

〔臨床報告〕

乳児にみられた頰部巨大
Cystic hygroma の1例

東京女子医科大学外科 (主任: 織畑秀夫教授)

荻原 英夫	・	齋藤 正光	・	中野 達也
オギハラ ヒデオ		サイトウ マサミツ		ナカノ タツヤ
中谷 雄三	・	岩崎 裕	・	岡崎 武臣
ナカヤ ヌウゾウ		イワサキ ヒロシ		オカザキ タケオミ
小島幸次郎	・	甲斐 弘子	・	赤羽根 敏
コジマコウジロウ		カイ ヒロコ		アカハネ イワオ
助教授 倉光 秀磨	・	教授 織畑 秀夫		
クラミツ ヒデマロ		オリハタ ヒデオ		

(受付 昭和48年9月10日)

はじめに

小児における頰部腫瘍はしばしば目にするものであるが、その多くは後天性であり、大部分は炎症性疾患である。先天性疾患としては、midline cyst, lateral cyst, cystic hygroma, lymphangioma, blood cyst, がある。このうち cystic hygroma は胎生期におけるリンパ系の發育異常が原因とみられ、過半数は出生時に認められ、2才ぐらいまでには大部分が発見される事が多い。

病理組織学的には良性とされるが、臨床的には隣接組織、血管、神経、気管、食道さらには縦隔への浸潤など、悪性像を示すものである。

われわれは最近、ファロー四徴症を合併した頰部 cystic hygroma を経験したので報告する。

症 例

患者: 榎○真○ 8カ月, 女児

主 訴: 左頰部腫瘍

既往歴: 昭和47年8月14日, 予定日より10日早く, 体

重 2,063 g で出生。その後チアノーゼを認め、大学病院を受診し、ファロー四徴症を指摘され、手術の必要ありと診断された。

現病歴: 生下時より左頰部に 拇指頭大の軟らかい腫瘍があつた。昭和48年4月7日, 40°C 近く発熱し、近医を受診し解熱したが、その後急速に左頰部腫脹を来し、痛がるようになった。4月11日某病院に入院し抗生物質を投与され、痛みは消失したようだった。入院時腫脹部穿刺により黄色透明液を約5cc 認めたという。4月24日当科外来を訪ずれ入院となつた。

現症: 体重 6,500 g で、年令に比較し体重は少ないが、栄養状態良好。全身の皮膚の色はほぼ正常であるが、口唇、手足の爪部にチアノーゼを認める。眼瞼・球結膜に異常は無い。左頰部に約12×11cm 大の表面凹凸、実質性と波動を有する囊腫状の部位が入り混じり、色調は皮下出血を思わせる紫色を呈し、皮膚および周囲組織に癒着があり、可動性の無い腫瘍を触れる (Fig. 1)。頰部以外のリンパ節は触知せず、理学的所見では左胸骨

Hideo OGIHARA, Masamitsu SAITO, Tatsuya NAKANO, Yuzo NAKAYA, Hiroshi IWASAKI, Takeomi OKAZAKI, Koziro KOZIMA, Hiroko KAI, Iwao AKAHANE, Hidemaro KURAMITSU, Hideo ORIHATA. Department of surgery (Director: Prof. Hideo ORIHATA) Tokyo Women's Medical College: "A case of cervical cystic hygroma in infancy".

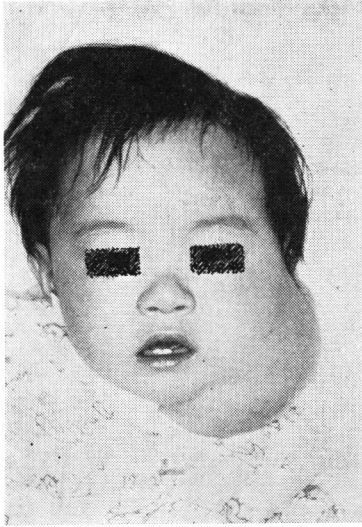


Fig. 1 Huge tumor of the left neck with subcutaneous hemorrhage.

