

症 例

顎関節部のガングリオンが疑われた一例と文献的考察

山内 六男¹⁾ 飯田 幸弘²⁾ 山本 寛明³⁾ 岩堀 正俊³⁾

Suspected ganglion cyst of the temporomandibular joint: A case report and literature review

YAMAUCHI MUTSUO¹⁾, IIDA YUKIHIRO²⁾, YAMAMOTO HIROAKI³⁾, IWAHORI MASATOSHI³⁾

顎関節症の症状を示す顎関節部のガングリオンが疑われた症例に対して保存的治療を行い症状が消失した一例を経験したので文献的考察と併せて報告した。

患者は 39 歳の女性で、左側顎関節部の疼痛および上顎左側臼歯部の自発痛を訴えて本学付属病院に来院した。最大開口距離は 18mm であった。触診により、左側顎関節部に小指頭大の弾性硬の腫瘤を触知した。CT 検査を行ったところ左側顎関節部外側に腫瘤が観察された。超音波検査では左側顎関節部外側に比較的境界明瞭な円形の像が認められた。MRI 検査では、両側の非復位性関節円板前方転位と両側に joint effusion を認めた。下顎頭外側に小指頭大の円形の腫瘤を認めた。確定診断のための穿刺は患者の同意が得られず実施しなかったが、これらの検査結果からこの時点ではガングリオンと診断した。

患者に日中噛みしめの禁止、硬固物咀嚼の禁止、欠伸の禁止、などの生活指導を行った。初診から 9 日後には開口距離は 40mm に増加し、疼痛もほぼ消失していた。6 週間後に再度超音波検査を施行したところ、腫瘤は著明に縮小していた。10 カ月後の超音波検査では大きさに変化は認められなかった。

キーワード：ガングリオン，顎関節，症例報告，文献的考察

Here, we report the conservative treatment for a suspected case of ganglion cyst of the temporomandibular joint showing symptoms of temporomandibular joint disease and present the corresponding literature review.

The patient was a 39-year-old woman who presented to the University Hospital complaining of pain in the left temporomandibular joint and spontaneous pain in the maxillary left molar. The maximum mouth opening length was 18 mm. We palpated a mass in the left temporomandibular joint of elastic hardness with the head of the little finger. Computed tomography (CT) examination revealed a mass on the outside of the left temporomandibular joint. In the ultrasonic examination, a circular image with a relatively clear boundary was observed on the outer side of the left temporomandibular joint. In the magnetic resonance imaging (MRI) examination, there were anterior disc displacements and joint effusion on both sides. A circular cyst was found on the outside of the mandibular head using the head of the little finger. A puncture for definitive diagnosis was not performed because the patient did not consent, but from these test results, the mass was diagnosed as a ganglion cyst.

We prescribed lifestyle changes such as the prohibition of daytime teeth grinding, chewing hard food, and yawning. The maximum mouth opening length increased to 40 mm, 9 days after the first visit, and the pain almost disappeared. Ultrasound examination was performed again after 6 weeks, and the cyst had shrunk remarkably. The ultrasound examination after 10 months showed no change in size.

Key words : suspected ganglion cyst, temporomandibular joint, case report, literature review

¹⁾ 朝日大学

²⁾ 朝日大学歯学部口腔病態医療学講座歯科放射線学分野

³⁾ 朝日大学歯学部口腔機能修復学講座歯科補綴学分野

〒 501-0296 瑞穂市穂積 1851

¹⁾ Asahi University

²⁾ Department of Oral Radiology, Division of Oral Pathogenesis and

Disease Control

³⁾ Department of Prosthodontics, Division of Oral Functional Sciences and Rehabilitation, Asahi University School of Dentistry
1851 Hozumi, Mizuho-shi, Gifu 501-0296, Japan

(平成 31 年 4 月 13 日受理)

目 的

ガングリオンは関節近傍、特に手関節背側部に弾性のある丸い腫瘤として発生するとされ、発生機序は不明だが、その本態は結合組織の粘液変性を伴った退行性変性とされている¹⁻³⁾。一方、顎関節部に発生するガングリオンはHeydtら⁴⁾によって報告されて以来、最も新しい報告であるSegamiら⁵⁾によれば2018年までに37論文で39例の報告がなされているものの、比較的稀であるとされている。今回われわれは、顎関節症の症状を主訴に来院し、検査の結果、顎関節部のガングリオンを疑う症例を経験したので、文献的考察を含めて報告する。

