臨床報告

低侵襲処置が奏効した舌下顎下型ガマ腫の1例

福島麻子 加藤伸一郎
土持 師* 渋谷恭之

A Pediatric Successful Case of Plunging Ranula Treated by Minimally Invasive Treatment

ASAKO FUKUSHIMA, SHINICHIRO KATO,
TSUKASA TSUCHIMOCCHI* AND YASUYUKI SHIBUYA

Abstract : A ranula is a mucous cyst caused by obstruction of saliva outflow. The various treatment methods include incision, fenestration, cystectomy, and total sublingual gland removal. In this case, we performed fenestration from the oral cavity as a minimally invasive treatment for a plunging ranula, and achieved good results.

A 9-year-old girl visited our hospital. A blue-purple soft-elastic swelling was found in the right floor of the mouth, and mild swelling was observed in the right submandibular region.

Based on the imaging and clinical findings, we diagnosed the lesion as a sublingual and plunging ranula. The patient and parents wanted minimally invasive treatment; thus, the cyst wall was resected by fenestration under local anesthesia, without suturing the oral mucosal tissue.

To avoid early wound closure, we instructed the patient and her parents to apply a steroid ointment to the wound with a cotton swab. Moreover, we instructed the patient and her parents to press the right submandibular region continuously using a small pillow.

Because a small amount of mucus retention was suspected at the 1st week and 2nd week after the operation, re-puncture and re-aspiration were performed. The patient's subsequent clinical course was uneventful and her condition was good at one year after the operation.

Key words : marsupialization (開窓術), steroid ointment (ステロイド軟膏), sublingual and plunging ranula (舌下顎下型ガマ腫), minimally invasive treatment (低侵襲処置)

〔Received Aug. 22, 2018〕

緒 言

ガマ腫は、一般に舌下腺、まれに顎下腺からの唾液の流出障害により生じる粘液嚢胞であり、治療法は切開術、開窓術、嚢胞摘出術、舌下腺摘出術などが挙げられる¹⁾。舌下腺摘出術は再発リスクが少ないものの、大きな手術侵襲を伴う²⁾。

今回われわれは、舌下顎下型ガマ腫に対して口腔内より

開窓術に準じた低侵襲な処置を行い、良好な結果を得たので報告する。

症 例

患者：9歳、女児。

初診：2018年7月22日。

主訴：右側口底部の腫脹。

家族歴：特記事項なし。

名古屋市立大学大学院医学研究科生体機能・構造医学専攻感覚器・形成医学講座口腔外科分野（主任：渋谷恭之教授）

* 名古屋市立大学大学院医学研究科高度医療教育研究センター（主任：深野英夫教授）

Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Nagoya City University Graduate School of Medical Sciences (Chief: Prof. YASUYUKI SHIBUYA) 1 Kawasumicho, Mizuho-ku, Nagoya, Aichi 467-8602, Japan.

* Nagoya City University Graduate School of Medical Sciences (Chief: Prof. HIDEO FUKANO)

現病歴：201X年7月16日、「右下奥がしみる」との主訴でかかりつけ歯科を受診。右側下顎の第一乳臼歯のう蝕と右側口底部の腫脹の指摘を受けた。同日う蝕処置を受け、口底部の腫脹は経過観察となったが、3日経過後も変化が見られず精査加療目的で当科へ紹介となった。なお、口底部の腫脹は指摘されるまで特に自覚症状はなかった。

現症：

口腔外所見：右側顎下部にびまん性の腫脹を認めた。

口腔内所見：右側口底部に正常粘膜に覆われた鶏卵大の境界明瞭なドーム状の腫脹を認めた。弾性軟で波動を触知し、やや青みを帯びていた（写真1）。

MR画像所見：右側舌下間隙に境界明瞭なT2強調像で高信号を示す嚢胞性腫瘍を認め、高信号域は顎舌骨筋を越えて顎下部に達していた（写真2A, B）。

臨床診断：舌下顎下型ガマ腫。

処置及び経過：ガマ腫の治療法には舌下腺摘出やピシバニール療法、開窓術などが挙げられ、舌下腺摘出の場合に

は再発のリスクが他の治療法に比べ低いとの報告があるが全身麻酔を必要とし、原因が顎下腺や反対側の舌下腺などであった場合には再発の可能性があること、またピシバニール療法は一般的な治療法とは言えず、薬剤注入後の局所の発赤・腫脹・硬結などのリスクがあること、開窓術は比較的低侵襲ではあるが再発のリスクがあること、などを患児と両親に説明したところ、より低侵襲な処置の希望があった。そこで開窓術に準じて嚢胞壁を試験的に切除し、口底粘膜との縫合は行わず、早期閉鎖予防のため創部にステロイド軟膏を綿棒で塗布する低侵襲処置について、再発の可能性を説明した上で提案したところ同意が得られた。