縁第3肋間に最強点を有する収縮期雑音が聴取できる。また anoxic spell などの distress 無く、心不全の徴候は無い。

入院時検査所見：赤血球 322×10^4 、血色素量 8.5 g/dl、ヘマトクリット値 26%、白血球数 7,200、血小板数 26×10^4 、出血時間 3分30秒、検尿でタンパク (+)、糖 (-)、ウロビリノーゲン正常、ウロビリリン (+)、ビリルビン (-)、アセトン (-)。血液生化学検査では、総タンパク量 6.9 g/dl、タンパク分画 A1 53%、 α_1 -G 7%、 α_2 -G 23%、 β -G 8%、 γ -G 10%、A/G 1.1、BUN 15、総ビリルビン値 1.0以下、総コレステロール値 152、Na 137、K 6.0、LDH 546、Al-ph 17。

X線検査所見：頸部軟線撮影では、腫瘍は小児頭大で、左鎖骨上から下顎、左耳介下部にわたっている。縦隔への浸潤、気管・食道への圧迫は認められない (Fig. 2)。胸部X線検査では、心陰影は木靴心様を呈し、肺野には異常は認められない (Fig. 3)。

以上より、頸部 cystic hygroma と診断し、術前3日間輸血施行後、手術を行なった。

手術所見：GOF麻酔下、腫瘍の直上で横に皮膚切開を加える。浅頸筋群はほとんど萎縮しており、下から押し上げられている。一部腫瘍と皮膚

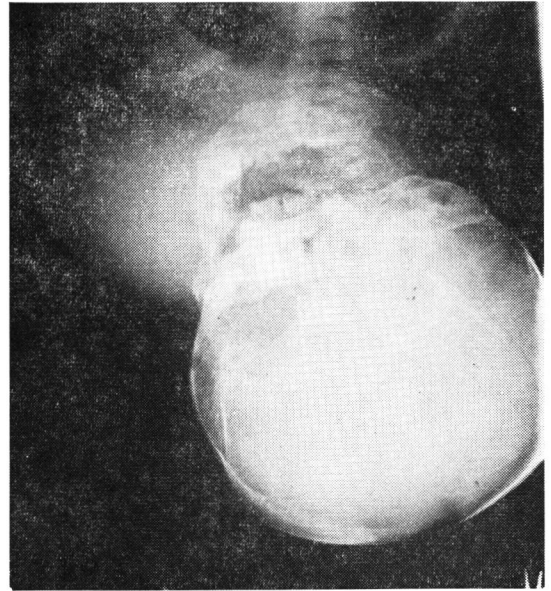


Fig. 2 Soft x-ray showing large mass of the left neck.

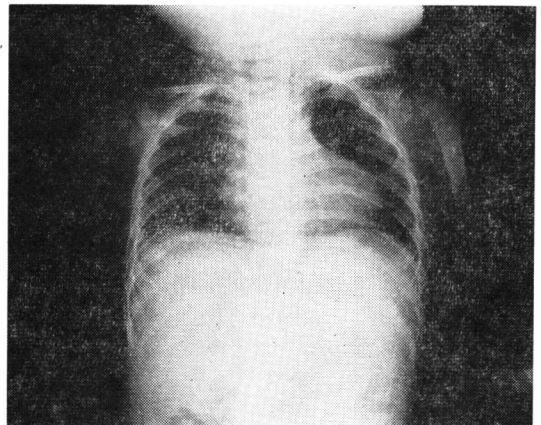


Fig. 3 Chest X-ray: There is no invasion to the mediastinum.

