乳児の口蓋垂に発生した類表皮嚢胞の1例

布施 佑磨・小林 淳二・山本 泰

A case of epidermoid cyst of the uvula in an infant

FUSE Yuma · KOBAYASHI Junji · YAMAMOTO Hiroshi

Abstract: We report a case of epidermoid cyst arising in the uvula of a 9-month-old male infant. The patient visited our pediatric department because of a common cold, and a tumorous mass of the uvula was detected. He was referred to our department. Clinical examination revealed a yellowish white projection measuring 9 × 9 × 9 mm at the tip of the uvula. There was no problem with movement of the uvula. The clinical diagnosis was a benign cyst, and the lesion was excised under intravenous sedation. It was diagnosed to be an epidermoid cyst.

Key words: uvula (口蓋垂), epidermoid cyst (類表皮嚢胞), infant (乳児)

緒 言

類皮嚢胞および類表皮嚢胞は胎生期における外胚葉性組織の陥入、あるいは外傷、炎症、手術などによる上皮の迷入により発生する嚢胞である¹⁾。口腔領域では口底部やオトガイ下部、頬部などに発生するが口蓋垂に発生することは非常にまれである^{2,3)}。今回我々は乳児の口蓋垂に発生した類表皮嚢胞の1例を経験したので、若干の文献的考察を加えてその概要を報告する。

症 例

患 者：9か月、男児。

初 診：2013年6月。

主 訴：口蓋垂の腫脹。

既往歴：特記事項なし。

家族歴：特記事項なし。

現病歴：2013年6月に発熱と感冒様症状のため当院小児科を受診。軟口蓋の腫脹を指摘され精査加療目的に当科紹介受診となる。

現 症：

全身所見：身長74cm、体重8.5kg、体温38.6℃、栄養状態は良好。

口腔内所見：口蓋垂先端部に境界明瞭で球状の腫瘤を認めた。腫瘤は弾性軟、表面平滑でやや黄白色であった(写

真1)。明らかな嚥下障害は認めなかった。

臨床検査：血液検査ではCRP 0.52mg/dLと炎症マーカーの軽度上昇を認めた以外に異常は認められなかった。

臨床診断：口蓋垂嚢胞。

処置および経過：RSウイルス感染による発熱ならびに全身状態の回復後、静脈内鎮静下での切除手術を予定した。小児科担当医との相談により切除が短時間でできること、また挿管チューブによる病変の接触が危惧されたため静脈内鎮静下での手術とした。嚢胞は口蓋垂の先端部に位置していたため、口蓋垂の先端部を結紮切断し嚢胞を一塊として切除した。術中の呼吸状態に異常は認めなかった。覚醒後は入院加療とし呼吸状態の管理に努めた。術後は口蓋垂の変形も認めず、経口摂取も良好であり8か月を経過した現在でも再発、機能障害は認めていない(写真2)。

切除標本所見：大きさは9×9×9mm、表面平滑で黄白色の球状であった(写真3)。

病理組織学的所見：扁平上皮の壁に構成された嚢胞状の病変であり、内腔には変性・剥離した上皮成分が充満していた。また、嚢胞壁には皮膚付属器官は認められなかった(写真4)。

病理組織診断：類表皮嚢胞。

考 察

類皮嚢胞および類表皮嚢胞は、身体各部に発生する嚢胞で、肛門、卵巣などの軟組織に好発し、頭頸部領域では比較的まれであり、その発生率は1.6%から6.9%とされている¹⁾。口腔領域での好発部位は口底部、オトガイ下部とされており^{2,3)}、口蓋垂における報告例は国内外でも非常に

千葉西総合病院口腔外科

(主任：小林淳二部長)

Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Chibanishi-General Hospital (Chief: Dr. KOBAYASHI Junji)

受付日：2014年1月21日

採択日：2014年4月22日

写真1 初診時の口腔内写真

口蓋垂先端部に表面平滑でやや黄白色の境界明瞭の腫瘍を認める。

写真2 術後8か月の口腔内写真

再発や軟口蓋の機能障害は認めない。

少なく、我々の渉猟し得た限りでは自験例も含めわずかに12例^{4~11)}のみであった(表1)。年齢は、新生児~1歳4か月、性別は、男児7例、女児4例、不明1例、大きさは、

写真3 切除標本写真

球状で弾性軟、大きさは9×9×9mmであった。

写真4 病理組織像(H-E染色, ×100)

裏層上皮に被われた嚢胞壁と内部に貯留した角質物ないし錯角化が認められる。

4~10mmまでであり、自験例においても過去の報告と同様であった。

本嚢胞の発生要因としては、先天的な胎生期における外胚葉の嵌入、あるいは後天的な炎症、外傷などによる上皮組織の迷入によると考えられている。口蓋垂に発生したものに関しては、自験例を含めたこれまでの報告でも年齢は新生児から1歳前後とすべて2歳までに発見され、病変の大きさはすべて10mm以下と比較的小さいことから先天的要因である胎生期の口蓋突起癒合時の外胚葉組織の嵌入により病変が形成されたと推察された。

臨床症状は、一般に無症状で緩慢に発育するが、口腔内で増大した例では嚥下障害や構音障害が認められる場合もある¹²⁾。今回渉猟し得た12例でも無症状は7例^{4, 6~10)}、いびき・嚥下障害がそれぞれ2例^{8, 11)}、哺乳量の減少が

