頤下部と顎下部に同時に発生した皮様嚢胞例

森園 健介・西元 謙吾・牛飼 雅人・宮之原郁代
松崎 勉・松根 彰志・黒野 祐一

A Patient with Double Dermoid Cysts Occurring in Submental and Submandibular Spaces

Kensuke Morizono, Kengo Nishimoto, Masato Ushikai, Ikuyo Miyano-hara,
Tsutomu Matsuzaki, Shoji Matsune and Yuichi Kurono

(Kagoshima University)

A dermoid cyst is one of the most common head and neck cystic diseases and is usually found in the submandibular area. We report a rare case of double dermoid cysts that occurred in submental and submandibular spaces at the same time in a 53-year-old woman who visited our hospital with the chief complaint of cervical swelling. MRI and CT scans revealed two tumors in the submental and submandibular spaces. The submandibular tumor had a calcified lesion. The two tumors were removed under general anesthesia. The submental tumor strongly adhered to connective tissue such as muscles and the hyoid bone. No adhesion to the surrounding tissues was observed in the submandibular tumor. Both tumors had a white muddy substance in the inside and were diagnosed as epidermal type dermoid cysts histopathologically.

Key words : dermoid cyst, submentum, submandible, head and neck tumor

はじめに

頤下部および顎下部には種々の嚢胞性疾患が発生し、そのなかで鑑別する疾患の一つに皮様嚢胞 (dermoid cyst) がある。これは胎生期に迷入した外胚葉組織から発生するものであり、その多くは単発性に発生する。今回われわれは頤下部および顎下部に同時に認められたきわめてまれな多発性皮様嚢胞の1症例を経験したので、ここに若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

患者：53歳，女性。

主訴：左顎下部腫瘍。

既往歴：特記すべき事項なし。

家族歴：特記すべき事項なし。

現病歴：20歳頃より頤下部に腫瘍を認めていた。しか

し、疼痛などの自覚症状を認めなかったため放置していた。平成9年頃より腫瘍の増大傾向を認めたため、近医を受診した。頤下部に腫瘍が認められたため、精査目的に当科紹介受診となった。

初診時所見：頸部正中よりやや左側に直径40×30 mmの弾性軟な腫瘍を認めた。舌骨との癒着がやや認められたが、可動性は良好であった。また左顎下部に直径10 mmの弾性硬な腫瘍を認めた(図1)。

画像所見：超音波検査上、頤下部の腫瘍に一致して直径38×17 mmの低エコー領域を認めた。MRIでは頤下やや左側にT1で等信号、T2で高信号、造影効果を認めない腫瘍が認められた(図2a)。CTでは左舌下部、顎舌骨筋・頤舌骨筋下方の頤部に4 cm大の内部均一な嚢胞性の腫瘍を認めた(図3a)。そこで超音波下に頤下部の腫瘍を試験穿刺したところ、白色のアテローム様の

図1 顎下部所見
写真中の点線は腫瘍の外縁を示す。

物質を吸引した。

顎下部の腫瘍に対して牟田氏法によるX線検査を行ったところ左顎下部に石灰化像が認められた。超音波検査でも顎下腺に隣接する，周囲の石灰化を伴う腫瘍を認め

た。MRI 上左顎下部には T1 等信号，T2 高信号，造影効果を認めない腫瘍が認められた(図 2 b)。CT では左顎下腺内にも 1 cm 大の嚢胞性の腫瘍を認めた(図 3 b)。

以上の所見より，顎下部の腫瘍は皮様嚢胞，左顎下部の腫瘍は反応性のリンパ節腫大と考え，平成10年5月11日，全身麻酔下にそれぞれの腫瘍摘出術を行った。

手術所見：顎下部に約 4 cm の水平な切開を加え，顎下部の腫瘍を周囲の筋・結合組織から剥離した。腫瘍は周囲の筋・結合組織と強く癒着しており，さらに舌骨との癒着も認められた。そこで舌骨の一部を切離した上で，腫瘍を周囲の筋・舌骨の一部とともに一塊として摘出した。

