甲状舌管側枝より発生したと考えられた乳頭癌例

堀 龍介・土師 知行*

Papillary Carcinoma Arising from the Lateral Branch Remnant of the Thyroglossal Duct

Ryusuke Hori

(Nisi-Kobe Medical Center)

Tomoyuki Haji

(Kurashiki Central Hospital)

An 81-year-old man visited our hospital for a lateral neck mass outside the thyroid cartilage. Fine needle aspiration of the neck mass showed class V, papillary carcinoma, but thyroid class I. Total thyroidectomy and D2a neck dissection were performed, and histological diagnosis revealed papillary carcinoma of the neck mass, but, no tumor of the thyroid. In this case, the lateral neck mass was clinically diagnosed as primary papillary carcinoma arising from the lateral branch remnant of the thyroglossal duct.

Key words : papillary carcinoma, lateral branch remnant, thyroglossal duct

はじめに

甲状舌管遺残組織に発生する癌の報告は比較的少なく、本邦では1961年に野中¹⁾以来約50例が報告されている。それらのほとんどは前頸部正中線上にみられるが、今回われわれは左頸部腫瘍として発症した甲状舌管側枝の遺残より発生したと考えられるまれな乳頭癌を経験したので報告する。

症 例

患者：81歳、男性。

主訴：左頸部腫瘍。

既往歴：高血圧。

家族歴：特記すべきことなし。

現病歴：平成15年1月、排尿時に失神発作を認め、倉敷中央病院を受診し全身精査を行った。循環器内科・神経内科的には異常を指摘されなかったが、内科での精査の際、左頸部腫瘍を指摘され3月5日、耳鼻咽喉科・頭

頸部外科紹介となった。初診時左頸部に可動性不良の直径約3cm大の硬い腫瘍を認めた。甲状腺には腫瘍を触知しなかった。

血液検査：甲状腺ホルモン値は正常で、甲状腺自己抗体は陰性であった。サイログロブリン (Tg) は115.3と高値だった。

頸部単純CT所見：左頸部の甲状軟骨外側・胸鎖乳突筋 (SCM) 内側に約33×25mmの境界不明瞭な腫瘍を認めた。頸動脈・頸静脈との境界ははっきりしないが、甲状腺との連続性はなかった。また甲状腺には腫瘍性病変は認めなかった (図1)。

頸部MRI所見：左頸部の甲状軟骨外側・SCM内側に約31×21mmの境界不明瞭な腫瘍を認めた。甲状腺とは連続していなかった。T1単純強調画像ではやや高信号、T2強調画像ではやや低信号を呈し、腫瘍内に変性を伴っていた (図2)。

頸部超音波所見：左頸部に約22×18×25mmの内部

図1 単純CT所見（左：頸部腫瘍レベル，右：甲状腺レベル）

頸部腫瘍レベルではSCM内側に約33×25 mmの境界不明瞭な腫瘍を認めた。矢印は左頸部腫瘍。甲状腺レベルでは甲状腺に腫瘍性病変は認めない。

図2 MRI所見（左：T1強調画像水平断（単純），右：T2強調画像冠状断）

SCM内側に約31×21 mmの境界不明瞭な腫瘍を認めた。T1単純強調画像ではやや高信号，T2強調画像ではやや低信号を呈し，腫瘍内に変性を伴っている。矢印は左頸部腫瘍。

低エコーの腫瘍が描出された。しかし甲状腺内に明らかな腫瘍性病変は認めなかった。

甲状腺シンチグラム：左頸部腫瘍はタリウム（Tl）シンチグラムにて異常集積あり。甲状腺左葉はTlシンチグラムにてやや集積し、テクネシウム（Tc）シンチグラムにてやや欠損がみられた。Tl-Tcサブトラクションシンチグラムでは左頸部腫瘍と左葉に集積を認めた（図3）。