との癒着が強いため、皮膚を含めて周囲との剝離をすすめた。腫瘍は上方は耳下腺および耳介軟骨に境され、下方は鎖骨上窩にあり、後方は僧帽筋に、前方は気管近くまであり、腫瘍底は総頸動脈および内頸静脈に癒着していた。顔面神経への浸潤は不明瞭であった。顎下腺、耳下腺は残すことができた。萎縮した左胸鎖乳突筋は腫瘍により前方へ押し出されていて、腫瘍との剝離ができず切断した。また内頸静脈は2カ所で切断した。総頸

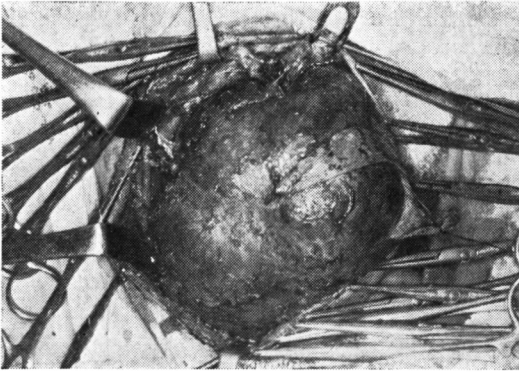


Fig. 4 Operative finding.

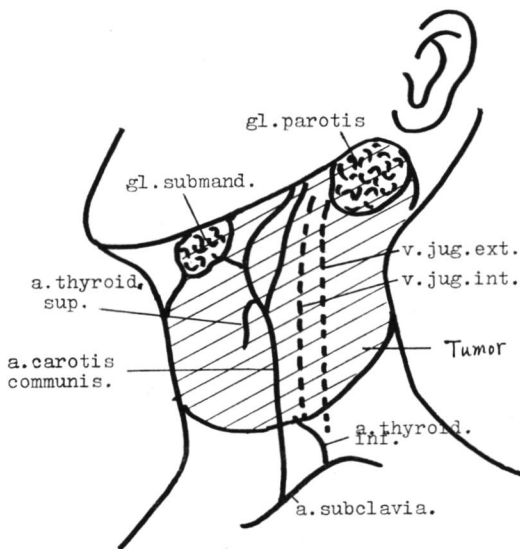


Fig. 5 Schema of the lesion.

動脈および内外頸動脈との剝離を注意深く施行し、腫瘍を完全に摘出することができた (Fig. 4.5).

摘出標本所見: 腫瘍は多房性で、 $10.5 \times 9.0 \times 5.5$ cm (術中内容液が一部漏出したので実際はもっと大きい) で、断面には大小の嚢胞が多数見られ、内面は平滑な上皮で被われ、内容は漿液性黄色透明液であつた (Fig. 6-a,b,c).

病理組織学的所見: cystic に拡張を示すリンパ管の増生が見られ、内面は1層の扁平上皮で被われている。隔壁は線維性結合織、種々の程度のリンパ濾胞の形成、平滑筋、脂肪組織がみられ、かなり肥厚している。典型的な cystic hygroma の



Fig. 6(a)

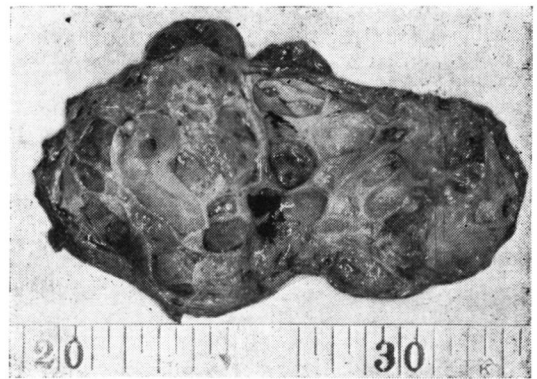


Fig. 6(b)

