

<原 著>

14歳女児に発生した plunging ranula の1例

深谷赤十字病院 歯科口腔外科¹⁾ 千葉大学医学部附属病院 歯科・顎・口腔外科²⁾ 深谷赤十字病院 外科³⁾
 山野 由紀男¹⁾ 鶴澤 一弘²⁾ 小池 博文²⁾ 笠松 厚志²⁾
 坂本 洋右²⁾ 丹沢 秀樹²⁾ 伊藤 博³⁾

A Case of Plunging Ranula in a 14-year-old Girl

Yukio YAMANO¹⁾, Katsuhiko UZAWA²⁾, Hirofumi KOIKE²⁾, Atsushi KASAMATSU²⁾,
 Yosuke SAKAMOTO²⁾, Hideki TANZAWA²⁾ and Hiroshi ITOH³⁾

¹⁾Department of Dentistry and Oral-Maxillofacial Surgery, Japanese Red Cross Fukaya Hospital

²⁾Department of Dentistry and Oral-Maxillofacial Surgery, Chiba University Hospital

³⁾Department of Surgery, Japanese Red Cross Fukaya Hospital

Key words : 顎下型ガマ腫、舌下腺摘出術、小児

はじめに

ガマ腫は、舌下腺あるいは口底部の小唾液腺に由来する粘液嚢胞である。その多くは舌下型ガマ腫として、口底部の片側性腫脹として認められるが、顎下部まで達するいわゆる plunging ranula は、嚢胞が顎舌骨筋の後方あるいは顎舌骨筋の裂隙を通して顎下部に進展し、同部の腫脹を生じるまれな疾患である。

今回、14歳女児に生じた plunging ranula に対して、舌下腺摘出術を施行し良好な結果を得たので、その概要を報告する。

症 例

症 例：14歳、女児

主 訴：右側顎下部腫脹

既往歴：特記事項なし

家族歴：特記事項なし

現病歴：初診1か月前より右側顎下部に無痛性の腫脹を自覚し、漸次増大傾向を示したため近医歯科を受診した。その際、精査加療目的に当科を紹介され受診した。

現 症：口腔外所見：右側顎下部に弾性軟、びまん性無痛性腫脹を認めた。表面皮膚は正常で、発赤や圧痛は認められなかった(図1)。

口腔内所見：口底部に腫脹は認められず、口底粘膜は正常色を呈していた。舌下小丘からの唾

液流出は両側とも良好であった(図1)。造影MRI所見：右側顎下腺前方ならびに顎舌骨筋外側にT1強調像で低信号、T2強調像で高信号を呈する内部均一で境界明瞭な病変を認めた(図2)。大きさは46×35×24mm大であった。

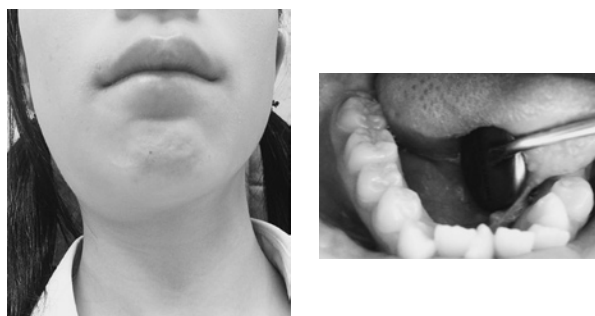


図1
左：初診時顔貌所見：右側顎下部に腫脹がみられる
右：初診時口腔内所見：右側口底部に腫脹は認めない

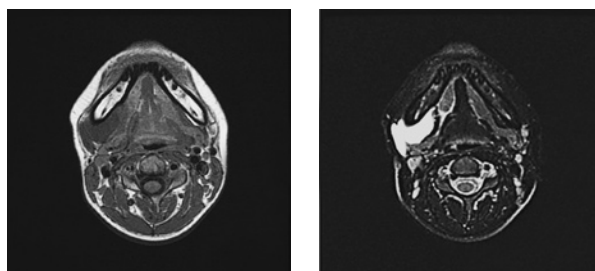


図2 造影MR像
左図：T1強調MR画像、右図：T2強調MR画像
右側顎下部にT1で低信号、T2で高信号の領域を認める

臨床診断：plunging ranula の疑い

処置および経過：全身麻酔下に口腔内より右側舌下腺摘出術を施行した。右側顎下腺管開口部より涙管ブジーを挿入し、同腺管の走行を確認した後、舌下皺襞外側に切開を加えた。舌神経を明示しその走行に注意しつつ、鈍的に舌下腺にアプローチし、最終的に顎舌骨筋から剥離して摘出した（図3）。舌下腺摘出後、顎下部を圧迫すると顎舌骨筋裂隙より血性で粘張度の高い唾液様液体が約10ml程度排出された（図3）。内容を十分に吸引した後、同部を生理食塩水で十分に洗浄し創面は1次閉鎖した。術後は口腔外から圧迫ガーゼにより顎下部を5日間圧迫した。術後経過は良好で、術後7日目に退院となった。術後6か月を経過した現在、再発及び合併症等もなく経過良好である。

