舌後方正中部に発生した異所性粘液嚢胞の1例

奥 結 香¹⁾・鈴木 正 二¹⁾・勅使河原睦¹⁾
菊池建太郎²⁾・草 間 薫²⁾・坂 下 英 明¹⁾

A case of mucous cyst due to heterotopic salivary tissue in the middle of the posterior of the tongue

OKU Yuka¹⁾・SUZUKI Seiji¹⁾・TESHIGAWARA Mutsumi¹⁾
KIKUCHI Kentaro²⁾・KUSAMA Kaoru²⁾・SAKASHITA Hideaki¹⁾

Abstract: Mucous cysts derived from heterotopic salivary tissue are rare, especially in the middle of the posterior of the tongue. We treated a case of mucous cyst that arose in an ectopic salivary gland in the middle of the posterior of the tongue. We report this case together with a literature review. A 21-year-old woman was referred to our hospital because of a painless swelling in the middle of the posterior of her tongue. Magnetic resonance imaging showed a well-circumscribed ovoid mass. The lesion extended from the posterior of the tongue to the left side of the floor of the mouth under the mucous membrane. A clinical diagnosis of a thyroglossal duct cyst was made, and the Sistrunk operation was performed. The pathological diagnosis was a mucous cyst. The patient's postoperative course was uneventful, and there were no signs of recurrence during the 24-month follow-up period.

Key words: heterotopic salivary tissue (異所性唾液腺), mucous cyst (粘液嚢胞), middle of the posterior of the tongue (舌後方正中部)

緒 言

異所性唾液腺，とくに舌後方正中部における腺組織に由来する粘液嚢胞は非常にまれである。今回われわれは，舌後方正中部の異所性唾液腺に発生した粘液嚢胞の1例を経験したので，その概要を若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

患 者：21 歳，女性。
初 診：2013 年 8 月下旬。
主 訴：舌後方正中部の腫瘍の精査。
既往歴：鉄欠乏性貧血。
家族歴：特記事項なし。
現病歴：片頭痛のため A 病院脳外科を受診し，MRI 検査

で舌後方正中部に T2 強調像で高信号の境界明瞭な病変を指摘され，B 病院口腔外科を受診した。同科から当科を紹介され受診した。

現 症：

全身所見：体格中等度で栄養状態は良好であった。

口腔外所見：頸部の腫脹，自発痛，嚥下痛，およびその他自覚症状は認めなかった。

口腔内所見：舌後方に明らかな腫瘍は視認できず，正常粘膜色であり，舌下小丘からの唾液の流出，性状に異常は認めなかった(写真 1)。

超音波検査所見：舌中隔よりやや左側よりで，顎舌骨筋より内側に近接した舌後方部付近に境界明瞭，辺縁整のやや楕円形で，内部均一無エコー，後方エコー増強を示す 19.4×14.0×12.4mm 大の嚢胞様病変を認めた(写真 2)。

¹⁾ 明海大学歯学部病態診断治療学講座口腔顎顔面外科学分野 2

(主任：坂下英明教授)

²⁾ 明海大学歯学部病態診断治療学講座病理学分野

(主任：草間 薫教授)

¹⁾ Second Division of Oral and Maxillofacial Surgery, Department of Diagnostic and Therapeutic Sciences, Meikai

University School of Dentistry (Chief: Prof. SAKASHITA Hideaki)

²⁾ Division of Oral Pathology, Department of Diagnostic and Therapeutic Sciences, Meikai University School of Dentistry (Chief: Prof. KUSAMA Kaoru)

受付日：2015 年 10 月 22 日

採択日：2016 年 4 月 26 日

MRI 所見：舌中隔よりやや左側よりで、顎舌骨筋より内側に近接した舌後方部付近に $21 \times 15 \times 13\text{mm}$ 大の境界明瞭な病変を認めた。T1 強調画像で低信号 (写真 3a, c, e), および T2 強調画像で高信号 (写真 3b, d, f) を示した。

甲状腺 I-123 シンチグラフィー所見：甲状腺への集積は正常範囲内で集積形態は正常であり、明らかな異所性甲状腺

写真2 初診時超音波画像

境界明瞭、辺縁整であり、内部均一無エコー、後方エコー増強を示す $19.4 \times 14.0 \times 12.4\text{mm}$ 大の嚢胞様病変を認める。

