甲 状 舌 管 乳 頭 癌 例

坂部亜希子・宇高 毅・平木 信明・若杉 哲郎
北村 拓朗・得居 直公・鈴木 秀明

A Case of Papillary Carcinoma Arising from
Thyroglossal Duct Cyst

Akiko Sakabe, Tsuyoshi Udaka, Nobuaki Hiraki, Tetsuro Wakasugi,
Takuro Kitamura, Naokimi Tokui and Hideaki Suzuki

(University of Occupational and Environmental Health, School of Medicine)

A case of papillary carcinoma arising from a thyroglossal duct cyst is reported. A 43-year-old man was referred to our clinic with an anterior cervical mass. CT scan and MRI imaging revealed a ring-enhanced cystic mass in his anterior neck, while ultrasonography showed an irregular echo in the mass. He was pre-operatively diagnosed with thyroglossal duct cyst, and underwent resection of the mass by Sistrunk's procedure. Histopathological examination of the surgical specimen showed papillary carcinoma in the thyroglossal duct cyst. Because the histological findings indicated that the tumor had been completely resected, no additional treatment was given. His postoperative course was uneventful, and the patient is currently free from disease 3 years after surgery.

It is known that carcinoma, mostly papillary carcinoma, occurs more frequently in thyroglossal duct cysts than in the ordinary thyroid gland. Ultrasonography is a sensitive and useful method for detecting calcified lesions for the diagnosis of this disease. The epidemiology and clinical characteristics of papillary carcinoma associated with thyroglossal duct cyst were reviewed in the literature.

Key words : papillary carcinoma, thyroglossal duct cyst, computed tomography, ultrasonography, calcification

はじめに

甲状腺原基から生ずる代表的な病態として異所性甲状腺と甲状舌管嚢胞がある¹⁾。異所性甲状腺は甲状腺原基の下降・気管前への定着障害が原因であり、甲状舌管嚢胞は甲状舌管の閉鎖・消失障害に起因する甲状舌管遺残組織から発生する。甲状舌管は甲状腺の発生過程に形成される上皮性管腔物であり、通常、胎生第6週には消失するが、遺残した場合嚢胞を形成することがある¹⁾。甲状舌管嚢胞は一般的に正中頸嚢胞と呼ばれており、ほとんどは良性の嚢胞性疾患であるものの、時に悪性腫瘍を合併することがあり、その術前診断には注意が必要であ

る。今回われわれは、甲状舌管遺残組織から発生したと考えられた乳頭癌症例を経験したので、その病態について考察するとともに甲状舌管癌の術前診断における画像検査の意義について検討したので報告する。

症 例

患者：43歳、男性。

主訴：前頸部腫瘍。

既往歴：特記すべきことなし。

家族歴：特記すべきことなし。

現病歴：2001年3月26日頃に前頸部腫瘍に気づき、3

月 29 日近医内科を受診した。同院にて甲状腺腫瘍を疑われ精査・加療依頼にて同年 4 月 3 日, 当科外来に紹介受診となった。

初診時所見: 前頸部正中よりやや左側に直径 20 mm 大の表面平滑, 弾性硬, 無痛性の腫瘍を触知した。甲状腺や頸部リンパ節の腫脹はなかった。その他, 耳鼻咽喉科領域には明らかな異常を認めなかった。

検査所見: 血液学的所見では白血球 9,800/ μ l (好中球 66.2%, リンパ球 23.5%, 単核球 8.1%, 好酸球 1.8%, 好塩基球 0.4%), 赤血球 4.75×10^5 / μ l, ヘモグロビン 15.0 g/dl, 血小板 23.4×10^6 / μ l, CRP 1.7 mg/dl であった。甲状腺機能検査では, T3 1.44 ng/ml, T4 8.3 μ g/dl, TSH 1.20 μ U/ml, 血中サイログロブリン値は 10 ng/ml といずれも正常範囲内であった。