病理組織学的所見：摘出された舌下腺は、舌下腺の辺縁部に嚢胞状に拡張した導管と思われる構造が認められた。同部には粘液が充満していたが、上皮の裏装を欠いていた。周囲には中等度の炎症性細胞浸潤を伴い、小葉は局所的に萎縮していた（図4）。

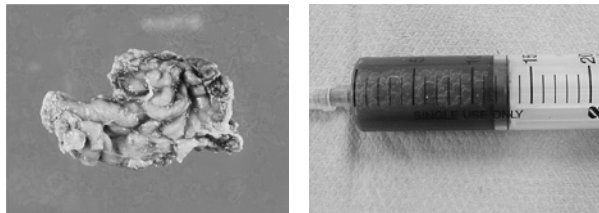


図3
左：摘出物標本（4×2.5×1 cm 大の舌下腺）
右：血性で粘張度の高い内容液

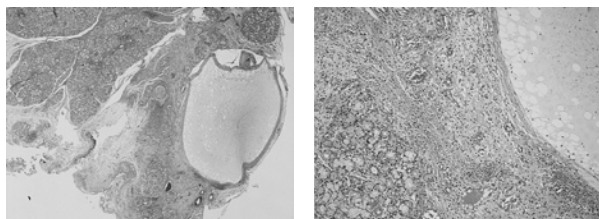


図4 病理組織像
左図：H-E 染色、×40
右図：H-E 染色、×100

考 察

ガンマ腫は、舌下型、顎下型、舌下・顎下型の3型に分類され¹⁾、その多くは、顎舌骨筋上に限局し、口底部に腫脹をきたす舌下型である。顎舌骨筋を越えて顎下部に腫脹を呈する顎下型は、後述のごとくまれである。また、顎下部への進展様式により、篠原ら²⁾はI型からV型に分類している。すなわちI型は、舌下・顎下型で嚢胞が顎舌骨筋の後方より顎下部に進展したもの、II型：舌下・顎下型で嚢胞が顎舌骨筋の裂隙より顎下部に進展したもの、III型：顎下型で嚢胞が顎舌骨筋の後方より顎下部に進展したもの、もしくは舌下腺が顎舌骨筋の後方まで発達し、この発達した部分より嚢胞が発生し顎下部に広がったもの、IV型：顎下型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、V型：顎下型で顎舌骨筋の裂隙より嚢胞が顎下部に進展したものに分類される。

自験例では、MRI所見と手術所見より嚢胞が顎舌骨筋を貫いて舌下腺に連続していたことから舌下腺由来で、V型に相当するものと考えられた。鑑別診断として、嚢胞性リンパ管腫、類皮嚢胞、類表皮嚢胞、甲状舌管嚢胞、脂肪腫、血管腫、鰓嚢胞等との鑑別が必要となる。口腔内に腫脹を伴わない顎下型ガンマ腫の場合は、これらの疾患との鑑別には注意を要する。ガンマ腫の診断に際して、嚢胞の内容液を吸引し、アミラーゼを測定する方法³⁾や超音波診断にて顎舌骨筋の裂隙を確認することも診断の一助になると報告されている⁴⁾。

全ガンマ腫に占める顎下型ガンマ腫の割合は2～11.6%と比較的低い^{1) 2) 5) 6)}。好発年齢は、10～30歳代に最も多いとされる⁷⁾。また15歳未満の小児のガンマ腫に関する報告では、10～12歳が最も多くそれぞれの報告で34.3%⁷⁾、34.8%⁸⁾を占めていた。新生児や乳児に発生した報告⁸⁾も散見されるが、ガンマ腫全体に占める割合は非常に少ない。男女比については、本邦では女性に多い^{1) 2) 5)-8)}。

ガンマ腫の治療法は、一般に開窓術、嚢胞摘出術、舌下腺摘出術等が単独あるいは併用で選択されている。開窓術、嚢胞摘出術単独では

再発率が高く、過去の報告では開窓術の10～46.7%、嚢胞摘出術の12.5～41.7%にそれぞれ再発を認めたとされている^{1) 5) 7) 9)}。

自験例で行った舌下腺摘出術は、他の開窓術、嚢胞摘出術、硬化療法等に比較しても合併症の発生率は低く、かつ再発率に関しては1～3.6%と他の治療法に比較して非常に低い結果となっている^{10) - 12)}。舌下腺摘出に際しては、(1) 舌下腺摘出と同時に嚢胞を摘出または開窓する術式と、(2) 舌下腺摘出のみで嚢胞の処理を併用しないあるいは内容液の排出のみを行う場合に大別される。多くの施設では、舌下腺のみを摘出し残遺嚢胞の処理を行わない治療が選択されている^{3) 13)}。その理由として、ガンマ腫は、上皮細胞を認めない偽嚢胞が主体であり¹⁴⁾、一般に発生は舌下腺由来とされているため²⁾、発生母地である舌下腺を摘出し、内容物を除去すれば残留した嚢胞壁は癒痕化し消退すると考えられる。また、残遺嚢胞自体には、粘液産生能がないことも理由の一つである。上記の理由により、本症例においても舌下腺摘出術を施行した後に内容液の十分な吸引・排出を行った。