201X年8月10日、局所麻酔下で舌下ヒダの内側の粘膜を電気メスで大きく切除したところ粘稠透明な内容液を認めた。電気メスで粘膜を切除した部位からモスキートの先端を挿入し、切除部位を大きく広げて粘稠な内容液をさらに排出させた。その後、術者の示指または小指にて舌下隙を大きく開放し、さらに顎舌骨筋の後縁付近から顎下隙方向へ示指または小指を挿入し、同時に顎下部を皮膚側から圧迫して、貯留していた唾液を可及的に排出させた。創部は縫合せずに開放創とした（写真3）。

術後、右側顎下部の腫脹部には枕子をあて、バンテージで圧迫固定した状態で帰宅とした。創の早期閉鎖を防ぐため、1日4回口腔内創部にステロイド軟膏を綿棒で塗布するよう母親に指導した。

処置後1週目と2週目では舌下部と顎下部に唾液の再貯留を疑う所見を認めたため（写真4A）、念のために再開創処置を行い（写真4B）、ステロイド軟膏の塗布と枕子による圧迫を継続させた。

処置後3週目では、あきらかな唾液の貯留所見はなく経過観察とした。顎下部の腫脹は認めなかった（写真4C）。

201X年12月のMR画像では、処置前に認めた高信号域は舌下部・顎下部ともに完全に消退していた（写真5A, B）。

201X+1年2月、再発所見を認めず経過良好である（写真6A, B）。

写真1 初診時の口腔内写真
右側口底部に青紫色で弾性軟の境界明瞭なドーム状の腫脹を認める。

写真2 初診時のMRI写真（T2強調、A：水平断 B：冠状断）
右側舌下間隙に境界明瞭なT2強調像で高信号を示す嚢胞性腫瘍を認め、高信号域は顎舌骨筋を越えて顎下部にも達している。

写真3 術中写真
粘膜切除部をモスキートなどで開放したところ。

写真 4 術後の口腔内写真
A: 術後1週目, B: 術後2週目, C: 術後3週目

写真 5 術後4か月経過時のMRI写真
T2強調, A: 水平断, B: 冠状断
高信号域は右側舌下部顎下部ともに消退し左右差を認めない。

病理組織学的所見: 201X年8月10日の処置時に切除した嚢胞壁の一部を病理組織検査に提出し, 粘液嚢胞に矛盾しない組織像であった(写真7A, B)。

考 察

ガマ腫の治療法では開窓術が低侵襲な処置として比較的多く選択される傾向にある⁴⁾が, その再発率は20%~50%程度と言われており^{5, 6)}, 再発の要因のひとつとして創部の早期閉鎖が考えられる。そのため, 開窓術では嚢胞の天蓋を除去した後, 創部を周囲の口腔粘膜と縫合する等の手技が考案されているが, 低年齢の患者ほど術野の制限や体動があることなどから処置を確実に行うことは困難である。

藤井らの報告⁷⁾では, 粘液嚢胞に対して切開に加えステロイド軟膏塗布を行った結果, 嚢胞摘出術と比較し再発率にほとんど差がないことを示している(図1A, B)。これは肉芽形成抑制効果のあるステロイド軟膏が創面に付着することで開放創部の早期閉鎖を防ぐことが期待できるためとしている⁷⁾。また梯ら⁴⁾は微小開窓法と称して絹糸を嚢胞腔に穿通させて縫合し, 絹糸に接する嚢胞壁の瘢痕治癒によって形成された開窓孔によって開窓効果を得る方法を考案し, 舌下型ガマ腫7例中5例で再発を認めなかったと報告している。これらの術式では切開や穿刺後に唾液の排

写真 6 術後6か月の写真
A：口腔外, B：口腔内
顎下部・口底部ともに腫脹を認めない。

写真 7 病理組織写真
A：弱拡大 H-E 染色×1, B：強拡大 H-E 染色×40
嚢胞壁に相当する部位に明らかな上皮の裏打ちは認めない。隣在する唾液腺組織には腺房腔および導管の拡張と間質における軽度の炎症がみられる。

図 1 粘液嚢胞に対する治療法別の再発率 (藤井亜矢子らの文献より引用)⁷⁾
(A：切除術+ステロイド軟膏塗布 B：嚢胞摘出術)
切除術+ステロイド軟膏塗布では19例中再発例は2例(10.5%)。嚢胞摘出術では99例中再発例は12例(12.1%)。

