口底部甲状舌管嚢胞の1例

大野康亮・石橋克礼・水野明夫・岩城 博・菅原晴美
中川茂美・清水正嗣・上野 正

Thyroglossal duct cyst of the floor of the mouth : Report of a case

Kohsuke OHNO・Katsunori ISHIBASHI・Akio MIZUNO・Hiroshi IWAKI
Harumi SUGAWARA・Shigemi NAKAGAWA・Masatsugu SHIMIZU・Tadashi UENO

緒 言

顎、口腔領域にはさまざまな嚢胞性疾患が発生する。口底部にみられるものには貯留嚢胞と皮様嚢胞がきわめて多く、他はまれである。

われわれは最近、3歳女児の正中舌下口底部に生じ、臨床的には皮様嚢胞を思わせる所見を呈し、摘出後の組織学的検索の結果、嚢胞壁に線毛円柱上皮を有する特異な像を示し、甲状舌管嚢胞と診断された1例を経験したので報告する。

症 例

患者：[REDACTED] 3歳5カ月、女性

初診：1973年3月[REDACTED]日

病歴番号：[REDACTED]

主訴：口底部の膨隆と発音障害

家族歴：祖母といとこ（各1名）に反対咬合、父に舌小帯異常があったという。

既往歴：2歳の時に水痘に罹患

現病歴：母親の言によると、出産直後から舌の挙上と哺乳障害とともに、口底の膨隆に気づいたという。3歳児検診の際、上記の膨隆を指摘され、某歯科大学口腔外科を紹介され、受診したところ穿刺吸引のみを受けた。しかし、症状の改善をみないので保健所と近医よりの紹介を得て当科を受診した。

初診時現症ならびに外来経過：全身所見に異常は認めなかったが舌の挙上と突出がみられ、正中舌下口底部に弾性軟の膨隆の存在が認められた。炎症症状はなく、ま

た所属リンパ節に異常は認められなかった。初診時所見にもとづいて臨床的に口底嚢胞（皮様嚢胞）と診断し、嚢胞摘出術の治療方針をたてた。

同年3月[REDACTED]日、言語治療室受診。言語機能所見では、サ行とザ行の構音は不明瞭であるが、他に異常は認められないとの報告を受けた。

入院時現症ならびに入院後の処置と経過：1973年5月[REDACTED]日入院。全身所見では体格中等度、栄養状態ならびに運動機能ともに良好。一般血検、血液生化学、尿、心電図、胸部X線写真ならびに内科的検査所見に、とくに異常は認められなかった。局所所見では顔色良好、顔貌は左右対称性であるが、下顎安静位で舌の突出と開口状態を呈した(写真1)。前歯部反対咬合がみられた(写真2)。

口を閉じて緊張させると、オトガイ下部に弾性硬のび慢性の軽度の膨隆を触れた。口腔内には舌下面から口底に及ぶ、正中を中心とする鶏卵大の膨隆がみられ、この

写真1 術前、顔正面像

下顎安静位で、歯列弓からの舌の突出と開口状態がみられる。

東京医科歯科大学歯学部第1口腔外科学教室

(主任：上野正教授)

First Department of Oral Surgery, School of Dentistry,
Tokyo Medical and Dental University

(Chief: Prof. Tadashi Ueno)

受付 昭和49年4月1日

写真2 術前, 頭部側面X線像
反対咬合がみられる。

ために舌が著明に挙上され, いわゆる二重舌の様相を示した。触診では緊張感のある弾性軟で, 被覆粘膜は健康色を呈し, 一部に静脈の拡張がみられた。被圧縮性, 勃起性ならびに炎症症状はみられなかった。采状ヒダ, 舌下ヒダおよび舌小帯の一部は不明瞭, しかし舌下小丘は明瞭で唾液の分泌を認めた(写真3)。舌の前方運動は充分可能であった。所属リンパ節には腫脹などの異常所見は認められなかった。各種方向より撮影されたX線写真の結果, オトガイ下部の膨隆に相当する部分にとくに異

