

## 自然治癒したと考えられる稀な顎下型ガマ腫の 2 例

畑 毅, 細田 超, 福田 道男, 広川 満良\*

今日まで顎下型ガマ腫の自然治癒は報告されていない。われわれは自然治癒したと考えられる稀な顎下型ガマ腫の 2 例 (50 歳女性, 14 歳男性) を経験した。2 例とも典型的な臨床像 (顎下部のび慢性腫脹, CT における顎下部の境界明瞭な単房性透過像) を示した。自然治癒の成因は, 舌下腺の部分的萎縮とその後の線維性結合織による置換と推測された。また顎下型ガマ腫の今後の治療法としては, まず吸引圧迫療法を行い, 再発例のみ舌下腺摘出術を考慮するのがよいと思われた。

(平成 8 年 3 月 25 日採用)

### Spontaneous Recovery from Plunging Ranula : Report of Two Cases

Tsuyoshi HATA, Masaru HOSODA, Michio FUKUDA  
and Mitsuyoshi HIROKAWA\*

To date, spontaneous recovery from plunging ranula (PR) has not been reported. We experienced two cases of spontaneous recovery from PR. One was a 50-year-old female and the other was a 14-year-old male. Typical PR findings (diffuse swelling in the submandibular lesion and unilocular, cystic mass within the submandibular space in CT finding) were observed in both cases. It is our guess that the spontaneous recovery from PR in our cases was due to partial atrophy of the sublingual glands and subsequent replacement by fibrous connective tissue. It may be recommended that PR is treated initially by compression therapy with aspiration, if recurrence occurs, then the sublingual gland should be excised. (Accepted on March 25, 1996) *Kawasaki Igakkaiishi* 22(1) : 43-47, 1996

**Key Words** ① Plunging ranula ② Spontaneous recovery ③ Cyst

#### はじめに

顎下型ガマ腫は, 舌下腺に起因する粘液嚢胞のうちで顎舌骨筋を越えて顎下部や頸部に存在するもので, 自然治癒した報告はなく, 通常は開窓療法や摘出術が必要である。われわれは, 自然治癒したと考えられる稀な顎下型ガマ腫の 2

例を経験したのでその臨床経過を報告し, さらに自然治癒の成因を推測するとともに, 顎下型ガマ腫の今後の治療法について考察した。

#### 症 例

症例 1 : 50 歳, 女性

初 診 : 平成 3 年 4 月 23 日

主 訴：右口腔底部の腫脹

既往歴：胃炎，肝炎，関節リウマチ

家族歴：特記事項なし

現病歴：約5年前より口腔内の熱感と舌がまわりづらい感じを自覚。右顎下部を圧迫すると口腔底部に無痛性腫脹認めたが放置。以後症状の改善はなく，近内科より当科を紹介された。

現 症：全身的に異常なし。外来受診時には右顎下部に約45mm×15mmの境界不明瞭な腫脹を認め，同部を圧迫すると右口腔底部に約20mm×10mmのやや透明感のある腫脹が出現した。CT所見 (Fig. 1) では，右口腔底部から右顎下部にかけて約34mm×11mm×25mmの境界明瞭な単房性透過像を示す病変を認めた。血液生化学検査に異常値はみられなかった

臨床診断：右舌下・顎下型ガマ腫

処置および経過：患者の都合にて約2か月間経過観察したところ，右顎下部の腫脹は残存していたものの明らかに縮小していた。手術目的に平成3年6月14日に入院した。入院時には右口腔底部の腫脹は残存していたが，顎下部の超音波断層検査では嚢胞性病変は描出されなかった。6月20日，全麻下で手術を施行した。手術は口外法で行い，顎下部に約5cmの皮膚切開を加え嚢胞壁の露出を試みたが，オトガイ下か

ら顎下部まで嚢胞と思われるものは確認し得なかった。また口腔底部に切開を加え舌下腺周囲を剝離したが，同部にも明らかな嚢胞は存在しなかった。口腔外は三層縫合し，口腔内は抗生剤軟膏付きタンポンガーゼを充填し開放創とした。術後4日目にタンポンガーゼを抜去し，術後12日目の7月2日に軽快退院した。術後4年6か月を経過するが，再発はみられない。

