

症 例

頸部にみられた広範な嚢胞性リンパ管腫の1例

北原朋広, 松浦政彦, 渋井 暁*, 横田光正,
大屋高德, 工藤啓吾, 佐藤方信**

岩手医科大学歯学部口腔外科学第一講座

(主任: 工藤 啓吾 教授)

岩手県立中央病院歯科口腔外科*

(科長: 中里 滋樹)

岩手医科大学歯学部口腔病理学講座**

(主任: 佐藤 方信 教授)

(受付: 1999年11月18日)

(受理: 1999年12月20日)

Abstract : We report on a cystic lymphangioma in the left cervical area in the submandibular region.

A 17-year-old female developed swelling in the left submandibular area at the age of about 10 years, and repeatedly underwent puncture aspiration of the content fluid at a local hospital. However, the swelling gradually increased, extending to the left cervical region. The lesion showed wide extension. MRI and CT preoperative imaging diagnosis of was useful for confirming the extension area of the cyst. Though the lesion was surgically extirpated as much as possible, complete extirpation was difficult.

Her course has been good a postoperative period of four years, without any recurrence.

Key words ; cystic lymphangioma, MRI and CT

緒 言

嚢胞性リンパ管腫は病巣が比較的小範囲の時は摘出も容易であるが、広範囲に及ぶ場合にはその処置に苦慮する。今回、われわれは長期の経過を辿った左側顎下部から傍咽頭隙に生じた広範な嚢胞性リンパ管腫の1例を経験したの

で、本症例の診断と治療および経過の概要について報告する。

症 例

患者; 17歳, 女性

初診; 1990年7月9日

主訴; 左側顎下部の腫脹

A case of extensive cystic lymphangioma in the cervical region

Tomohiro KITAHARA

(First Department of Oral and Maxillofacial Surgery, School of Dentistry, Iwate Medical University. 1-3-27 Chuodori, Morioka, 020-8505 Japan)

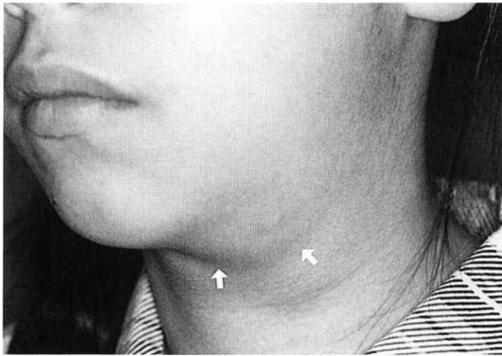


Fig. 1. Swelling in the left submandibular area.

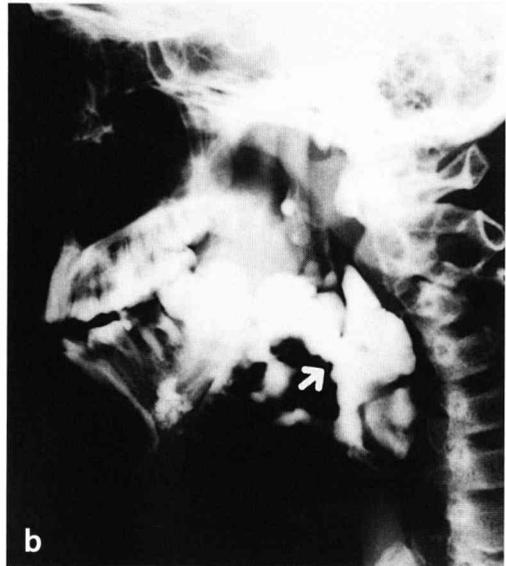
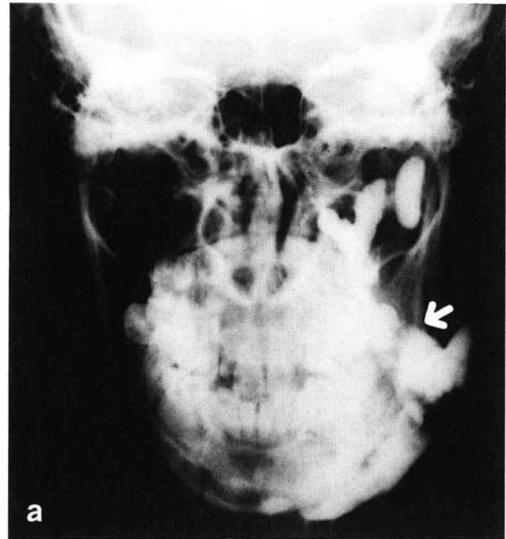


Fig. 2-a, b. Contrast enhanced X-ray images.
Extensive multilocular radiopacity is observed.



