著明な石灰化を伴った舌甲状腺例

児玉 章・内田 郁
小澤 博史・片岡 健一*

Lingual Thyroid with Marked Calcification ; A Case Report

Akira Kodama, Kaoru Uchida and Hiroshi Ozawa
(Shiga University of Medical Science)

Ken-ichi Kataoka
(Maizuru City Hospital)

A 47-year-old female was admitted to our department because of a sensation of foreign body in the throat. After various medical examinations, partial resection of the lingual thyroid was initially planned. However, the tumor was extremely hard and impossible to resect, so total removal of the tumor was performed. The histological diagnosis was "thyroid tissue with hyalinized and calcified stroma without malignancy". Even an extensive search of the literature failed to uncover a case similar to ours.

Key words: lingual thyroid, hyalinization, calcification

はじめに

舌甲状腺症例は、現在までに国内外でそれぞれ150例余りの報告がある^{1)~7)}が、日常臨床では稀にしか遭遇しない疾患である。舌甲状腺は通常軟らかいことが多く⁸⁾、手術的治療法では、部分切除術⁹⁾、有茎移植術¹⁰⁾¹¹⁾が行われることが多い。今回我々は、著明な石灰化を伴う非常に硬い舌甲状腺で、悪性の可能性も否定できないために、全摘出術を施行した症例を経験したので、文献的考察を加え報告する。

症 例

患者：47歳，女性。

主訴：咽頭異物感。

現病歴：約5年前頃より、咽頭部の圧迫感を

時々自覚していた。平成2年秋頃より咽頭異物感が増強するも放置。平成3年3月、感冒のため近医耳鼻咽喉科を受診した際に舌根部の腫瘍を指摘された。平成3年11月、精査加療の目的で当科に紹介受診となった。

既往歴：前頸部腫瘍の摘出術(7歳時)，気管支喘息(42歳時)。

家族歴：特記することなし。

初診時所見：舌圧子で舌根部を圧迫すると、直径約2.5 cm、表面はほぼ平滑でやや暗赤色、弾性硬の腫瘍が、半球状に突出して認められた。腫瘍の表面には、数本の細い血管を認めた(図1)。身長150 cm、体重46 kgで、精神発達遅滞などはない。また舌骨上の前頸部正中に約

滋賀医科大学耳鼻咽喉科学教室(主任：北原正章教授)

* 市立舞鶴市民病院耳鼻咽喉科

4 cm の手術瘢痕を認めた。

血液検査では, TSH とサイログロブリンの高値, T_4 , 遊離 T_3 , 遊離 T_4 の軽度低値を示した。サイロイドテスト, マイクロゾームテストは陰性, 炎症反応は認められなかった(表 1)。

咽頭側面 X 線では, 舌根部の腫瘍に一致して,

粗大および微小な石灰化像を認めた(図 2)。

図 3 に造影 CT を示す。舌根部に石灰化を伴い, 周囲組織との境界は明瞭で咽頭に突出する, 直径 2.5 cm の円形の腫瘍を認めた。

MRI では腫瘍は, T1 強調像では筋肉と等信号で内部に一部高信号域を, T2 強調像では低

図 1 局所所見

舌根部に直径 2.5 cm, 半球状の腫瘍を認める。

図 2 咽頭側面 X 線

舌根部の腫瘍に石灰化像を認める。

表 1 検査成績

血液一般		生化学検査	
HT	37.4%	TP	6.0 g/dl
HB	12.7 g/dl	A/G	2.75
RBC	397万	CHO	188 mg/dl
WBC	7,500	GOT	14 IU/l
PLTS	157,000	GPT	14 IU/l
血液像	正常	LDH	312 IU/l
		Ca	8.3 mg/dl
		P	3.8 mg/dl
		CRP	0.0 mg/dl
血清			
サイロイドテスト	陰性		
マイクロゾームテスト	陰性		
甲状腺機能検査		(正常値)	
TSH	79.40 μ IU/ml		(0.1~4.0)
T_4	4.1 μ g/dl		(4.7~11.8)
T_3	0.87 ng/ml		(0.7~2.1)
F- T_4	0.6 ng/dl		(0.8~2.1)
F- T_3	1.8 pg/ml		(2.8~6.0)
TBG	19.1 μ g/ml		(12~30)
H-TG	320.0 ng/ml		(40以下)
TRAB	11.0%		(15以下)

図 3 造影 CT

周囲組織との境界は明瞭である。

信号で内部に一部高信号域を認め、甲状腺組織と一部の強い線維化が考えられた。

^{99m}Tc シンチグラムでは、舌根部の腫瘍と甲状腺左葉の一部に集積を認めたが、甲状腺右葉には集積を認めなかった(図4)。 ^{123}I シンチグラムでも同様の像で、舌根部に12.20%、頸部甲状腺左葉に2.17%の取り込みを認めた。超音波検査でも2×3 cmの甲状腺左葉が確認された。

