口底に発生した大きな類表皮嚢胞の1例

山田 隆一・富久尾明徳・清水 徹・小島孝司
山田あつ子・阿部 喜八・立松憲親・岡 伸光

A large epidermoid cyst of the floor of the mouth: Report of a case

Ryuichi YAMADA・Akinori FUKUO・Tohru SHIMIZU・Takashi KOJIMA
Atsuko YAMADA・Kihachi ABE・Norichika TATEMATSU・Nobumitsu OKA

緒 言

口腔領域に発生する類皮嚢胞および類表皮嚢胞は、胎生期、特に胎生3～4週における顔面、顎骨の形成時に各突起の融合部への上皮の嵌らないし遺残によって生じた一種の胎児性あるいは发育性の嚢胞性過誤腫であるとされている¹⁾。先天性のもの以外に、外傷、炎症のほか上皮組織の皮下への迷入などによって発生する後天性のものも考えられる。

口腔領域での発生部位は、口底のものが最も多く、大きさについてはクルミ大から小鶏卵大のものが多くと報告されている。われわれは、口底に発生した8.0×5.0×4 cm, 83 gの比較的大きな類表皮嚢胞の1症例を経験したので、その臨床経過とともに追加報告する。

症 例

患 者：[] 女性 20歳。

初 診：昭和51年3月 []。

主 訴：舌下部の腫脹。

既往歴：特記事項なし。

家族歴：母親44歳時に子宮癌摘出手術を受け、兄は肺結核にて現在入院中、弟は5歳時脳性小児麻痺に罹患している以外、特記事項なし。

現病歴：昭和49年に舌下部の腫脹および口腔内乾燥感を覚えるも放置、しかし昭和50年7月ごろより舌下部の腫瘍は漸次増大し、腫脹は正中オトガイ下部にまで達したために当科を受診する。

岐阜大学医学部口腔外科学教室（主任：岡 伸光教授）

Department of Oral Surgery, Faculty of Medicine, Gifu University (Chief: Prof. Nobumitsu Oka)

受付日：昭和52年8月23日

写真1 オトガイ下部に大鶏卵大の腫脹がみられる

現 症

全身所見：体格、栄養、発育ともに良好ではかに異常所見は認められない。

局所所見

口腔外所見：顔貌は左右対称で、正中オトガイ下部に大鶏卵大のびまん性の腫脹が認められ、自発痛、圧痛はなく、所属リンパ節の腫脹は触知しない(写真1)。

口腔内所見：開口障害はなく、両側舌下部にわたって40×30 mmの腫瘍が認められる。腫瘍は弾性軟で色調は粘膜色を呈し、表面は滑沢で自発痛、圧痛はない。また、腫瘍のため舌は挙上し、舌の運動障害および発音障害が認められた。歯牙には5|部にC₂程度のう蝕症と4|部咬合面にアマルガム充填処置がみられるほかは、異常はない(写真2)。

臨床検査成績：血液一般検査、尿検査、肝機能検査、電解質検査、呼吸機能検査、PSP検査はともに正常値範囲内で、心電図には異常は認められない。

臨床診断：類皮嚢胞。

処置ならびに経過：GOF 気管内挿管による全身麻酔下にて、口腔内より一塊として摘出した。術後経過良好で、舌の運動障害および発音障害も軽減した。

写真 2 舌下部の 40×30 mm の腫瘤

写真 3 8.0×5.0×4.0 cm の摘出物

摘出物所見

肉眼所見：嚢胞壁の色沢は赤褐色で、外形は長卵形を呈し、厚さ約 2 mm の強靱な結合組織様の嚢胞壁で被われていた。内容物は透明な粘稠の液体と、白色および黄白色のオカラ様物質であり、腐敗臭はなく、毛髪、爪、歯牙などは認められなかった。大きさは、8.0×5.0×4.0 cm で、重量は 83 g であった（写真 3）。

病理組織学的所見：本学中央検査室病理部門において切片を作製し、H-E 染色を施し、検鏡の結果、外層は結合組織で被われており、嚢胞内壁は数層の扁平上皮および扁平立方上皮によって被われ、その内側には剝離された角化物を認め、嚢胞壁には皮脂腺などの皮膚付属器官は認めなかった（写真 4）。

総括および考案

口腔領域に発生する類皮嚢胞、類表皮嚢胞は、他部に発生するものと同様に、胎生期に迷入した外胚葉から生じた奇形腫であり、発生に関して Mikulicz²⁾ が見解を述べて以来、多数報告されているが、組織由来についての定説は確立されていない。Bergmann³⁾ は両側の第 1、

写真 4 嚢胞壁の病理組織所見 (H-E 染色 ×40)