次に左顎下腺内方を触診すると，直径 1 cm 大のやや固い薄い被殻を持つ腫瘍が認められた。視野を確保するため皮切を外方へ 1 cm 程度延長し，左顎下腺の内方にある腫瘍を摘出した。周囲組織との癒着は認められず腫瘍の摘出は容易であった。創部の止血操作を行い，皮膚を縫合して手術を終了した。

摘出した 2 つの腫瘍はそれぞれ 56×30×14 mm，19×14×10 mm 大であり，これに割を入れると，両方と

a

b

図2 MRI (T2 強調水平断像) 所見
a. 顎下部の腫瘍を示す。
b. 左顎下部の腫瘍を示す。

図3 CT 所見

- a. 頤下部の腫瘍，石灰化は認められない。
b. 左顎下部の腫瘍，腫瘍周囲に石灰化を認める。

も白色泥状の内容物を認めた(図4)。

病理所見：頤下部の腫瘍は扁平上皮で裏打ちされた嚢胞状であり，内部は horney lamellar material で満たされていた。慢性炎症性細胞や多核巨細胞が切開部周囲に浸潤していたが，明らかな皮膚付属器官の存在は認められなかった(図5a)。病理組織学的には類表皮型の皮様嚢胞と診断された。

左顎下部の腫瘍は骨様の石灰化を伴うヒアリン結晶の

組織が認められ(図5b)，これも同じく病理組織学的に石灰化を伴った類表皮型の皮様嚢胞と診断された。

考 察

皮様嚢胞の発生部位としては，New ら¹⁾の報告によると全身的に発生を認めるが，特に肛門を含む直腸部分や卵巣に多く認められ，この両者だけで全体の85%以上を占める。頭頸部での発生はそれ以外の部位としては最も多く認められるが，それでも6.9%にすぎない。口腔領域のなかでは口腔底部に発生するものが多い。口腔底部に発生したものに対して，Bergmann²⁾は①顎舌骨筋の上方に存在する舌下型，②顎舌骨筋の下方に存在する頤型を提唱し，萩崎³⁾は③顎舌骨筋の上下に存在する舌下頤型を追加して3型に分類している。また萩崎³⁾は口腔底の正中線上にあるものを正中線型，左右に偏位するものを側方型とする分類も示している。今回の症例は顎舌骨筋よりも下方に嚢胞が認められたため頤型に当たり，それぞれ正中線型および側方型であったと思われる。

口腔底に発生する皮様嚢胞 (dermoid cyst) は Meyer⁴⁾によって病理組織学的な特徴から3型に分類されている。

図4 摘出標本

いずれの腫瘍も割に入ると内部に白色泥状の物質を認めた。

図 5 病理所見(HE 染色, 800倍)

- a. 頤下部の腫瘍：嚢胞内腔を裏打ちする扁平上皮と horney lamellar material の存在を認める。
 b. 左顎下部の腫瘍：骨様の石灰化を伴うヒyalin結晶が認められる。

I型は類表皮嚢胞(epidermoid type)と呼ばれ、嚢胞壁は重層扁平上皮の皮様構造を示し、その内容物は表皮剥離屑やコレステリンなどを含む灰白色の泥状物質などであり、皮膚付属器官は認められない。II型はいわゆる類皮嚢胞(dermoid type)と呼ばれるもので、嚢胞壁は類表皮嚢胞と同様に重層扁平上皮の皮様構造を示し、内容物としては皮脂腺、汗腺、毛嚢などの皮膚付属器官を有するものである。III型は奇形腫型(teratoid type)と呼ばれ、皮膚付属器以外に中胚葉、下胚葉成分が含まれる奇形腫様のものである。ただし、奇形腫型に関してはその報告は少なく、その存在が疑問視されている。萩場ら⁵⁾は上記のIII型のような病変は胚細胞由来の成熟型奇形腫とみなし、その発生に上皮成分の迷入が考えられている。I型、II型とは分けて考えるべきと指摘している。今回の症例では病理学的には嚢胞壁が扁平上皮で裏打ちされており、皮膚付属器官等の存在は認められなかったことから類表皮嚢胞に当たると思われる。

