症 例

顎下部に発生した嚢胞性リンパ管腫の1例

坂 下 英 明 宮 田 勝 宮 本 日 出
宮 地 優 子 車 谷 宏*

要旨：嚢胞性リンパ管腫は、頭頸部ではまれな腫瘍である。6歳・男児の右側顎下部に発生した嚢胞性リンパ管腫の1例を報告する。腫瘍は8×4 cmの大きさで、初診時の臨床診断を顎下型ガマ腫として、口内法で開窓した。病理組織学的には、嚢胞性リンパ管腫であった。腫瘍は口腔外切開にて完全に切除した。術後、再発は認められていない。

キーワード：嚢胞性リンパ管腫，顎下部，鑑別診断

緒 言

嚢胞性リンパ管腫は、一般に小児の頸部に先天性にみられるリンパ組織由来の嚢胞状の腫瘍性疾患で、ほとんどの症例が1～2歳で発症する。このため、一般外科や小児外科を受診することが多く、口腔外科を受診することは比較的にまれな疾患である。

今回われわれは、6歳男児の顎下部に発生した本腫瘍の1例を経験したので報告する。

症 例

患 者：6歳 男児

初 診：1992年12月4日

主 訴：右側顎下部の腫脹

家族歴および既往歴：特記事項なし

現病歴：11月13日頃より、右側顎下部に腫脹を認めた。18日に某歯科を受診し、当科を紹介されて受診した。

現症

全身所見：体格・栄養状態ともに良好

局所所見：右側顎下部に、弾性軟で約3×3 cmの無痛性腫脹を認めた（写真1）。右側口底

部に小指頭大の軽度の腫脹を認めた。同部はやや青く、透明感を認めた（写真2）。

検査所見：超音波検査にて、右側顎下腺の外側から右側耳下腺の裏面に入り込むように、約8×4 cmの不整形の嚢胞性病変を認めた。内部には、薄い隔壁が認められ、病変と周囲との境界は不明瞭であった（写真3）。CTでは、右側顎下腺から耳下腺の内側に連続する low density lesion を認めた。さらに、病変は下顎骨内側より口底に及んでいた。また、右側耳下腺は軽度に腫脹していた（写真4）。

臨床診断：顎下型ガマ腫の疑い

処置および経過：12月18日、全身麻酔下にて口腔内より生検を兼ねた開窓術を施行した。すなわち、右側口底の腫脹部を中心として、周囲約5 mmの粘膜とともに嚢胞壁を切除した。淡黄透明色の粘稠な液体が大量に流出し、直ちに顎下部の腫脹は消失した。切除部周囲を縫合し、ガーゼドレーンを挿入した。術後経過が良好なため、22日に退院した。しかし、再度顎下部に腫脹を認めた。病理組織学的診断が嚢胞性リンパ管腫であったため、12月28日に全身麻酔下にて口外法による顎下部腫瘍摘出術を施行した。腫瘍は広頸筋の下

石川県立中央病院歯科口腔外科（主任：坂下英明医長）

* 石川県立中央病院病理科（主任：車谷 宏医長）

〔1994年6月23日受付〕

写真1 初診時口腔外写真

右側顎下部に弾性軟で約3×3cmの無痛性腫脹を認める。

写真2 初診時口腔写真

右側口底部に、小指頭大の軽度の腫脹を認める。

写真3 超音波検査写真

境界不明瞭な、約8×4cmの嚢胞性病変を認める。

に存在し、多房性であり下顎骨骨膜に癒着し、口底部を経て下顎枝の内側に及んでいた。神経および血管を保存しながら、顎下腺とともに腫瘍を一塊として摘出した。この際、前回手術の開窓部で口腔内と術野とが交通したため、同部を縫合し低圧持続吸引を留置した後に、創を閉鎖した。低圧持続吸引は術後4日目に除去した。その後、創感

写真4 CT写真

下顎骨の内側から耳下腺の内側に達する low density lesion を認める。

写真5 摘出物の病理組織像(HE染色・×20)

リンパ液を貯留した大きな嚢胞腔を形成する腫瘍で、嚢胞の内面は内皮細胞にて被覆されている。

染を認めたため、術後10日目に切開をおこない治癒した。1993年1月16日に退院し、外来にて経過を観察している。現在、再発や顔面神経麻痺などの異常所見は認めていない。

摘出物の病理組織学的所見：内部にリンパ液を貯留した不整形の大きな嚢胞腔を形成する腫瘍である。嚢胞の内面は内皮細胞にて被覆されており、嚢胞壁には平滑筋を認める部分が多く認められた(写真5)。一方、顎下腺においては間質の所々に軽度の小円形細胞浸潤を認め、リンパ球集簇およびリンパ濾胞を散在性に認めた。