画像所見: 超音波検査にて前頸部に一部石灰化を疑わせるような不均一な内部エコーを有する嚢胞状腫瘍が示された (図 1)。造影 CT 検査では, 甲状腺に異常所見はなく, 甲状腺と離れた位置の甲状軟骨左板腹側に, 辺縁のみ淡い造影効果が認められる筋よりやや低吸収を示す径 12 mm の腫瘍陰影が存在した (図 2)。腫瘍と舌骨および甲状軟骨との境界は明瞭で, 辺縁は整, 内部はやや不均一であるものの明らかな石灰化は描出されなかつ

図 1 超音波検査所見
前頸部に不均一な内部エコーを有する嚢胞状腫瘍が存在する。

た。MRI では, T1 強調画像で不均一な淡い高信号であり, T2 強調画像では強い高信号を示した (図 3)。以上の所見より甲状舌管嚢胞を第一に考え, 2001 年 6 月 18 日に腫瘍摘出術を施行した。

手術所見: 前頸部に襟状切開を加え, 前頸筋を縦に切断すると腫瘍が出現した。腫瘍と甲状腺とは離れて存在した。腫瘍の一部が甲状軟骨と癒着していたため甲状軟骨の軟骨膜を付けて切除し, 上方に延びる索状物および舌骨体を含め摘出した。摘出標本を図 4 に示す。摘出後, ただちに腫瘍を切断して内部を観察したところ充実性部分と嚢胞様部分が存在し, 充実性部分には微小な石灰化が複数認められた。充実性部分を術中迅速病理検査に提出したところ乳頭癌との診断が得られた。充実性部分は肉眼的に被膜の内部にとどまっており, 甲状軟骨との癒着部についても軟骨膜を含めて切除したことで十分な切除範囲が得られたものと判断し手術を終了した。

病理組織所見: 弱拡大像にて乳頭状に増殖する腫瘍組織がみられ (図 5a), 強拡大像でスリガラス状の核や重積した核が認められた (図 5b)。以上より高分化型乳頭癌との診断となった。なお索状物と甲状軟骨に癒着していた部分は甲状腺組織であり, 悪性所見は認められなかった。

術後経過: 術後経過は良好で, 2001 年 6 月 27 日に退院となった。術後 3 年経過した現在, 再発の徴候なく外

図 2 造影 CT 所見
甲状軟骨左板腹側に, 辺縁のみ淡い造影効果を示す径 12 mm の筋よりやや低吸収を示す腫瘍陰影が存在する (矢頭)。

図3 MRI 所見

T1 強調画像で不均一な淡い高信号を, T2 強調画像で強い高信号を示す腫瘍陰影が存在する。

来にて経過観察中である。

図4 摘出標本

舌骨(*)と腫瘍(#)とが索状物でつながっている。

考 察

甲状舌管嚢胞は、通常、良性の嚢胞性疾患であるが時に悪性腫瘍を合併することがある。LiVolsi ら²⁾ は甲状舌管遺残疾患 371 例中癌の発生は 7 例 (1.9%) であったことを報告しており、そのうち 95% の組織型は乳頭癌であったと述べている。本邦における甲状腺癌の有病率は、人口 10 万人あたり 120~630 人 (0.12~0.63%) であり、そのうち 80~90% が乳頭癌であったと報告されている³⁾。すなわち両者を比較すると、通常の甲状腺癌に比べて甲状舌管遺残組織からの癌の発生率は 3~16 倍程度高いことが示される。

乳頭癌を合併した甲状舌管嚢胞について国内における報告例を中央医学雑誌で検索したところ、1987 年以降 17 症例 (17 文献) を見いだすことができた。このうち術前診断において甲状舌管癌や甲状腺癌の転移などの悪性腫瘍合併を疑った例は 10 例 (59%) であり、残りの 7 例では術後の病理組織検査によりはじめて乳頭癌の併存が判明しており、文献的にもその術前診断の困難さが窺われる。

