右顎下部に認めた異所性甲状腺腫例

藤垣 聖雄・浅野幸一郎・加藤 雅也
澤井 薫夫・伊藤 八次・宮田 英雄

A Case of Ectopic Thyroid Gland in the Submandibular Region

Masao Fujigaki, Koichiro Asano, Masaya Kato, Shigeo Sawai,
Yatsuji Ito and Hideo Miyata

(Gifu University)

We report a rare case of an ectopic thyroid gland that developed in the right submandibular region. The patient was a 65-year-old female. She complained of a mass (4.0×3.0 cm) in her neck, and was admitted to our hospital. An ultrasonic scan, CT scan and fine needle aspiration biopsy were performed before the resection. Results of these examinations did not give diagnostic information. After the resection, the histological appearance showed an adenomatous goiter. This could not be clinically distinguished from a tumor of the submandibular gland. Ectopic thyroid tissue should be considered in the differential diagnosis of a mass in the submandibular portion.

Key words : ectopic thyroid gland, submandibular region, adenomatous goiter

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じ、その発生部位は甲状舌管の存在した部位、すなわち頸部正中に沿って出現するのが普通で、舌根部や喉頭部および気管周囲の組織中に見い出されることが多い。最近、右顎下部に認めた異所性甲状腺腫の1例を経験したので報告する。

症 例

症例：65歳、女性。

主訴：右顎下部腫瘍。

既往歴：高脂血症。

家族歴：特記すべきことなし。

現病歴：平成10年7月初旬頃、感冒症状にて近医内科受診し、右顎下部腫瘍を指摘された。本人はその時まで自覚していなかった。自発痛、圧痛などの自覚症状がないためしばらく様子を見ていたが、指摘されてから腫瘍が気になり、近医耳鼻咽喉科を受診した。右顎下腺腫瘍

を疑われ、手術治療目的で当科を紹介され、平成10年9月7日入院となった。

局所所見：右顎下部に大きさ4.0×3.0 cm、表面平滑、弾性軟で可動性良好の腫瘍を認めた。自発痛、圧痛は認めなかった(図1)。頸部のリンパ節は触知しなかった。

超音波エコー所見：境界明瞭で、内部はやや不均一な充実性の腫瘍を認めた。また後方エコーの増強を認めた(図2)。なお同部からのFNAでは、class Iであった。

頸部CT所見：単純CT(図3、左)で、右顎下部に境界明瞭で辺縁は整、内部は一部不均一の腫瘍を認めた。

造影CT(図3、右)では陰影はやや増強された。

以上より右顎下腺腫瘍、悪性腫瘍のリンパ節転移も考えられるため、診断目的もかねて平成10年9月9日、全身麻酔下に摘出術を施行した。

手術所見：腫瘍は顎二腹筋前腹、顎舌骨筋を外方に圧排するように位置し、周囲との癒着はなかった。被膜は非常に血流に富んでいたため、適宜止血を行いながら剥離し摘出した。深部では腫瘍は舌骨の右側に接するよう

図1 右顎下部に弾性軟で可動性良好な腫瘤を認める。

図2 超音波検査

境界明瞭で辺縁は整, 内部はやや不均一な実質性の腫瘤を認める. 後方エコーの増強を認める.

に位置していた. 副甲状腺および栄養動脈は確認できなかった. 摘出後の術中の迅速病理では腺腫様甲状腺腫という結果であった. 肉眼的には甲状腺方向への組織の連絡は認めなかった.

摘出標本: 大きさは $5.0 \times 4.0 \times 3.0$ cm, 表面平滑, 弾性軟であった. 色調は赤褐色であった. 断面をいれると, 内部は充実性であり結節性構造を認めた(図4).

図3 CT 所見

- (左) 単純: 境界明瞭で辺縁は整, 内部は不均一な腫瘤を認める(矢印).
 (右) 造影: 腫瘤はややエンハンスされている(矢印).

