顎下部に発生した異所性甲状腺例

鈴木 政博・多田 靖宏・松塚 崇
小川 洋・鹿野 真人・大谷 巖

A Case of Ectopic Thyroid in the Left Submandibular Region

Masahiro Suzuki, Yasuhiro Tada, Takashi Matsuzuka, Hiroshi Ogawa,
Makoto Kano and Iwao Otani

(Fukushima Medical College)

We report a case of a 46-year-old female with an ectopic thyroid located in the left submandibular region. The pre-operative thyroid function showed normal values. First, Tc 99m scintigraphy confirmed the presence of a normally placed thyroid, and the ectopic thyroid could not be distinguished from a salivary gland tumor.

It was not surgically excised because a histological examination of the open biopsy revealed that the tumor consisted of normal thyroid tissue. The post-operative thyroid function showed normal values. In reviewing the literature, we found three cases in which the surgical removal of an ectopic submandibular thyroid led to hypothyroidism. Post-operative I¹²³ scintigraphy disclosed a nodular uptake in the left submandibular region. The ectopic thyroid showed normal functioning by the immuno-histologic examination of anti-thyroglobin antibody.

Key words : ectopic thyroid, submandibular region, normally functioning

はじめに

異所性甲状腺は甲状腺原基の下降障害により生ずる発生学的位置異常が大部分を占め、舌部、舌根部、舌下部、甲状軟骨前方などの正中部に発生することが多い。今回われわれは左顎下部に異所性甲状腺が存在したきわめてまれな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：46歳，女性。

主訴：左顎下部の腫瘍。

既往歴：17歳時より甲状腺機能亢進症があり21歳時と36歳時の2度にわたり外科で甲状腺亜全摘術を施行された。

現病歴：平成8年頃(43歳時)から左顎下部の腫瘍に気

付いていたが放置していた。平成10年8月頃から腫瘍の増大傾向を自覚したため、通院中の外科で超音波検査を施行された。超音波検査上、左顎下部に低信号の陰影が認められ、平成10年9月22日に精査目的に当科に紹介となった。同日外科で施行した甲状腺機能検査の結果は、T₃ 2.1 ng/ml (正常範囲 ; 0.8~1.6 ng/ml), FT₄ 1.4 ng/dl (0.7~2.0 ng/dl), TSH 1.4 μU/ml (0.5~3.0 μU/ml) とほぼ正常範囲内であった。頸部の単純CTでは、周囲に比べてやや高信号の陰影を認め、造影CTでは造影効果のある境界明瞭な腫瘍陰影を認めた(図1)。MRIではT1強調画像で低信号、T2強調画像で高信号、ガドリニウム造影によるT1強調画像では造影効果のある高信号の境界明瞭な陰影を示した(図2)。術前のテクネシウムシンチでは左顎下部に高濃度の集積を認めたが(図3)、ガリウムシンチでは同部位の集積は認められな

図1 造影CT

左顎下部に境界明瞭で造影効果のある腫瘍陰影(↑)を認める。

図2 MRI (ガドリニウム造影)

左顎下部深部にはほぼ均一に造影効果のある境界明瞭な腫瘍陰影(↑)を認める。

かった。以上の検査結果から顎下部腫瘍が疑われ平成11年2月17日当科入院となった。入院時、左顎下部に双手診にて、20×20 mmの表面平滑で弾性硬、可動性やや不良な腫瘍を触知した。血液生化学検査では特に異常は

図3 テクネシウムシンチ

左顎下部に高度の集積(↑)を認める。

認めず、甲状腺機能は FT_4 1.1 ng/dl, TSH 0.62 μ U/ml と正常範囲内であった。2月22日に全身麻酔下に腫瘍摘出術を予定した。摘出に先立ち、開放生検術を施行した。術中所見では腫瘍は被膜を有し、顎下腺との連続は認めず顎二腹筋後腹の深部に存在していた。被膜内の組織は血管性に富み暗赤色を示していた(図4)。腫瘍の一部を楔状に切除し術中迅速組織検査を行ったところ、異型のない立方上皮からなる濾胞構造を認める正常甲状腺組織との診断であった(図5)。術中の病理組織学的所見から腫瘍は異所性甲状腺と考えられたため、腫瘍を摘出せずそのまま閉創した。術後の甲状腺機能は FT_4 1.4 ng/dl,

図4 術中所見

腫瘍(↑)は被膜を有し、顎下腺とは連続せず顎二腹筋後腹の深部に存在し、被膜内の組織は血管性に富み暗赤色を示していた。

図5 病理組織所見(HE 染色 ×100)
異型のない立方上皮からなる濾胞構造を認める甲状腺組織.