腺集積は認めなかった。

臨床診断：甲状舌管嚢胞。

処置および経過：既往歴の鉄欠乏性貧血については乾燥硫酸鉄を処方し改善を図ったうえで、2013年12月下旬、全身麻酔下に Sistrunk 法による摘出術を施行した。すなわち、オトガイ下部で皺線と平行に広頸筋の深さまで7cm 皮膚切開を行い、剥離を進めた。舌骨に達したら舌骨体に付着する顎舌骨筋、胸骨舌骨筋および甲状舌骨筋を切離し、舌骨中央部を2cm 幅で切離した。なおこの際、舌動脈、舌下神経を損傷しないように注意した。切離した舌骨の一部を前方に牽引しながら、舌骨背面の筋肉を付着させつつ、切離した舌骨の大きさから舌盲孔部へ向かって徐々に嚢胞大に剥離をすすめてゆき嚢胞を摘出する、いわゆるくりぬき法を行った。舌骨周囲に索状物は認めなかった。しかし、嚢胞から舌盲孔付近に癒着を認めたため、嚢胞に周囲組織を付着させて、舌盲孔直下にて結紮した (写真 4a, b)。死腔を縮小するために陰圧持続吸引を留置のうえ、舌骨に付着する筋肉は密に縫合した。術直後は心電図、血圧計、およびパルスオキシメーターを装着のうえ、酸素を5L/分 で吸入し呼吸管理を行った。SpO₂の低下はなく翌日にモニター管理を終了した。

摘出標本所見：舌骨を含めて $50 \times 30 \times 30\text{mm}$ 大の嚢胞様病変であり、断面にて、嚢胞内腔にはやや粘稠な淡白色

写真3 初診時MR画像

a: T1 強調画像 (水平断) c: T1 強調画像 (冠状断) e: T1 強調画像 (矢状断)

b: T2 強調画像 (水平断) d: T2 強調画像 (冠状断) f: T2 強調画像 (矢状断)

舌後方部正中やや左側よりの粘膜下に $21 \times 15 \times 13\text{mm}$ 大の境界明瞭な病変を認め、T1 強調画像で低信号 (a, c, e), および T2 強調画像で高信号 (b, d, f) を示す。

透明な内容物を認めた。

病理組織学的所見：全体像では、舌骨体部中央 1/3 と、それに連続した筋組織および単発性嚢胞様病変を認めた (写真 5a)。嚢胞は薄い肉芽と厚い線維性結合組織の壁で

写真1 初診時口腔内写真

舌後方に明らかな腫瘍は視認できず、正常粘膜色であり、舌下小丘からの唾液の流出、性状に異常は認めない。

写真4 術中写真

- a: 舌骨周囲に索状物は認めない (矢印)。
b: 嚢胞から舌盲孔付近の間に癒着を認める (矢頭)。

構成され、裏装上皮は認めなかった。嚢胞内腔には、粘液様液状物が充満し、多数の泡沫細胞浸潤を伴っていた。嚢胞周囲には、拡張導管 (矢頭) や流出障害像を示す唾液腺類似の腺房組織 (矢印) を認めた (写真 5b, c)。

以上の所見から、病理組織学的には異所性唾液腺から発生した粘液嚢胞と診断した。

病理組織学的診断：粘液嚢胞 (溢出型)。

写真5 病理組織像

- a: 全体像 (H-E 染色, 42×20mm 大) 舌骨体部 1/3 と、それに連続した筋組織および単発性嚢胞様病変を認める。
b: 弱拡大 (H-E 染色, スケールバー = 500 μm)
c: 弱拡大 (H-E 染色, スケールバー = 100 μm)

嚢胞裏装上皮は認めず、嚢胞壁は薄い肉芽と厚い線維性結合組織で構成されている。嚢胞状拡張を示す導管 (矢頭) や流出障害を伴った腺房組織を認める (矢印)。嚢胞内腔には粘液様液状物が充満しており、多数の泡沫細胞浸潤を認める。また甲状腺濾胞やリンパ組織は認めない。