Fig. 3. CT image.
A low density mass appears to surround the submandibular gland.

既往歴, 家族歴; 特記事項なし

現病歴; 10歳頃に左側顎下部の腫脹に気付き近医を受診し, 左側顎下部嚢胞の診断のもと内溶液の穿刺, 吸引を受けた。その後も1~2か月に1回, 同様の処置を受けたが, 腫脹は徐々に増大し左側頸部にも波及してきた。1990年7月5日同医にて再度穿刺するも, 内溶液が吸引されないため当科を紹介された。

現症; 顔貌は左右非対称で, 左側顎下部に慢性の腫脹を認めたが (Fig. 1), 皮膚は正常色で, 圧痛は認められなかった。口腔内外からの双手診にて, くるみ大の境界不明瞭な弾性軟の波動が触知された。口腔内所見では左側下顎第一大臼歯相当部の口腔底を中心に腫脹がみられた。

画像所見; 76%ウログラフィンによる造影では, 嚢胞は多房性で下顎骨下縁から前方はオート

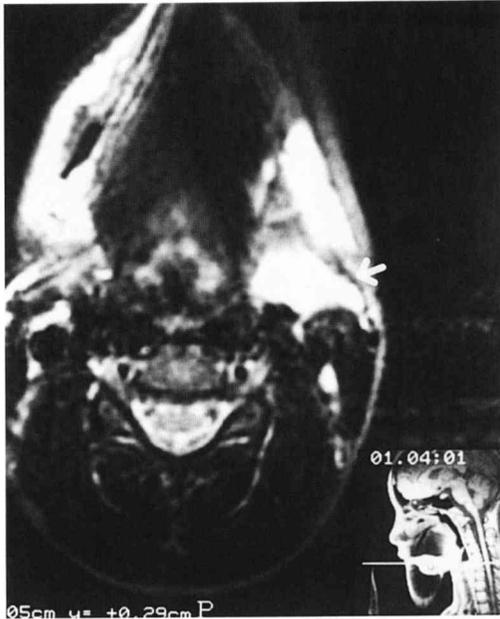


Fig. 4. MR image
T₁ and T₂ weighted images are observed anteriorly to the sternocleidomastoid muscle, internal carotid artery, and internal jugular vein.

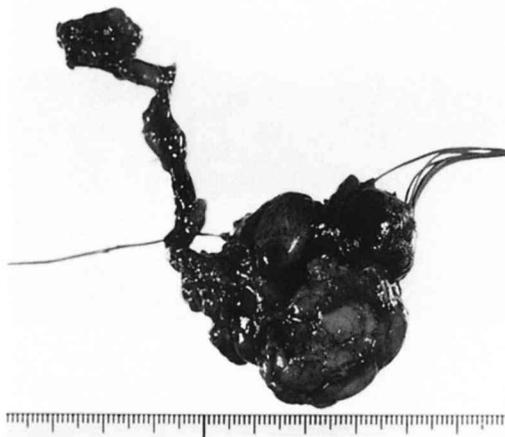


Fig. 5. Resected mass
A single-layer of capsule was present on the surface, and a yellow liquid content was observed through it.

ガイ部に、後方は咽頭後壁にまで達していた。下方は側頸部を甲状軟骨レベルまで進展し、上方は下顎枝内面に沿って下顎頭にまで及んでいた (Fig. 2-a, b)。

CTでは、嚢胞は菲薄な被膜を有し、左側傍



Fig. 6. Histopathologic image (H-E stain, x 50)
Small vessels varying in size were noted, irregularly enlarged cystic structures were occasionally observed, and lymphocytes on the thin walls of the cysts.

咽頭隙から甲状軟骨にかけて、頸動脈前方および胸鎖乳突筋前方に顎下腺を取り囲むように存在し、低調度の病変として描出された (Fig. 3)。

MRI では、左側胸鎖乳突筋、内頸動脈および外頸静脈前方に約28×11mmのほぼ均一な強調像が認められた (Fig. 4)。

臨床検査所見；異常所見なし。

臨床診断；嚢胞性リンパ管腫の疑い

処置；1991年11月1日、全身麻酔下に摘出術を施行した。CT 所見で認められた様に嚢胞壁はきわめて薄く、顎下腺を圧迫するように顎下三角と頸部三角とを満たし、下顎枝内面を上方に進展し、上端は傍咽頭隙と一部頭蓋底部にまで進展していた。傍咽頭隙部の剥離時には嚢胞壁が破綻し内溶液が流出したため、一部上方の嚢胞摘出が不可能であったが他は摘出できた。残存嚢胞壁は電気焼灼し、再発防止を計った。

