新生児に発生したガマ腫と甲状舌管嚢胞様病変の合併例

瀬古和秀・各務秀明・光藤健司・水谷英樹
上田 実・金田敏郎Co-existence of ranula and possible thyroglossal
duct cyst in a newborn babyKazuhide SEKO・Hideaki KAGAMI・Kenji MITSUDO・Hideki MIZUTANI
Minoru UEDA・Toshio KANEDA

Abstract: In this paper, we report a case of congenital ranula lying adjacent to a possible thyroglossal duct cyst. The patient was a newborn baby who presented no remarkable anomalies in other regions. He was referred to us by a gynecologist because of swelling of the oral floor and elevation of the tongue. There were no noteworthy findings in the patient's family or personal history, including during gestation. Our clinical diagnosis was a sublingual cyst. The cyst was surgically enucleated at 9 months old when his body weight reached 9 kg. The cyst consisted of two compartments, one superficial and the other deep, which were completely separate. From clinical and pathological findings, the superficial portion was diagnosed as a congenital ranula, and the deep cyst was supposed to be a thyroglossal duct cyst. A close etiological relationship was suggested between these two adjacent cysts.

Key words: ranula (ガマ腫), retention cyst (貯留嚢胞), thyroglossal duct cyst (甲状舌管嚢胞), newborn baby (新生児)

緒 言

新生児に発生する口底部嚢胞としては貯留嚢胞, 類皮嚢胞などの例が報告されている^{1, 2)}.

そして貯留嚢胞に他の嚢胞が接して見られたとの報告は稀であるが³⁾, 今回われわれは, 新生児の口底部に存在したガマ腫を含む2つの嚢胞の合併例を経験した. 双方の位置関係からも両嚢胞の発生に関して密接な関係が推測された症例であったため, その概要を報告する.

症 例

患 者: [黒塗り], 男児.

初 診: 平成4年6月 [黒塗り].

主 訴: 舌下部膨隆.

現病歴: 出生当日, 産婦人科医師により舌下部膨隆を指摘され, 当科に紹介された. この時点で呼吸困難を呈することはなかった.

妊娠歴: 妊娠中に特記事項なし.

家族歴: 特記事項なし.

全身所見: 生下時体重 2880g, Apgar score 9, 心拍, 体温とも正常, 全身所見に異常は認めなかった.

局所所見: 口底部に健常粘膜に被覆された 20×20 mm 大の半球様, 境界明瞭な腫脹を認め, 波動を触知した. 舌は挙上していた.

臨床診断: 口底部嚢胞.

処置および経過: 上記診断のもとに外科的摘出術を計画したが, 舌の挙上によって呼吸困難, 哺乳障害を

名古屋大学医学部口腔外科学講座
(主任: 上田実教授)

Department of Oral Surgery, Nagoya University
School of Medicine (Chief: prof. Minoru Ueda)

受付日: 平成6年4月25日

写真1 摘出物所見

嚢胞は寒天材の注入された浅部とされていない深部からなる2胞性を示す。

(矢印は両嚢胞の境界を示す。)

TG: 甲状舌管嚢胞様病変

RA: ガマ腫

写真2 摘出物浅部の病理組織像

(H-E 染色, $\times 400$)

CC: 嚢胞腔 GT: 肉芽組織 CW: 嚢胞壁

写真3 摘出物深部の病理組織像

(H-E 染色, $\times 400$)

CC: 嚢胞腔

CW: 線毛上皮に被覆された嚢胞壁

IF: 炎症細胞の浸潤

呈することはなかったため、患児の手術に対する適応力を考慮し、しばらく経過観察を行った。

病変は経過観察中特に変化は示さなかったものの、依然として舌の挙上は認められた。

体重が9kgに達した平成5年3月、全身麻酔下にて嚢胞摘出術を施行した。嚢胞壁を保護し摘出を容易にするために寒天注入法⁴⁾を用いた。穿刺により淡黄色粘稠な濃汁様内溶液を2.0ml吸引したのち、同部より寒天材を注入した。嚢胞壁は周囲の口腔粘膜を含め鈍的に剝離摘出を行った。嚢胞壁と周囲の口腔粘膜との間に癒着は認めなかった。摘出された嚢胞は2胞性で寒天材の注入された浅部と、注入されていない深部に分かれていた(写真1)。浅部に存在した嚢胞より吸引された内溶液は、アミラーゼが2945単位と高値を示し唾液が主成分であると推測された。また深部に存在した嚢胞は舌下腺との関連は見られず舌筋内に存在していた。