患者の概要

患者は39歳の女性で、左側顎関節部の疼痛および上顎左側臼歯部の自発痛を訴えて本学付属病院に来院した。咀嚼時痛、自発痛を訴え、最大開口距離は18mmであった。歯の欠損はないものの、切端咬合を呈していた(図1)。触診により、左側顎関節部に小指頭大の弾性硬の腫瘤を触知した。患者は4年前に顎関節症の診断のもとにバイトプレートによる治療を受けるも、改善せず放置した既往がある。



図1. 咬合時の口腔内写真

パノラマX線写真および側斜位経頭蓋撮影法写真では、特に異常を認めなかった(図2, 3)。そこでCT検査を行ったところ、CT値が咬筋より小さく、耳下腺より大きく、左側顎関節部外側に腫瘤が観察され、近傍にはリンパ節が観察された(図4)。さらに、超音波検査を施行したところ、比較的境界明瞭な円形の像が認められた。ドップラー法では、内部に液体貯留を思わせる像が観察された(図5)。MRI検査では、両側の非復位性関節円板前方転位と診断された。また、両側に joint effusion を認め、顎関節部に小指頭大の、T1でlow, T2でhighな信号を呈する円形の腫瘤を下顎頭外側に認めた(図6)。

確定診断のための穿刺は、患者の同意が得られず実施しなかったが、これらの検査結果からこの時点ではガングリオンと診断した。

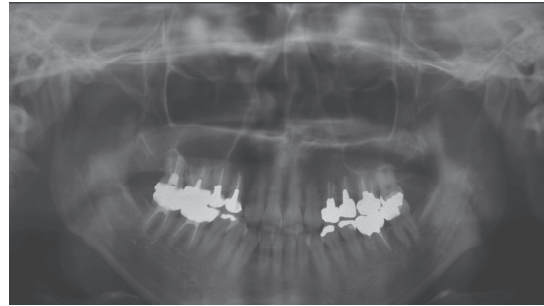


図2. 初診時のパノラマX線写真

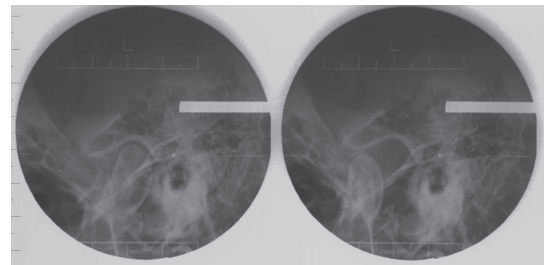
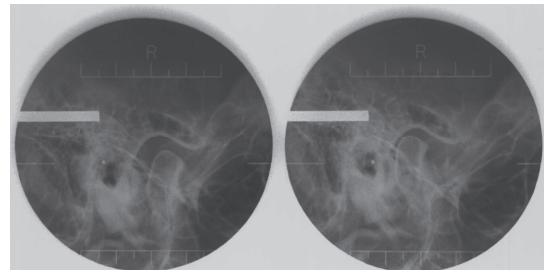


