嚥下障害を伴った巨大な口底類表皮嚢胞の1例

西嶋 克巳・石田 利広・長嶋駿一郎
前田健一郎・和気 和也・元井 信*

**A case of large epidermoid cyst of the floor of the
mouth following difficult in swallowing.**

Katsumi NISHIJIMA・Toshihiro ISHIDA・Shunichiro NAGAHATA
Kenichiro MAEDA・Kazuya WAKE・Makoto MOTOI*

緒 言

類皮嚢胞あるいは類表皮嚢胞は外胚葉の嵌入により生ずる嚢胞で、口腔領域に発生することは比較的少ないといわれている¹⁾。その嚢胞壁が皮膚様の組織、すなわち、表皮と皮膚付属器から成るものを類皮嚢胞、単に数層の表皮に被われたものを類表皮嚢胞と呼ぶ¹⁾。

今回我々は、口底部に発生した巨大な類表皮嚢胞で嚥下障害を伴った稀有な症例を経験したので報告する。

症 例

患 者：27才、男性

初 診：昭和45年9月 日

主 訴：舌下部の無痛性腫脹と、それに伴う発音ならびに嚥下障害。

家族歴、既往歴：特記事項なし

現病歴：約6年前より舌下部中央にクルミ大無痛性腫脹を認めるも放置。その後、腫脹は徐々に増大し、約1年前には舌が挙上され、言語障害ならびに嚥下障害を招くようになった。約6カ月前より、腫脹部は下顎全歯をおおい、咀嚼時に腫脹部辺縁を咬むようになったため来院。

現症

全身所見：体格、栄養は良好で、特記事項なし。

局所所見

口腔外所見：おとがい下部より両側顎下部にかけ腫脹を認めた。左顎下リンパ節に小豆大2個、右顎下リンパ節には小指頭大1個と小豆大1個を触知したが、リンパ節

写真1 術前側貌

写真2 口腔内

岡山大学医学部口腔外科学教室（主任：西嶋克巳教授）
*岡山大学医学部第2病理学教室（主任：小川勝士教授）
Department of Oral Surgery, Okayama University
Medical School (Chief: Prof. Katsumi Nishijima)
2nd. Department of Pathology, Okayama University
Medical School* (Chief: Prof. Katsuo Ogawa)
受付：昭和50年12月29日

は可動性、弾性軟で、圧痛は認められなかった(写真1)。

口腔内所見：舌下部に小児手拳大の腫脹を認め、その腫脹により舌は挙上され、後方に押しやられていた。嚢胞表面に歯による圧痕が認められたが、表面粘膜色は正常で、触診により粘膜と嚢胞との癒着は認められなかった(写真2)。下顎前歯部は嚢胞によると思われる歯間離開を認めたが、咬合状態は正常であった。また腫脹のため、舌運動、嚥下および発音障害を認めた。

臨床検査成績：血液検査結果は表1に示したとおりであり、血清蛋白検査、尿検査および他の内科的検査には異常を認めなかった(表1)。

表1 血液検査

赤血球数	581×10 ⁴ /mm ³
血色素量	16.4g/dl
色素指数	0.88
白血球数	10500
白血球像	
好中球	{ 杆状核 5% 分葉核 56%
好酸球	1%
好塩基球	2%
単球	5%
リンパ球	31%
栓球数	18.6×10 ⁴
出血時間	3分30秒
ヘマトクリット	44%

写真4 摘出物

写真5 摘出物割面

写真3 嚢胞摘出中

臨床診断：類皮嚢胞

処置および経過：G-O-F 全身麻酔のもとに、嚢胞正中部の口腔粘膜に縦切開を加え、嚢胞壁を破らぬように注意して、一塊として摘出した(写真3)。嚢胞は、舌下部より左右顎二腹筋の間にみられ、周囲組織を圧迫していた。術後の経過は良好で、術前にみられた舌運動、嚥下および発音障害も徐々に改善され、12日後退院し、現在まで再発はみられない。

摘出物所見：大きさは、小児手拳大(8.0×5.3×5.3)cmの卵円形を呈し、血管に富んだ被膜でおおわれていた。内容物は、軟泥状、帯黄灰白色、バター状物が充満していた(写真4, 5)。