第 2 鰓弓の正中癒合部に上皮が嵌入して生ずるとしており、これに対し Colp⁴⁾ は口腔底類皮嚢胞の大部分は第 1 鰓弓と第 2 鰓弓とが癒合する際に、外胚葉が中胚葉内に迷入残留することにより生ずるが、一部は無対結節の異常埋没によると報告している。さらに Anderson⁵⁾、Ackerman⁶⁾ は外傷または炎症によって組織に分離残存した上皮からも類皮嚢胞が生じると述べている。病理組織学的には Meyer⁷⁾ の分類が一般に通用しており、Thoma⁸⁾、石川⁹⁾ もこれを支持している。すなわち嚢胞壁に皮脂腺、汗腺、毛髪、毛嚢などの皮膚付属器官を有する類皮嚢胞と、これら皮膚付属器官を有しない類表皮嚢胞と、さらにこれらの要素のほか骨、筋肉、血管、呼吸系組織、胃腸系組織を含む奇形様嚢胞の 3 つに分類している。

発生年齢については 16～30 歳といわれており、Meyer⁷⁾ は 20 歳前後において表皮組織の活動が著しくなり、構造が皮膚とほぼ同様の類皮嚢胞についても同じことがいえると述べており、従来よりの諸氏の統計的観察をみても 50～70% が 20 歳前後に発生している。本症例も 20 歳の女性であり諸氏の報告と一致している。1 歳未満の発生頻度はごくまれで、Meyer⁷⁾ は生後 2 日、深谷¹⁰⁾ は生後 50 日、Yoshimura¹¹⁾ は生後 4 か月、Hoo-ley¹²⁾ は生後 5 か月、Howell¹³⁾ は生後 7 か月、長谷川¹⁴⁾ は生後 11 か月を報告している。

発生部位についてみると、口腔領域における発現頻度は低く、New¹⁵⁾ は類皮嚢胞 1,495 例中、103 例 (6.8%) が頭頸部にみられ、そのうち 24 例 (1.6%) が口底にみられたにすぎないと述べており、諸氏の報告において頭頸部では主として、口底^{8,11~22)} にみられるが、頬部²³⁾、顎骨内^{24~27)}、舌にもみられるようである。

手術方法としてオトガイ下型に対しては口外法、舌下型に対しては口内法が用いられるが、いずれにしても単なる切開、穿刺などでは再発はまぬがれないとされており、完全摘出が必要である。われわれの症例は舌下型で

表 1

順位	報告者 (年)	大きさ (cm)	重量 (g)
1	萩 野 (1929)	12.0×8.0	
2	三 宅 (1952)	8×7×5	250
3	立 木 (1950)	11.0×6.5	220
4	森 (—)	10.5×4.5	175
5	高 橋 (1971)	7.5×5.5×5.0	114
6	本症例 (1975)	8.0×5.0×4.0	83

結 語

- 1) われわれは20歳、女性の、口底に発生した頬表皮嚢胞の1症例を経験した。
- 2) 嚢胞の大きさは8×5×4 cm で、重量83gであった。

本論文の要旨は第21回日本口腔外科学会総会において発表した。

文 献

- 1) 栗沢靖之：新編口腔病理学。下巻，第1版，金原出版，東京，1977，308頁。
- 2) Mikulicz, C.R.: Dermoid cysts of the floor of the mouth. Surg Gyn Obst 40: 183 1925.
- 3) 山下佐英，他：皮様嚢胞の11例。日口外誌 19: 480 1973 より引用。
- 4) Colp, R.: Dermoid cysts of the floor of the mouth. Surg Gyn Obst 40: 183 1925.
- 5) Anderson, W.D.D.: Pathology, Mosby, St Louis, 1957, p 1185.
- 6) Ackerman, L.V.: Surgical pathology, Mosby, St Louis, 1953, p 94.
- 7) Meyer, I.: Dermoid cysts of the floor of the mouth. Oral Surg 8: 1149 1955.
- 8) Thoma, K.H.: Oral pathology. ed 3, Mosby, St Louis, 197, p 463.
- 9) 石川裕朗，他：口腔病理学Ⅱ，第2版，永末書店，京都，1971，860頁。
- 10) 深谷昌彦，他：新生児にみられた口腔底皮様嚢胞の1例。口科誌 19: 213 1970.
- 11) Yoshimura, Y.: Congenital dermoid cyst of the sublingual region: report of case. J Oral Surg 28: 366 1970.
- 12) Hooley, J.R.: Sublingual dermoid cyst in an infant. Oral Surg 24: 715 1967.
- 13) Howell, W.E.: Sublingual dermoid cyst in infant: report of case. J Oral Surg 30: 437 1972.
- 14) 長谷川 明，他：乳児に見られた大きな口腔底皮様嚢胞の1例。日口外誌 18: 187 1972.
- 15) New, G.B.: Dermoid cyst of the head and neck. Surg Gyn Obst 65: 48 1937.
- 16) 高橋庄二郎，他：巨大な口腔底表皮様嚢胞の1例。日口外誌 17: 344 1971.
- 17) 鈴木 貢，他：口腔底の頬皮様嚢胞の1例。口科誌 19: 638 1970.
- 18) 馬場孝雄，他：口腔底表皮様嚢胞の1例。日口外誌 14: 98 1968.
- 19) 山下佐英，他：皮様嚢胞の11例。日口外誌 19: 480 1973.