症例2：14歳，男性

初 診：平成6年12月26日

主 訴：左顎下部の腫脹

既往歴：特記事項なし

家族歴：特記事項なし

現病歴：平成6年12月上旬頃，左耳下部に自発痛が出現。さらに左顎下部に腫脹が出現したために近病院を受診した。血液生化学検査値に異常はなかったが，抗生剤と消炎剤を処方された。疼痛は軽快したが，腫脹は継続したために当科を紹介された。

現 症：左オトガイ下から左顎下部にかけて約70mm×43mmのやや境界不明瞭な弾性軟の腫脹を認め，軽度圧痛を伴っていた。口腔内には異常所見はみられなかった。また血清アマラーゼ値やCRP値を含め，血液生化学検査値に異常は認めなかった。超音波断層検査所見 (Fig.

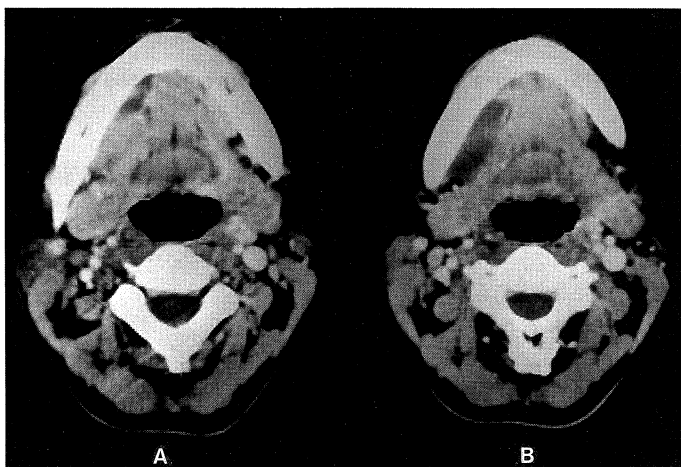


Fig. 1. Cervical CT-scan of case 1 shows a unilocular, cystic mass emanating from the right sublingual space (A) and extending into the right submandibular space (B).

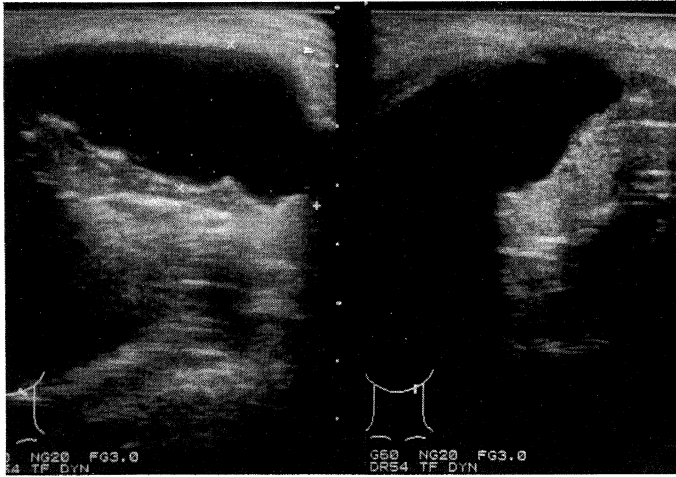


Fig. 2. Cervical echography on first visit of case 2 indicates echo free area within the left submandibular space.

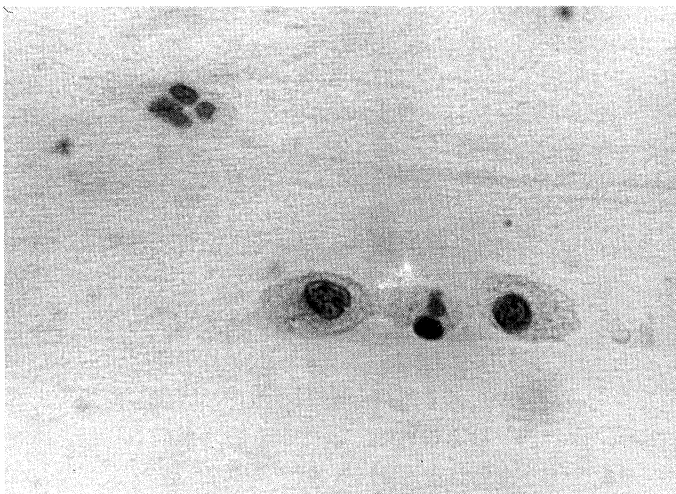


Fig. 3. Photomicrograph of case 2 demonstrating a few of histiocyte and neutrophil in mucus pool. (Pap. staining  $\times 400$ )

