

囊胞性リンパ管腫の1例

—OK-432 の局注療法とチンキキャップの応用—

谷尾和彦・八尾正己・高橋啓介
領家 和男・濱田 駿・岡本和己

A case of cystic lymphangioma

—OK-432 local injection therapy and application of a chin-cap—

Kazuhiko TANIIO • Masami YAO • Keisuke Takahashi
Kazuo RYOKE • Takeshi HAMADA • Kazumi OKAMOTO

J.J.O.M.S. 39(12) : 1362—1364 1993

「日本口腔外科学会雑誌」第39巻 第12号（平成5年）別刷

Jpn. J. Oral Maxillofac. Surg. Vol. 39 No. 12 1993

嚢胞性リンパ管腫の1例

—OK-432の局注療法とチンキャップの応用—

谷尾和彦・八尾正己・高橋啓介
領家 和男・濱田 駿・岡本和己*

A case of cystic lymphangioma

—OK-432 local injection therapy and application of a chin-cap—

Kazuhiko TANIO・Masami YAO・Keisuke Takahashi
Kazuo RYOKE・Takeshi HAMADA・Kazumi OKAMOTO*

Abstract: A 3-year-old boy was referred to our clinic with swelling of the neck, submandibular region and tongue. The patient had been previously treated in our clinic with local injection of bleomycin. We therefore resected the neck tumor and performed tongue reduction. After the operation, the patient was applied a chin-cap to manage progenia and open bite which were caused by congenital swelling of the tongue. Application of the chin-cap for 3 years brought about cure of the progenia and open bite. At the age of 7 years and 6 months, a huge cystic lymphangioma appeared in the parapharyngeal space. MRI was very effective in allowing us to estimate the characteristics of this cystic lymphangioma of the parapharyngeal space. Fortunately, OK-432 local injection therapy was effective for the lymphangioma, and no recurrence has been noted for 2 years and 3 months.

Key words: cystic lymphangioma (嚢胞性リンパ管腫), OK-432 local injection therapy (OK-432 局注療法), chin-cap (チンキャップ)

を使用し、良好な治療成績を得たので報告する。

はじめに

嚢胞性リンパ管腫は、先天性あるいは早発性にみられるリンパ組織由来の、頸部に好発する嚢胞状の腫瘍性疾患である。特に口腔、頸部に生じた先天性のものでは、その管理、処置に苦慮する場合が多い。

今回われわれは3歳時に受診した頭頸部の先天性嚢胞性リンパ管腫の症例に対し、腫瘍切除術、OK-432の局所注入療法を行い、また生下時からの舌病変のため生じた下顎前突、開咬の下顎骨変形に対してはチンキャップ

症 例

患者：3歳4か月 男児。

初診：昭和62年4月11日。

主訴：舌、頸部～顎下部の腫脹。

家族歴：特記事項なし。

現病歴：昭和58年9月2日出生。出生時より両側頸部～顎下部、口底、舌の腫脹を認め、鳥取県立中央病院小児外科にて、嚢胞性リンパ管腫の診断下に、プレオマイシンの局所注入療法が行われたが、著明な効果は得られず、昭和62年3月同院歯科口腔外科に紹介された。

現症：舌は口腔外に突出し、口腔内に舌を収めることは不能な状態であった(写真1)。このため、構音障害、摂食障害をきたしていた。舌背部～口底部には白色および赤色の多数の細顆粒状の腫瘍を認めた。また両側頸部、顎下部にも弾性軟のび漫性腫脹を認めた。頭部X線規格写真では、舌の口腔外突出により、下顎骨には骨格性の下顎前突と開咬の状態が観察された(写真2)。

処置および経過：昭和62年7月30日(3歳10か月)に

鳥取大学医学部歯科口腔外科学教室
(主任：濱田 駿教授)

* 鳥取県立中央病院歯科口腔外科
(主任：岡本和己医長)

Department of Oral and Maxillofacial Surgery,
Faculty of Medicine, Tottori University (Chief:
Prof. Takeshi Hamada)

* Department of Dentistry and Oral Surgery,
Prefectural Central Hospital (Chief: Kazumi
Okamoto)

受付日：平成5年6月18日



写真 8 退院時顔貌

呈し、種々の方向に走行する不規則な配列を示していたが、部位により疎となり粘液腫様な性状を示す部位も認められた。このような線維腫様組織中にはほぼ全域にわたって多数の小血管が認められ、壁は1層の内皮細胞のみからなっていたが、時には平滑筋層を有していた。多くの血管は周囲を硝子化した線維に囲まれていた(写真7)。