図4 摘出標本

(左) 腫瘍は $5.0 \times 4.0 \times 3.0$ cm の大きさで色調は赤褐色、表面は平滑。
 (右) 断面は内部は充実性で結節構造が認められる。

病理組織学的所見：コロイドを含む大小の濾胞が結節性に増殖している像で診断は術中迅速病理と同じく腺腫様甲状腺腫であった。連続切片により詳細に検討したが、悪性像は認められなかった(図5)。

術後経過：血液検査では術後1日目から TSH が $13.30 \mu\text{U/ml}$ 、5日目には $65.34 \mu\text{U/ml}$ (正常値： $0.35 \sim 3.73$) と上昇してきたため、術後7日目からレボチロキシナトリウム (50 mg) 4錠の朝1回投与を開始した。なお血清 Ca, PTH は正常値であった。術後の甲状腺シンチグラフィでは $^{99\text{m}}\text{Tc}$ で正常部位に集積は認められなかったが、舌根部、舌下部に集積が認められ、異所性甲状腺の存在が疑われた(図6)。Tl シンチグラフィでは早期、後相期とも明らかな異常集積は認めなかった。 ^{123}I

図5 病理組織標本(HE染色 $\times 100$)

コロイドを含む大小の濾胞が結節性に増殖している。

図6 術後の $^{99\text{m}}\text{Tc}$ シンチグラフィ

舌下部、舌根部の2カ所に集積を認める(矢印)。

シンチでは $^{99\text{m}}\text{Tc}$ で集積のあった部分に一致したわずかな集積が認められた。しかしヨード摂取率(24時間値)は 0.84% (正常 $10 \sim 35\%$)であり無機能性の甲状腺組織であった。この結果、本例では術前に3個の甲状腺組織が存在し、摘出した右顎下部の甲状腺腫が唯一機能していたと思われた。患者は現在レボチロキシナトリウム (50 mg) を朝1回内服し、術後11カ月現在経過良好である。

考 察

異所性甲状腺の存在部位は甲状腺の発生過程と深いかわりを有し、甲状舌管に沿った部位に出現するのが普通で、舌根部や喉頭部および気管周囲の組織に見い出されることが多い。なかでも舌根部に発生するものが最も多く、45%を占めているといわれている¹⁾。しかしまれに縦隔内にも認められ、臨床的に縦隔(内)甲状腺あるいは縦隔甲状腺腫として発見される。

今回の症例は甲状腺原基の発育過程で発育障害、下降障害が生じ、舌下部、舌根部に甲状腺組織を残しながら下降し、一部が正中から右方へずれて右顎下部に留まったと推察した。一部が右方へ移動した理由は不明である。Kaplan ら²⁾は、甲状腺原基の下降障害は、発育不全のため二次的に起こるとしている。本来あるべき位置に正常な甲状腺組織がなく、異所性甲状腺が顎下部に認められた症例はわれわれが渉猟し得た限りでは過去に本邦において報告がなく、欧米では7例の報告^{3)~9)}があり、自験例を含めて8例になる(表1)。また本邦において、安部ら¹⁰⁾によれば正常部位に甲状腺組織がない異所性甲状腺の場合、甲状腺組織は1個ないし2個としている。しかし高橋ら¹¹⁾は3個存在した異所性甲状腺の1例を報告しているので自験例と合わせると2例になる。

異所性甲状腺の発症年齢は佐藤ら¹²⁾の統計では0~69歳まで幅広く分布しているが10歳代が48例と最も多く、

次いで0~9歳が43例で、平均年齢は18.9歳である。男女比は1:5であったと報告している。今回の症例は65歳の女性で高齢であった。

異所性甲状腺の初発症状としては嚥下障害、発声困難、呼吸困難などが多く報告¹³⁾されているが、橋本ら¹⁴⁾は甲状腺機能正常例では舌根部腫瘍、咽頭異和感が、甲状腺機能低下例では成長障害、高TSH血症などが多いとしている。異所性甲状腺と先天性甲状腺機能低下症の関係についてみると先天性甲状腺機能低下症の63.6%に異所性甲状腺がみられたとの報告¹⁵⁾もあり、またKatzら¹⁶⁾、Montgomery¹⁷⁾¹⁸⁾はそれぞれ舌根甲状腺症例の10%、15%に甲状腺機能低下症がみられたという。今回の症例では65歳であったが、甲状腺機能低下を示すような症状や他の自覚症状もなかった。