表1 口蓋垂に発生した類表皮嚢胞の報告例

	報告年	著 者	性 別	年 齢	大きさ (mm)	症 状	治 療
1	1966	Ito ら ⁴⁾	女	1歳4か月	7×7×8	無症状	手 術
2	1984	Pruszewicz ら ⁵⁾	不明	新生児	不明	哺乳量減少	手 術
3	1986	Yoshinari ら ⁶⁾	女	1歳	6×4	無症状	手 術
4	1991	中島ら ⁷⁾	男	11か月	6	無症状	摘 出
5	1998	Seshul ら ⁸⁾	男	1歳	10×10	いびき	手 術
6	1998	Seshul ら ⁸⁾	男	1歳	5	嚥下障害	手 術
7	1998	Seshul ら ⁸⁾	男	3か月	5	無症状	手 術
8	1998	藤村ら ⁹⁾	男	11か月	6×5, 5×5	無症状	切除・摘出
9	2002	Mu ら ¹⁰⁾	男	新生児	4×4	無症状	切 除
10	2002	Mu ら ¹⁰⁾	女	1か月	5×5	無症状	自然破裂
11	2006	小林ら ¹¹⁾	女	1歳	5×5	いびき・嚥下障害	切 除
12	2013	自験例	男	9か月	9×9×9	無症状	切 除

1例⁵⁾であった。小林ら¹¹⁾は、いびきや嚥下障害の他に仰臥位にて喘鳴を伴う上気道閉塞の所見を認めたと報告している。本嚢胞は、出生時や感冒症状出現時に小児科などを受診した際、偶然発見されることがほとんどであるが、たとえ医療機関を受診することがなく経過しても口蓋垂という上気道の中心部に発生しているため、哺乳量の減少や呼吸狭窄音といった何らかの臨床症状が出現することで比較的早期に病変が発見されていると考えられた。

治療法は、摘出手術が一般的である。口蓋垂に発生した症例に関して Mu ら¹⁰⁾は、自然破裂したことを報告しているが、その他は全例、切除もしくは摘出手術が施行され良好な経過をたどっている。口腔内に発生した無症状のものであれば経過観察することも考慮すべきであると考えられるが、自験例では母親が処置を希望したこと、構音機能の発達時期が比較的近かったことから切除手術を施行した。手術後も自験例を含め全例において再発や機能障害を認めることなく経過している。臨床症状があった場合は無論のことながら、自験例のように臨床症状を認めない例においても、遅くとも1歳6か月までには摘出手術を施行することが、構音障害を発生させないために望ましいのではないかと考えられた。

本嚢胞は、まれに組織の残存により再発した例¹³⁾も報告されているため、今後も定期的な観察を行う予定である。

結 語

今回我々は乳児の口蓋垂に発生した類表皮嚢胞の1例を経験したので報告した。

本論文に関して、開示すべき利益相反状態はない。

引 用 文 献

- 1) New GB and Erich JB : Dermoid cysts of the head and neck. Surg Gynecol Obstet 65: 48-55, 1937.
- 2) 大野邦博, 曾田忠雄, 他 : 口腔領域の類表皮嚢胞 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.
- 3) 有村健二, 向井 洋, 他 : 過去 25 年間の類表皮嚢胞および類表皮嚢胞の臨床統計的観察. 日口外誌 38: 1441-1442, 1992.
- 4) Ito H, Nakajima T, et al : Epidermoidcyst of the uvula. Report of a case. Jpn Stomatol Soc 15: 89-92, 1966.
- 5) Pruszewicz A, Sobala M, et al : Case of epithelial cyst of the uvula situated in the nasopharynx in a newborn infant. Otolaryngol Pol 38: 529-531, 1984.
- 6) Yoshinari M and Nagayama M : Epidermoid cyst of the uvula. Report of a case. J Oral Maxillaofac Surg 44: 828-829, 1986.
- 7) 中島 建, 喜久田利弘, 他 : 口蓋垂に発現した類表皮嚢胞の1例. 日口外誌 37: 1868-1869, 1991.
- 8) Seshul M, Tseng E, et al : Isolated epithelial cysts of the uvula in children: a report of three cases. Ann Otol Rhinol Laryngol 107: 717-719, 1998.
- 9) 藤村義秀, 前田顕之, 他 : 小児の口蓋垂に二房性に発生した類表皮嚢胞の1例. 日口外誌 44: 217-219, 1998.
- 10) Mu SC, Sung TC, et al : Solitary epithelial cyst the uvula in the neonate: case reports and review of the literature. Pediatr Emerg Care 18: 93-94, 2002.
- 11) 小林千恵, 小原 裕, 他 : 口蓋垂に生じた類表皮嚢胞の1例. 大阪母子保険総合医療セ誌 22: 105-107, 2006.
- 12) 樋田謙二郎, 上原菊次, 他 : 呼吸障害を伴った口底部類表皮嚢胞の1例. 日口外誌 29: 957-962, 1983.
- 13) 関本恵一, 大口忠彦, 他 : 顎骨を含む全身に多発した Epidermoid cyst の1例. 口科誌 21: 781-789, 1972.