あったので口内法により全摘出した。

口腔底頬皮嚢胞の大きさは梅突大から小児頭大まで種々報告されているが，最も多く報告されているのは30～40 g の鶏卵大のものである。萩野¹⁶⁾は12×8 cm，三宅¹⁶⁾は8×7 cm，250 g，立木¹⁶⁾は11×6.5 cm，220 g，森¹⁶⁾は10.5×4.5 cm，175 g，高橋¹⁶⁾は7.4×5.5 cm，114 g で今回のわれわれの症例は8×5×4 cm，83 g であり，これらに次ぐ比較的大きなものと考えられる(表1)。

内容物についてはオカラ様物質，粥状物の報告が多く，本症例もまた透明な粘稠の液体と白色および黄白色のトウフのカス様物質であり，腐敗臭はなかった。内容物の化学的性状については長谷川¹⁴⁾，鈴木¹⁷⁾，馬場¹⁸⁾らの報告があるが，本症例では検査していない。

鑑別診断としては口底，オトガイ下部の場合 Catone²⁸⁾は Cellulitis Cysts of Wharton's duct, Accessory gland mucocoeles, Cyst of Thyroglossal duct, Branchial cleft cysts, Hemangioma, Lymphangioma, Lipoma, Pleomorphic adenoma をあげており，顎骨内に発生した場合，塩田ら²⁶⁾は，エナメル上皮腫，濾胞性歯嚢胞，原始性嚢胞，正中嚢胞，鼻口蓋管嚢胞，外傷性骨嚢胞をあげ，また頬部に発生した場合，土井ら²³⁾は粉瘤，血管腫，リンパ管腫，線維腫，脂肪腫をあげている。

頬皮嚢胞および頬表皮嚢胞は発育が比較的緩慢で患者の苦痛が少ないため，長時間放置される傾向があり，腫瘤の増大に伴って，はじめて機能障害を自覚するケースが多い。特に口底においては，発音障害，言語障害，咀嚼障害，嚥下障害，呼吸困難，食物摂取困難，唾液分泌障害などが起こるが，本症例においても発音障害，唾液分泌障害，舌の運動障害などがあった。これらの障害は腫瘤の摘出により徐々に改善されてきた。

予後は一般に良好であり，悪性化することはないとされているが，Thoma⁸⁾は癌性変化はまれに起こるとし，宗村²⁹⁾は臀部に発生した頬表皮嚢胞の癌性変化を経験している。本症例は1年2か月を経ても，再発は認められないが，今後さらに経過を観察する予定である。

- 20) 松田 登, 他: 当科における軟組織に発生した頬表皮嚢胞, 頬表皮嚢胞17症例の概要. 口外誌 24: 109 1975.
- 21) Kinnman, J.: Dermoid cysts of the floor of the mouth: report of three cases. J Oral Surg 26: 190 1968.
- 22) Brown, C.A.: Dermoid cyst: report of case. J Oral Surg 30: 55 1972.
- 23) 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.
- 24) 曾田忠雄, 他: 下顎骨内に発生した Epidermoid cyst の1例. 口科誌 18: 810 1969.
- 25) 福田順子, 他: 顎骨内に発生した Epidermoid cyst の4例. 日口外誌 18: 612 1972.
- 26) 塩田重利, 他: 下顎骨内に多発性に発生した頬表皮嚢胞の1例. 口科誌 20: 168 1971.
- 27) Issa, M.A.: Dermoid cyst of the jaw. Brit dent J 131: 543 1970.
- 28) Catone, G.A.: Sublingual gland mucus-escape phenomenon-treatment by excision of sublingual gland. J Oral Surg 27: 774 1969.
- 29) 紙尾健二, 他: 眼窩より頭蓋腔に及ぶ巨大な表皮様嚢腫の1例. 耳鼻臨床 36: 643 1964.