巨大な口腔底類皮嚢胞

— 口腔内アプローチにて摘出した1例 —

西池 季隆¹⁾・入船 盛弘²⁾・馬谷 克則³⁾Giant Dermoid Cyst in the Floor of the Mouth Totally Excised
by an Intra-Oral Approach

Suetaka Nishiike

(Osaka University)

Morihiro Irifune

(Osaka Prefectural Habikino Hospital)

Katsunori Umatani

(Osaka Seamen's Insurance Hospital)

Dermoid cyst is commonly considered a rare finding in the floor of the mouth. We report a 20-year-old man who presented with a large cystic mass in the floor of the mouth extending into the submandibular region. The mass, which was totally excised by an intra-oral approach, was lined by squamous epithelium containing sweat glands, sebaceous glands and hair follicles and diagnosed as a dermoid cyst. In our case, the classification of Bergman-Hagisaki from relationships to the mylohyoid muscle was of little importance in determining the presentation of the cyst or the surgical approach. The cyst lining is generally so thick that it is relative easy to excise the cyst totally. Therefore, the intra-oral approach should be attempted first, even if the cyst is large. When the removal of cyst by an intra-oral approach is difficult, extra-oral approach must be combined.

Key words : dermoid cyst, floor of the mouth, intra-oral approach

緒 言

類皮嚢胞は胎生期における外胚葉組織の迷入, あるいは後天的な外傷, 手術による上皮片の迷入に由来するとされている。その発生部位は身体各部におよび, 好発部位は肛門, 卵巣であるが, 口腔の発生は比較的まれである¹⁾。今回, われわれは口腔内アプローチにて摘出した巨大な口腔底類皮嚢胞の1症例を経験したので, 若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

患者: 20歳, 男性。

初診: 平成10年11月25日。

主訴: 舌下部に腫瘤を触知。

現病歴: 平成8年より舌下部に腫瘤を自覚していたが, 構音障害, 嚥下障害, 呼吸困難などの症状を全く伴わないため無治療のまま放置していた。家族や友人に異常を指摘され, 平成10年10月16日近くの耳鼻咽喉科を受診したところガン腫を疑われ, 平成10年11月25日大阪府立羽曳野病院耳鼻咽喉科を受診した。

1) 大阪大学大学院医学系研究科感覚器外科学耳鼻咽喉科学教室

2) 大阪府立羽曳野病院耳鼻咽喉科

3) 大阪船員保険病院耳鼻咽喉科

図1 患部側面像
腫瘍は軟性で波動を認めた。

図2 口腔底像
口腔に腫瘍(矢尻)による隆起を認めた。

初診時所見：オトガイ下正中部に境界明瞭で可動性のある軟性の腫瘍を認めた(図1)。口腔では腫瘍は舌を上後方へ圧排するように正中に隆起していた(図2)。腫瘍表面の粘膜は正常であったが、内容は透視できなかった。腫瘍は境界明瞭、弾性軟で、自発痛、圧痛を認めなかつ

た。嚢胞を疑い腫瘍を穿刺したが粘度の高い内容液が少量しか採取できなかった。細菌検査では病原体は検出されなかった。

検査成績：血液検査および生化学検査では特記すべき所見は認められなかった。

画像診断：CT 検査では舌下部正中からオトガイ下部正中にかけて均一な低吸収像を呈し、明瞭な被膜を有する腫瘍を認めた(図3左)。MRI では舌下部からオトガイ下部にかけて T1 強調画像で内容均一な低信号、T2 強調画像で内容均一な高信号領域を認めた(図4)。

手術および経過：いわゆるガマ腫でなく、類皮嚢胞様の嚢胞を疑い、平成11年2月18日、経鼻挿管による全身麻酔下に腫瘍摘出術を行った。口腔底舌下ひだ下縁に沿って横切開を入れて、嚢胞性腫瘍の剥離を進めた。腫瘍と周囲組織の癒着はなく、腫瘍に沿って鈍的に剥離を進めることができた。オトガイ舌筋、オトガイ舌骨筋は正中で剥離した。腫瘍の下端部ではオトガイ下部との双手触診を行いながら用手にて剥離した。腫瘍は弾性に富んでおり、圧排することによって明視下に処理が進められ、一塊として腫瘍を摘出することができた(図5)。生体組織接着剤にて筋層間を充填し、吸収糸にて切開創を縫合し終了した。咽頭浮腫を予防するためヒドロコルチゾンの点滴を術後3日間行ったが、術後2日間構音障害があった以外はその後特に合併症はなかった。術後4日目のCT 検査では、中咽頭浮腫はなくむしろ咽頭腔は拡大していた(図3右)。術後一年間経過を診ているが再発はない。

摘出腫瘍肉眼所見：摘出した腫瘍は7×4 cm の弾性に富み表面は平滑で血管に富んだ赤褐色の被膜を有していた(図6上)。割を入れると、腫瘍は嚢胞壁のなかに粘度の高い帯黄色の比較的均一なオカラ状の内容物を多量に含んでいた(図6下)。

