

Title	舌下腺の下方突出により生じた顎下型ガマ腫の1例
Author(s)	重松, 司朗; 鈴木, 康之; 滝川, 幸生; 福本, 裕
Journal	歯科学報, 102(2): 129-134
URL	http://hdl.handle.net/10130/564
Right	

臨床報告

舌下腺の下方突出により生じた顎下型ガマ腫の1例

重松 司 朗 鈴木 康 之 滝川 幸 生
福 本 裕

都立府中病院歯科口腔外科

(指導：岩本昌平 部長)

(2001年12月5日受付)

(2002年2月1日受理)

抄 録：顎下型ガマ腫は舌下腺の溢出に関連してみられる偽嚢胞である。顎下型ガマ腫の治療法は現在、一般的に発生源である舌下腺を摘出し、口腔外から嚢胞を摘出する必要はないとの考えが支持されている。

われわれは迷入した舌下腺から発生し、左側舌下腺を口腔内外からのアプローチで摘出した顎下型ガマ腫の1例を報告する。

患者は33歳の女性で、左側の上顎部に無痛性の腫脹が徐々に増大してきた。左側顎下部に2×4 cmの弾性軟で嚢胞性疾患のように波動を触知した。近年診断上、MRIが有用な検査であることが数多く報告されている。MRIで左側顎下部に水滴状の病変は舌下腺にまで拡大していた。臨床診断は顎下型ガマ腫となった。

口腔内から左側の舌下腺を摘出する際、舌下腺の一部は顎下部に突出していたので口外法も追加した。舌下腺と嚢胞を全摘出する結果になった。嚢胞は嚢胞壁に上皮を持たず、帯黄色の粘液が満たされていた。この治療法は下方突出した舌下腺を伴う顎下型ガマ腫に対する選択肢として考慮されるべきである。

キーワード：顎下型ガマ腫，迷入舌下腺，MRI

緒 言

顎下型ガマ腫はガマ腫の約7～11%にみられ^{1,2)}、その多くは若年者に発症するとされている²⁾。本態は舌下腺からの唾液溢出が顎舌骨筋の下方部に達することにより形成される偽嚢胞であるといわれている³⁾。今回われわれは比較的晩期に発症し、顎下部に突出した舌下腺より発症したと思われる顎下型ガマ腫の1例を経験したので報告する。

症 例

患者：33歳 女性。
初 診：2000年6月15日。
主 訴：左側顎下部の違和感。
既往歴，家族歴：特記事項なし。
現病歴：2000年5月中旬より左側顎下部の無痛性腫脹を自覚したが放置していた。しかし、違和感が強くなったので近医歯科を受診し、当科を紹介され来院した。
現 症：左側顎下腺の前内方に触診で20×30mmの波動を触知する無痛性腫脹を認めた。口底に腫脹はなく舌下小丘からの唾液分泌も良好であった。
エコー所見：左側下顎骨体内側に沿って長径4

cm 幅径1.8cm の内部が均一で低エコーの嚢胞性パターンがみられ、顎下腺よりも口腔側に位置し、前方に向かって先端が伸びていた(写真1)。CT 所見：顎下腺の前方で左側下顎骨内面に沿って楕円形の病変があり、内部 density は水に近似し、均一であった。オトガイ舌骨筋と顎下腺が圧偏されていた(写真2)。

MR 所見：左側顎下部に T1 強調画像で周囲筋肉より低信号、T2 強調画像では均一で水滴型の強い高信号を示し細く管状になった先端部は舌下腺

に接していた(写真3, 4)。

臨床診断：左側顎下型ガマ腫。

処置および経過：上記診断のもと2000年8月9日全身麻酔下に口内法による舌下腺摘出術を施行した。小白歯部で顎舌骨筋の前方部が欠損しており

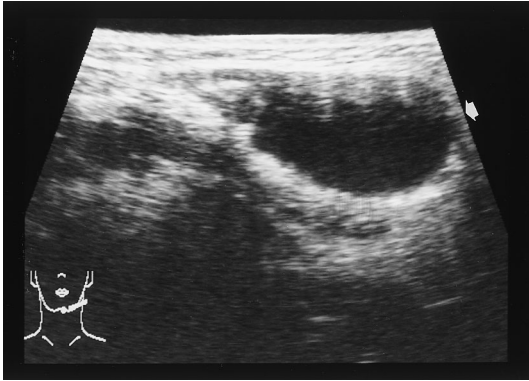


写真1 エコー像
内部が均一な低エコー(矢印)