組織学的所見：嚢胞壁は、部位により多少その巾に広狭の差はあったが、ほぼ一様に数層の重層扁平上皮から成り、その基底部には紡錘形の基底細胞が並び、嚢胞内面には層板状の角化物質を有していた。粘膜下結合組織は、ごく軽度のリンパ球浸潤が散在性に認められたが、巨細胞を伴う肉芽性炎症は認められなかった。しかも嚢胞壁には皮膚付属組織を欠如していた(写真6)。

以上の所見から、病理組織学的に類表皮嚢胞と診断された。

総括ならびに考察

類表皮嚢胞の成り立ちについては、一般に先天的なもの、すなわち、胎生期における外胚葉の迷入によって生ずると考えられており²⁾、口腔領域では主に口底部にみられる¹⁾。Bergmann³⁾によれば口底の大部分は、両側の第1、第2鰓弓の正中癒合部に上皮が嵌入して生ずるとされている。しかし、その嵌入する部位については未だ

写真6 病理組織像 H・E・染色

明らかでなく種々の説があるが、いずれも胎生学上からの推論にすぎず、確実な証明は困難である。また、Anderson⁴⁾ および Ackerman⁵⁾ は、外傷または炎症によって、外胚葉が内胚葉内に分離残存するために生ずることがあると述べている。

病理組織学的には、Meyer²⁾ の分類が一般に適用されており、Thoma & Goldman⁶⁾ もこれを支持している。すなわち、第Ⅰ型から第Ⅲ型に分類し、第Ⅰ型の類表皮嚢胞は、嚢胞壁は上皮によって裏装されているが、皮膚付属器がない場合。第Ⅱ型の類表皮嚢胞は、毛髪、毛嚢、皮脂腺、汗腺などの皮膚付属器が包含されている場合。第Ⅲ型の奇型嚢胞は、上述の皮膚付属器に加えて、中胚葉組織たとえば骨、筋、呼吸器系あるいは消化器系組織などが包含されている場合。以上のように分類しているが、口底においては、第Ⅰ型の類表皮嚢胞と第Ⅱ型の類表皮嚢胞に属するものが大半であると述べている。また Török⁹⁾ は、外胚葉の迷入時期によって差異が生ずるとし、早期に迷入すれば類表皮嚢胞、晚期に迷入すれば類表皮嚢胞を生ずると述べている。

類表皮嚢胞および類表皮嚢胞の頻度について、高橋、大西⁷⁾ は両者のうち類表皮嚢胞が約60%を占め、類表皮嚢胞や中間型よりもやや多かったと述べている。

性別発現率について、New & Erich⁹⁾ は103例中、男51%、女49%、また高橋、大西⁷⁾ は73例中、男43.7%、女56.3%、三村¹⁰⁾ は40例中、男42.5%、女57.5%と記しており、ほとんど性差はないようである。

年齢別発現率については、先天性嚢胞であるから、発生学的には胎生期に発生するべきものである。しかし、16才～35才位に嚢胞の発育するものが多い¹¹⁾。それについて Meyer²⁾ は、20才前後において表皮組織の活動が著しくなり、毛髪の発育や、汗腺、皮脂腺の活動も盛んになるためであろうと述べている。

発生部位に関しては、Bergmann³⁾ は嚢胞が顎舌骨筋上に位置するものを舌下型嚢胞、顎舌骨筋下にあるものを、おとがい下型嚢胞に分類し、萩崎¹²⁾ はこれに舌下より顎舌骨筋を超えておとがい下にわたる巨大なものを、舌おとがい下型嚢胞として加えている。本症例は、舌おとがい下型嚢胞であった。

嚢胞の大きさについては、New & Erich⁹⁾ は頭頸部領域において、103例中、4cm から10cm の種々の大きさが存在し、大きいものは口底部に存在すると報告している。本邦症例中では、萩崎¹²⁾ の12.0×8.0cm が最大とされ、次いで森¹³⁾ の10.0×8.0cm が報告されている。その他巨大なものとして野村ら¹⁴⁾ の8.5×8.0cm、新森、篠原¹⁵⁾ の6.1×4.3cm、長谷川ら¹⁶⁾ の4.9×4.4cm が報告されている。われわれの症例は8.5×5.3cm であり、その大きさの点で巨大な症例の一つであった。