2)では、左顎下部に顎下腺を圧排するように約58mm $\times$ 26mm $\times$ 25mmの嚢胞性病変を認めた。さらに顎下部から穿刺を行い、淡黄色粘稠な内容を極少量吸引できたために、これを細胞診に提出した。細胞診所見 (Fig. 3) では、多量の粘液と少数の組織球と好中球を認めた。CT所見 (Fig. 4A) では、左顎下部を中心に顎下腺に近接した約50mm $\times$ 15mm $\times$ 25mmの境界明瞭な単房性透過像を示す病変を認めた。

臨床診断：左顎下型ガン腫

処置および経過：通学の都合を考慮し、平成7年3月頃に手術予定とし、その間は定期的に経過観察した。左顎下部の腫脹は徐々に縮小し、同年3月11日には腫脹はほぼ消失した。その後も再腫脹することなく経過し、同年4月8日のCT所見 (Fig. 4B) では病変の陰影は完全に消失し、以後再発はみられていない。

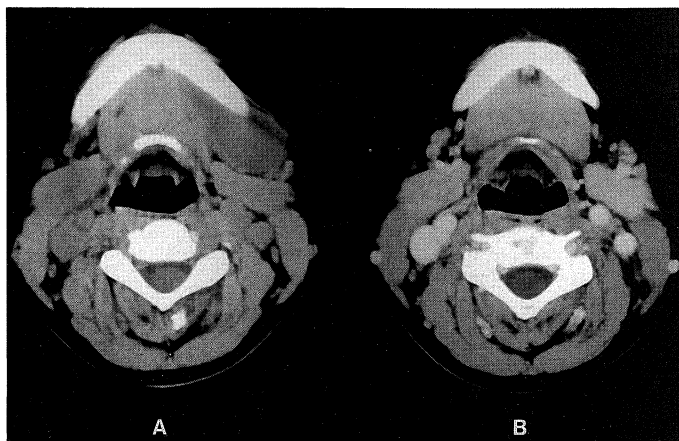


Fig. 4. Cervical CT-scan of case 2 on first visit shows a unilocular, cystic mass within the left submandibular space (A). Three months later mass disappeared spontaneously (B).

## 考 察

ガマ腫をはじめとする粘液嚢胞の成因としては、①破れた導管からの唾液の漏出(escape phenomenon)<sup>1)~3)</sup>、②導管の部分的貯留(partial retention phenomenon)<sup>2)</sup>、③導管周囲炎<sup>3)</sup>、④導管の閉塞<sup>4)</sup>、⑤導管の部分的閉塞後の脈瘤形成(analogous to an aneurysm)<sup>2)</sup>などが報告されているが、大部分の症例は①に起因するといわれ<sup>1)~3)</sup>、通常は嚢胞腔の周囲には上皮被覆はみられない。また Bhaskar ら<sup>1)</sup>は導管の切断により実験的に粘液嚢胞を作り、これを証明している。そのうちガマ腫は舌下腺に起因するといわれる<sup>5)</sup>粘液嚢胞で、Roediger ら<sup>6)</sup>は嚢胞内容液の総蛋白量とアミラーゼ値の測定結果よりこれを支持している。篠原ら<sup>3)</sup>は嚢胞内容液のデンプン消化試験よりアミラーゼの存在を確認している。また臨床的には舌下腺摘出術により再発がないことは舌下腺由来を推測させる<sup>3),7),8)</sup>。

今回の2症例とも、臨床所見ならびに顎下部の特徴的CT所見<sup>9)</sup>、さらに症例2においては穿刺吸引細胞診所見<sup>1),4)</sup>よりガマ腫が形成されたことは明らかであったが、自然治癒したために唾液の漏出部位を含めて成因については推測の域を出ない。ガマ腫は臨床的には自然治癒しない