治療に関しては、一般的に正常部位に甲状腺組織が存在し、側頸部などに甲状腺組織が迷入する場合のほとんどは甲状腺癌のリンパ節転移といわれ、この場合は側頸部の甲状腺組織は摘出すべきで、さらに正常部位の甲状腺の慎重な検索、治療が必要となる。しかし今回のように正常部位に甲状腺組織がない場合は、単なる甲状腺の下降不全によると考えられるため、悪性腫瘍である可能性は少ない。異所性甲状腺の組織像は一般的に正常甲状腺か腺腫様な組織像であることが多く、しかも悪性化の頻度は固有位のものより少ないといわれている¹⁰⁾。し

表1 顎下部に認められた異所性甲状腺の報告例

症例	報 告 者		症例	部位	病理組織	正常甲状腺
1	Helidonis ら ³⁾	1980	30歳 女性	左顎下部 (舌骨上部)	びまん性コロイド様甲状腺腫	無
2	Alsop ら ⁴⁾	1986	61歳 女性	右顎下部 (舌根部)	濾胞状甲状腺腫	無
3	Aguirre ら ⁵⁾	1991	47歳 女性	左顎下部	コロイド様甲状腺腫	無
4	Morgan ら ⁶⁾	1995	50歳 女性	右顎下部 (舌根部)	結節性甲状腺腫	無
5	Sambola-Cabrer ら ⁷⁾	1996	34歳 女性	右顎下部	過形成	有 (低形成)
6	Sironi ら ⁸⁾	1996	45歳 女性	右顎下部 左顎下部	施行せず	無
7	Temmel ら ⁹⁾	1998	18歳 女性	左顎下部 (胃粘膜下) (膀胱)	施行せず	無
8	自験例	1998	65歳 女性	右顎下部 舌下部 舌根部	腺腫様甲状腺腫	無

かし欧米では悪性化した症例は21例の報告¹⁹⁾があり、悪性化の頻度は約100例中1例とされている²⁰⁾。悪性化については、寺師ら²¹⁾は、未発達な異所性甲状腺が長期間のTSHの過剰刺激のため腺腫様の変化をとり、ひいては悪性化をもたらすと考えることができると述べている。自験例の病理組織は腺腫様甲状腺腫であり、表1で示した症例1, 3でコロイド様甲状腺腫、症例2で濾胞状甲状腺腫、症例4で結節性甲状腺腫、症例5で過形成という結果で、組織検査の記載のあった症例6例(症例1～5, 8)中5例で腺腫様の変化をきたしていた。これらの症例においては長期間のTSHの過剰刺激状態にあった可能性はある。

Turcot²²⁾, Wilkins²³⁾は悪性化の可能性がある限り、異所性甲状腺は摘出した方がよいとしている。しかし、それが唯一の機能性甲状腺組織の場合は、摘出により甲状腺機能低下は必発であるので、摘出するか保存的に経過をみるか、慎重に検討しなければならない。今回の症例では、術前の画像所見などから第一に右顎下腺腫瘍を疑ったが、異所性甲状腺を疑うことはなかった。表1で示した自験例を除く組織検査の記載のあった5例においても、1例(症例5)で術前のFNAで甲状腺組織が疑われ、摘出とならなかったが他の4例では摘出後にはじめて甲状腺組織であることがわかった。

今後はきわめてまれであるが、顎下部にも異所性甲状腺が存在し得ることを念頭におく必要があり、頸部腫瘍の術前診断がはっきりしない場合、超音波エコー、CTなどを施行した際、常に甲状腺の存在を確認するなどの配慮をすべきと考えた。