一般に臨床的症状は、嚢胞の解剖学的位置と大きさに重要な関係があり、おとがい下型嚢胞では機能障害は著明ではないが、舌下型および舌おとがい下型では、大きくなると嚥下困難、発音障害、歯列弓拡大、歯牙前方傾斜、下顎前歯部の歯間離開等の症状を来す場合があり、Ivy & Curtis¹⁷⁾ は下顎前歯部の歯間離開を来した症例を報告している。本症例においても、下顎前歯部の歯間離開および舌運動、嚥下、発音障害を認めた。

手術方法は、口内法、口外法、両者併用法があり、この選択は嚢胞の位置、大きさによって決定される。口内法は、無菌の手術という点で不可能であり、口外法は、顔貌に醜形を残すが無菌的に手術ができるという点で一長一短がある。本例では、患者の希望、手術の容易であることを考慮し口内法で行った。

予後は一般に良好で、悪性化することはないとされている¹⁸⁾。しかし、Thoma & Goldman⁶⁾ は稀に癌性変化が起り、文獻的には1～6%で比較的高い頻度であるが、経験では0.5%程度であったと報じている。土井ら¹⁸⁾ は口底類表皮嚢胞において癌性変化を来したものは未だ報告が無いようであると述べており、私達が渉猟した範囲でもみられなかった。

再発については、完全摘出を行えば再発は起らないようである。

結 語

本症例は、27才男性における舌おとがい下型嚢胞で、病理組織学的には類表皮嚢胞であった。摘出物は8.0×5.3×5.3cm の卵円形で、内容物は軟泥状、帯黄灰白色

であった。

全麻にて口腔内より摘出手術を行い、予後は良好であった。

本論文の要旨は、昭和46年9月、第19回日本口腔外科学会九州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). 増補版, 永末書店, 京都, 1971 860頁.
- 2) Meyer, I.: Dermoid cysts (Dermoids) of the floor of the mouth OS. OM. OP 8: 1149 1955.
- 3) Bergmann, E.: Handbuch der praktischen Chirurgie. 4 Auf. Bd 1, Stuttgart, 1913, p. 976.
- 4) Anderson, W.D.D.: Pathology. Mosby Co, St Louis, 1957, p.1185.
- 5) Ackerman, L.V.: Surgical Pathology. Mosby Co, St Louis, 1953, p.94.
- 6) Thoma, K.H. and Goldman, H.M.: Oral Pathology, ed 5. Mosby Co, St Louis, 1960, p. 924.
- 7) 高橋庄二郎, 大西栄蔵: 口腔底皮様嚢腫の2例ならびに本邦文献による統計的観察. 歯科学報52: 62 1952.
- 8) Török: 高橋⁷⁾より引用
- 9) New, G.B. and Erich, J.B.: Dermoid cysts of the head and neck. Surg Gynec & Obst 65: 48 1937.
- 10) 三村房雄: 巨大なる口腔底皮様嚢腫症例 (付, 口腔底皮様嚢腫の統計的観察) 大日耳鼻 46: 862 1940.
- 11) 山下佐英, 他: 皮様嚢胞の11例. 日口外誌 19: 480 1973.
- 12) 萩崎為行: 巨大なる口腔底皮様嚢腫の1例, 耳喉 2: 562 655 1929.
- 13) 森 忠雄: 巨大なる口腔底皮様嚢腫の2例. 東洋歯科月報 5: 11 1924.
- 14) 野村 和, 他: 口腔底および頤下部に発生した巨大頬表皮のう腫の3症例. 久留米医学会誌 28: 1552 1965.
- 15) 新森彬博, 篠原寿宏: 頤下部に発生した巨大な表皮様嚢胞の1例. 日歯評論 316: 182 1969.
- 16) 長谷川明, 他: 乳児にみられた大きな口腔底皮様嚢胞の1例. 日口外誌 18: 187 1972.
- 17) Ivy, R.H. and Curtis, L.: Two cases of sublingual dermoid and a case of protrusion of mandible. Am J Orthodont & Oral Surg 31: 666 1945.
- 18) 土井 尚, 他: 頬部に発生した頬表皮嚢胞の1例. 日口外誌 18: 384 1972.