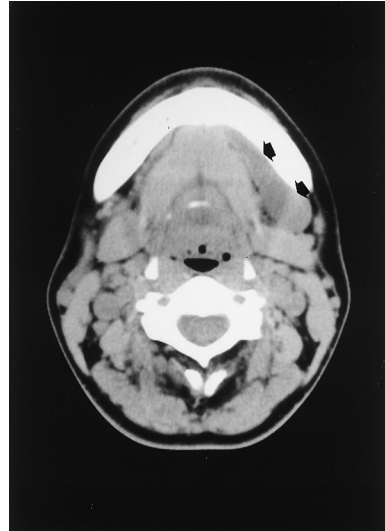


写真2 CT 像
左側下顎骨内面に沿って細長い楕円形の嚢胞性病変がみられる。(矢印)

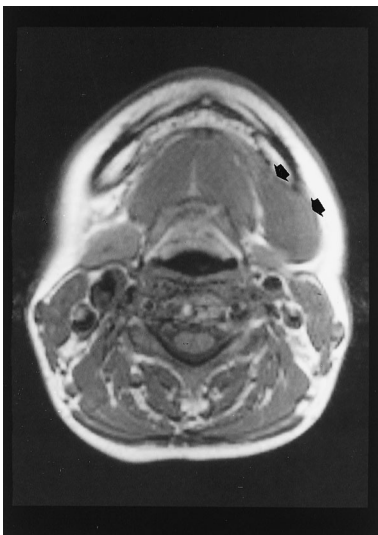


写真3 T1 強調 MR 画像
左顎下部に低信号を示す。(矢印)

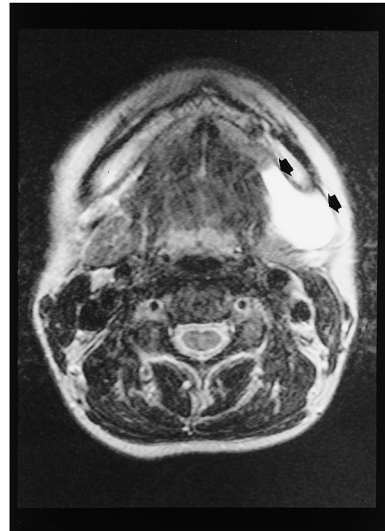


写真4 T2 強調 MR 画像
高信号を示し先端は舌下腺に接している。(矢印)