写真3 術前, 正中舌下口底部所見。開口時
正中舌下口底部に大きな膨隆がみられる。

常所見はなかった(写真2)。

入院後, 穿刺吸引したところ約 3ml の帯黄淡褐色のやや粘稠な, しかし非牽縷性の内容液が容易に得られ, その位相差顕微鏡所見及び塗抹標本の Papanicolaou 染色所見では, 大部分は小顆粒状の本態不明の物質で, 一部には上皮性の細胞が見られたが, コレステリンを思わせる結晶性物質の存在は認められないとの報告を受けた(戸塚盛雄博士)(写真4)。

写真4 内容液の塗抹標本のPapanicolaou
染色像

大部分は小顆粒像の物質で, 一部に上皮性の細胞がみられる。

同年5月■日, 経鼻挿管, GOF全身麻酔下で, 口腔内より嚢胞の摘出手術を行った(執刀清水)。まず正中舌下口底部の膨隆のほぼ中央に, 水平に, かつ歯列にはば平行に粘膜切開を加え, 鈍的に剥離しながら嚢胞の露出をはかり, 途中嚢胞壁の損傷があったため, 内容液が約 20ml 流出したので壁を絹糸で数針縫合後, 嚢胞を一塊として全摘した。その際嚢胞壁の上方は, 舌背粘膜直下に及び, 後方は舌盲孔付近, さらに下方は口底筋群に癒着していることを認めた。

摘出後, 手術創を消毒し, 筋層をカットグートにて縫合し, Penrose ドレーンを1本挿入し, これを舌下面に絹糸で縫いつけ, 粘膜縫合は絹糸にて行った後, 最後以後出血の予防のために, 舌下面から舌背にかけて周囲縫合(括弧縫合)を1針行なって手術を終了した。なお嚢胞の舌下腺ならびに顎下腺との関連はみられなかった。

術後経過は順調で, 7日目に全抜糸し, 6月■日に軽快退院した。

摘出物所見: 類球形で重量は約 5g。剖面での所見は, 上方は薄く, 他は厚い軟組織の壁よりなり, 部分的にその上に筋組織の付着が見られ, 嚢胞壁の内面は灰白色を呈し, 内容液のぬけた後の腔内は空で, 袋状であった(写真5)。

摘出物の病理組織学的所見: 嚢胞壁の内面の大部分は重層扁平上皮で被覆されているが, 部分的には線毛円柱

写真 5 摘出物矢状断面所見

写真 8 嚢胞壁の写真6のㇿ印の部分×100

嚢胞壁は線毛を有する円柱上皮によって被れている。

上皮の被覆もみられた。上皮の下層は結合組織および筋組織で、円形細胞浸潤のみられるところもあり、皮様嚢胞とは異なる嚢胞で、本学口腔病理学教室石川梧朗教授により甲状舌管嚢胞と診断された(写真6, 7, 8)。

退院後の経過：退院後は外来通院下で術後経過の観察を続けているが、術後約6カ月目、同年11月■の所見では、創部は良好な治癒経過を示していた。母親によると術前とは異なり夜間熟睡できるようになったという。顔貌では舌の突出、挙上などによる開口状態は全く消失し、口腔内では正中舌下口底部の膨隆はみられず、舌下小丘からの唾液の分泌は正常にみられた。また舌運動も著明に改善されており、良好であった(写真9)。

写真 6 摘出物の全割の所見×2

ㇿ印の部分の嚢胞壁の内面は線毛円柱上皮によって被れているが(嚢胞の後上方部)、他の大部分には非角化性の重層扁平上皮による被覆がみられる。(ㇿ印は写真8の部位)