図3. 初診時の側斜位経頭蓋撮影法写真

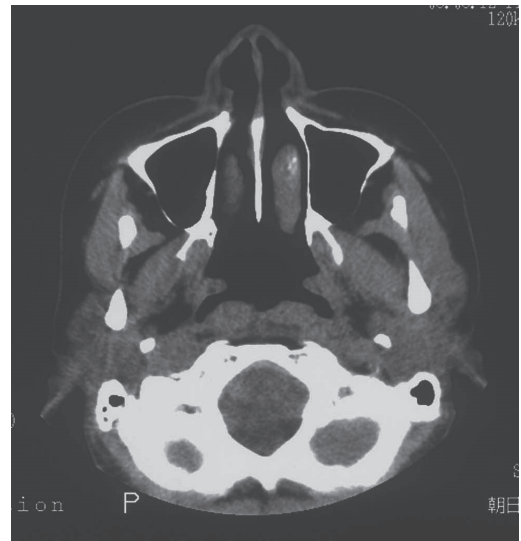


図4. 初診時のCT像

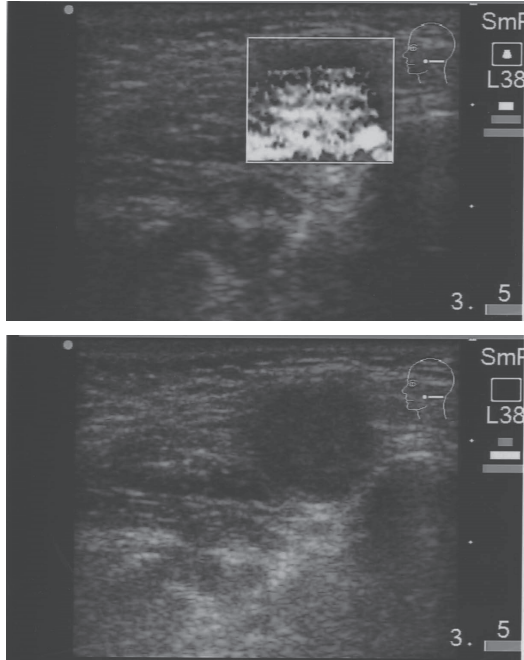
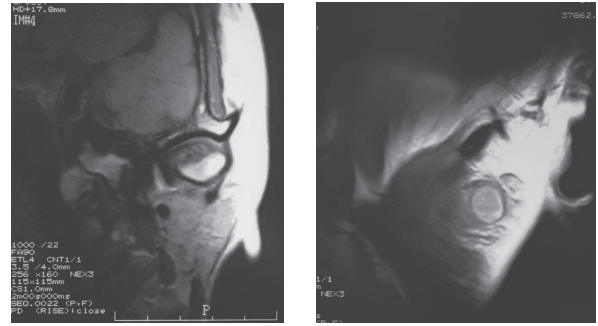


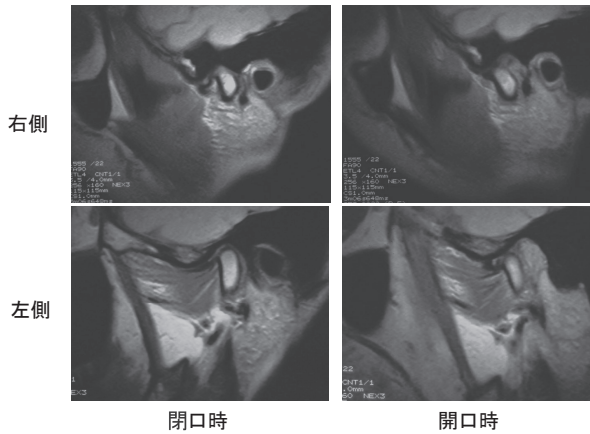
図5. 初診時の超音波検査, およびドップラー像



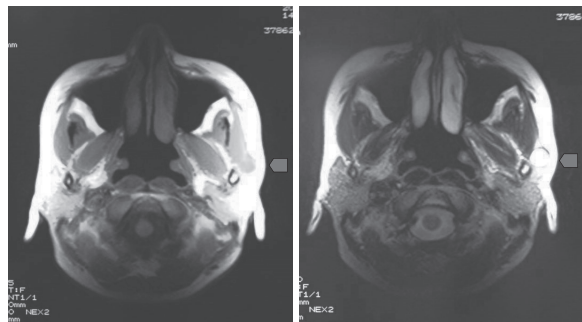
冠状断 矢状断
図6. 初診時のMRI像(腫瘍部)

経過

患者は、バイトプレートを持っていたが、不適合のため装着できないとのことであり、日中噛みしめの禁止、硬固物咀嚼の禁止、欠伸の禁止、などのわれわれが行っている生活指導⁶⁾のみ行った。検査期間中に腫瘍は触診にて縮小傾向を示し、初診から9日後のMRI検査時において開口距離は40mmに増加し、疼痛もほぼ消失していた。6週間後に再度超音波検査を施行したところ、腫瘍は著明に縮小しており、症状もなかったことから経過を観察することとした(図7)。10カ月後に再び超音波検査を施行したところ、大きさに変化は認められなかった(図8)。MRI検査でも腫瘍はほぼ消失していた(図9)。開口距離も正常で顎関節部の疼痛もなかった(図10)。