以上の検査結果から、甲状腺左葉を有し、著明な石灰化を伴う舌甲状腺と診断し、平成3年12月2日手術を施行した。術式は、軽度の甲状腺機能低下状態にあったため、口腔内からの腫瘍部分切除術を予定した。しかし、腫瘍は術前の予想よりも硬く、メスやレーザーメスでの切

除、蒸散は困難であり、仮に腫瘍の部分切除を行ってもこの硬さでは主訴の咽頭異物感は軽快しないと予想され、また悪性の可能性も完全には否定できないこともあり、腫瘍の全摘出術とした。術中、一時動脈性の激しい出血をみたが、結紮ならびに電気凝固処置にて止血した。術中の出血量は630 mlであった。術後の舌根部腫脹の可能性を考慮し、気管切開を施行した。この際気管上には甲状腺組織は認めず、また甲状腺左葉はこの術野では確認できなかった。

図5に摘出標本の断面を示す。2.5×3 cmで、メスで辛うじて切開可能なほど非常に硬く、内部には一部灰白色の部分も認めた。

病理組織学的には、ヒアリン化を伴う増生した結合織の中に石灰化像を、また一部には大小様々の甲状腺濾胞を認め、ヒアリン化と石灰化を伴う甲状腺組織であったが、核の異型性は認められなかった(図6)。

気切口は、術後7日目に閉鎖し、咽頭異物感とは術後約3週目頃に消失した。また術後粘液水腫、テタニーなどの症状は出現せず、術後1カ月目の甲状腺機能検査はTSH 21.4 $\mu\text{IU}/\text{ml}$ 、 T_3 1.4 ng/ml、 T_4 4.5 $\mu\text{g}/\text{dl}$ であったが、術後3カ月目ではTSHの上昇傾向を認め、軽度の甲状腺機能低下状態となったため、現在チラーヂンS® 50 $\mu\text{g}/\text{日}$ の内服で、通院加療中である。

図4 ^{99m}Tc シンチグラム

舌根部と固有甲状腺の左葉の一部に集積を認める。

図5 摘出標本の断面

灰白色の部分の一部を認める。

図6 病理組織所見

ヒアリン化を伴う増生した結合織の中に石灰化像を認める。甲状腺濾胞も認める。

考 案

舌甲状腺は、甲状腺の発生過程での原基の下降不全や迷入により生じ、現在までに国内・国外でそれぞれ150例余りの報告がある^{1)~7)}。舌甲状腺の発生例数は、甲状腺疾患患者の3,000例に1例程度³⁾と報告されているが、甲状腺シンチグラムの普及により、発生頻度は増加する傾向にある¹⁾という。以下表2に、これまでの報告による舌甲状腺の特徴を要約して示す。今回の我々の症例は、47歳女性で、舌甲状腺と固有甲状腺の半葉を有する症例で、奥村ら⁸⁾の報告と類似の症例であった。しかも幼少時に摘出を受けた前頸部の腫瘍を本人は“ふくろ”と記憶しており、正中頸嚢腫を併発していた可能性もあり、臨床的には珍しい症例と考えられる。

従来の報告との相違点は、我々の症例の舌甲状腺の腫瘍は非常に硬く、組織学的にもヒアリン化、石灰化が著明であった点があげられる。これまでの舌甲状腺の報告では、腫瘍は弾性軟で軟らかいことが多い⁸⁾とされ、本症例のごとく舌甲状腺の石灰化の記載があったのは小森ら¹²⁾、八木ら¹³⁾の報告のみである。病理学的には、ヒアリン化は様々な型の甲状腺炎や腺腫様甲状腺腫の場合に、甲状腺間質結合組織にしば

しば認められ¹⁴⁾、また石灰化は変性壊死に陥った組織に好んで生じる¹⁵⁾といわれる。咀嚼・嚥下時の反復刺激による反応性炎症に起因する¹²⁾ことが考えられ、我々の症例の場合、これが長期間に及んだことが原因と考えられる。

臨床的にみると甲状腺組織の石灰化の有無により腫瘍の良性、悪性を判定することは困難であるが、石灰化そのものは良性腫瘍よりも悪性腫瘍に認められることが多い¹⁶⁾。舌甲状腺の悪性化は、通常の甲状腺に比べ特に多いものではない⁵⁾とされるが、Montgomery³⁾⁴⁾は144例中4例に、Fishら⁵⁾は、1910年から1958年までの間に21例に、Kamatら⁶⁾は12例中2例に、それぞれ舌甲状腺に悪性所見を認めたと報告している。また国内では八木ら¹³⁾が、石灰化を伴った舌甲状腺に濾胞癌が生じた症例を報告しており、本症例のように粗大および微小な石灰化像を認めれば、悪性の可能性も十分に考慮しておかねばならない。