舌下腺摘出に際しては、口内法および口外法(顎下部切開)が考えられるが、口外法では、顔面神経損傷の可能性や皮膚切開による整容性の問題があり、多くの場合口内法が選択されている。しかし、顎舌骨筋の裂隙から舌下腺が顎下部に大きく突出している場合などは、口腔外よりのアプローチが必要になる場合もある¹⁵⁾。海外の複数の報告でも、口内法による舌下腺摘出術は、舌下型・顎下型ガンマ腫に対する再発率の非常に低い有効な治療とされている^{3) 10) - 13)}。近年、保存的治療法として、OK-432を使用した硬化療法の治療効果とその有用性に関する報告が、複数報告されている^{16) 17)}。その有効性が示される一方、施行後の発熱や腫脹、嚥下・呼吸障害等の合併症も指摘されている。本症例では、整容性から皮膚切開を避けるほかに顎下型ガンマ腫であったため、口内法による舌下腺摘出術を施行することで良好な結果を得た。本症例では、病理組織学的に舌下腺組織辺縁部で導管が拡張し、上皮裏装を伴わない嚢胞状変化を呈していたため、舌下腺由来のガンマ腫と考えられ

た。そのため、今回施行した舌下腺摘出術は、再発の可能性の低い根治的な治療法であったと考えられた。

謝 辞

稿を終えるにあたり、本症例の病理学的診断に関して御意見を賜りました深谷赤十字病院病理部部長 兼子 耕先生に深謝致します。

ま と め

1. 14歳女児にみられた顎下型ガンマ腫の1例を経験した。
2. 口腔内より舌下腺摘出術を行い、良好な結果が得られた。

文 献

- 1) 里村一人, 力丸浩一 他: 過去10年間のガンマ腫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 他: 顎下型ガンマ腫(Plunging ranula)の臨床的, 組織学的検索. 日口外誌 30: 222-230, 1984.
- 3) Samant S, Morton RP, et al. Surgery for plunging ranula: the lesson not yet learned?. Eur Arch Otorhinolaryngol 268: 1513-1518, 2011.
- 4) Jain P, Jain R, et al. Plunging ranulas: high-resolution ultrasound for diagnosis and surgical management. EurRadiol 20: 1442-1449, 2010.
- 5) 斉藤輝海, 神野洋輔 他: ガンマ腫45例の臨床的検討. 愛院大歯誌 40: 259-262, 2002.
- 6) 奥村康明, 安岡 忠 他: 顎下型ガンマ腫の1症例と当科における過去6年間のガンマ腫の臨床的検討. 口科誌 38: 745-751, 1989.
- 7) 高木純一郎, 宮田 勝 他: 小児ラヌーラの臨床的検討. 小児口外 18: 15-20, 2008.
- 8) 佐藤美樹, 佐藤孝幸 他: 小児にみられたガンマ腫の臨床的研究. 日口外誌 47: 803-806, 2001.
- 9) 山田桂子, 砂川 元 他: 小児のガンマ腫に関する臨床的検討. 小児口外 14: 18-22, 2004.
- 10) Patel MR, Deal AM, et al: Oral and plunging ranulas: What is the most effective treatment?. Laryngoscope 119: 1501-1509, 2009.
- 11) Sigismund PE, Bozzato A, et al: Management of ranula: 9 years' clinical experience in pediatric and adult patients. J Oral Maxillofac Surg 71:

- 538-544, 2013.
- 12) Zhao YF, Jia Y, et al. Clinical review of 580 ranulas. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 98 : 281-287, 2004.
- 13) Huang SF, Liao CT, et al. Transoral approach for plunging ranula--10-year experience. *Laryngoscope* 120 : 53-57, 2010.
- 14) 小林明男：顎口腔領域の超音波診断－顎下型ガマ腫について－, *日口外誌* 37 : 1819-1825, 1991.
- 15) 重松司朗, 鈴木康之 他：舌下腺の下方突出により生じた顎下型ガマ腫の1例. *歯科学報* 102 : 129-134, 2002.
- 16) 池内 忍, 加藤 伸, 他：OK-432 硬化療法が著効した小児ラヌーラの1例. *小児口外* 17 : 47-50, 2007.
- 17) 宇佐見一公, 林 康司 他：OK-432 局所注入療法による顎下型ガマ腫治療の経験. *口科誌* 52 : 139-142, 2003.