閉口時 開口時
図6. 初診時のMRI像(矢状断)



T1強調画像 T2強調画像
図6. 初診時のMRI像(冠状断)

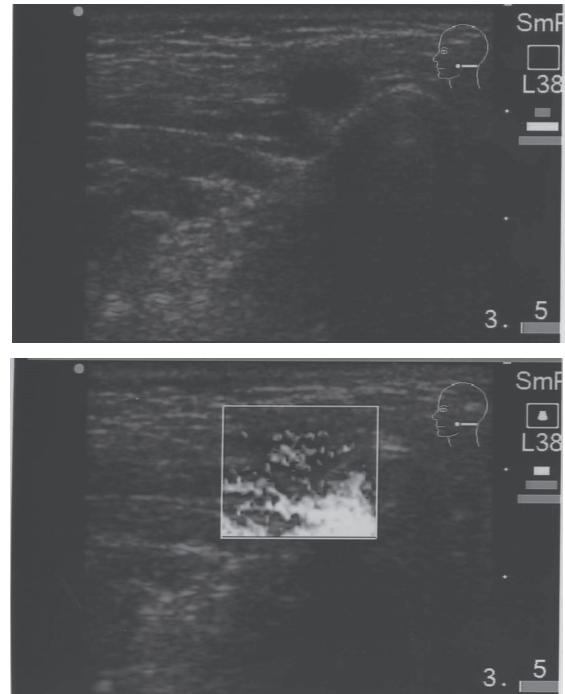


図7. 2週間経過後の超音波検査

考 察

ガングリオンに関する報告を2000年代に限って医学中央雑誌WEB版およびMedlineにて、顎関節(temporomandibular joint)、ガングリオン(ganglion)をキーワードとして英語、日本語の論文を検索し、得られた論文でハンドサーチも行ったところ、英文24編、和文5編の合計29論文^{5,7-34)}が検索された(表1)。Segamiら⁵⁾の報告では、英文、和文で合計37論文が検索されているが2000年代だけでみると25論文であり、今回の検索結果は十分に妥当性があると思われる。ただし、他の文献レビュー⁸⁾に含まれている症例の記載のない論文は含めていない。

性別では圧倒的に女性が多く、女性23例、男性10例であった。Albrightら³⁴⁾は、ガングリオンの発生は女性では男性の3倍であると報告しており、最近の報告でも類似していることが分かった。Albrightら³⁴⁾は症例の70%は20歳代～40歳代で発生すると報告している。また、整形外科学分野での報告では、20～40歳代の女性の手関節背側に好発するといわれている²⁾。しかし今回の検索結果では、平均年齢は女性44.3±15.9歳、男性66±16.3歳であり、顎関節部ガングリオンは比較的高齢で観察されている。顎関節部ガングリオンでは、一般的に耳介前方部の腫脹、疼痛、開口障害を示すことが多く本症例のように顎関節症の症状を示す症例は少ない。まれに頭痛や眩暈を訴えることもある⁷⁾。本症例でも初診時、開口制限や顎関節部の疼痛の顎関節症の症状を示しており、パノラマX線写真や顎関節側斜位方向撮影法X線写真では診断に繋がらず^{16, 25, 27, 32)}、CTや超音波検査によりガングリオンと診断された。発生部位に関しては下顎頭内の症例は少なく²⁹⁾、本症例のように顎関節近傍に発生することが多い。また、耳下腺内にあっても顎関節部ガングリオンとして取り扱っている報告もある^{21, 33)}。

ガングリオンの検査法としては、治療を兼ねて穿刺によるゼリー状の粘液確認が一般的であり、超音波診断も有効とされている¹⁻³⁾。一方、顎関節部ガングリオンでは穿刺による診断も行われている^{17, 22, 27)}がかなり大きくないと効果的ではないようで、CT、MRIが一般的であり、確定診断には摘出後の病理組織診が有効である。しかし、整形外科領域で診断に有効とされる超音波検査は少ない^{12, 13, 16, 21, 32, 33)}。本患者では患者の同意が得られず病理組織診は行えなかったが、CT、MRIに加えて超音波検査を施行し、本症例でも従来の報告と類似した検査結果を得た。一方、ガングリオンとの鑑別すべき疾患として、まずは滑膜嚢胞がある³⁵⁾が、そのほか、耳下腺嚢胞、耳下腺腫瘍、顎関節の嚢胞性