治療は甲状腺剤の内服により縮小を計る保存的な方法もあるが、主訴である咽頭異物感や、出血を来す可能性を考慮すれば、レーザーによる蒸散や部分切除⁹⁾、有茎移植¹⁰⁾¹¹⁾などの手術的な方法がとられることが多い。しかし本症例のように石灰化が著明で腫瘍が非常に硬く、主訴の咽頭異物感などの臨床症状が部分切除では消失しない可能性が高く、また悪性の可能性も否定できない場合には、部分切除や有茎移植よりは全摘出術の適応と考える。手術法としては、口内法その他、咽頭側切開も考えられるが、腫瘍の大きさ、部位を考慮し、本症例では口内法による全摘出術とした。術中の出血はやや多くなったが、術後の呼吸困難や粘液水腫などの合併症もなく、術後7カ月経過した現在、強かった咽頭の異物感も完全に消失し、チラージンS[®] 50 μ g/日の内服で甲状腺機能もほぼ正常範囲内にコントロールされており、十分な手術治療の効果があったと考えている。

表2 舌甲状腺の特徴

1. 初診時年齢、性
思春期、青壮年期、妊娠中に多く、20歳までで約50%
男：女 = 1 : 5 ~ 7
2. 甲状腺との関係
固有の甲状腺が、ある：10%，ない：60 ~ 80%
3. 甲状腺機能
正常：33%，低下：25 ~ 40%
4. 症状
咽頭異物感、咽頭痛、嚥下困難、呼吸困難、大出血、精神発達遅滞、クレチニズム
5. 治療
保存的：甲状腺剤の投与
手術的：全摘出、部分切除、移植
(遊離または有茎)

ま と め

著明な石灰化を伴った舌甲状腺の症例を報告した。腫瘍は非常に硬く部分切除は不可能であり、咽頭異物感も強く、また悪性も否定できなかったため、全摘出術を行った。病理組織学的には、ヒアリン化と石灰化を伴う舌甲状腺であった。本症例のように、高度の石灰化を伴った非常に硬い舌甲状腺の報告はこれまでにはなく、ここに報告した。

本論文の一部は、第51回日本耳鼻咽喉科学会京都滋賀合同地方部会(平成4年4月、京都市)において口演した。

参考文献

- 1) 佐藤言葉, 田川俊郎, 中川英俊, 他: 舌甲状腺の1症例ならびにその文献的考察. 日口外誌 **31**: 62~67, 1985.
- 2) 伊藤恵子, 山下耕太郎, 古川 滋, 他: 舌甲状腺の1症例. 耳鼻 **35**: 21~36, 1989.
- 3) Montgomery ML: Lingual thyroid; a comprehensive review. West J Surg **43**: 661~669, 1935.
- 4) Montgomery ML: Lingual thyroid; a comprehensive review. West J Surg **44**: 54~62, 122~128, 189~195, 237~247, 303~309, 373~379, 442~446, 1936.
- 5) Fish J and Moore RM: Ectopic thyroid tissue and ectopic thyroid carcinoma; a review of the literature and report of a case. Ann Surg **157**: 212~222, 1963.
- 6) Kamat MR, Kulkarni JN, Desai PB, et al: Lingual thyroid; a review of 12 cases. Br J

Surg **66**: 537~539, 1979.

- 7) Weider DJ and Parker W: Lingual thyroid; review, case reports, and therapeutic guidelines. Ann Otol Rhinol Laryngol **86**: 841~848, 1977.
- 8) 奥村隆史, 大川内一郎, 松永 亨, 他: 甲状腺片葉欠損を伴った舌根部甲状腺腫. 耳喉 **57**: 197~200, 1985.
- 9) 松岡秀隆, 上村正行, 栗田茂二郎, 他: 舌根甲状腺の一症例. 耳鼻 **29**: 471~476, 1983.
- 10) 小宮山荘太郎, 原田好雄, 牧嶋和見: 舌根甲状腺移植術症例. 耳鼻 **18**: 46~49, 1972.
- 11) 小川 明, 山下公一, 宮崎 巨, 他: 舌根甲状腺の手術療法. 日耳鼻 **90**: 1359~1362, 1987.
- 12) 小森常喜, 石井保雄: 舌甲状腺の1症例. 日口外誌 **28**: 160~163, 1982.
- 13) 八木正人, 立本圭吾, 安田範夫, 他: 舌根甲状腺に発生した濾胞癌症例. 耳鼻臨床 **84**: 975~980, 1991.
- 14) 中川定明: 変性・壊死・萎縮. 現代病理学大系 17A(飯島宗一, 他編). 293~300頁, 中山書店, 東京, 1988.
- 15) 岩政輝男, 内野文彌, 土山秀夫: 退行変性. 病理学(遠城寺宗知編). 7~62頁, 医学書院, 東京, 1989.
- 16) 東 与光, 伊藤国彦, 西川義彦: 軟X線撮影による甲状腺腫の石灰化像. 臨放 **29**: 869~873, 1984.

(原稿受付: 平成4年9月3日
原稿採択: 平成4年10月19日
別刷請求先: 児玉 章
〒520-21 大津市瀬田月輪町
滋賀医科大学耳鼻咽喉科学教室)