考 察

粘液嚢胞は、唾液の流出障害によって生じる嚢胞であり、口腔軟組織に発生する嚢胞では最も多い¹⁾。舌下腺に由来する口底に生じる大きなものはラヌーラ、前舌腺に由来する舌尖部に生じたものはBlandin-Nuhn嚢胞と呼ばれる。下唇、口底、および舌に好発し、小唾液腺および大唾液腺に由来することが多いが、異所性唾液腺にも関連して発生し得る²⁾。自験例では、舌根部に存在する後舌腺あるいはエブネル腺由来の可能性も考えられた。後舌腺は舌根部と舌縁後部の粘膜下に分布する厚さ約8 mmの粘液腺であり、エブネル線は有郭乳頭、葉状乳頭の直下に分布する漿液腺である³⁾。口腔内に明らかな腫瘍が存在しないことや、MRI所見、および術中所見で舌筋内に存在することから上記由来とは断定できなかった。以上より、後舌腺の深部より発生し、舌筋内に進展した可能性を完全には否定できないものの、胎生期に何らかの原因で唾液腺が舌筋群内に迷入した、いわゆる異所性唾液腺から嚢胞化した可能性が考えられた。われわれが渉猟し得た限りでは、自験例の他に、Gudbrandssonら⁴⁾やShigematsuら⁵⁾が異所性唾液腺に関連して粘液嚢胞が発生したと報告している。

異所性唾液腺は、その腺組織の分泌機能と排泄管の有無から一般に副唾液腺と迷入唾液腺に分類されている。分泌機能を営み排泄管を有するものを副唾液腺、そうでないものを迷入唾液腺としている²⁾。異所性唾液腺の多くは頸部下方1/3の胸鎖乳突筋前縁に沿って存在するとされている^{6,7)}。また、固有の大唾液腺の近くに存在する場合もあるが、脳下垂体、扁桃、中耳、喉頭、下顎骨のような離れた部位において発見された症例もある^{2,5)}。自験例では明らかな排泄管を認めなかった。

粘液嚢胞の成因としては、導管の閉塞あるいは流出障害による粘液の貯留、導管の損傷による周囲軟組織への唾液の溢出とされている¹⁾。その原因として、粘液腺、または舌下腺の先天的閉塞¹⁾、歯の萌出による外傷⁸⁾、咬傷、歯と粘膜との過大な接触による刺激¹⁾などが因子として挙げられる。自験例では発生部位から上記の因子が考えられないほか、交通事故等の外傷の既往もなかった。一方、甲状舌管の周囲組織に粘液腺が存在することがあり⁹⁾、その粘液腺から嚢胞が発生するとの報告がある¹⁰⁾。発生部位から、自験例は甲状舌管につながる粘液腺から発生した可能性が考えられた。しかし、明らかな甲状腺組織およびリンパ組織を認めなかったことから確証は得られなかった。

粘液嚢胞は、病理組織学的に嚢胞腔内を裏装する上皮の有無から、溢出型と停滞型に分類されている。溢出型は、何らかの原因により、唾液腺や導管が破綻をきたし周囲軟組織へ唾液が漏出し生じるものであるとされている。また、停滞型は、何らかの原因で導管が拡張し、そのなかに粘液

が貯留して形成されると言われている。自験例では、摘出標本の断面にて嚢胞腔内に粘液様物質を認めた。嚢胞壁は厚い線維性結合組織から成り、内腔には泡沫細胞および粘液様液状物質を認めた。また、嚢胞壁に近接して混合腺を認め、導管の拡張および腺房の流出障害を示し溢出型と考えられた。なお、無症状で長期間にわたり病変が存在していたため、表在性のものと比較して線維性被膜が厚くなったと考えられた。

舌後方に発生した粘液嚢胞の鑑別疾患としては、甲状舌管嚢胞、類皮嚢胞、類表皮嚢胞、リンパ上皮性嚢胞、脂肪腫、異所性甲状腺、および甲状腺腫瘍などが挙げられる⁴⁾。自験例では、臨床所見および画像所見から、類皮嚢胞、類表皮嚢胞、脂肪腫やリンパ上皮性嚢胞との鑑別は容易であった。異所性甲状腺については、甲状腺I-123シンチグラフィにより異所性甲状腺集積がないことを確認し、甲状腺腫瘍については、Free-T3、Free-T4およびTSHが正常値であったことから否定された。甲状舌管嚢胞は、甲状舌管の残遺に由来し¹¹⁻¹³⁾、胎生期の甲状腺峡部と舌盲孔との間のいずれの部位にも発生し得る^{13,14)}。自験例は、舌後方正中部からやや左側よりの粘膜下の境界明瞭な腫瘍として認識され、T1強調画像で低信号、T2強調画像で高信号を示したことから臨床診断を甲状舌管嚢胞とした。しかし、病理組織学的には粘液嚢胞であり、発生部位からまれな症例と考えられた。頸部の腫脹、自発痛、嚥下痛などの自覚症状はなく、臨床症状のみで診断することは容易ではなかった。