皮様嚢胞の発生機序としてNewら¹⁾は①congenital dermoid cysts of teratoma type, ②acquired implantation dermoid cysts, ③congenital inclusion dermoid cystsという3型に分類している。このうち頤部でよく認められるものとしてはcongenital inclusion dermoid cystsが考えられている。その発生機序に関してBergmann²⁾は胎生期の鰓弓癒合部へ外胚葉が迷入することで説明している。したがって今回の症例で頤下部に発生したものに関しては第1鰓弓・第2鰓弓の正中癒合線での上皮の

迷入が考えられる。左顎下部に発生したものに関しては鰓裂溝の癒合の際に上皮が迷入したものと考えられる。

多発性皮様嚢胞についてわれわれが渉猟し得た限りでは比較的まれであり、岩田ら⁶⁾の13例、有村ら⁷⁾の3例の報告を認める限りである。こうした同時多発症例に対し、覚道ら⁸⁾は複数の上皮塊が偶然同時に迷入するか、もしくは迷入した単発の上皮塊がいくつかに分かれて発育した可能性を示唆している。自験例では、それぞれの嚢胞がまったく異なった位置に独立して存在しており連絡性も認められなかったことから、前述したごとく複数の上皮塊が迷入した可能性が高いと思われた。

今回、われわれは診療の過程でさまざまな画像を撮影したが、病変部の描出という点においては、MRIがもっとも優れていた。これはMRIではCTと比べて歯牙の充填物や骨・空気などによるアーチファクトが少ないことや、軟部組織間のコントラストが強くつくことによるとされている⁹⁾。ただ今回の症例では触診上で腫瘍の硬度に違いがあり、それぞれの腫瘍が異なる病変と考えられ、その診断は必ずしも容易ではなかった。

皮様嚢胞に対しては一般的に嚢胞の全摘が行われる。もし残存した場合再発は必発であるとされている¹⁰⁾。一般的に予後は良好で悪性化はまれであるといわれている。今回の症例では現在のところ嚢胞の再発は認めていないが、多発性に生じる場合は潜在する腫瘍を取り残す可能性もあり注意が必要と思われる。

ま と め

頤下部および顎下部に同時に多発した皮様嚢胞の1例を報告した。皮様嚢胞は比較的好くみられる症例であるが、本症例のごとくまれに多発することを考慮し、診断ならびに治療を行うことが必要と考えられた。

参考文献

- 1) New GB and Erich JB : Dermoid cysts of the head and neck. Surg Gynec Obstet 65 : 48~55, 1937.
- 2) Bergmann E : Handbuch der Practische Chirurgie. 4 umgearb Aufl (ed by von Bruns). pp 976~979, Enke, Stuttgart, 1913-1914.
- 3) 萩崎為行 : 巨大なる口腔底皮様嚢腫の一例. 耳喉 2 : 562~569, 1929.
- 4) Meyer I : Dermoid cysts (Dermoids) of the floor of the mouth. Oral Surg 8 : 1149~1164, 1955.
- 5) 萩場貴夫, 伊藤和也, 和田 清, 他 : 口腔底に生じた類皮嚢胞の一症例. 耳鼻臨床 補38 : 215~219, 1990.
- 6) 岩田浩行, 高井克喜, 丹下和久, 他 : オトガイ下部にみられた多発性類表皮嚢胞の1例. 日口外誌 33 : 773~776, 1987.
- 7) 有村健二, 向井 洋, 石神哲郎, 他 : 過去25年間の類皮嚢胞及び類表皮嚢胞の臨床統計的観察. 日口外誌 38 : 1441~1442, 1992.
- 8) 覚道健治, 荒木春美, 大竹智子, 他 : 上唇に発生した類皮および類表皮嚢胞の1例. 日口外誌 32 : 1238~1243, 1986.
- 9) 山邊けい子, 西川育志, 本田雅之, 他 : 口腔底類表皮嚢胞の2例. 耳鼻臨床 81 : 235~240, 1988.
- 10) 高木撰夫, 本村昌一, 大沼秀行, 他 : Dermoid Cyst. 耳喉 58 : 312~313, 1986.

原稿受付 : 平成12年3月6日
原稿採択 : 平成12年4月26日
別刷請求先 : 森園健介
〒890-8520 鹿児島市桜ヶ丘8-35-1
鹿児島大学医学部耳鼻咽喉科学教室