今回われわれは施行しなかったが、甲状舌管癌の術前診断においても通常の甲状腺癌と同様に穿刺吸引細胞診が術前診断に際しての有力な手がかりとなりうる⁴⁾。しかし一方で、偽陰性となる症例も多いため結局は術後の病理組織検査で確定診断を得ることが多いとする報告もみられる⁵⁾。前述した甲状舌管乳頭癌の報告例 17 例のうち、術前に穿刺吸引細胞診が施行されていたのは 10 例であったが、このうち Class III 以上であったものは 4 例 (40%) のみであり、その正診率は低い。正診率向上のためには、超音波検査ガイド下に穿刺吸引細胞診を行うことも有用と考えられる。

図5 病理組織所見 (HE 染色. a : $\times 100$, b : $\times 400$)

a : 乳頭状に増殖する腫瘍組織が認められる.

b : スリガラス状の核や重積した核が認められる.

甲状舌管嚢胞に癌の合併を疑わせる所見として, CT や超音波検査における嚢胞壁の肥厚や不整, 嚢胞内部における充実性病変や石灰化病変の存在が挙げられる⁶⁾⁷⁾. しかし, 嚢胞壁の肥厚や不整, 嚢胞内部の充実性病変については, 甲状舌管嚢胞内の炎症性変化が高度な症例でもみられることがあり⁶⁾⁷⁾, 必ずしも癌の合併に特異的な所見ではない. 一方, 石灰化病変の存在は癌の合併を強く示唆する所見と考えられている⁶⁾⁷⁾. Glastonbury ら⁶⁾は術前診断において, 通常の甲状舌管嚢胞 18 例ではいずれも石灰化がなかったのに対し, 甲状舌管癌では 6 例中 4 例で石灰化が認められたことを報告している. 前述した本邦報告例 17 例の画像所見を検討してみると, CT または超音波検査で石灰化が存在した症例は 8 例 (47%) であり, 従来の報告⁶⁾⁷⁾と同様に石灰化病変の存在は癌の合併を強く示唆する重要な所見と考えられる.

本症例では, 術前に表面平滑, 弾性硬, 無痛性などの臨床症状と, 超音波検査における嚢胞様病変の存在, CT および MRI で辺縁のみ造影効果が認めらる嚢胞様パターンを示していたことから甲状舌管嚢胞を第一に考えた. しかし, 前述した画像上の特徴を念頭において, 本症例での術前画像所見を再検討してみると, 超音波検査で石灰化を疑わせる内部不均一な充実性病変を伴っていたことより, 癌合併の可能性も考慮すべきであったと考えられた. 本症例でみられたような微細な石灰化は CT では

描出されないことがあり, むしろ超音波検査のエコーパターンによる診断の方が有用であると考えられる.

甲状舌管に発生する乳頭癌の生物学的悪性度は通常の甲状腺乳頭癌と同様に低悪性度と考えられるため, 腫瘍が局限しリンパ節転移を伴わない症例に対しては局所切除のみで十分とする意見が多い²⁾. 本邦報告例 17 例では全例で手術が行われており, うち 15 例は手術単独治療であった. 残りの 2 例はどちらも術後に乳頭癌合併が判明した症例であり, 手術に加えて化学療法または放射線外照射が併用されていた. 腫瘍内に局限した甲状舌管乳頭癌に対する標準的な術式は甲状舌管嚢胞と同様に, 舌骨を含めて腫瘍切除を行う Sistrunk 法であり, これにより一般的に良好な成績が得られている⁸⁾⁹⁾. なお, 両側リンパ節転移が認められた症例が 17 症例中 1 例あったが, Sistrunk 法に加えて頸部郭清術が行われ, 術後再発なく良好な経過を辿っている¹⁰⁾. また, 甲状舌管癌と甲状腺癌とが混在した症例が 1 例あり, Sistrunk 法に加えて甲状腺右葉切除と頸部郭清術が行われたが, 術後の病理組織検査により甲状腺内に癌は認められたものの, 頸部リンパ節に転移は認められなかった¹¹⁾. 他の 1 例で予防的頸部郭清術が施行されたが, 術後の病理組織診断にてリンパ節転移は認められなかった¹²⁾. 結局, これまでの国内報告例 17 例ではリンパ節転移陽性例が 1 例認められたものの, 遠隔転移, 局所再発および原病死は 1 例もなく,