舌後方部軟組織内の粘液嚢胞の症例報告はなく、治療法も確立されていない。一般的に、甲状舌管嚢胞の手術法は、Sistrunk法であり¹⁵⁾、粘液嚢胞の治療法は、全摘出術および開窓術¹⁾、凍結療法¹⁾、薬物療法¹⁶⁾および吸引・圧迫療法などである。異所性唾液腺由来の粘液嚢胞については、頸部の異所性唾液腺から良性、悪性新生物が発生したという報告^{7,17)}があることから、手術法および予後観察には十分な注意が必要である。それゆえ、将来的な新生物の発生を防ぐためには異所性唾液腺組織などの周囲組織を含めた切除が推奨されている。自験例については、嚢胞に至る筋組織を付着させながら、嚢胞にも周囲組織を付着させて切除した。病理組織学的所見では、異所性唾液腺と考えられる小唾液腺類似の組織が切除されていることより、結果的に再発や新生物の発生の可能性は少ないと考えられた。このため、自験例においてSistrunk法を施行したことは適切であったと思われる。

現在、術後2年経過し再発の兆候は認めてない。しかし、舌後方部の異所性唾液腺から発生した粘液嚢胞についての症例が少ないことから、慎重に経過観察を行う予定である。

結 語

今回われわれは、舌後方正中部に発生し、術前に甲状舌管嚢胞と診断して Sistrunk 法を適用した異所性粘液嚢胞の 1 例を経験したので、その概要を若干の文献的考察を加えて報告した。

舌後方正中部の異所性唾液腺に粘液嚢胞が発生することは非常にまれであるが、鑑別疾患として挙げるべき疾患と考えられる。

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) 石田 恵：口腔粘液嚢胞性の臨床的ならびに組織学的研究。口病誌 47: 447-464, 1980.
- 2) 石川梧朗, 秋吉正豊, 他：唾液腺の病変。石川梧朗 監修；口腔病理学 II, 改訂版, 永末書店, 京都, 1982, 415-417 頁.
- 3) 上條雍彦：図説 口腔解剖学。第 1 版, アナトーム社, 東京, 1965, 1453-1454 頁.
- 4) Gudbrandsson FK and Liston SL : Heterotopic salivary tissue in the neck. Otolaryngol Head Neck Surg 90: 279-282, 1982.
- 5) Shigematsu H, Kitada M, et al : Mucous extravasation phenomenon due to heterotopic seromucous glands arising in a thyroglossal duct. POMS 18: 81-84, 2008.
- 6) Hwang S, Ahn SK, et al : Heterotopic salivary glands simulating bronchial cleft fistula in the lower neck. J

- Dermatol 23: 287-289, 1996.
- 7) Lind O and Bang G : Heterotopic salivary gland tissue in upper neck. Int J Oral Surg 12: 201-203, 1983.
- 8) 左坐春喜, 篠原正徳, 他：唾液腺粘液嚢胞の臨床統計的検索。日口外誌 28: 1545-1550, 1982.
- 9) 柳澤 稔, 棚野晃秀：甲状舌管嚢胞—甲状舌管の基本的走行と手術法—。耳鼻臨床 105: 587-598, 2012.
- 10) 小泉 洸, 福井奈緒子, 他：成人に発生した口腔底甲状舌管嚢胞例。耳鼻臨床 補 129: 96-99, 2010.
- 11) Miyaji M, Sakashita H, et al : Thyroglossal Duct Cyst: Report of Case. Jpn J Oral Dig/Oral Med 9: 435-438, 1996.
- 12) 鈴木 円, 坂下英明, 他：舌下面正中に腫大を示した甲状舌管嚢胞の 1 例。日口外誌 50: 430-433, 1998.
- 13) 須賀則幸, 馬越誠之, 他：嚢胞腔内に小石灰化粒を認めた甲状舌管嚢胞の 1 例。日口外誌 59: 776-780, 2013.
- 14) 齋藤喜一郎, 坂下英明, 他：多房性甲状舌管嚢胞の 1 例。日口外誌 44: 780-782, 1998.
- 15) Sistrunk WE : A technique of removal of cysts and sinuses of the thyroglossal duct. Surg Gynecol Obstet 46: 106-109, 1928.
- 16) 時崎 洋, 高森基史, 他：OK432 局所注入による小児の Blandin-Nuhn 嚢胞の治療経験。小児口外 13: 17-19, 2003.
- 17) Ferlito A, Bertino G, et al : A review of heterotopia and associated salivary gland neoplasms of the head and neck. J Laryngol Otol 113: 299-303, 1999.