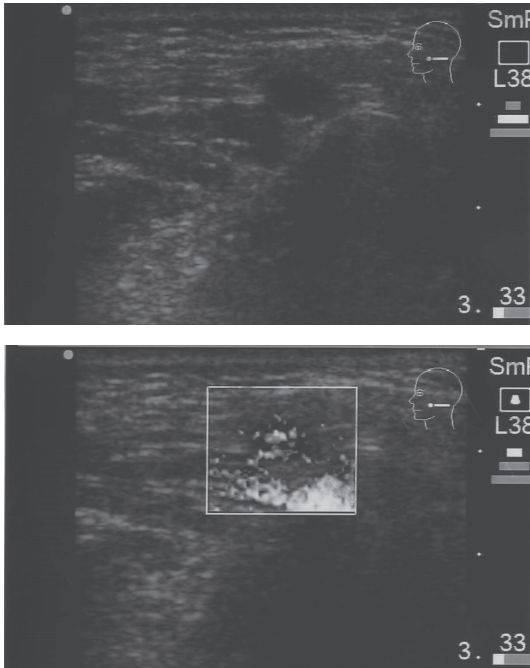


図8. 10カ月後の超音波検査

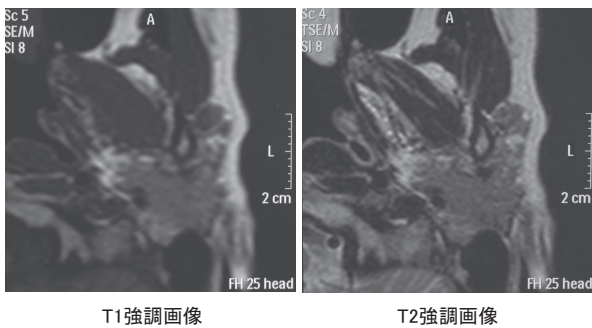


図9. 経過観察時のMRI像



図10. 経過観察時の開口状態および患部の状態

表 1 顎関節部に発生したガングリオンの報告例

I#	著者	発表年	性別	年齢	症状	画像検査			検査所見・部位など
						MRI	CT	US	
1#	自験例	2019	女性	39	左側顎関節の疼痛、開口障害	*	*	*	下顎頭外側 両側非復位性顎関節甲板前方転位
2	Sogami N	2018	男性	55	左側耳介前腫脹	*			左側下顎頭外側
3	Aguillo-Seara G	2018	男性	52	頭痛、眩暈	*	*		左側顎関節近傍、左側下顎頭のerosionとremodeling
4	Otake H	2018	女性	64	右側の腫脹	*			左側下顎頭前方、右側；脂肪腫
5	大和谷 崇	2017	男性	66	右耳からの出血	*			側頭骨下顎窩の骨欠損内、3個のガングリオン
6#	Levarak RE	2016	女性	88	左側耳介前腫脹、クレビタス	*	*		両側下顎頭の変性 右側下顎頭の周囲
7#	Zheng ZW	2015	男性	24	左側耳介前部疼痛、開口障害、両側レンジンブプロカルクリック	*			右側下顎頭後方 両側非復位性顎関節甲板前方転位
8	Abdulrah A	2015	女性	41	左側耳介前部腫脹	*		*	左側顎関節側面
9	Steen MW,	2015	女性	48	右側耳介前部の中等度の疼痛、腫脹	*		*	記載なし
10	Gong Z	2014	女性	40	左側耳介前部の腫脹	*	*		左側関節突起外側
11	Lee YT	2013	男性	48	目眩	*			左側下顎頭側面
12	Savolainen JJ	2013	女性	56	右側耳介前部の隆起	*	*	*	右側顎関節側面
13#	Suhr MA	2013	男性	30	左側耳介前の腫脹と疼痛、開咬	*			左側顎関節近傍、穿刺吸引で黄色の粘液
14	神谷結季	2012	男性	80	右側耳介部の腫脹	*	*		右側下顎頭外側、穿刺
15	Mumert ML	2012	女性	63		*	*		中顎蓋窩、左側顎頭のerosion
16#	Okochi K	2012	男性2名 女性2名	40, 59 26, 59	クリック、開口障害、顎関節痛、筋疼痛	*			下顎頭前方3例、側方1例
17	Yang XJ Jr	2011	女性	58	右側耳介前部の腫脹と疼痛	*	*	*	耳下腺内
18	Wu CI	2011	女性	59	右側耳介前部の無痛性腫脹	*	*		右側下顎頭に近接、穿刺
19	Deng R	2010	女性	45	左側耳介前部の無痛性腫脹	*	*		左側下顎頭側面
20	Lima SM Jr	2009	女性	12	右側顔面非対称、開口障害、咀嚼困難	*	*		右側顎関節に近接、シンチグラム
21	Sugiura J	2006	男性	66	左側顔面の無痛性腫脹	*	*		左側顎関節に近接
22	Ali ZA	2006	女性	28	右側顎関節痛、クリック	*			右側下顎頭後方
23	Silva EC	2005	女性	51	左側耳介前部の腫脹と疼痛	*	*		左側顎関節外側、穿刺でゲル状物、左側下顎頭側面のerosion
24	神部芳則	2004	女性	50	右側耳介前部の腫瘍	*	*		右側下顎頭外側、右側下顎頭の骨変形
25	Kim SG	2003	女性	37	左側顎頭部の腫脹	*			左側下顎頭に近接
26#	嵐山貴徳	2002	女性	23	右側顎関節自発痛、開口障害	*	*		右側下顎頭骨内
27#	Takaku S	2001	女性	50	右側耳介前部の腫脹、右側クリック	*			右側顎関節側面
28	Nahlieli O	2000	女性	57	左側耳介前部の腫脹	*			左側下顎頭外側
29	磯野伸雄	2000	女性	52	右側耳介前部の無痛性腫瘍	*	*		耳下腺内
30	Albright JT	2000	女性	51	右側耳閉塞感、耳漏	*	*		右側顎関節に二重塊、穿刺