病理組織学的所見: 摘出物浅部は肉芽組織からなる嚢胞壁を有し、上皮を欠く偽嚢胞であった(写真2)。摘出物深部は線毛円柱上皮に被覆された嚢胞壁を有し、一部出血と炎症細胞の浸潤を認めた(写真3)。2つの嚢胞は疎な結合組織により接していたが2つの嚢胞腔は完全に分離されていた。臨床所見と合わせ検討したところ摘出物浅部はガマ腫と考えられた。深部の嚢胞については今回の所見のみから断定することは困難であるが部位および組織像から甲状舌管嚢胞と推測された。現在術後13か月を経過するも病変の再発はなく経過良好である。

考 察

貯留嚢胞の成因については、古くから異物または炎症による導管ないし腺房の閉鎖が重視されていた⁵⁾。しかし近年の実験的研究から、この嚢胞は導管の単なる閉鎖による分泌物の停滞による導管拡張の結果では生じないことが確認されている。一方、導管の損傷に

よって周囲の組織中に唾液が溢出することにより同様の病変が起こることが明らかになった^{6,7)}。

しかし、新生児においては、これら誘発原因に接する機会は少なく、その成因についても導管損傷に結果というよりむしろ導管の先天性異常によるのではないかと考えられている⁸⁾。

今回われわれは新生児の口底部に貯留嚢胞とそれに接して存在した甲状舌管嚢胞様病変を経験した。2つの嚢胞間の関連についてはわれわれの渉猟しえた文献等にも記載はないが、Thompsonらは鰓嚢胞に接して存在したガマ腫の症例を報告している³⁾。この例では鰓嚢胞が鰓弓中の筋の変形をもたらしたことにより唾液腺導管を変形、変移させたことが一因ではないかと推定している。この例が今回の症例と直接対応するかは疑問であるが、同様の機序を考えれば、先天的に存在した甲状舌管嚢胞様病変が、近接した唾液腺導管を圧迫、もしくは器質的変化をもたらすことにより、ガマ腫を生じせしめたのではないかと推測された。しかし組織学的検索にても、その機序を証明するにはいならず、その関係の解明は、今後の課題と考えられた。また新生児貯留嚢胞の診断に際しては唾液腺導管の圧迫、損傷を惹起させるうる合併疾患の可能性に、十分な配慮が必要と考えられた。

結 語

今回われわれは新生児の口底部に存在したガマ腫とそれに近接して存在した甲状舌管嚢胞様病変を経験し

たので、文献的考察を加えその概要を報告した。

引 用 文 献

- 1) Rocco, R.A: Congenital cystic dilatation of the submandibular duct. *Oral Surg* 59 : 656-658 1984.
- 2) Rees, R: Congenital ranula. *Br Dent J* 146 : 345-346 1979.
- 3) Thompson, J.E: The relationship between ranula and branchiogenetic cysts. *Ann Surg* 72 : 164-172 1920.
- 4) 藤本雄大, 宇佐美雄司, 他: 寒天印象材を用いた軟組織内嚢胞の摘出手術. *日口外誌* 39 : 487-489 1993.
- 5) 石川悟朗監修: 口腔病理学 II. 改訂版, 末永書店, 京都, 1982, 886 頁.
- 6) Whitlock, R.I.H and Summersgill, G.B: Ranula with cervical extensions. Report of a case. *Oral Surg Oral Med and Oral Path* 15 : 1163 1962.
- 7) Bhaskar, S.N., Bolden, T.E., et al.: Pathogenesis of mucocoeles. *J D Res* 35 : 863, 1956.
- 8) Pownell, P.H., Brown, O.E., et al.: Congenital abnormalities of the submandibular duct. *Int J Pediatr Otorhinolaryngology* 24 : 161-169 1992.