甲状舌管乳頭癌の予後は良好であると推定される。今回の症例でも切除断端に悪性所見は認められず、良好な予後が期待される。しかし海外の報告では再発例も散見されるため⁹⁾¹³⁾、今後とも注意深い経過観察が必要と考えられる。

まとめ

甲状舌管遺残組織内の甲状腺組織から発生したと考えられた乳頭癌症例を報告した。本症例では術前に正中頸嚢胞と診断したが、術後の病理組織診断で嚢胞内に乳頭癌組織と正常甲状腺組織が併存したことより甲状舌管癌の診断にいたった。甲状舌管嚢胞においては、通常の甲状腺に比して統計的に癌の発生率が高いため術前診断に際しては注意を要する。診断にあたっては画像検査における石灰化病変の存在が重要な所見であり、その検出には超音波検査が有用と考えられた。

参考文献

- 1) Batsakis JG, EL-Naggar AK and Luna MA : Thyroid gland ectopias. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 105 : 996 ~ 1000, 1996.
- 2) LiVolsi VA, Perzin KH and Savetsky L : Carcinoma arising in median ectopic thyroid (including thyroglossal duct tissue). *Cancer* 34 : 1303 ~ 1315, 1974.
- 3) 小原孝男 : 甲状腺腫瘍. EBM 現代内科学 (黒川 清, 斎藤英彦, 矢崎義雄編). 1151 ~ 1154 頁, 金芳堂, 京都, 1997.
- 4) Yang YJ, Hagher S, Wanamaker JR, et al. : Diagnosis of papillary carcinoma in a thyroglossal duct cyst by fine-needle aspiration biopsy. *Arch Pathol Lab Med* 124 : 139 ~ 142, 2000.
- 5) Hilger AW, Thompson SD, Smallman LA, et al. : Papillary carcinoma arising in a thyroglossal duct cyst: a case report and literature review. *J Laryngol Otol* 109 : 1124 ~ 1127, 1995.
- 6) Glastonbury CM, Davidson HC, Haller JR, et al. : The CT and MR imaging features of carcinoma arising in thyroglossal duct remnants. *AJNR Am J Neuroradiol* 21 : 770 ~ 774, 2000.
- 7) Branstetter BF, Weissman JL, Kennedy TL, et al. : The CT appearance of thyroglossal duct carcinoma. *AJNR Am J Neuroradiol* 21 : 1547 ~ 1550, 2000.
- 8) Van Vuuren PA, Balm AJ, Gregor RT, et al. : Carcinoma arising in thyroglossal remnants. *Clin Otolaryngol* 19 : 509 ~ 515, 1994.
- 9) Pacheco-Ojeda L, Micheau C, Stafford N, et al. : Papillary carcinoma in thyroglossal duct remnants. *Eur Arch Otorhinolaryngol* 248 : 268 ~ 270, 1991.
- 10) Yamada H, Katoh A and Ishinaga H : A case of bilateral cervical lymph node metastasis of thyroglossal duct cancer. *Auris Nasus Larynx* 30 : 107 ~ 111, 2003.
- 11) 今井容子, 高崎かおり, 吉原俊雄, 他 : 甲状舌管遺残組織より発生した乳頭癌の一例. *耳喉頭頸* 69 : 318 ~ 321, 1997.
- 12) 光山昌珠, 中村義彦, 豊島里志, 他 : 術前に甲状腺癌のリンパ節転移と考えられた甲状舌管遺残組織より発生した乳頭癌の1例. *外科診療* 10 : 1537 ~ 1542, 1989.
- 13) Pribitkin EA and Friedman O : Papillary carcinoma in a thyroglossal duct remnant. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg* 128 : 461 ~ 464, 2002.

原稿受付 : 平成16年 6 月11日

原稿採択 : 平成16年 7 月21日

別刷請求先 : 鈴木秀明

〒807-8555 北九州市八幡西区医生ヶ丘1-1
産業医科大学医学部耳鼻咽喉科学教室