MRI: magnetic resonance imaging CT: computer tomography US: ultra sound

*: 検査実施 #: 顎関節症の症状や咬合異常を示した症例

疾患、粘液貯留嚢胞、アテローム、良性リンパ上皮性嚢胞、血管腫、神経腫などが挙げられている¹⁸⁾が、これらの検査結果からは、上記の疾患は除外された。特に、滑膜嚢胞は画像診断の特徴が類似しており、鑑別診断が重要となってくる³⁵⁾。しかし、ガングリオンの確定診断とされる病理組織診は行えず確定診断はできなかったが、これまでの報告の画像診断からするとガングリオンと診断しても構わないと考えられる。

ガングリオンの発生には種々の説がある¹⁸⁾ものの、関節部への負担過重が指摘されている²⁹⁾。本患者でも切端咬合を示し、顎関節部の負担過重が疑えた。また、生活指導などにより顎関節部への荷重をある程度制限したことによりガングリオンが縮小したことからも、負担荷重が考えられた。

ガングリオンの治療に関しては穿刺あるいは穿刺後に副腎皮質ステロイドの注入が行われ、再発する場合に摘出術が行われる²⁾ようである。まれに漢方薬による治療も行われている³⁶⁾。一方、顎関節ガングリオンでは穿刺のみ行うのが難しいこともあるのか摘出が最も多く、経過観察はほとんどない³⁷⁾。しかし、本症例では患者の同意を得られず、また経過観察によりガングリオンは縮小傾向を示したこと、主訴であった顎関節症状は消失したこと、経過観察を選択した。

今後も継続して超音波検査により腫瘤の状態を観察し、症状の再発、腫瘤の増大が認められれば、摘出すべきと考える。

結 論

顎関節症の症状を示す顎関節部のガングリオンが疑われた症例に対して保存的治療を行い症状が消失した一例を経験したので報告した。

本論文において、開示すべき利益相反状態はない。

文 献

- 1) 国分正一：鳥巢岳彦監修。標準整形外科学。第10版。東京。医学書院；2008：344。
- 2) 高橋正明監修。整形外科。第4版。東京。海馬書房；2013：192。
- 3) 落合慈之監修。整形外科疾患ビジュアルブック。初版。東京学研メディカル秀潤社；2013：206。
- 4) Heydt S. A ganglion associated with the temporomandibular joint, J Oral Surg. 1977; 35: 400-401.
- 5) Segami N, Nojima T. Ganglion cyst in the temporomandibular joint: A case report and discussion of surgical approaches, Cranio. 2018; 23:

1-5. doi: 10.1080/08869634.2018.1465512. [Epub ahead of print]

- 6) 横田裕俊, 北条正秋, 笠村健一朗, 岡田光明, 山内六男. 顎関節症に対する家庭療法の短期的効果, 日本顎頭蓋機能学会誌. 2007; 20: 46-52.
- 7) Aguilo-Seara G, Runyan CM. Ganglion cyst of the temporomandibular joint mimicking auriculotemporal neuralgia, J Craniofac Surg. 2018; 29: e680-e682. doi: 10.1097/SCS.0000000000004864.
- 8) Otawara H, Jinbu Y, Shinozaki Y, Ito H, Noguchi T, Segami N, Kobayashi K, Matsumoto N, Mori Y. Ganglion cyst occurring in the temporomandibular joint: A case report, J Oral Maxillofac Surg Med Pathol. 2018; 30: 39-43.
- 9) 大和谷崇, 中西 啓, 遠藤志織, 小黒美樹, 三澤 清, 峯田周幸. 外耳道腫瘤として認められた多房性顎関節ガングリオン例, 耳鼻咽喉科臨床. 2017; 110: 525-529.
- 10) Levarrek RE, Nolan PJ. Temporomandibular joint ganglion cyst: A unique case of complete resolution following subtotal excision, J Oral Maxillofac Surg. 2016; 74: 1783-1791. doi: 10.1016/j.joms.2016.02.022. Epub 2016 Mar 3.
- 11) Zheng ZW, Shao X, Yang C, Fang YM. Surgical treatment of temporomandibular disorder in a 24-year-old male patient with ganglion cyst, J Craniofac Surg. 2015;26:560-562. doi: 10.1097/SCS.0000000000001231.
- 12) Abdullah A, Jeet P, Ahmed S, Colin H. A rare case of a ganglionic cyst of the TMJ: Case report and review of the literature, J Oral Maxillofac Surg Med Pathol. 2015; 27: 385-389.
- 13) Steen MW, Hofstede DJ. Ganglion and synovial cyst of the temporomandibular joint: A case report and literature review, Plast Reconstr Surg Glob Open. 2015; 23: 3: e524. doi: 10.1097/GOX.0000000000000494. eCollection 2015 Sep.
- 14) Gong Z, Keremu A, Ling B, Liu H, Hu M, Yin X, Hu L, Lin Z, Wen H. Ganglion cyst of temporomandibular joint: A case report and literature review, J Oral Maxillofac Surg Med Pathol. 2014; 26:531-534.
- 15) Lee YT, Kwon SB, Cho SH, Eo S, Rhee SC. A ganglion cyst of the temporomandibular joint, Arch Plast Surg. 2014; 41: 777-780. doi: 10.5999/aps.2014.41.6.777. Epub 2014 Nov 3.
- 16) Savolainen JJ, Kellokoski JK. Ganglion cyst of the temporomandibular joint, Int J Oral Maxillofac Surg. 2013; 42: 776-779. doi: 10.1016/j.ijom.2012.10.028. Epub 2012 Nov 21.
- 17) Suhr MA, Mager A. Unilateral non-occlusion secondary to a ganglionic cyst of the temporomandibular joint (TMJ), J Craniomaxillofac