穿刺吸引細胞診：左頸部腫瘍からの検体では、核の集

塊・核溝・核内封入体のある細胞が認められclass V、乳頭癌疑いと診断された。穿刺した検体内にリンパ球は認められなかった（図4）。また、甲状腺左葉からも穿刺を試みたが、異型のない濾胞上皮が認められるのみでclass Iとの診断であった。

これらの結果から甲状腺には腫瘍を確認できないものの、微小な甲状腺癌が原発でそれが左頸部リンパ節に転移したものと考え、平成15年5月8日、甲状腺全摘術・

図3 甲状腺シンチグラム（左：Tl シンチグラム，右：Tl-Tc サブトラクションシンチグラム）
白矢印は左頸部腫瘍，黒矢印は甲状腺左葉。

図4 左頸部腫瘍の穿刺吸引細胞診（HE 染色，×200 倍）
核の集塊・核溝・核内封入体のある細胞が認められ class V，乳頭癌疑いと診断。穿刺した検体内にリンパ球は認められなかった。

左頸部郭清術を施行した。原発巣の部位が不明なこと，頸部の転移巣が周囲組織に浸潤していること，術後ヨード治療を行う可能性があること，Tg による術後の経過観察が容易に行えることを考えて甲状腺全摘術を選択した。また光山ら²⁾，篠原ら³⁾によると微小癌であっても転移巣の顕在化した症例は，腺内多発例が多いとして甲状腺全摘術を勧めており，やはり甲状腺全摘術が適当で

あると考えた。

手術所見：左葉は周囲との癒着が中程度であったが右葉には癒着はなかった。また術中甲状腺には触知する腫瘍はなかった。左頸部郭清は D2a 郭清（喉頭前・気管前・気管傍・甲状腺周囲・上内深頸・下内深頸の各リンパ節の郭清）を行った。内頸静脈・胸鎖乳突筋は切除，副神経は保存した。Va（上内深頸の尾側）領域では直径約 4 cm の腫瘍が頸動脈に強く癒着しており，頸動脈鞘ごと剥離摘出した。舌骨は保存した。甲状腺や舌骨，その他の構造物と連続はなかった。VI（下内深頸）領域のリンパ節を術中迅速病理に提出したところ乳頭癌との診断であった。反回神経は両側保存した。

摘出標本：甲状腺には明らかな腫瘍は触知しなかった。左頸部腫瘍は約 38×28×21 mm であった（図 5）。

病理所見：甲状腺を全割・連続切片にて検索したが（約 2 mm のスライス幅），腫瘍組織は認められなかった。左 Va 領域（左頸部）の腫瘍は大部分が腫瘍で占められており，辺縁も含めリンパ節構造は認められなかった。甲状腺類似の濾胞構造・乳頭状構造をとっており，スリガラス状の核・核内封入体・核溝が認められ典型的な甲状腺乳頭癌の所見であった（図 6）。胸鎖乳突筋にも浸潤像が認められた。

以上のことから甲状舌管内に存在した異所性甲状腺組織原発の甲状腺乳頭癌の可能性が考えられた。また腫瘍

図5 摘出標本（左：甲状腺全体像，右：左頸部腫瘍）

甲状腺には腫瘍は認められなかった。左頸部腫瘍は約 $38 \times 28 \times 21$ mm であった。

図6 左頸部腫瘍の病理写真（HE 染色， $\times 400$ 倍）

スリガラス状の核・核内封入体・核溝が認められ典型的な甲状腺乳頭癌の所見であった。辺縁も含めリンパ節構造は認められなかった。

が正中ではなく左頸部であったことより、甲状舌管側枝の遺残より発生したものではないかと推測された。

術後 Tg は速やかに低下し、再発を認めていない。

考 察

甲状腺原基は胎生第3週頃に第1鰓弓と第2鰓弓の間で発生し、やがて正中線上を下降し甲状舌管を形成する。胎生第4～7週にいたり甲状腺原基より遅れて発生した舌骨で上下に二分され、下方の先端が第1気管軟骨の位置まで達すると左右の甲状腺葉を形成する。胎生8週には甲状舌管は萎縮消失する。この甲状舌管の内腔が開存し続け、管腔の上皮組織が遺残し、そこに分泌が起これると嚢腫を形成する⁴⁾。また、甲状舌管には側枝が認められることがあり⁵⁾、側枝も消失せずに開存し続け分泌が

