腫脹。

既往歴および家族歴：特記事項なし。

現病歴：昭和59年6月■■日、正常分娩にて出産。出産後、右側頸部の異常に気付くもそのまま放置。生後3か月頃感冒に罹患し、右側頸下部から右側耳介後部にかけて急激に腫脹が増大しはじめたため某病院小児科を受診。同年9月■■日九州歯科大学■■■■を紹介され受診した。

現症：体格、栄養は中等度、眼瞼結膜の貧血は認められない。顔貌は右側頸下部から右側耳介後部にかけてのびまん性腫脹のため非対称である。同部の皮膚は健康

色を呈しており、同部は皮膚に対して可動性を有していた（写真5）。呼吸は規則的ではあるが気道が圧排されているため、喘鳴を聴取することができた。CT検査にて、比較的境界鮮明な cystic mass を右側頸部に認めた（写真6）。

臨床検査所見：RBC 408 万/mm³, WBC 11,900/mm³, Hb 11.0 g/dl, Ht 34%, その他血清蛋白、肝機能、血清電解質とも異常は認めなかった。

臨床診断：嚢胞性ヒグローム。

処置および経過：昭和59年10月■■日、経鼻気管内麻酔下にて腫瘍摘出術を施行した。右側下顎角後縁より約1.5 cm 下方で下顎下縁に平行に約12 cm の皮膚横切開を加え、皮下組織及び広頸筋を剝離したところ、暗赤色を呈する多房性の腫瘍が認められた（写真7）。浅部では周囲組織からの剝離は比較的容易であったが、深部に

写真 9a 病理組織像：症例 2 (H-E 染色, ×40)

写真 9b 病理組織像：症例 2 (H-E 染色, ×100)

進むに従って剝離がやや困難な部位があった。腫瘍は上方では耳下腺と癒着し後方に至っては頸椎横突起にまで進入していた。前方は気管と癒着し、下方では胸鎖乳突筋の深部に入り込んで頸動脈鞘に移行していた。可及的に周囲組織を損傷しないよう注意しつつ、腫瘍に癒着していた周囲リンパ節群と顎下腺を含めて一塊として摘出した。摘出後、一部ドレナージを施し各層縫合を行い手術を終了した。

術後右側眼瞼の閉鎖不全を認めたが、就寝時には閉鎖可能な状態であり、経日的に同症状は改善された。現在では再発の傾向もなく、機能的にもほとんど障害を認めていない(写真 8)。

摘出物の肉眼的所見：大きさは $5 \times 4.5 \times 3$ cm で表面は結合組織性の被膜により覆われ、一部血管に富んでいた。

摘出物の病理組織学的所見：線維性結合組織よりなる囊胞壁は一層の内皮細胞で被覆されており、平滑なところや鋸歯状を呈する部など多様な形状をなしている。間質は部分的にも毛細血管の拡張、充血と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(写真 9a, b)。

病理組織学的診断：Cystic hygroma。

考 察

本症は最初に Redenbecker (1928)¹⁾ が *ranula congenita* として報告して以来、Wernher (1843)²⁾ が初めて囊胞性ヒグローム (cystic hygroma) と命名し、以後広くこの名称が用いられるようになっていく。

本症の成因に関してはいまなお意見の一致をみておらず、Sabin (1909)³⁾ の原始リンパ囊 primitive lymphatic sac の遊離・分画説、Bill (1965)⁴⁾、Godart (1966)⁵⁾ らのリンパ管と静脈系との交通遮断説などがある。さらに、Wills (1962)⁶⁾ は Goetsch (1938)⁷⁾ らの腫瘍説を疑問視し、むしろ液体の貯留、側副路の増生・栓塞・器質化などの結果増大するものであって、単に脈管系の形成異常であると述べている。最近では、奇形学の立場からみて過誤腫 (hamartoma) の要素が強いと考える傾向がある⁸⁾。いずれにしろ、診断に際しては primitive lymphatic sac と発生部位との関係を考慮して決定すべきことであると考えられている⁹⁾。