病理組織所見：嚢胞壁は扁平上皮細胞により構成され、内腔には角化物質が認められた(図7上)。扁平上皮下には、汗腺(図7上)、皮脂腺、毛嚢(図7下)の構造が認められ類皮嚢胞 (dermoid cyst) と診断された。

考 察

類皮嚢胞は身体各部に発生するが、New ら¹⁾によれば頭頸部領域における発生は1495例中103例(6.9%)であったと報告されている。また、そのうち口腔領域の発生は24例で全例の1.6%であり比較的まれである。類皮

図3 頸部CT像

術前のCT像(左)では、舌下部からオトガイ下部にかけて明瞭な被膜を有する均一な低吸収像を持つ腫瘤を認めた。術後4日目のCT像(右)では咽頭腔は拡大していた。

図4 MRI像

舌下部からオトガイ下部にかけて、T1強調画像(左)で内容均一な低信号、T2強調画像(右)で内容均一な高信号領域を認めた。

図 5 術中写真

表面平滑で被膜を有する弾性に富んだ腫瘤を認めた。口腔内に切開を加えて腫瘤を摘出した。

図 6 摘出標本

摘出した腫瘤(上)は7×4 cmで弾性に富み、赤褐色の被膜を有していた。腫瘤は粘度の高い帯黄色のオカラ状の内容物(下)を多量に含んでいた。

嚢胞は病理学的には Meyer²⁾ によって次の3つに分類されている：重層扁平上皮の嚢胞壁を持ち皮膚付属器官を有さない類表皮嚢胞 (epidermoid cyst), 皮膚付属器官(毛髪, 毛包, 脂腺など)を有する類皮嚢胞 (dermoid

図 7 病理組織標本像(HE 染色 ×250)

嚢胞壁は扁平上皮細胞により構成され、上皮下には汗腺の構造(矢尻)が認められ内腔には角化物質が認められた(上)。扁平上皮下に皮脂腺(小矢尻)、毛嚢(大矢尻)の構造が認められた(下)。

cyst), 皮膚付属器官(外胚葉), 結合組織(骨, 筋肉, 血管などの中胚葉)および呼吸器あるいは消化器組織(内胚葉)を有する奇形腫様嚢胞 (teratoid cyst). 臨床的には、広くこれらの嚢胞を類皮嚢胞で代表して一括して表現しているのが一般的である。

これらの嚢胞の発生機序については一般に先天的と考えられており, Meyer²⁾ は胎生3～4週期における第1, 第2鰓弓癒合部への外胚葉の迷入に起因するとしている。また, Ackerman³⁾ および Allen⁴⁾ は, 外傷または炎症によって組織内に分離残存した上皮から後天的に発生すると述べており, これに関しては馬場ら⁵⁾ の報告もみられる。

口腔領域では, 類皮嚢胞は類表皮嚢胞に比べて少なく, 大野ら⁶⁾ の報告によると口腔領域のこれらの嚢胞50症例中, 類表皮嚢胞33例(66.0%)に対して類皮嚢胞13例(26.0

%)であった。類表皮嚢胞は左右どちらかに偏在することが多いのに対し、類皮嚢胞はそのほとんどが正中に位置しており、このような発生部位の違いは発生機序の違いによるとされている⁷⁾。類皮嚢胞は類表皮嚢胞より大きい傾向があり、この点に関しては類皮嚢胞の皮膚付属器官である皮脂腺や汗腺の分泌作用が、嚢胞腔内圧を亢進させるためであると考えられている¹⁾。類皮嚢胞における発生の性差はないが、症状発現の年齢は15~35歳に多く、これは発育が緩徐で汗腺、皮脂腺の機能が活発になる思春期に急速に発育する傾向があるためとされている。本症例では18歳より症状発現した類皮嚢胞であり、この好発年齢に合致していた。また、外傷、手術の既往もなく先天性のものと思われた。

口腔底の嚢胞性病変の鑑別疾患は、ガマ腫、唾液線由来の嚢胞性腫瘍、嚢胞性リンパ管腫等があるが、特にガマ腫との鑑別はときに困難である。類皮嚢胞では脂肪と水がレベルを形成して存在していることがあり、MRIでは内容不均一に描出されることがある⁸⁾。本症例ではMRI像では内容均一であったが、口腔底正中に存在すること、嚢胞内容が透見できないこと、穿刺吸引が困難なことから術前に類皮嚢胞を疑った。

類皮嚢胞と顎舌骨筋との位置関係は嚢胞の発育方向を決める点で重要であり、したがって術式を選択するためにも重要であるとの考えがあり、顎舌骨筋の上か下かにより舌下型、オトガイ下型に分類したBergmann-萩崎の分類⁹⁾がある。しかし、すべての類皮嚢胞は顎舌骨筋より上に存在し、オトガイ舌骨筋上なら舌下に向けて発育伸展し、オトガイ舌骨筋下ならば顎下部に発育膨隆するとの報告もある¹⁰⁾¹¹⁾。このため、オトガイ舌骨筋の上か下の分類も用いられている¹²⁾。われわれの症例において、MRI、術中の所見では、嚢胞はオトガイ舌骨筋は貫通しているものの顎舌骨筋上に位置していたが、舌下にも顎下にも大きく膨隆しており、腫瘤の発育にはオトガイ舌骨筋との関係が重要であると疑わせた。