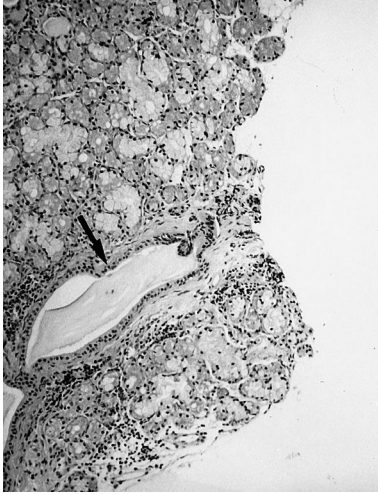


写真 5 A

著しく拡張した導管(矢印)がみられ,円形細胞浸潤を伴う慢性唾液腺炎

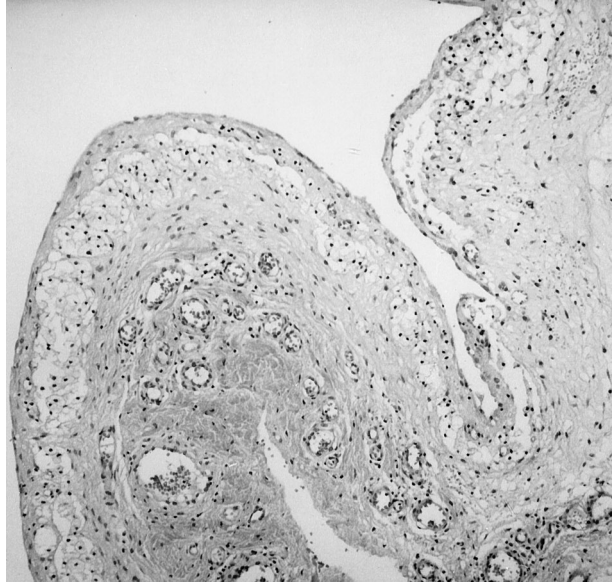


写真 5 B

嚢壁には上皮が認められなかった。

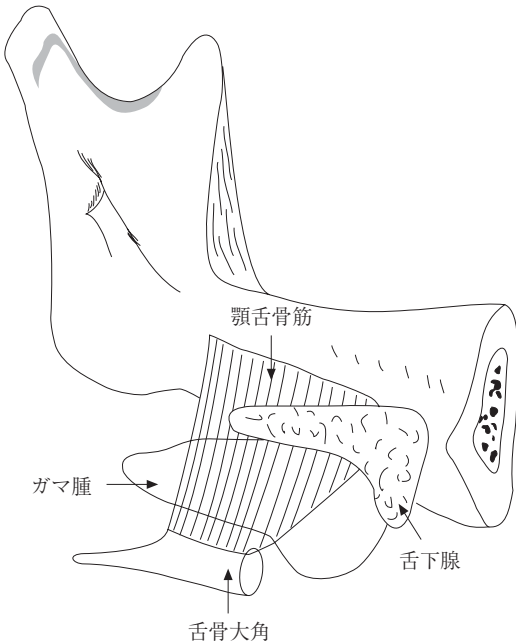


図 1 舌下腺, ガマ腫および顎舌骨筋の位置関係

舌下腺が2.5cmほど顎下部に突出していたため,その部分は口腔内からのみでは摘出できず口腔外からもアプローチすることにした。嚢胞壁は菲薄で舌下腺と嚢胞の移行部が剥離途中に損傷し,帯黄色透明で粘稠な内容液が流出した。舌下腺と嚢壁を口腔内から引き抜いて摘出し,顎下部には持続吸引チューブを留置した。舌下腺とガマ腫の位置関係を示す(図1)。

病理組織像:舌下腺は軽度の炎症細胞浸潤がみられ導管は著しく拡張しており慢性唾液腺炎の像を示していた(写真5A)。嚢胞壁には上皮認められず,溢出型ガマ腫と診断された(写真5B)。

考 察

顎下型ガマ腫は舌下腺導管から唾液が顎下部に溢することによって生じる偽嚢胞と考えられている²⁻⁴⁾。ガマ腫は舌下型,顎下型ともに発症年齢を年代別にみると20歳未満の若年者が約半数にのぼり¹⁾,顎下型ガマ腫ではさらにその傾向が強^く10歳未満が最も多く約半数を占めるとい^う²⁾。

鑑別を要する疾患には頬皮・頬表皮嚢胞,甲状

舌管嚢胞，リンパ上皮性嚢胞，嚢胞性リンパ管腫などがあり^{2,4)}，近年 MRI による診断が有用との報告が多い⁵⁻⁷⁾。浅海ら⁵⁾はガマ腫が唾液を含有しているので T1 強調像で低信号，T2 強調像で高信号を示すが類皮・類表皮嚢胞では内容物にケラチン，高タンパク，脂肪成分を含有するので T1 強調像で比較的高信号を不均一に示すためにこれらと鑑別できるという。また，太田ら⁶⁾は顎下型ガマ腫の形態について MRI のスライスによって円形や楕円形，ひょうたん型や水滴型というように周囲組織の形態によって嚢胞の形態が変わって観察できたと述べている。大島ら⁷⁾は MRI の有用性として嚢胞の進展状況が3次元的に把握でき，さらに舌下腺由来であることまで観察できるとしている。われわれの症例でも T1 強調像で低信号，T2 強調画像にて均一な高信号がみられ形態も既報告に一致しており，さらに舌下腺の後端部と嚢胞が接していることが確認できたので術前診断としてきわめて有用であった。