性別では男女間に差異は認めておらず^{10~12)}、発生年齢に関しては Gross (1953)¹⁰⁾ は 80~90% が 2 歳未満に発症すると報告しており、本邦でも生下時あるいは新生時期にほとんどが発見されている^{13~17)}。今回の症例の場合も生後半年および生下時に気付いており、先人の報告と一致している。

好発部位に関しては、Gross (1953)¹⁰⁾ は 112 例中 100 例、池田ら (1969)¹²⁾ は 23 例中 14 例、Ninh ら (1974)¹⁸⁾ は 126 例中 62 例、金子ら (1978)¹⁹⁾ は 90 例中 32 例の頸部発生例を報告している。これは頸部リンパ囊が初期に形成され、最も大きいことから囊胞性ヒグロームの好発部位と関連があることがうかがえる。また、頸部では発育様式から鎖骨上部限局型、顎下部型、胸鎖乳突筋前方型、側頸部広汎型に分類することができ²⁰⁾、本症例 1 は顎下部型、症例 2 は側頸部広汎型に発生した例である。

本腫瘍は径 1 cm の小さなものから、小児頭大以上に達するものがあり、柔軟で皮膚との癒着はなく、流動性、透光性を呈する。内容液は漿液性、透明でわずかに黄色を帯びるが囊胞壁からの出血により血性を呈することもある。鑑別すべき疾患としては、脂肪腫、血管腫、血腫、リンパ管腫、皮様囊胞、嚢性側頸嚢胞などがあげられるが、発現部位、腫瘍の柔軟性、透光性、内容液の性状等により診断は比較的容易である。

一般に本疾患は無症状に経過し、早急に手術を必要とするものではない。しかし、感染や腫瘍内出血を起こした場合などは腫瘍が急速に増大し、上気道や食道を圧迫し、呼吸困難や嚥下障害をきたすことがあり、このような時には緊急手術を要することがある¹⁹⁾。本症例 1 の場合、腫瘍が一昼夜にして急速に増大し気管圧迫による呼吸困難を惹起したため、気管内挿管ののちただちに腫瘍

摘出術を施行した。本症の治療法としては、吸引療法、硬化剤の注入、放射線療法、手術療法などがあり、最近ではBleomycinの局所投与が試みられている²¹⁾。呼吸困難等の緊急時には、Barrand (1973)²²⁾やWeller (1974)²³⁾とは気管切開術を推奨しているが、麻酔の進歩した今日においては早期手術が可能となっている²⁴⁾。著者らは、本症の治療としてまず第一に摘出術が施行されるべきものと考え、本症例に対して積極的に手術を行った。八上ら (1972)²⁵⁾は33例のリンパ管腫のうち嚢胞性ヒグロームは腫瘍の一部を残存した場合でも再発や難治性リンパ漏は起こらなかったと述べ、またWardら (1970)²⁶⁾も一部が残存した場合でもいずれは縮小・消失をみると報告している。しかしながら、本症例1では術後4か月頃より再発をきたしており、凍結療法を併用した再手術を行い現在に至っている。このように、症例によってはごくわずかな組織が残存していても再発の原因となり、同疾患の発育態度が旺盛であることが示唆される。

勝俣ら (1971)¹¹⁾は腫瘍基底部では重要血管、神経との癒着が必ず存在し、剝離の困難性を述べている。本症例においても同様で、腫瘍の一部が周囲の血管や神経に密接して取り囲んでおり、剝離に際して細心の注意を払ったにもかかわらず、術後舌下神経麻痺や顔面神経麻痺を認めた。しかし、同麻痺がいずれも軽度で経日的に改善され、機能的にもほとんど障害を見い出されないことからして摘出後の浮腫、瘢痕形成等が原因となったものと考えられる。