病理組織学的診断：嚢胞性リンパ管腫および慢性顎下腺炎

考 察

1. 疾患名

嚢胞性リンパ管腫の最初の報告は、1828年に

ranula congenita としておこなわれた。さらに、1843年には cystic hygroma と、1946年には lymphangioma cysticum と命名された。本邦では現在、嚢胞性リンパ管腫、嚢腫状リンパ管腫、嚢腫性リンパ管腫、嚢腫状リンパ管腫、嚢状リンパ管腫などの用語が使用されている^{1,2)}が、嚢胞性リンパ管腫が多く使用されている。

病理組織学的には、リンパ管腫は内皮細胞に被覆された薄い壁を有するリンパ管の集合からなるもので、腔内にはリンパ性体液を含んでおり、単純性リンパ管腫、海綿状リンパ管腫、嚢胞性リンパ管腫および全身性リンパ管腫症に分類される^{3,4)}。本症例では、嚢胞性リンパ管腫であった。

2. 成 因

リンパ管腫の成因には、現在のところ2つの成因論が存在する^{1,2)}。ひとつは、原始リンパ嚢から遊離・分画したリンパ芽が異常な成長力を有するとする説であり、他方はリンパ管と静脈系との交通遮断によりリンパ系に閉塞が起きるとする説である。また、リンパ管腫は、形成異常と新生物との中間のものとの意見が強く、特に嚢胞性リンパ管腫は新生物というよりは先天性形成異常であるという説が支配的である⁵⁾。

さらに、リンパ系の閉塞が起きた周囲が脂肪組織であれば嚢胞性リンパ管腫に、筋組織であれば海綿状リンパ管腫になるとされている⁶⁾。この説では、両者の組織型が混在している症例があることや、頸部には嚢胞性リンパ管腫が多く、四肢には海綿状リンパ管腫が多いことの説明がされやすい。

3. 好発年齢と性差

嚢胞性リンパ管腫の80～90%が2歳未満に発生する⁷⁾。このため、一般外科や小児外科を受診することが多く、口腔外科を受診することは比較的まれな疾患である^{1,8)}。また、性別については男に多い、女に多い、男女差は認められないとの報告^{1,5,9)}がある。

本症例は6歳の男児であり、小児期であり、ほぼ好発年齢であった。また、性差については今後の症例の蓄積と検討を待ちたい。

4. 好発部位

嚢胞性リンパ管腫は身体各所に発生するが、頭頸部には37.5%¹⁰⁾、60.3%¹¹⁾と好発する。特に、

頸部に発生する症例は44.4%¹²⁾、85.3%¹³⁾である。本症例は顎下部に発生し、耳下腺内側から口底に達したものと考えられる。このような症例は比較的まれと考えられた。

5. 鑑別診断

嚢胞性リンパ管腫は表面平滑な柔らかい腫瘤で、波動を触れることが臨床的所見である。頸部に発生した本腫瘍は、上方では耳下腺や舌に達し、下方では縦隔に達することがあり、その割合は15%に達する¹²⁾。本腫瘍と鑑別診断を要する疾患としては、嚢胞性腫瘍、顎下リンパ節炎、側頸嚢胞、頬部良性腫瘍、頬部嚢胞、血腫あるいは血管腫、顎下型ガン腫、顎下型頬皮嚢胞ないしは頬表皮嚢胞、脂肪腫、唾液腺嚢腫などが挙げられている^{2,14)}。新生児および小児の典型例では、本腫瘍の診断は比較的容易である。しかし、成人に発生した場合¹⁵⁾や非典型例¹⁶⁾においては診断が困難となる。

本症例では、顎下型ガン腫と診断しており、診断は困難であった。

6. 治療法

嚢胞性リンパ管腫の治療としては、完全摘出術が最も望ましい。手術時期としては無症状で大きさが不変の症例では、5歳を過ぎてから摘出する。また、急激な増大傾向がある場合には、ただちに手術をおこなうが、緊急時には切開、排液で一時的に腫瘤の大きさを減少することができる¹⁷⁾。

しかし、本腫瘍のほとんどが多房性であるため、頸部の本腫瘍は頸部の重要諸器官や血管の間隙に浸潤することが多く、術後に障害が生じることがある。術後障害としては、顔面神経下顎縁枝の麻痺が最も多く、声帯麻痺（反回神経麻痺）、舌下神経麻痺、副神経麻痺などが挙げられる。さらに嚢胞性リンパ管腫摘出後の問題点の1つとして、術後のリンパ液漏出が挙げられており、これらは体タンパク質の損失や創感染の原因となる¹⁸⁾。

このため最近では、術後の機能障害を軽減させる目的で硬化療法がおこなわれる。硬化療法には、当初より腫瘍に硬化剤を注入する方法と、重要部分を残存させて大部分の切除をはかった後に残存部に硬化剤を注入する方法とがある。硬化剤としては、ブレオマイシン、OK 432、高張ブドウ糖液などが使用される¹⁹⁾。