図7 腫瘍の位置

今回の症例での腫瘍の位置は◎で示す。（鈴木茂身，他：耳鼻臨床 75:722～727, 1982⁷⁾より引用）

起こると、側枝からも嚢腫を形成する可能性が考えられる。

この甲状舌管嚢腫内より発生する癌の頻度は少なく、長嶺ら⁶⁾の集計によると1.61%にすぎない。甲状舌管癌の発生部位は甲状舌管のどの高さにおいても発生する。鈴木ら⁷⁾の66症例の集計によれば、図7に示すように舌骨レベルから輪状軟骨レベルにかけて認められ、全くの正中は48例であるが、やや右よりが7例、やや左よりが11例あり、多少の偏位も認められるようである。この多少の偏位が、甲状舌管が下降する際に偏位したことによるものなのか、甲状舌管側枝から発生したものなのかは不明である。

甲状舌管遺残組織における癌の発生については、それが原発性なのか甲状腺に発生した癌のリンパ転移なのかの鑑別が問題になってくる。Nuttal⁸⁾やJudd⁹⁾は真の甲状舌管原発癌ではなく転移説を支持している。その理由として多くの症例で甲状腺自体の記載や検索が不十分であるため、甲状腺に原発癌が存在している可能性があるとしている。実際、犬山ら¹⁰⁾の報告によると甲状舌管癌と考えられ、同時に甲状腺摘出を行った24例中4例(16.7%)に、甲状腺組織内にも乳頭癌を認めている。Renardら¹¹⁾の報告でも43例中6例(15.1%)に甲状腺に乳頭癌を認めている。また甲状舌管原発なら乳頭癌など甲状腺

にみられる組織型でなく、上皮系の癌でなければならぬなどの点を挙げている。

しかし、しばしば甲状舌管壁中に異所性甲状腺組織が発見されていることも事実である。LiVolsiら¹²⁾は甲状舌管嚢腫 129 例中 80 例 (62%) に異所性甲状腺組織が認められたと述べている。この甲状舌管に遺残する異所性甲状腺組織より乳頭癌が発生する可能性は考えられる。また犬山ら¹⁰⁾、Renardら¹¹⁾の報告での甲状腺摘出を行った甲状舌管癌において、癌細胞が発見されたのは 15 ~ 16 % にすぎないともいえるので、このことから甲状舌管からの癌発生を否定することはできない。今回われわれの経験した症例では、左頸部腫瘍は頸部正中線上からはずれて甲状軟骨外側に認められたこと、左頸部腫瘍には乳頭癌が認められ、リンパ節構造は認められなかったこと、甲状腺全摘術を施行した上で甲状腺自体には連続切片にて癌組織は認められなかったことから、甲状腺から発生した乳頭癌が頸部リンパ節に転移したものではなく、甲状舌管側枝壁に存在していた異所性甲状腺組織から発生した乳頭癌の可能性が考えられた。本症例のように頸部正中領域から明らかにはずれており、甲状舌管側枝より発生した癌と考えられる報告は、われわれの渉猟しえた範囲内では吉田ら¹³⁾の報告を認めるのみである。今回の症例の治療としては甲状腺全摘術・左頸部郭清術を行ったが、VI リンパ節領域に転移も認められたため、今後再発・転移に注意していく必要があると考える。Tg は再発の発見に有用であるとされており¹⁴⁾¹⁵⁾、定期的な診察・画像検査とともに Tg の測定を頻回に行っていく予定である。