- Surg. 2013; 41: e5-e7. doi: 10.1016/j.jcms.2012.03.017. Epub 2012 May 9.
- 18) 神谷結季, 上嶋伸知, 藤井裕美, 横小路桃子, 藤本雄大, 上田 実. 顎関節部に生じたガングリオンの1例, 日本口腔外科学会雑誌. 2012; 58: 87-91.
 - 19) Mumert ML, Altay T, Shelton C, Harnsberger HR, Couldwell WT. Ganglion cyst of the temporomandibular joint with intracranial extension in a patient presenting with seventh cranial nerve palsy, J Neurosurg. 2012; 116: 310-312. doi: 10.3171/2011.10.JNS111247. Epub 2011 Nov 25.
 - 20) Okochi K, Nakamura S, Tetsumura A, Honda E, Kurabayashi T. Magnetic resonance imaging of temporomandibular joint cyst, Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol. 2012; 113: 827-831. doi: 10.1016/j.oooo.2011.11.013. Epub 2012 Feb 18.
 - 21) Yang XJ Jr, Yang C, Chen MJ, Zhang XH, Qiu YT, He DM, Wang LZ. Preauricular transcondylar approach for basal cell adenoma of parotid coexist with ganglion cyst of the ipsilateral temporomandibular joint, J Craniofac Surg. 2011; 22: e23-26. doi: 10.1097/SCS.0b013e31822ec903.
 - 22) Wu CI, Liu KW, Hsu YC, Chiang IP, Chang SC. Treatment of temporomandibular joint ganglion cyst, J Craniofac Surg. 2011; 22: 1935-1937. doi: 10.1097/SCS.0b013e318211516d.
 - 23) Deng R, Yang X, Tang E. Ganglion cyst of the temporomandibular joint, Br J Oral Maxillofac Surg. 2010; 48: 224-225. doi: 10.1016/j.bjoms.2009.08.013. Epub 2009 Sep 12.
 - 24) Lima SM Jr, de Souza Maliska MC, Dimitroulis G, Modolo F, Nazareno Gil J. Painful deviation of the mandible, Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod. 2009; 107: 7497-53. doi: 10.1016/j.tripleo.2009.01.002. Epub 2009 Feb 20.
 - 25) Sugiura J, Ito H, Yamasaki A, Koitabashi T. Ganglion of the temporomandibular joint: A case report and review of the literature, Oral Medicine & Pathology, 2006; 11: 55-58.
 - 26) Ali ZA, Busaidy KF, Wilson J. Unusual presentation of a ganglion cyst of the temporomandibular joint: case report and distinction from synovial cyst, J Oral Maxillofac Surg. 2006; 64: 1300-1302.
 - 27) Silva EC, Guimarães AL, Gomes CC, Gomez RS. Ganglion cyst of the temporomandibular joint, Br J Oral Maxillofac Surg. 2005; 43: 77-80.
 - 28) 神部芳則, 大多和薫, 三田村治郎, 草間幹夫, 小林 馨. 顎関節部に生じたガングリオンの1例, 歯科放射線. 2004; 44: 238-239.
 - 29) 嵐山貴徳, 高木律男, 小林龍彰, 福田純一, 長島克弘, 鈴木 誠. 下顎頭の骨内に発生したガングリオンの1例, 日本口腔外科学会雑誌. 2002; 48: 584-587.
 - 30) Kim SG, Cho BO, Lee YC, Hong SP, Chae CH. Ganglion cyst of the temporomandibular joint, J Oral Pathol Med. 2003; 32: 310-313.
 - 31) Takaku S, Sano T, Komine Y, Fukazawa N. Ganglion of the temporomandibular joint: case report, J Oral Maxillofac Surg. 2001; 59: 224-228.
 - 32) Nahlieli O, Lewkowicz A, Hasson O, Vered M. Ganglion cyst of the temporomandibular joint: report of case and review of literature, J Oral Maxillofac Surg. 2000; 58: 216-219.
 - 33) 磯野伸雄, 佐々木健司, 野崎幹弘, 寺田伸一, 岩坂 督, 西蔭美和. 極めてまれな顎関節部ガングリオンの1例, 形成外科. 2000; 43: 813-817.
 - 34) Albright JT, Diecidue RJ, Johar A, Keane WM. Intraosseous ganglion of the temporomandibular joint presenting with otorrhea, Arch Otolaryngol Head Neck Surg. 2000; 126: 665-668.
 - 35) Partridge JC, Cipriani N, Faquin WC, Chuang SK, Keith DA, Lahey ET. Periarticular cysts of the temporomandibular joint are more frequently synovial than ganglion, J Oral Maxillofac Surg. 2016; 74: 1396-1402. doi: 10.1016/j.joms.2016.01.036. Epub 2016 Jan 28.
 - 36) 高橋也尚. 牛車腎気丸で下焦機能改善とともにガングリオンが消失した1例, 日東医誌. 2016; 67: 371-375.
 - 37) Hopper C, Banks P. A ganglion of the temporomandibular joint: A case report, J Oral Maxillofac Surg. 1991; 49: 878-880.