摘出物所見；表面は一層の被膜が存在し波動を触知することができた。また黄色の内溶液が透過してみえた (Fig. 5)。

病理組織学的所見；比較的豊富な脂肪組織をまじえた線維性の組織片には、大小不整な小管腔の形成が目立ち、ところにより不規則な嚢状に拡張していた。その壁は薄くこれに接してリンパ球の集簇が認められた (Fig. 6)。病理組織学的診断は嚢胞性リンパ管腫であった。

考 察

本疾患は真性腫瘍，組織奇形あるいはその中間型などの見解があるものの，結論は出ていない。成因については胎生2カ月までに形成される原始リンパ嚢の残遺物として先天性に生じるとされている。また，その発生部位は原始リンパ嚢に一致する¹⁾。

リンパ管腫はLandingら²⁾により，単純性リンパ管腫，海綿状リンパ管腫，嚢胞性リンパ管腫の3種類に分類されているが，しばしば混合型で存在することもある。一方，日本小児腫瘍組織分類委員会³⁾ではさらに全身性リンパ管腫を追加し，現在は4つに分類するのが一般的である。発生頻度には性差がなく新生児や乳幼児に認められることが多く，そのほとんどが2歳未満までに出現している⁴⁾。本例は10歳頃より左側顎下部の腫脹に気づくも，疼痛がないため同部の穿刺，吸引を繰り返す，17歳になってから当科を受診するという長期経過を辿った。

嚢胞性リンパ管腫の診断はその発生部位，臨床症状，内容液性状から比較的容易とされているが，嚢胞内に感染や出血が生じたりすると嚢胞壁が肥厚し，緊慢性となり血管腫との鑑別が困難な場合があると報告されている⁵⁾。

術前の検査ではsilverman⁶⁾はリンパ管腫の局在や拡がりを把握するのにCTが有用であると報告しているが，本症例では76%ウログラフィによる造影所見が嚢胞の拡がりを診断するのに有用であった。さらに本症例では嚢胞の局在や進展範囲を知る上でよりMRI画像が有用であった。

治療法として摘出手術が第一選択として，行われている。本疾患は正常組織と嚢胞との境界が不明瞭なため，嚢胞の発生部位や進展範囲によっては手術侵襲が大きくなり，完全摘出が困難になる⁷⁾。今回の症例ではその経過と症状および画像所見から外科的摘出が最も適当と判断

し可及的に摘出を試みた。残存部に対しては電気焼灼にて嚢胞壁の組織固定をはかり，術後4年間では良好であったが，その後は患者の都合で来院していない。

最近，本疾患の治療にA群3型溶連菌Su株の凍結乾燥製剤であるOK-432をリンパ管腫内に局所投与し，炎症を惹起させリンパ管腫の内皮細胞を破壊することにより縮小，治癒に導くことの有効性が報告されている^{8,9,10)}。本例のように罹患部位が広範におよぶ場合や小児例など全摘が困難で再発をきたしやすい嚢胞性リンパ管腫の治療法として，外科的摘出とOK-432との併用が期待されている。

文 献

- 1) 池田恵一，戸田智博，木村範孝，児玉好央，木下清弓：小児のリンパ管腫。外科治療，20：374-387 1969.
- 2) Landing, B. H. and Farber, S.: Tumors of the cardiovascular system. Atlas of tumor pathology. : Armed Forces Institute of pathology, Washington, D. C., 124-125 1956.
- 3) 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.
- 4) Gross, R. E.: The surgery of infancy and childhood. W. B. Saunders Co., Philadelphia, 960-970 1953.
- 5) 草間 悟，和田達雄，三枝正裕：外科MOOK 顎部腫留の臨床。第3刷，金原出版，東京，1982，15-29.
- 6) Silverman, P. N., Korobkin, M., Moore, A. V.: CT diagnosis of cystic hygroma of the neck. J. of computer assisted tomography 7：519-520 1983.
- 7) 斎藤純夫：リンパ管腫。外科診療，15：227-282 1973.
- 8) 萩田修平，伝 俊秋，出口英一：頭頸部リンパ管腫の治療，外科切除，Bleomycin, OK-432の局所療法と比較検討。日外会誌，90：1389-1391 1989.
- 9) 萩田修平，伝 俊秋，中村 香，出口英一，岩井直躬：リンパ管腫のOK-432局注療法による治療。小児外科，25：371-376 1993.
- 10) 岩田光正，岡部郁夫，野中倫明，越永従道，荻野教幸：リンパ管腫のOK-432局注療法による治療。小児外科，25：377-383 1993.