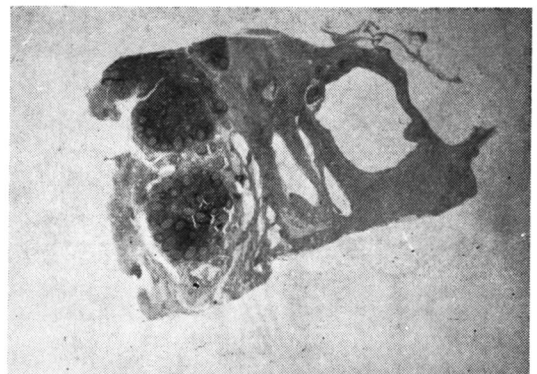


Fig. 6(c)

Photograph of the surgical specimen. The lesion is composed of large cystic spaces lined by endothelium. (a) surface. (b) cut surface. (c) macroscopic specimen.

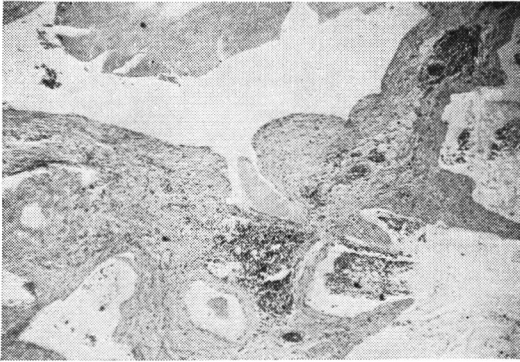


Fig. 7 Histological findings: composed of large cystic spaces lined by endothelium with thick walls containing collagen and smooth muscle.

組織像を示し、悪性像は認めなかつた (Fig. 7).

考 按

Sabin によると、リンパ系は胎生 8 週前に発生し、静脈と接した間葉性嚢から分化されるものと考えられているが⁴⁾、リンパ系が静脈系か、もしくは間葉系から発生するのかは明らかにされていない。

原始リンパ嚢は jugular sac, retroperitoneal sac, posterior sac であり²⁾ (Fig. 8), これらの一部が胚芽として遊離し、これが異常な成長を来し本症が発生するといわれている。

頸部に多く発生するのは、jugular sac が最も早く発生し、また最も大きいためと考えられる。こ

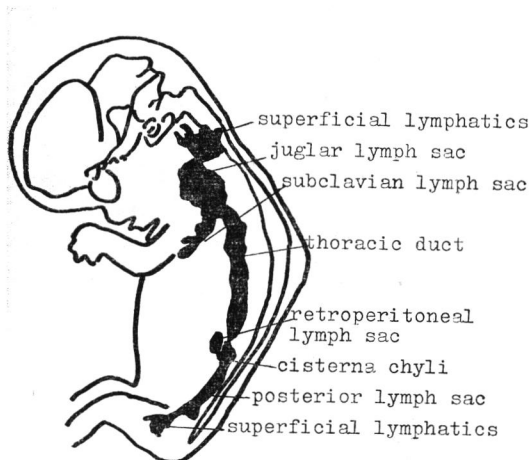


Fig. 8 Lymphatic system in the 30mm human embryo about 8 weeks.

これらの lymphatic sac の存在は、lymphangioma を考える場合の基本となる。

末梢リンパ系は各々原始リンパ嚢から分化するもので、頭・頸・腕部のリンパ管は jugular sac から、臀部・背部・下肢リンパ管は posterior sac から、腸管膜リンパ管は retroperitoneal sac から各々分化したものと いわれる³⁾。

本症が新生物であるか、形成異常であるかは明らかにされていないが、一般には新生物と形成異常の中間で hamartoma の要素が強いと考えられている。

1) リンパ管腫を分類すると⁴⁾,

(1) lymphangioma simplex: リンパ管が単に拡張したものが集合したもので、皮下、粘膜下をはじめいかなる場所にも発生し、四肢に最も多い。

(2) cavernous lymphangioma: リンパ管がさらに拡張し、大きなリンパ管が集合したもので、海綿状を呈す。静脈系の交通があると、青紫色を呈し、舌・口唇・手背・腸管膜などに好発する。