が、Chaudhry ら<sup>4)</sup>は実験的に唾液腺導管を切断して粘液嚢胞を形成したが、2週間後には腺萎縮と線維性結合織により置換されてみられなくなることを報告している。また臨床例の顎下型ガマ腫の摘出舌下腺においては、多くの症例で腺房の萎縮や変性がみられ、さらに嚢胞に近接する部位に線維成分の増生がみられたとの報告がある<sup>3)</sup>。今回の自然治癒過程において、舌下腺全体が萎縮するとは考えにくい。症状出現から数か月の間に、漏出部の小舌下腺管に関係する腺体に局限して腺房の萎縮と線維性結合織による置換が起こったと考えても無理はない推論であろう。

一般的には顎下型ガマ腫の治療法については舌下腺摘出術が最も確実な方法といわれ、当科においても今回の2例を含め経験した6例中2例に舌下腺摘出術を行い、いずれも再発はみられなかったが、顎下腺摘出術をした2例中1例は再発し、2次手術にて舌下腺摘出し以後は再発はみられなかった。しかしながら舌下腺摘出術は比較的侵襲が大きく、術後の疼痛や食事摂取困難などを患者に強いることになるので、特に高齢者や小児には確実に非侵襲的な治療法が望まれていた。近年、大類ら<sup>10)</sup>により報告された吸引・圧迫療法は、6mlから12ml程度の顎下型ガマ腫の内容液を完全に吸引後、しっかり圧

迫することにより再度漏出を抑え、その間に漏出部位に癬痕形成を起こさせ、同部を閉鎖することを期待した、侵襲が少なく簡便な方法であり、再発もみられていない。また Ikarashi ら<sup>11)</sup> はガマ腫内容液を吸引後に OK-432 を局所注入し治癒した症例を報告している。今回の場合は、症例 2 において穿刺吸引細胞診により極少量の内容液を吸引したが圧迫はしておらず、これが

治癒過程に大きな影響を及ぼしたとは考えずらい。一方で当科の舌下・顎下型ガマ腫の 1 例において、舌下腺摘出術に顎下部圧迫を併用することにより顎下部の病変が治癒した経験がある。したがって顎下型ガマ腫においては、今後はまず内容液吸引後に圧迫などの保存的治療を行い、経過観察後に再発した症例のみに舌下腺摘出術を考慮するのがよいと思われた。

## 文 献

- 1) Bhaskar SN, Bolden TE, Weinmann JP : Pathogenesis of mucoceles. J Dent Res 35 : 863-874, 1956
- 2) Standish SM, Shafer WG : The mucus retention phenomenon. J Oral Surg, Anesth & Hosp D Serv 17 : 15-22, 1959
- 3) 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
- 4) Chaudhry AP, Reynolds DH, Lachapelle CF, Vickers RA : A clinical and experimental study of mucocele (Retention Cyst). J Dent Res 39 : 1253-1262, 1960
- 5) Catone GA, Merrill RG, Henny FA : Sublingual gland mucus-escape phenomenon-treatment by excision of sublingual gland. J Oral Surg 27 : 774-786, 1969
- 6) Roediger WEW, Lloyd P, Lawson HH : Mucous extravasation theory as a cause of plunging ranulas. Br J Surg 60 : 720-722, 1973
- 7) 松田拓己, 浜本宜興, 長峯岳司, 中島民雄 : ガマ腫 38 例の臨床統計的検討. 日口外誌 41 : 145-147, 1995
- 8) Yoshimura Y, Obara S, Kondoh T, Naitoh S : A comparison of three methods used for treatment of ranula. J Oral Maxillofac Surg 53 : 280-282, 1995
- 9) Coit WE, Harnsberger HR, Osborn AG, Smoker WR, Stevens MH, Lufkin RB : Ranulas and their mimics : CT evaluation. Radiology 163 : 211-216, 1987
- 10) 大類 晋, 石川 誠, 臼井康裕, 佐藤 明, 北田秀昭, 福田 博 : 唾液腺貯留嚢胞に対する吸引・圧迫療法. 口科誌 42 : 585-589, 1993
- 11) Ikarashi T, Inamura K, Kimura Y : Cystic lymphangioma and plunging ranula treated by OK-432 therapy : a report of two cases. Acta Otolaryngol Suppl Stockh 511 : 196-199, 1994