本症例では、顎下腺とともに完全摘出したが、術後にリンパ液漏出が原因と考えられた創感染を認めた。このため、本腫瘍の手術に際しては、通常の手術症例と比較してドレーンの留置をやや長期におこなう必要があると考えられた。

結 語

嚢胞性リンパ管腫は、口腔外科を受診することは比較的まれな疾患である。今回われわれは、6歳男児の顎下部に発生した本腫瘍の1例を経験したので報告した。

文 献

- 1) 藤本誠一, 野代忠宏, 他: 嚢胞性ヒグロームの2症例. 日口外誌 33: 2239-2243, 1987.
- 2) 岩井正行, 大木順一, 他: 頰部に発生した嚢胞性リンパ管腫の1例. 日口外誌 37: 365-369, 1991.
- 3) Landing, B.H. and Farber, S.: Tumor of the cardiovascular system. 1st ed, AFIP, Washington, 1965, 124-125.
- 4) 日本病理学会小児腫瘍組織分類委員会: 小児軟部組織腫瘍の組織分類. 日小外誌 11: 529-544, 1975.
- 5) 勝俣慶三: 頸部腫瘍の臨床. 第1版, 金原出版, 東京, 1979, 15-29.
- 6) Bill, A.H.: A unified concept of lymphangioma and cystic hygroma. Surg Gynec Obstet 120: 79-86, 1965.
- 7) Gross, R.E.: The surgery of infancy and childhood. 1st ed, WB Saunders, Philadelphia, 1953, 960.
- 8) 塩崎雄生, 野間弘康, 他: 成人の顎下部に発生した嚢胞性リンパ管腫の1例. 日口外誌 38: 150-151, 1992.
- 9) 久保田邦之, 河野三郎: 先天性嚢腫性リンパ管腫の2症例. 小児科臨床 16: 296-299, 1963.
- 10) 鶴賀信篤, 由良二郎, 他: 嚢胞状リンパ管腫の治療とその成績. 小児外科 16: 939-943, 1984.
- 11) Ninh, T.N. and Ninh, T.X.: Cystic hygroma in children; A report of 126 cases. J Pediatr Surg 9: 191-195, 1975.
- 12) Gorlin, R.J. and Goldman, H.M.: Thoma's Oral Pathology I. 6th Ed, Mosby Co, St Louis, 1970, 70-71.
- 13) 世良好史, 吉村実信, 他: 頸部巨大嚢胞状リンパ管腫の治療とその成績. 小児外科 16: 945-951, 1984.
- 14) 高橋廣臣: 先天性頸部腫脹. 耳喉 55: 847-856, 1983.
- 15) 佐藤泰則, 埜口五十雄, 他: 成人頸部に発生した嚢胞性リンパ管腫の1例. 日口診誌 4: 439-444, 1991.
- 16) 立松憲親, 大久保恒正, 他: 臨床診断に苦慮した嚢胞性リンパ管腫. 日口外誌 36: 979-982, 1990.
- 17) 板倉康夫: 顔面・頸部腫瘍. 金原出版, 東京, 1986, 112-121.
- 18) 長谷川史郎, 河野澄男, 他: 頸部巨大嚢胞状リンパ管腫の治療とその成績. 小児外科 16: 953-959, 1984.
- 19) 萩田修平, 伝 俊秋, 他: リンパ管腫の OK-432 局所療法による治療. 小児外科 25: 371-376, 1993.

A case of cystic lymphangioma in the submandibular region

Hideaki Sakashita, Masaru Miyata, Hizuru Miyamoto,

Yuuko Miyaji and Hiroshi Kurumaya*

Department of Dentistry and Oral Surgery, Ishikawa Prefectural Central Hospital

(Chief: Hideaki Sakashita)

*Department of Pathology, Ishikawa Prefectural Central Hospital

(Chief: Hiroshi Kurumaya)

Abstract

The cystic lymphangioma is a rare tumor of the head and neck. A case of cystic lymphangioma in the right submandibular region of a 6-year-old boy is presented. The tumor, measuring about 8×4 cm, was clinically diagnosed as a plunging ranula on the first examination. The lesion was marsupialized by intraoral approach. Histopathologically, the excised specimen indicated cystic lymphangioma. The tumor was completely enucleated by extraoral incision. After the operation, there was no evidence of recurrence.

Key words: cystic lymphangioma, submandibular region, differential diagnosis.

Requests for reprints to: Dr. Sakashita H., Department of Dentistry and Oral Surgery, Ishikawa Prefectural Central Hospital, Minamishinbomachi, Ishikawa, 920 Japan