(3) cystic hygroma: 嚢胞状に拡張したリンパ管より成り、大小多数の嚢腫が集合したものである。

本症は、肉眼的には大小多数の嚢胞に境され、内面は平滑な上皮で被われ、リンパ液を含んでいる。壁は血管がないか、あるいはあつても乏しい。周囲はリンパ組織やリンパ管が癒着している場合が多い。

組織学的には、嚢胞の内面は 1 層の扁平上皮で被われ、壁は単純な結合織から成る。平滑筋の存在が認められることもある。

Gross によると⁵⁾、本症の 80% が 2 才未満で発見されている。発生部位は Shirder によると⁶⁾、頸部が最も多く、腋窩、腸間膜、胸壁と続き、その他上腕、背部、後腹膜、単径部がある。

頸部では、大部分が側頸三角部に発生する。大きさは種々あり、硬度は軟で、波動を認め、皮膚および深部との癒着があり、移動性は無い。感染および嚢内出血が加わると、壁は肥厚し、緊満性となり、皮膚色は青紫色となつてくる。通常は無症状であるが、感染、出血が伴うと痛みを訴える

ようになる。

また大きく腫大し、気管、食道を圧迫すると呼吸困難、嚥下障害を来たす。

好発部位、腫瘤の柔軟性、透光性その他前述の事項を参照すると診断は容易であるが、本症に際しては、必ず胸部X線像を見て、縦隔への拡がりの有無を検する。また食道・気管への圧迫の有無をレ線で確かめる⁷⁾。

リンパ管腫の治療方針として、外科的手術によって切除する根治的療法と、保存的に薬物、注射、放射線照射によって腫瘤の縮小を図る方法とがある。しかし自然に縮小、退縮することは、*cavernous hemangioma*, *cystic hygroma* では期待できない⁶⁾。また小児リンパ管腫は通常発育が緩慢であるが、ときに上気道感染などと共に急速に増大することがあり⁶⁾、種々の障害を来たすので、発見次第早期に手術するのが望ましいと考える。頸部リンパ管腫は他の部位に発生したものと比して限局性のものが多く、比較的摘出が容易である。しかし細心の注意を払つても、術後顔面神経麻痺を来たす場合があり、直接顔面神経の損傷が無くても、摘出後の著明な浮腫、瘢痕形成等が原因と考えられる。

完全摘出が困難で、腫瘤の一部を残存したもの

のうち、再発あるいは難治性リンパ漏を来たしたものはなかつたことから、周囲組織損傷の危険をおかしてまで全摘出を試みるべきでなく¹¹⁾、嚢胞壁を切開切除し、壁内面にヨードチンキ、ナイトロミン等の硬化剤を塗布、あるいはラドシノードを挿入することも効果的である¹²⁾。

本症例においては、顔面神経に注意しつつ完全摘出を施行したが、術後顔面神経麻痺を来たした。

結 語

最近経験した、乳児の頸部に発生した巨大な *Cystic hygroma* の1治験例を、文献的考察と共に報告した。

文 献

- 1) **Sabin, F.R.:** Amer J Anat 4 355 (1905)
- 2) **Sabin, F.R.:** Amer J Anat 9 43 (1909)
- 3), 8) 斎藤純夫: 外科診療 3 277 (1973)
- 4) **Ackerman, L.V.:** Atlas of tumor Pathology, Armed Forces Institute of Pathology Washington D.C. (1953)
- 5) **Gross, R.E.:** Surgery of infancy & childhood (1953)
- 6) **Shirder, S. et al.:** Surgery 69 947 (1971)
- 7) 池田恵一・他: 外科治療 20 376 (1969)
- 8) 椋棒正博・他: 日小外会誌 8 59 (1972)
- 9) 勝俣健二・他: 外科診療 20 1054 (1971)
- 10), 12) 八上彪・他: 日小外会誌 858 (1972)