結 語

著者らは小児および乳児に発生した嚢胞性ヒグロームの2症例を経験し、外科的摘出術を施行し良好的な結果を得たので若干の考察を加え、その概要を報告した。

引 用 文 献

- 1) Redenbecker, E.A.H.: 文献9)より引用。
- 2) Wernher, A.: Die angeborenen Zysten-Hygrone und die ihnen verwandten Geschwulste in anatomischer, diagnostischer und therapeutischer Beziehung, GF Heyer, Giese, 1843. 文献9)より引用。
- 3) Sabin, F.P.: The lymphatic system in human embryos with a consideration of the morphology of the system as a whole. *Am J Anat* 9: 43-91 1909.
- 4) Bill, A.H.: A unified concept of lymphangioma and cystic hygroma. *Surg Gynec Obstet* 120: 79-86 1965.
- 5) Godart, S.: Embryological significance of lymphangioma. *Arch Dis Child* 41: 204-299 1966.

- 6) Wills, R.A.: Pathology of tumors. ed 4, Butterworths, London, 1967, p 728.
- 7) Goetsch, E.: Hygroma colli cysticum and hygroma axillare. *Arch Surg* 36: 394-479 1938.
- 8) 高橋俊治, 齊藤利夫, 他: Cystic hygroma の1例. *日口外誌* 25: 901-904 1979.
- 9) Ravitch, M.: Pediatric Surgery. ed 1, Year Book Med Publishers, Chicago, 1966, p 192.
- 10) Gross, R.E.: The surgery of infancy and childhood. WB Saunders, Philadelphia, 1953, p 960.
- 11) 勝俣慶三, 横山稔太郎, 他: Cystic hygroma (嚢腫性リンパ管腫). *外科診療* 13: 1054-1060 1971.
- 12) 池田恵一, 戸田智博, 他: 小児のリンパ管腫. *外科診療* 20: 376-387 1969.
- 13) 福田仁一, 空閑祥浩, 他: 嚢腫性リンパ管腫の治験例. *日口外誌* 20: 388-392 1974.
- 14) 池田恵一, 林田 裕, 他: 呼吸困難を伴う小児の頸部浸潤性リンパ管腫の治療. *外科* 38: 675-680 1976.
- 15) 今村 健, 竹腰知治, 他: 嚢腫状リンパ管腫. *日小外会誌* 13: 453-460 1977.
- 16) 小島碩哉, 平間裕一, 他: 先天性喘鳴を伴ったcystic hygroma の1例. *小診療* 40: 994-997 1977.
- 17) 杉崎正志, 難波まゆみ, 他: 巨大なcystic hygroma の1例. *日口外誌* 25: 115-119 1979.
- 18) Ninh, T.H.: Cystic hygroma in children: A report of 126 cases. *J Pediatr Surg* 9: 191-195 1974.
- 19) 金子道夫, 土田嘉昭, 他: 頸部巨大リンパ管腫. *外科* 40: 1094-1103 1978.
- 20) Indahl, V.H.: Zeitwall, Radikalität und gefahren der Exstirpation des Zystischen Lymphangioma colli beim Säugling und Kleinkind. *Z. Kinder, Supplement*, 1966, p 8.
- 21) 由良二郎, 橋本 俊, 他: 小児の頸部腫瘍, 特に嚢腫状リンパ管腫とBleomycinの効果について. *小児外科・内科* 8: 279-285 1976.
- 22) Barrand, K.G. and Freeman, N.V.: Massive infiltrating cystic hygroma of the neck in infancy. *Arch Dis Child* 48: 523-531 1973.
- 23) Weller, R.M.: Anesthesia for cystic hygroma in a neonate. *Anesthesia* 29: 588-594 1974.
- 24) 西 正勝, 北村勝也, 他: 頸部一顎下一舌下部にわたる新生児Cystic hygromaとその気管麻酔について. *日口外誌* 16: 286-290 1970.
- 25) 八上 彪, 門脇 宏, 他: 小児リンパ管腫の治療とその問題点(抄). *日小外会誌* 8: 58 1972.
- 26) Ward, P.H., Harris, P.F., et al.: Surgical approach to cystic hygroma of the neck. *Arch Otolaryng* 91: 508-514 1970.