ま と め

1. 右顎下部に認められた異所性甲状腺腫の1例を報告した。

2. 顎下部腫瘍ではきわめてまれであるが、異所性甲状腺腫である場合もあり、念頭におく必要があると思われる。

本論文の要旨は第61回耳鼻咽喉科臨床学会(平成11年, 大分)にて口演した。

参考文献

- 1) 加藤良平, 矢川寛一: 迷入甲状腺および稀な甲状腺腫瘍。内分泌外科 4 : 244～249, 1987.
- 2) Kaplan M, Kauli R, Lubin E, et al : Ectopic thyroid gland ; a clinical study of 30 children and review. J Pediatr 92 : 205～209, 1978.
- 3) Helidonis E, Dokianakis G, Papazoglou G, et al : Ectopic thyroid gland in the submandibular region. J Laryngol Otol 94 : 219～224, 1980.
- 4) Alsop JE, Yerbury PJ, O'Donnel PJ, et al : Signet ring cell microfollicular adenoma arising in a nodular ectopic thyroid ; a case report. Oral Pathol 15 : 518～519, 1986.
- 5) Aguirre A, de la Pierda M, Ruiz R, et al : Ectopic thyroid tissue in the submandibular region. Oral Surg Oral Med Oral Pathol 71 : 73～76, 1991.
- 6) Morgan NJ, Emberton P and Barton RPE : The importance of thyroid scanning in neck lumps ; a case report of ectopic tissue in the submandibular region. J Laryngol Otol 109 : 674～676, 1995.
- 7) Smbola-Cabrer I, Fernandes-Real JM, Ricart W, et al : Ectopic thyroid tissue presenting as a submandibular mass. Head Neck 18 : 87～90, 1996.
- 8) Sironi M, Assi A, Andruccioli M, et al : Submandibular ectopic thyroid gland. Clin Nucl Med 21 : 585, 1996.
- 9) Temmel AFP, Baumgartner WD, Steiner E, et al : Ectopic thyroid gland simulating a submandibular tumor. Am J Otolaryngol 19 : 342～344, 1998.
- 10) 安部治彦, 小林武夫: 舌根部と舌下部に発生した異所性甲状腺の1例。耳喉 54 : 357～364, 1982.
- 11) 高橋 姿, 川名正博, 五十嵐秀一, 他: 異所性甲状腺を示した2症例。耳喉 54 : 637～640, 1985.
- 12) 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 : 754～759, 1985.
- 13) Dudley JW and Willard P : Lingual thyroid ; review, case reports, and therapeutic guidelines. Ann Otol Rhinol Laryngol 86 : 841～848, 1977.
- 14) 橋本禎介, 久保敦司, 橋本省三: 甲状腺シンチグラフィにより発見された異所性甲状腺の20例。臨放 33 : 357～363, 1988.
- 15) Mamdouh G : The role of thyroid dysgenesis and maldescent in the etiology of sporadic cretinism. J Pediatr 60 : 830～835, 1962.
- 16) Katz AD and Zager WJ : The lingual thyroid ; its diagnosis and treatment. Arch Surg 102 : 582～585, 1971.
- 17) Montgomery ML : Lingual thyroid ; a comprehensive review. West J Surg Obstet Gynec 43 : 661～669, 1935.
- 18) Montgomery ML : Lingual thyroid ; a comprehensive review. West J Surg Obstet Gynec 44 : 54～62, 122～128, 189～195, 237～247, 1936.
- 19) Fish J, Robert M, Moore RM, et al : Ectopic thyroid tissue and ectopic thyroid carcinoma ; a review of the literature

- and report of a case. *Ann Surg* **157** : 212~222, 1963.
- 20) Jarvis JF : Lingual thyroid ; a report of three cases and discussion. *S Afr Med J* **43** : 8~12, 1969.
- 21) 寺師浩人, 大原義雄, 林鐘 学, 他 : 異所性甲状腺の存在が疑われた正中頸嚢胞の経験. *形成外科* **31** : 948~954, 1988.
- 22) Turcot J : Lingual and hyoid thyroid. *Am J Surg* **104** : 677~681, 1962.
- 23) Ward GE, Cantrell JR and Alann WB : Lingual and other

aberrant thyroids. *The Diagnosis and Treatment of Endocrine Disorders in Childhood and Adolescence* 2nd ed (ed by Wilkins L). pp 152, Charles C Thomas, Springfield, Illinois, 1952.

(原稿受付 : 平成12年 3 月 6 日
原稿採択 : 平成12年 4 月19日
別刷請求先 : 藤垣聖雄
〒500-8705 岐阜市司町40
岐阜大学医学部耳鼻咽喉科学教室)