図6 I¹²³ シンチ
(A) 今回生検後の I¹²³ シンチ. 左顎下部に正常位置の甲状腺と同程度の高度の集積を認める(↑).
(B) 36歳時(2度目)に施行された甲状腺全摘術前の I¹²³ シンチ. 左顎下部にわずかに集積を認める(↑).

TSH 0.24 μ U/ml と異常を認めず 3月10日に退院した. 術後施行した I¹²³ シンチにおいて左顎下部に正常位置の甲状腺と同程度の集積を認めておりこれら甲状腺組織の uptake は9.4%/5h と正常下限程度であった. これらの結果から再度以前に施行された I¹²³ シンチの結果を検討してみると, 36歳時に外科での2度目の甲状腺全摘術を施行される前に行った I¹²³ シンチにおいても同部位にわずかではあるが集積を認めていた(図6).

考 察

異所性甲状腺は女性に多く発生し, 腫瘍性病変として発症するが, その時期としては思春期, 青壮年期, 妊娠中が多く, この時期に甲状腺ホルモンの需要が増大し異所性甲状腺が刺激されて, 腫大するためと考えられている¹⁾. その発生原因には主に甲状腺原基の下降障害によるものと迷入によるものがある. 下降障害の場合, 舌根部に発生するものが大部分を占め, そのほとんどが正中部に発生し, この約70%の例では異所性甲状腺が唯一の甲状腺であると報告されている²⁾. 一方, 迷入によるものでは正常位置の甲状腺のほかに, 喉頭内, 気管内, 上部食道内, 頸部リンパ節内への存在が報告されている³⁾. また臨床症状としては, 舌根部発生によるものでは腫瘍による咽頭異物感, 嚥下障害と甲状腺機能低下があり¹⁾, 機能低下の原因としては甲状腺の正常の発達が妨げられることによると考えられている⁴⁾. 一方, 迷入によるものでは単に腫瘍として触れることが多く, 他の臨床症状を伴わないことが迷入による異所性甲状腺の診断を困難にしている. 本症例では正常位置に甲状腺を有しさらに左顎下部に異所性甲状腺が存在しており, 甲状腺原基の一部が分離して迷入した症例であると考えられた. 診断には種々の検査があるが, I¹²³ シンチグラムが最も有用であり, 本来の甲状腺組織の有無や異所性甲状腺の存在も診断することができるとされている¹⁾. 本症例では正中を外れた迷入による異所性甲状腺が存在していたが, 腫瘍の穿刺吸引細胞診は周辺組織の損傷を伴う危険があったため, あえて施行しなかった. 触診, 術前の甲状腺機能検査, 画像所見からのみでは顎下部の腫瘍性疾患との鑑別が非常に困難であったが, テクネシウムシンチで高度の集積があり唾液腺腫瘍, 異所性甲状腺の可能性があり, 開放生検を行いその組織診断に基づいて治療法を選択することとした. 本例のように顎下部に異所性甲状腺が存在していた例はわれわれが渉猟した限り

表 1 顎下部異所性甲状腺の報告

報 告 者	年・性	術前甲状腺機能	顎下部操作	他の甲状腺の部位	術後機能
Helidonis ら ⁵⁾ (1980)	30・女		摘出	オトガイ下	低下
Alsop ら ⁶⁾ (1986)	61・男		摘出	舌骨後部	低下
Aguirre ら ⁷⁾ (1991)	47・女		部分切除	(-)	正常
Morgan ら ⁸⁾ (1995)	50・女		摘出	舌根部	低下
Sironi ら ⁹⁾ (1996)	34・女	正常	細胞診のみ	正常位置	正常
Ignasi ら ¹⁰⁾ (1996)	45・女	正常		(-)	
Aköz ら ¹¹⁾ (1998)	55・男		摘出	正常位置	正常
Temmel ら ¹²⁾ (1998)	18・女	低下		(-)	
自験例	46・女	正常	開放生検	正常位置	正常