まとめ

1) 甲状舌管側枝の遺残より発生したと考えられたまれな乳頭癌の 1 例を経験した。

2) 81 歳男性で、左頸部腫瘍を主訴に来院した。画像診断や細胞診などから、甲状腺乳頭癌の頸部リンパ節転移と考え、甲状腺全摘術・左頸部郭清術を行った。

3) 病理組織所見にて左頸部腫瘍には乳頭癌が認められたがリンパ組織はなく、また全摘した甲状腺を精査したが癌組織は認められなかった。

4) 以上のことから甲状舌管内に存在した異所性甲状腺組織原発の甲状腺乳頭癌の可能性が考えられた。また腫瘍が正中ではなく左頸部であったことより、甲状舌管

側枝の遺残より発生したものではないかと推測された。

本論文の要旨は第 66 回耳鼻咽喉科臨床学会総会 (平成 16 年 6 月、青森市) にて発表した。

参考文献

- 1) 野中康弘 : 輪状軟骨の Osteochondrom を思わせた迷在性甲状腺乳頭状腺癌の 1 例. 耳喉 33 : 877 ~ 879, 1961.
- 2) 光山昌珠, 宮川 信, 伊藤淳一 : 頸部リンパ節転移で発見された甲状腺乳頭癌の検討. 甲状腺外科検討会抄録集 29 : 70, 1996.
- 3) 篠原尚吾, 山本悦生, 田邊牧人, 他 : 頸部転移巣から発見された甲状腺微小癌症例. 耳鼻臨床 92 : 779 ~ 783, 1999.
- 4) 中村 賢, 村上忠也, 中村兼一, 他 : 最近 6 年間に経験した先天性頸部嚢腫. 耳鼻 25 : 1145 ~ 1151, 1979.
- 5) 山田 隆, 細川正夫, 池田浩之, 他 : 正中頸嚢腫および瘻の臨床経験について. 旭川医誌 4 : 41 ~ 48, 1971.
- 6) 長嶺信夫, 宮城 靖, 正義之 : 甲状舌管遺残組織に発生した癌の 1 例—症例報告と文献例の検討—. 癌の臨床 22 : 793 ~ 797, 1976.
- 7) 鈴木茂身, 谷口郷美, 内田博也 : 甲状舌管遺残組織より発生した癌の 1 症例. 耳鼻臨床 75 : 722 ~ 727, 1982.
- 8) Nuttal FQ : Cystic metastasis from papillary adenocarcinoma of the thyroid with comments concerning carcinoma associated with thyroglossal remnants. Am J Surg 109 : 500 ~ 505, 1965.
- 9) Judd ES : Thyroglossal duct cysts and sinuses. Surg Clin North Amer 43 : 1023 ~ 1032, 1963.
- 10) 犬山幸子, 高橋 敬, 小津雷助, 他 : 甲状舌管遺残組織より発生したと考えられる乳頭状腺癌の 1 例および文献的考察. 耳喉 49 : 653 ~ 657, 1977.
- 11) Renard TH, Choucair RJ, Stevenson WD, et al. : Carcinoma of the thyroglossal duct. Surg Gyn Obst 171 : 305 ~ 308, 1990.
- 12) LiVolsi VA, Perzin KH and Savetsky L : Carcinoma arising in median ectopic thyroid (including thyroglossal duct tissue). Cancer 34 : 1303 ~ 1315, 1974.
- 13) 吉田篤正, 窪田哲昭, 賀来光寛, 他 : 甲状舌管癌の 1 症例. 耳喉 54 : 935 ~ 939, 1982.
- 14) 北尻真一郎, 金子賢一, 庄司和彦, 他 : 甲状舌管遺残組織に発生した乳頭癌例. 耳鼻臨床 91 : 715 ~ 719, 1998.
- 15) 山本一宏, 土師知行, 田中明子 : 甲状腺癌を合併した甲状舌管癌例. 耳鼻臨床 92 : 773 ~ 777, 1999.

原稿受付 : 平成 16 年 9 月 29 日

原稿採択 : 平成 17 年 1 月 12 日

別刷請求先 : 堀 龍介

〒651-2273 神戸市西区糀台 5-7-1

西神戸医療センター耳鼻咽喉科