以上の所見より、血管線維腫と診断された。

考 察

血管線維腫は、良性軟部組織腫瘍のなかでまれなもの、遠城寺ら¹⁾によれば、良性軟部組織腫瘍8,086例中49例(0.6%)にすぎない。そのほとんどは、鼻咽腔に発生し、若年男性に多いことから、鼻咽腔血管線維腫^{2,3)}、若年性鼻咽腔血管線維腫⁴⁾として扱われている。鼻咽腔以外での報告は、われわれの渉猟した限りでは、軟口蓋⁵⁾、副鼻腔⁶⁾、鼻腔⁷⁾、胃⁸⁾、縦隔⁹⁾、皮膚、口腔領域¹⁰⁻¹⁵⁾であり、特に口腔領域では6例を認めるのみである。

本腫瘍の成因については、あきらかではないが、ホルモンの関与³⁾などが考えられている。本腫瘍の治療法としては、手術療法が優先し、手術困難な症例に対してのみ、ホルモン療法、放射線療法、薬物療法が行われている。今回われわれの経験した症例は、76歳の女性の頰部に発生した大きなもので、きわめてまれな症例と思われる。

手術後1年11か月を経て現在経過良好である(写真8)。

結 語

頰部に発生した血管線維腫のまれな1例を経験したので、若干の考察を加え報告した。

なお、本論文の要旨は第19回日本口腔外科学会北日本地方会(福島)において発表した。

引用文献

- 1) 遠城寺宗知, 岩崎 宏, 他: わが国における良性軟部組織腫瘍. 癌臨 20: 594-609 1974.
- 2) Enzinger, F.M. and Weiss, S.W.: Soft tissue tumors. 2nd Ed, Mosby Co, St Louis, 1988, p 127-129.
- 3) Girgis, I.H. and Fahmy, S.A.: Nasopharyngeal Fibroma. J Laryngol Otol 87:1107-1123 1973.
- 4) 遠城寺宗知, 曾田豊二, 他: 若年性鼻咽腔血管腫の臨床病理学的検索. 耳鼻 9: 76-86 1963.
- 5) 頰突一男, 末藤頼男, 他: 軟口蓋混合腫瘍(血管線維腫)の一症例. 耳鼻 5: 110-113 1959.
- 6) 菊地正明, 三浦英子, 他: 上顎洞に原発した血管線維腫の1例(抄). 日口外誌 24:1338 1978.
- 7) 平出文久, 松原 宏: 若年性鼻腔血管腫の1例. 耳喉 50: 991-997 1978.
- 8) 稲越英機, 原 敬治, 他: 十二指腸下行脚に脱出せる巨大胃血管線維腫の1例(抄). 日医放 32: 649 1972.
- 9) 古賀昭夫, 中村 敬, 他: 縦隔血管線維腫の1治験例. 胸部外科 26: 331-334 1973.
- 10) 瀧川富雄, 寺門正昭, 他: 下顎前歯部に生じた血管線維腫の1例. 日大歯学 57:415-420 1983.
- 11) 杵淵孝雄, 菊田高行, 他: 口底部に出現した血管線維腫の1例. 日口外誌 27: 604-612 1981.
- 12) 川崎隆義, 須川委洪, 他: 側頭窩下から発生し上顎骨を著しく侵した管腫性血管腫の1例. 日大歯学 44: 153-156 1970.
- 13) 久野吉雄, 鈴木 修, 他: 下顎臼歯部に発生した血管線維腫と思われる一症例について(抄). 日口外誌 21: 860 1975.
- 14) 宮脇昭彦, 登 正太郎, 他: 上顎に生じた Juvenile angiofibroma の1例(抄). 口科誌 39: 1171 1990.
- 15) 鈴木一郎, 鈴木 誠: 口唇に発生した angiofibroma の1例(抄). 日口外誌 38: 173 1992.