しかし画像診断だけではなく，確定診断には内容液分析が必要との見方もある。deVisscher ら³⁾はガマ腫の内容液の生化学検査で高アマラーゼ活性値と高総タンパク値を示すという。さらに井野ら⁴⁾は嚢胞性リンパ管腫とは後者の場合，漿液性でリンパ球が認められるので鑑別が可能であると述べている。本症例は MR 所見をもって確定診断としたが，MRI の鮮明な像が得られない場合も考えられるので内容液の確認は行った方がよいと思われる。

嚢胞の進展経路について篠原ら²⁾は I ~ V 型に分類し，IV 型を顎下型ガマ腫で舌下腺が顎舌骨筋の裂隙より顎下部に突出し，この突出した部分の舌下腺より嚢胞が発生し顎下部に広がったものと定義している。彼らはこの舌下腺の突出について既報告では正常人の約 10% ~ 30% にみられる現象であり，顎下型ガマ腫の発生原因として十分な可能性がある結論している。また，徳永ら⁸⁾は 11 歳男児での成因を成長期に伴う舌下腺と周囲組織とのバランスの変化によって顎舌骨筋裂隙が狭窄し，舌下腺突出部の唾液流出路が遮断されたため

と推察している。本症例もこのような過程を経て発症したものと考えられるが学童期での発症ではなく，また発育もゆっくりとしていたので早い時期から舌下腺の突出はあったにせよ顎舌骨筋の裂隙が狭窄したと考えるよりも突出した腺の下端から重力によって自然に溢出したのではないかと考える。

治療法は舌下腺を摘出し，嚢胞は摘出しない方法が主流となっている^{2,3,4,7,8,9,10)}。その根拠として¹⁾舌下型と同様に舌下腺由来であること。²⁾本態は偽嚢胞であるため上皮が欠落する。ことが挙げられている⁹⁾。Barnard ら¹⁰⁾は嚢壁の一部を鏡検したところ上皮が存在していた 1 例を報告し，上皮はマクロファージが圧偏され層をなして偽上皮となったと彼らは述べ，この場合も嚢胞の全摘出は不要としている。残遺嚢胞の処置については内容液を吸引し，顎下部を圧迫する方法^{2,3,4,7,8,9,10)}と舌下腺を摘出したのち口腔内に開窓し，副口腔を形成する方法^{11,12)}がある。創傷治癒の点から考慮すると舌下腺を摘出したのちに副口腔を形成する必要性はみいだせず，むしろ口腔内をしっかりと閉鎖させ，嚢胞部分を圧迫なり持続吸引することで嚢壁は密着され，嚢胞は消失するものと考えられる。

さらに近年では小児患者を対象として舌下腺にも手を付けずに嚢胞内容液をできるだけ吸引し，内容液と同量の OK - 432 溶液を注入し，壁を癒着させる方法が試みられている¹³⁾。欠点としては OK - 432 注射に伴う発熱と舌下腺を残すことによる再発の懸念であるが若年者に対する first choice としては有用と思われる。

今回，われわれは対象患者が成人で再発の可能性を排除したかったので手術を選択した。口腔内から舌下腺のみを摘出する目的で手術を開始したが，舌下腺の顎下部への突出部が予想以上に大きく口腔内からだけでは摘出が不可能と術中に判断し，口外法を併用し結果的には舌下腺と嚢胞を摘出することになった。術前の MR 所見だけではこの事態を予測することは困難で，篠原ら²⁾の分類した IV 型ではこのようなケースもあり得る。

従って口腔外からもアプローチできるよう念頭におくべきで、その旨インフォームドコンセントが患者に対してなされるべきだと思われる。

結 語

33歳女性にみられた左側顎下型ガマ腫の1例を経験したので報告した。本症例は舌下腺が顎舌骨筋の裂隙から顎下部に大きく突出していたため口内法と口外法を併用し舌下腺と嚢胞を摘出した。篠原のⅣ型では口外法の併用も念頭におくべきと考えられた。