写真 9 術後6カ月目、口腔内所見。開口時正中舌下口底部の膨隆は消失している。

写真 7 嚢胞壁の一部×40

嚢胞壁の内面の大部分は非角化性の重層扁平上皮によって被れている。

言語機能所見では、サ行の構音の著明な改善が認められ、またザ行の構音にはまだ問題点があるが、それは年齢的なもので時間の経過とともに改善されるものと考えられるとの報告を受けた(言語治療士伊東節子)。

考 察

甲状腺舌管嚢胞は、胎生期の甲状腺舌管の遺残に由来する嚢胞で、甲状腺と舌盲孔との間の部分に生じ、多くはオトガイの下部で舌骨付近の正中頸部にみられるが、ときには口底部や舌根部に生ずることもある。そして自然にあるいは2次的感染によって外表、あるいは口腔に交通をきたし、瘻孔を生ずることがまれでないといわれている¹⁾。

欧米では、甲状腺舌管の異常(嚢胞と瘻)については従来より比較的多くの報告がなされている^{2)-6), 13)-18)}。

Bailey²⁾は117例の甲状腺舌管の異常を報告し、そのうち舌に3例(2例は剖検例)、口底に6例の甲状腺舌管嚢胞がみられたが、その他はオトガイの下部に生じたという。Gross³⁾は198例の甲状腺舌管の異常中、舌根部の嚢胞を3例みとめ、また Ward^{4), 5)}は105例中4例を舌にみとめたが、それ以外はオトガイの下部であったとしている。

一方本邦では、赤松⁹⁾は75体の剖検例中、舌根部嚢胞を3例、舌骨付近の嚢胞を10例認めたと報告している。執行⁷⁾、大橋⁸⁾、古川⁹⁾、大谷¹⁰⁾、田縁¹¹⁾、大守¹²⁾などにより舌根部および口底部甲状腺舌管嚢胞の少数例の報告がなされている。本例は比較的にまれな口底部甲状腺舌管嚢胞であった。

本例では前歯部反対咬合が認められたが、その成因は遺伝性であるか(祖母といとこに反対咬合がある)、あるいは生下後すでに舌の挙上を認めたという母親の言葉から、本嚢胞の増大による下顎骨の過剰前方発育によるのかは決定しがたい。本例では嚢胞摘出と同時に、齶蝕のために残根あるいはそれに近い状態であったD4Dを抜去した。その後、小児歯医によりほぼ正常咬合に復し、審美的、機能的改善がなされている。

発症年齢については、生下時より老年期におよび、最高年齢は Marshall¹³⁾の75歳との報告がある。Clute¹⁴⁾は甲状腺舌管の異常58例中、10歳未満には5%しかなかったという。しかし Bailey²⁾は117例中10歳未満には56%、Ward^{4), 5)}は105例中60%、Marshall¹³⁾は310例中46%、Stahl¹⁵⁾は88例中55%にみられ、さらに Gross³⁾は小児病院での198例中6歳未満に76%認められたと報告している。

本邦報告例では嚢胞の存在は出生直後から9歳頃までに気づかれることが多く、また初発症状から初診までの期間は短い場合では約1年、最長では43年の長期におよんでいた。

本例では母親の言によると、生下時すでに嚢胞が存在していたと考えられ、初発症状から初診までの期間は約3年であった。田縁¹¹⁾も生下時に本嚢胞が存在していた症例を報告している。Clute¹⁴⁾の甲状腺舌管の異常58例中2%、Marshall¹³⁾の310例中0%、Stahl¹⁵⁾の90例中6%、Pollock¹⁶⁾の100例中2%が生下時にみられたと報告して

いる。

性差については、Pemberton¹⁷⁾は293例中、男性66.2%、女性に33.8%と男性に約2倍多いとし、一方 Bailey²⁾は117例中、男性36%、女性に64%、同じく Clute¹⁴⁾は66例中、男性37%、女性に63%といずれも女性に約2倍多いとしている。しかし性差はほとんど認められなかったという報告も多い^{4), 16), 18)}。