写真1 初診時(3歳7か月の顔貌



写真3 右耳介下部腫脹時のMRI画像



写真2 初診時の側頭部X線写真



写真4 OK-432局所注入後のMRI画像

全身麻酔下に頸部、顎下部、オトガイ下部の腫瘍切除術、舌の腫瘍部分切除術を施行した。両側下顎角前方20 mmの顎下部からオトガイ下部に切開を加え腫瘍を可及的に切除した。舌に対しては舌尖が口腔内に収まるように、半径約20 mm、120度の扇型に舌前方部を切除した。摘出物の組織所見は、顎下部のものでは嚢胞性リンパ管腫、舌部では海綿状リンパ管腫の所見を呈していた。手術により舌は口腔内に収まったが、生下時よりの舌の歯列外突出による下顎前突、開咬の状態が残存した。上下顎左側の乳中切歯間距離は、オーバージェット -4 mm、オーバーバイト -8 mmであった。これに対して昭和62年10月(4歳1か月)よりチンキャップを使用し状態を観察することにした。チンキャップの負荷は約600 gとした。平成元年11月(6歳2か月)の下顎前歯の萌出時には、下顎前突の状態はほぼ改善された。さらに平成2年10月(7歳1か月)の上顎前歯の萌出時には、開咬状態は解消した。

平成3年3月(7歳6か月)、突然右耳下腺部に腫脹を認め当科を受診した。受診時、耳介下部に約5 cmの

び慢性で弾性軟の腫脹を認めたが、発赤、圧痛、熱感などの炎症所見はなかった。口腔内では右軟口蓋の腫脹と口蓋垂の左方への偏位を認めた。MRIのT₂強調画像(写真3)にて副咽頭隙に巨大な多胞性の嚢胞様病変を認め、この病変は副咽頭間脂肪を後方へ、耳下腺を上外側へ圧排しており、さらに舌、口底とも連続している状態が観察されたことから、本病変も嚢胞性リンパ管腫と考え処置することにした。病変の位置から外科的治療は困難と考えられ、OK-432の局所注入療法を行うことにした。第1回目の処置では耳介下部の穿刺を行い、黄色透明または暗赤色の内容物20 ml吸引した後、OK-432 1 KE(生食10 mlにて溶解)を注入した。注入後2日間は発熱を認めたが、注入後5日目より腫脹は軽減した。しかしながら1か経過しても完全緩解に至らず、再度OK-432 1 KEの投与を行った。その後約1か月後には耳下腺部の腫脹は消失し、MRIにて病変の完全消失を確認した(写真4)。

平成3年12月(8歳3か月)には臨床的に前歯部の被蓋関係はほぼ正常となったので、チンキャップの使用を中止した。最近の顔貌所見では、オトガイ部の突出感がなく、ほぼ満足できる状態(写真5)になっている。同時期の咬合状態は、上顎前歯が萌出し下顎前歯との被蓋関係は正常で、下顎前突、および開咬の状態は解消している。口腔内所見で、舌は歯列内に完全に収まっているが、舌表面はリンパ管腫特有の白色および赤色の顆粒状病変を認める。8歳3か月のチンキャップ使用中止時とチンキャップ使用前(4歳1か月)との頭部X線規格写真の重ね合わせ(図1)をみると、下顎角の縮小、下顎前歯の歯軸の変化などにより、下顎前突、開咬の状態が改善しているのが観察される。OK-432の投与後約2年3か月が経過するが、右耳下腺部の腫脹はなく再発は認められない。

考 察

リンパ管腫は、病理組織学的には内皮細胞に覆われた薄い壁を有するリンパ管の集合で、単純性リンパ管腫、海綿状リンパ管腫、嚢胞性リンパ管腫、全身性リンパ管腫に分類されている。比較的よくみられるのが嚢胞性リンパ管腫、海綿状リンパ管腫である。両者はリンパ管の閉塞によって発生するものであるが、周囲組織が脂肪組織のような軟らかな場合は嚢胞状となり、筋肉のように密な組織の場合は海綿状リンパ管腫となるといわれている¹⁾。本症例も顎下部、頸部のは嚢胞性リンパ管腫、舌のは海綿状リンパ管腫であることが組織学的に確認されている。

嚢胞性リンパ管腫の治療は外科的治療とプレオマイシンなどの局所注入による保存的治療に大別される。本症は良性疾患といわれながら隣接する血管、神経、筋肉を巻き込んでいるため、外科的完全摘出は困難であること



写真 5 最近 (9 歳 7 か月) の顔貌

もある。これを補う方法としてブレオマイシンの局所注入療法が考案された²⁾。しかしながら本剤は抗癌剤であり副作用の問題からも、あくまで慎重に行うべきである。

荻田らは OK-432 の局所刺激作用に注目し、嚢胞性リンパ管腫に対し局所注入を行い、良好な成績を得た³⁾。荻田らは外科療法、ブレオマイシン、OK-432 の局所療法と比較検討を行っているが、OK-432 の局所投与により 31 例中著効が 21 例、有効 6 例であったと報告⁴⁾し、他の治療より優れていると報告している。