参 考 文 献

- 1) 里村一人, 力丸浩一, 林 英司, 野沢孝行, 宮本洋二, 長山 勝: 過去10年間のガマ腫39症例の臨床的検討. 口科誌 44: 261~264, 1995.
- 2) 篠原正徳, 左坐春喜, 友寄喜樹, 田代英雄, 香月 武, 岡増一郎: 顎下型ガマ腫 (Plunging ranula) の臨床的, 組織学的検索. 日口外誌 30: 222~230, 1984.
- 3) de Visscher J. G. M., van de Wal K. G. H and de Vogel P. L.: The Plunging Ranula Pathogenesis, Diagnosis and Management. J. Cranio - Max. - Fac. Surg. 17: 182~185, 1989.
- 4) 井野千代徳, 山下敏夫: 顎下型ガマ腫. JOHNS, 15: 1400~1403, 1999.
- 5) 浅海淳一, 柳 文修, 久富美紀, 岸 幹二, 吉濱泰斗, 松村智弘: 傍咽頭腔に進展した Plunging Ranula の MR 像. 岡山歯誌 18: 365~369, 1999.
- 6) 太田隆之, 窪田哲昭, 松井和夫, 高崎宗太, 大橋一正, 門倉義幸, 竹村栄毅, 飯田正樹, 小林 斉: 顎下部嚢胞症例の検討: 13例について. 口咽科, 12: 239~244, 2000.
- 7) 大島 収, 渡邊昭仁: 顎下型ガマ腫の2症例. 耳鼻臨床, 86: 1733~1738, 1993.
- 8) 徳永 剛, 福田てる代, 松尾 明, 早津良和, 篠崎文彦: 11歳男児に発生した顎下型ガマ腫の1例. 小児口腔外科, 9: 36~39, 1999.
- 9) Galloway R. H., Gross P. D., Thompson S. H. and Patterson A. L.: Pathogenesis and Treatment of Ranula: Report of Three Cases. J Oral Maxillofac Surg. 47: 299~302, 1989.
- 10) Barnard N. A.: Plunging ranula: a bi-lateral presentation. Br J Oral Maxillofac Surg, 29: 112~113, 1991.
- 11) 横林康夫, 日出嶋康博, 前田美智之, 川北小百合: 顎下型ガマ腫の1例. Niigata Dent. J. 26: 211~214, 1996.
- 12) Mizuno A., Yamaguchi K.: The Plunging ranula. Int. J. Oral Maxillofac. Surg. 22: 113~116, 1993.
- 13) 深瀬 滋, 太田伸男, 稲村和俊, 青柳 優: ガマ腫に対する OK-432嚢胞内注入療法. 口腔・咽頭科, 10: 297~305, 1998.

A case of plunging ranula due to an aberrant sublingual gland

Shiro SHIGEMATSU, Yasuyuki SUZUKI, Yukio TAKIGAWA
and Yutaka FUKUMOTO

Department of Dentistry and Oral Surgery, Tokyo Metropolitan Fuchu Hospital
(Director : Dr. Shohei Iwamoto)

Key words : *Plunging ranula, Aberrant sublingual gland, MRI*

Abstract

Plunging ranula refers to a pseudocyst that is usually the result of mucous extravasation phenomenon involving the sublingual gland (SLG). The treatment of plunging ranula is now generally accepted as removal of the source, the SLG, without the need for extensive neck dissection.

We report a case of plunging ranula due to an aberrant SLG treated by excision of the left SLG using a combined extraoral/intraoral approach. The patient was a 33 - year - old woman who presented with a painless swelling in the left upper neck region which gradually increased in size. On examination, a 2 × 4 cm soft, compressible mass - like cystic lesion was found in the left submandibular region.

Magnetic resonance imaging (MRI) is an efficient diagnostic examination and has recently been preferred by many physicians. On MRI, the lesion appeared as a water drop - shape in the left submandibular space extending into the SLG. The clinical diagnosis was plunging ranula.

At the time of left SLG excision, the gland was demonstrated to protrude into the submandibular space. Therefore, an extraoral approach was added to intraoral approach. The SLG and the sac were completely removed. Histologically, the sac had no epithelial lining at the cyst wall and yielded straw - colored mucous. Surgery should be considered the treatment of choice for a plunging ranula due to an aberrant SLG.

(*The Shikwa Gakuho* , 102 : 129 ~ 134 , 2002)