本例は女児であった。われわれの調べた範囲内では舌および口底部甲状腺舌管嚢胞の本邦9例中男性7例、女性に2例であった。

嚢胞の内容液は淡黄色、粘稠で、コレステリン結晶は含まないといわれており、本例でも同様の所見であった。しかし細胞学的観察の所見の報告は少なく⁶⁾、本例で観察された細胞成分は非角化性の上皮性細胞であることから、嚢胞内壁の被覆上皮よりの剥離細胞と考えられる。内容液は非牽縷性で、腔内には毛髪などの皮膚付属器はなかった。嚢胞の大きさは径2~3cm位のものが多く、古川⁹⁾は7×4.5×5cm、重さ91gの巨大な症例を報告している。本例では手術中の内容液の流出量が約20ml、摘出物の重量が5gであったことから摘出物の重量は約30gと推定した。

結 語

われわれは3歳女児の正中舌下口底部に発生した甲状腺舌管嚢胞を、口内法により全摘出し、術後9カ月の今日再発なく順調に経過しているので報告した。

病理学的検索に関しては、本学歯学部口腔病理学教室主任石川梧朗教授のご教示をいただいたことを記し、深甚なる謝意を表する。

本論文の要旨は、1974年5月25日の第99回日本口腔外科学会関東地方会において発表した。

文 献

- 1) 石川梧朗, 秋吉正豊: 口腔病理学Ⅱ, 永末, 京都, 1970, 864頁.
- 2) Bailey, H.: Thyroglossal cyst and fistulae. Brit J Surg 12: 579 1924.
- 3) Gross, R.E., et al.: Thyroglossal cysts and sinuses. New Eng J Med 223: 616 1940.
- 4) Ward, G.T., et al.: Thyroglossal tract abnormalities-cysts and fistulas. Surg Gyn and Obst 89: 727 1949.
- 5) Ward, G.T., et al.: Diagnosis and treatment of tumors of the head and neck. Williams & Wilkins Co, Baltimore, 1950, p 618.
- 6) 赤松純一: 本邦人に於ける甲状腺舌管残胎の研究, 附 之より発生する腫瘍及び瘻管に就いて. 大日本耳鼻科会報 24: 105 1918.
- 7) 執行作彌: 甲状腺舌管残胎の研究. 六日本耳鼻科会報 26: 623 1921.
- 8) 大橋二郎, 他: 頸毛上皮を有する特異なる口腔底嚢胞の1例. 口病誌 22: 50 1955.

- 9) 古川哲夫, 他 : 舌下部軟組織に発生した嚢胞性疾患の2例. 口科誌 20 : 152 1971.
 - 10) 大谷隆俊 : 口底部にみられた頰毛上皮嚢胞の1例. 日口外誌 11 : 26 1965.
 - 11) 田縁昭一, 他 : 臨床的に先天性ガマ腫と診断された甲状舌管遺残性嚢胞の1例. 日口外誌 18 : 366 1972.
 - 12) 大守明久, 他 : 舌下部正中部にあらわれた甲状舌管嚢胞の1例. 口科誌 22 : 267 1973.
 - 13) Marshall, S.F., et al. : Thyroglossal cysts and sinuses. Ann Surg 129 : 642 1949.
 - 14) Clute, H.M. : et al. : Thyroglossal cysts and sinuses. Ann Surg 92 : 57 1930.
 - 15) Stahl, W.H., et al. : Cervical cysts and fistulae of thyroglossal tract origin. Ann Surg 139 : 123 1954.
 - 16) Pollock, W.F., et al. : Cysts and sinuses of the thyroglossal duct. OS OM and OP 112 : 225 1966.
 - 17) Pemberton, J.D., et al. : Cysts, sinuses and fistulae of the thyroglossal duct. Ann Surg 111 : 950 1940.
 - 18) Sistrunk, W.E. : The surgical treatment of cysts of the thyroglossal tract. Ann Surg 71 : 121 1920.
-