治療については完全摘出が必要とされ、切開、穿刺などでは再発があると報告されている⁶⁾。舌下型であるならば口腔内アプローチ、オトガイ下型ならば口腔外アプローチ、さらに舌下より顎舌骨筋に達する巨大な嚢胞の際には両アプローチの併用による手術が必要であるとの考えがある¹³⁾¹⁴⁾。一方で、近くに大血管が走っていない限り、ほとんどすべての類皮嚢胞は口腔内アプローチで摘出できるとの考えもある¹⁰⁾。このように、今まで摘出

法について一定の見解はない。われわれの例は舌下よりオトガイ下部に達する巨大な嚢胞であったが、口腔内アプローチのみで摘出できた。今回の症例では、Bergmann-萩崎の分類⁹⁾は、嚢胞の発育方向および術式の選択の点で重要ではなかったといえる。

類皮嚢胞の予後は良好で悪性化することはまれであり、特に頭頸部領域においては悪性化の報告はない¹¹⁾。また、類皮嚢胞の嚢胞壁は厚く術中の損傷は避けやすい。口腔外アプローチでは頸部外切開による術後の美容等の問題がある。このことから、手術に熟達した医師が手術することを前提にするならば、特に類皮嚢胞が術前に疑われる場合には、巨大であってもまず口腔内アプローチにて摘出を試みるべきでないかと考えられた。口腔内アプローチのみでは視野の確保や剥離が困難な時に、二次的に口腔外アプローチを併用すべきであると考えられた。

まとめ

1) 20歳の男性の口腔底よりオトガイ下に達する巨大な類皮嚢胞の1例を報告した。

2) 腫瘤は口腔内アプローチによって摘出され、摘出した腫瘤の嚢胞壁には、汗腺、皮脂腺、毛嚢の構造も認められ類皮嚢胞 (dermoid cyst) と診断された。

3) 今回の症例では、Bergmann-萩崎の分類⁹⁾は嚢胞の発育方向および術式の選択に関して重要な意味を持たなかった。

4) 類皮嚢胞の嚢胞壁は比較的厚く損傷は避けやすいので、まず口腔内アプローチで摘出を試みるべきではないかと考えた。口腔内アプローチのみでは摘出が困難な時に二次的に口腔外アプローチを併用すべきであると考えられた。

参考文献

- 1) New GB and Erich JB : Dermoid cysts of the head and neck. Surg Gynecol Obstet 65 : 48~55, 1937.
- 2) Meyer I : Dermoid cysts of the floor of the mouth. Oral Surg 8 : 1149~1165, 1955.
- 3) Ackerman LV : Specific tumors arising from skin appendages. Surgical Pathology. pp 90~94, Mosby Co, St Louis, 1953.
- 4) Allen AC : The skin. Pathology (ed by Anderson WAD). pp 1130~1185, Mosby Co, St Louis, 1957.
- 5) 馬場孝雄, 福井勝男, 内藤 清, 他 : 口腔底表皮嚢胞の1例. 日口外誌 14 : 98~102, 1968.

- 6) 大野邦博, 曾田忠捷, 石田 恵, 他 : 口腔領域の類皮嚢胞 50例の臨床統計ならびに本邦における文献的考察. 日口外誌 **25** : 842~847, 1979.
- 7) 小林 裕, 木野孔司, 間仁田浩一, 他 : 口腔顔面領域の類皮嚢胞および類表皮嚢胞の臨床的観察. 口科誌 **47** : 101~107, 1998.
- 8) 笠原利之, 竹内義人, 川瀬友子, 他 : MRI で特徴的な所見を呈した口腔底類皮嚢胞の 1 例. 臨放 **43** : 428~429, 1998.
- 9) 萩崎為行 : 巨大なる口腔底皮様嚢腫の一例. 耳喉 **2** : 562~569, 1929.
- 10) Steward S : Dermoid cysts of the floor of the mouth. Br J Oral Surg **3** : 36~47, 1965.
- 11) King RC, Smith BR and Burk JM : Dermoid cyst in the floor of the mouth ; review of the literature and case reports. Oral Surg Oral Med Oral Pathol **78** : 567~576, 1994.
- 12) Howell CJT : The sublingual dermoid cyst ; report of five cases and review of the literature. Oral Surg Oral Med Oral Pathol **59** : 578~580, 1985.
- 13) Triantafillidou E, Karakasis D and Laskin J : Swelling of the floor of the mouth. J Oral Maxillofac Surg **47** : 733~736, 1989.
- 14) Al-Khayat M and Kenyon GS : Midline sublingual dermoid cyst. J Laryngol Otol **104** : 578~580, 1990.

原稿受付 : 平成11年12月 6 日
原稿採択 : 平成11年12月22日
別刷請求先 : 西池季隆
〒565-0871 吹田市山田丘2-2
大阪大学大学院医学系研究科
感覚器外科学耳鼻咽喉科