液路を確保したことが良好な結果を導いたと考えられる。

一方、大類ら⁸⁾は、顎下型ガマ腫・耳下腺腺体内嚢胞の8例において、内容液の穿刺吸引と術後顎下部または耳下腺部の持続的な圧迫を行うことで良好な結果を得たことを報告している(表1)。この術式では周囲を持続的に圧迫

することで唾液の再貯留を抑制し、最終的には唾液の漏出部に癒着組織を形成させて閉鎖させることで治癒に至ったと考えられる^{2,7-9)}。また林ら⁹⁾は持続的な圧迫を行わず、複数回の穿刺吸引のみで治癒した舌下顎下型ガマ腫の1例を報告している。

表 1 吸引・圧迫療法を行った症例の部位と治療経過 (大類 晋らの文献⁸⁾より引用)

性別	年齢	診断	圧迫期間	予後
F	7	右顎下型ガンマ腫	2週間	治癒
M	10	右舌下顎下型ガンマ腫	3週間	治癒
M	8	左舌下顎下型ガンマ腫	4週間	治癒
F	38	右顎下腺体内嚢胞	5週間	再腫脹→再吸引→治癒
M	20	右顎下型ガンマ腫	6週間	治癒
M	29	右耳下腺体内嚢胞	7週間	治癒
M	28	右顎下型ガンマ腫	8週間	治癒
F	13	左顎下型ガンマ腫	9週間	治癒

このような低侵襲な処置は、外来通院下で行うことができ、簡便かつ処置時間が短いなど患者の負担が少ないうえ、治癒が望める治療法であることから特に小児のガンマ腫では有効な治療法であると言える²⁾。われわれは既に舌下部の粘膜穿刺と綿棒によるステロイド軟膏塗布により治癒に至った先天性ガンマ腫の1例を報告しているが¹⁾、今回の症例では唾液が舌下部と顎下部の両者に貯留し、その範囲が大きかったことから、顎下部に枕子を当てて継続的に圧迫し、処置後1週目と2週目に再開創処置を行った。ただし再開創時の手技はモスキート挿入して内部を開放するのみであり、低侵襲な処置であることに変わりはない。ステロイド軟膏は口内炎や口腔内粘膜潰瘍などの抗炎症作用を示す薬剤として頻用されているため、切開あるいは開窓した口腔粘膜創部に応用しても短期間であれば重大な副作用が起こる危険性は低いと考えられる。従って本治療法は既存の治療方法に加えて新たな選択肢のひとつになりうると思われた。

結 語

今回われわれは舌下顎下型ガンマ腫に対して口腔内より切開術と創部へのステロイド軟膏の塗布を行い良好な結果を

得たのでその概要を報告した。

謝辞ならびに利益相反 本論文に関して、開示すべき利益相反状態はない。

引用文献

- 1) 千賀靖子, 佐藤 隼, 森田麻希, 他: 先天性ガンマ腫の1例. 日口外誌, 63: 222-226, 2017.
- 2) 高木 慎, 高橋利近, 田村博宣, 他: 持続的開窓圧迫療法を行った小児の舌下顎下型ガンマ腫の2例. 小児歯誌, 43: 518-521, 2005.
- 3) 深瀬 滋, 太田伸男, 稲村和俊, 他: ガンマ腫に対する OK-432 嚢胞内注入療法. 口咽科, 3: 297-305, 1998.
- 4) 梯 裕恵, 白石剛士, 河井洋祐, 他: 粘液嚢胞に対する微小開窓法 (micro-marsupialization) の臨床的検討. 日口外誌, 60: 672-676, 2014.
- 5) 横林敏夫, 横林康男, 上田 健, 他: 口腔粘液嚢胞の臨床統計的検討. 新歯会誌, 13: 23-27, 1983.
- 6) 松田拓巳, 浜本宜興, 長峯岳司, 他: ガンマ腫 38 例の臨床的検討. 日口外誌, 41: 145-147, 1995.
- 7) 藤井重矢子, 新垣敬一, 仁村文和, 他: 粘液嚢胞の臨床的検討. Hosp Dent (Tokyo), 23: 23-27, 2011.
- 8) 大類 晋, 石川 誠, 臼井康裕, 他: 唾液腺貯留嚢胞に対する吸引・圧迫療法. 日科誌, 42: 585-589, 1993.
- 9) 林 宰央, 恩田健志, 大金 覚, 他: 穿刺吸引療法を行った小児の舌下顎下型ガンマ腫の1例. 歯科学報, 116: 296-301, 2016.