OK-432 のリンパ管腫に対する治療は、OK-432 の投与によりリンパ管腫に炎症を惹起させ、内皮細胞を破壊することで縮小、治癒させると考えられている。本症例では患児が 7 歳 6 か月の時、副咽頭隙に生じた巨大な嚢胞性リンパ管腫に対して OK-432 の投与を行った。腫瘍の位置からして外科療法は困難と考え、またすでに当科受診までにブレオマイシンの投与を受けているため、その副作用を懸念し、OK-432 の投与を選択した。OK-432 の投与は 2 KE であったが、その効果は非常に良好であった。また腫瘍の評価、治療効果の判定には MRI が有効であった。OK-432 の局注療法の副作用は 38°C 前後の発熱が認められる程度であったとの報告³⁾があるが、本症例の場合も同様であった。

頸部、顎下部の嚢胞性リンパ管腫で、臨床上特に問題になるのは気道圧迫とともに本症例のごとくリンパ管腫の圧迫による骨格系の変形であると思われる。嚢胞性リンパ管腫による骨格系に異常をきたしたとの報告はわれわれが渉猟した限りではみあたらなかったが、長期間の腫瘍の圧迫により骨格系の変形をきたすことは想像に難くない。本症例では巨舌症による下顎骨の変形がみられ、下顎前突、開咬を呈していた。骨格性の下顎前突、開咬に対してまず巨舌症の縮小術を行い、舌の容量を減じた後、チンキャップを使用した。チンキャップ使用による改善の根拠は 1) 下顎骨の位置移動、2) 上下切歯

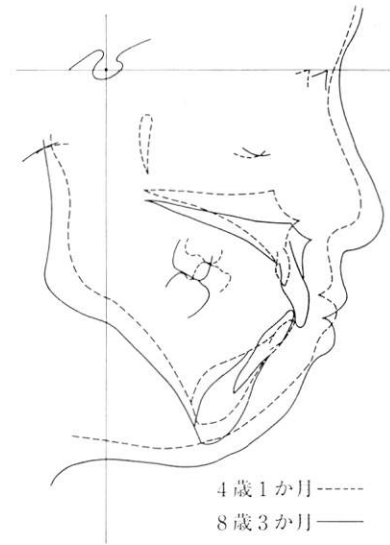


図 1 チンキャップ使用前、中止時の側貌
頭部 X 線規格写真の重ね合わせ

歯軸の変化、3) 下顎角の減少、下顎枝後縁から下顎体下縁にいたる下顎外形線の変化、下顎枝高の成長量の減少などの下顎骨形態の変化がいわれている⁵⁾。本症例の場合、4 歳 1 か月よりチンキャップを使用し、オトガイ部の前方への成長抑制により、ゴニアルアングルが術直後 153 度であったものが、8 歳 3 か月時には 132 度となり、また前歯部の開咬状態と反対咬合の解消を認め、著明な効果を発揮した。しかしながら現在も舌などに腫瘍は存在し、今後とも厳重なる観察が必要である。

結 語

頭頸部に発生した嚢胞性リンパ管腫に対し、腫瘍切除術、OK-432 の局所注入を行い、さらに生下時よりの舌病変により生じた、下顎前突および開咬の下顎骨の変形に対しチンキャップを使用し、良好な治療結果が得られた。

引用文献

- 1) Bill, A.H.: A unified concept of lymphangioma and cystic hygroma. *Surg Gynecol Obstet* 120: 79-86 1965.
- 2) 由良二郎, 橋本 俊, 他: 小児の頸部腫瘍特に嚢胞状リンパ管腫と Bleomycin の効果について. *小児外科・内科* 8: 279-285 1976.
- 3) 荻田修平, 伝 俊秋, 他: OK-432 の局所注入による小児嚢胞状リンパ管腫治療の経験. *外科* 49: 421-423 1987.
- 4) 荻田修平, 伝 俊秋, 他: 頭頸部リンパ腫の治療, 外科切除, Bleomycin, OK-432 局所療法と比較検討. *日外会誌* 90: 1389-1391 1989.
- 5) 滝本和男監修: 歯科矯正臨床シリーズ 1 反対咬合. 医歯薬出版, 東京, 1976, 376頁.