では本邦では報告がなく、海外では8例報告されているにすぎない^{5)~12)}(表1). そのうち本例のように顎下部以外の部位にも甲状腺が存在している報告は5例⁵⁾⁶⁾⁸⁾⁹⁾¹¹⁾あり、4例⁵⁾⁶⁾⁸⁾¹¹⁾で顎下部の異所性甲状腺が摘出されている. このうち3例⁵⁾⁶⁾⁸⁾は術後機能低下を認めたとの報告があり、顎下部の甲状腺組織が機能を有していたことを示唆するものであった. また、2例⁹⁾¹¹⁾では本症例と同様に正常位置にも甲状腺を有していた. このうちAköz ら¹¹⁾の症例では顎下部の甲状腺組織が摘出されており、この症例では術後機能低下を示していないが、摘出された組織は嚢胞状の部分が多く含んでおり、どの程度の機能性を有していたかは不明である. また、Ignasi ら¹⁰⁾の症例では顎下部の異所性甲状腺が甲状腺癌の転移によるものであることを除外するために摘出を勧めたが本人が希望せず、超音波下での穿刺吸引細胞診のみが行われた. 結果は異型細胞を認めない濾胞細胞であった. 本症例は術前甲状腺機能が正常であり手術時の開放生検で正常甲状腺組織であることが確認されたため摘出術を施行しなかった. 術後の甲状腺機能の低下は認められず正常範囲内であった. 開放生検による病理組織学的所見と術後のI¹²³シンチで左顎下部に高度の集積を示したことから、本例の異所性甲状腺は十分に機能を有していると考えられた. その機能性について検討するために、われわれは2度目(36歳時)の甲状腺亜全摘術時の標本と、今回顎下部生検時の甲状腺組織に対して、抗サイログロブリン抗体による免疫組織染色を施行した(図7). 前者ではコロイド内に立方上皮細胞に接して空胞化を認めコロイド吸収像を示しており、立方上皮細胞は一部円柱状で重層化を示し、甲状腺機能亢進症においてみられる所見を示していた. 後者ではコロイド内が陽性を示し、立方上皮

図7 抗サイログロブリン抗体染色による免疫組織学的所見
(A) 今回生検後. コロイド内は染色され立方上皮細胞は扁平化しており正常の甲状腺組織でみられる所見を示していた. (×100)
(B) 36歳時(2度目)に施行された甲状腺亜全摘術前. コロイド内に立方上皮細胞に接して空胞化を認めコロイド吸収像を示していた. また、立方上皮細胞は一部円柱状で重層化を示していた. (×100)

細胞は扁平化しており正常の甲状腺組織であった。これらのことは、顎下部の異所性甲状腺が機能を有していること、また、正常位置と顎下部の甲状腺組織が異なるものであることを示唆する貴重な所見であった。

まとめ

左顎下部に発生したきわめてまれな異所生甲状腺の1症例について報告した。本症例では正中を外れて異所性甲状腺が存在し、正常位置にも甲状腺が存在していた。顎下部甲状腺の発生原因は迷入と考えられた。免疫染色より顎下部の甲状腺組織は甲状腺機能を有していると考えられた。

本論文の要旨は第61回耳鼻咽喉科臨床学会(1999年6月25, 26日 別府市)に於いて口演した。

参考文献

- 1) 川合優子, 小出千秋, 今井昭雄, 他 : 異所性甲状腺の2症例. 新潟市病医誌 18 : 47~50, 1997.
- 2) Haddad A, Frenkiel S, Costom B, et al : Management of the undescend thyroid. J Otolaryngol 15 : 373~376, 1986.
- 3) Okestad S, Mair I, Sundsfjord J, et al : Ectopic thyroid tissue in the head and neck. J Otolaryngol 15 : 52~55, 1986.
- 4) 浅井 寿, 富田 博, 上条隆司, 他 : 前顎部腫瘍を呈した異所性甲状腺の2例. 小児臨床 45 : 2469~2472, 1992.
- 5) Helidonis E, Dokianakis G, Papazoglou G, et al : Ectopic thyroid gland in the submandibular region. J Laryngol Otol 94 : 219~224, 1980.
- 6) Alsop JE, Yerbury PJ, O'Donnel PJ, et al : Signet-ring cell microfollicular adenoma arising in a nodular ectopic thyroid ; a case report. J Oral Pathol 15 : 518~519, 1986.
- 7) Aguirre A, de la Piedra M, Ruiz M, et al : Ectopic thyroid tissue in the submandibular region. Oral Surg Oral Med Oral Pathol 71 : 73~76, 1991.
- 8) Morgan NJ, Emberton P and Barton RP : The importance of thyroid scanning in neck lumps ; a case report of ectopic tissue in the right submandibular region. J Laryngol Otol 109 : 674~676, 1995.
- 9) Sironi M, Assi A, Andruccioli M, et al : Submandibular ectopic thyroid gland. Clin Nucl Med 21 : 585, 1996.
- 10) Ignasi Sambola-Cabrer, José-Manuel Fernández-Real, Wifredo Ricart W, et al : Ectopic thyroid tissue presenting as a submandibular mass. Head Neck 18 : 87~90, 1996.
- 11) T Aköz, B Erdogan, M Ayhan, et al : Ectopic submandibular thyroid tissue. Rev Laryngol Otol Rhinol 119 : 323~325, 1998.
- 12) Temmel A, Baumgartner W, Steiner E, et al : Ectopic thyroid gland simulating a submandibular tumor. Am J Otolaryngol 19 : 342~344, 1998.

(原稿受付 : 平成12年1月4日
原稿採択 : 平成12年1月19日
別刷請求先 : 鈴木政博
〒960-1295 福島市光ヶ丘1
福島県立医科大学耳鼻咽喉科学教室)