2 個の小嚢胞を伴う舌下型皮様嚢胞の 1 例

佐藤 研一・額賀 康之・石山 信之・藤原 元幸

A case of dermoid cyst with two daughter cysts

Kenichi SATO・Yasuyuki NUKAGA・Nobuyuki ISHIYAMA・Motoyuki FUJIWARA

緒 言

口腔底に出現する嚢胞には、胎生残遺組織に由来するものとして皮様嚢胞、類皮様嚢胞、側頸嚢胞、甲状舌管嚢胞、貯溜嚢胞としてはガマ腫などがある。最近われわれは、舌下部の皮様嚢胞に 2 個の小嚢胞が随伴し、計 3 個の嚢胞を有する症例を経験した。口腔底皮様嚢胞に複数の小嚢胞が発現する例はきわめてまれであり、本邦文献では過去に 4 例をみるのみであった。組織学的にも興味深いものがあり、ここに詳細を報告する。

症 例

患 者：■■■■ 23 歳 男性 ■■■■。

初 診：昭和 49 年 8 月 ■■ 日。

主 訴：口腔底の腫脹。

家族歴：特記事項なし。

既往歴：特記事項なし。

現病歴：初診約 2 週間前に、勤務先の口腔検診により、口底部の腫脹を指摘されたが、それまで特に違和感はなかった。

現 症：体格栄養中等度、健康な男子で、臨床諸検査にも異常所見はみられなかった。顔貌は左右対称性で、オトガイ下部にも特に腫脹は認めなかった（写真 1）。開口障害もなく、口腔内をみると舌後退時に、舌下部中央に境界明瞭なクルミ大の腫脹が出現する。表在粘膜に特に炎症所見は認められず、粘膜下には抵抗軟弱な腫瘍をふれた。オトガイ下部を圧迫すると、舌下部に膨隆を増すが、圧痛も自発痛も認めなかった（写真 2）。

臨床診断：舌下部皮様嚢胞。

処置および経過：手術は両側下顎孔伝達麻酔および局所浸潤麻酔を用い、ワルトン氏管の損傷をさけて、舌下

写真 1 患者顔貌

写真 2 口腔内所見

部正中中に約 3 cm の縦切開を施し、粘膜下に嚢胞壁を露出した。さらに周囲の疎性結合組織を鈍的に剝離して菲薄な嚢胞壁を全面的に露出した。その際、主嚢胞の底部とわずかに線維性に連続している 2 個の小嚢胞がオトガイ舌骨筋の中間に互に独立して存在するのを認め、これ

千葉大学医学部歯科口腔外科学教室（主任：堀越達郎教授）

Department of Oral Surgery, School of Medicine, Chiba University (Chief: Prof. Tatsuro Horikoshi)

受付日：昭和 53 年 9 月 18 日

写真 3 摘出物肉眼所見
A : 主嚢胞, B, C : 小嚢胞

写真 4 摘出物病理組織学的所見

写真 5 格子状の数層の上皮被覆。線毛は認められない。

らも同時に摘出した。

手術創は 1 次的に縫合閉鎖した。経過は良好で、患者は 1 週間後に退院した。

摘出物の肉眼的所見：主嚢胞はほぼクルミ大で軟弱な抵抗を示し、その壁は菲薄である。

写真 6 嚢胞壁内の皮脂腺（下）

写真 7 小嚢胞の被覆上皮

写真 8 小嚢胞にみられた脂肪染色陽性の被覆上皮

内容物は、淡黄色でチーズ様の均一な性状を示していた。2 個の小嚢胞はそれぞれ直径 10 mm と 3 mm の球状の腫瘍で、外見は主嚢胞とほぼ同様であった（写真 3）。

病理組織学的所見：3 個の嚢胞の所見には、組織学的に多少の差異が認められた。主嚢胞の所見は、嚢胞壁の大部分の内面が角化扁平上皮でおおわれ、基底細胞層より角化に至る段階が明瞭に認められた（写真 4）。嚢胞

壁のこの部分には正常皮膚にみられる皮脂腺および汗腺、毛嚢などは存在しなかった。しかしこの扁平上皮は一部で漸次菲薄となり、ついにそれが消失する部分がみられた(写真5)。その部の嚢胞壁は1ないし数層の格子状の上皮細胞でおおわれていた。その上皮層の直下には皮脂腺と思われる組織があり、嚢胞壁を被覆する上皮と形体、染色性等により密接な関係があることが推定された(写真6)。また2個の小嚢胞の内面は、同様に1〜3層の格子状上皮細胞によりおおわれ、かつ主嚢胞と異なり扁平上皮は認められなかった。この細胞は大型で数石状に配列し、かつ原形質はヘマトキシリンで淡青色に染まり、また Sudan III で橙赤色に染まる脂肪を含有していた(写真7, 8)。核の原形質に対する比も小さかった。これらの所見は、正常皮膚にみる皮脂腺にきわめて類似していた。要約すれば、主嚢胞の嚢胞壁の被覆上皮は重層扁平上皮であったが、嚢胞壁の一部に皮脂腺が認められたこと、小嚢胞の被覆上皮はすべて皮脂腺上皮であったことから、これらの3嚢胞は共通に関連する母地から発生した皮様嚢胞であると診断された。

考 按

New & Erich²⁷⁾の多数の統計によれば、人体にみる皮様嚢胞は肛門後部44%、卵巣42%、頭頸部7%などがみられ、頭頸部の発現頻度はあまり多くない。また頭頸部103例のうち口腔底のものは23%で、眼窩領域の50%の次に多くみられた。New & Erich は、皮様嚢胞を次の3型に分類している。1) 奇型腫型の先天性皮様嚢胞(複合構造をとり、胎生胚芽上皮の分割細胞の一部が迷入し、休止状態にあったが、のちに活性化し嚢胞を形成したもの)、2) 後天的嵌入性皮様嚢胞(外傷により発生するもので、皮膚の一部が創傷深部に嵌入し増殖したものであり、壁は扁平上皮よりなる)、3) 先天性埋没性皮様嚢胞(胎生原基の癒合線に沿って、上皮細胞の迷入することにより発生する)。口腔底に発生するものは3)に属するものが多いとされている。

本症に関しては、1859年 Rosar²⁸⁾以来多数の報告がある。口腔底皮様嚢胞の発生機序に関しても諸説があり、Kaufman (1884)²⁴⁾の皮膚小片迷入説、Bergmann (1913)²⁰⁾の胎生期外胚葉の迷入するという鯉弓説、Hassel (1913)²³⁾の顎洞の残遺物によるとする顎洞説、Colp (1925)²¹⁾の鯉弓ならびに無対結節異常埋没説などがみられ、また Anderson (1957)¹⁹⁾および Ackermann (1953)¹⁸⁾は、一般に先天的な原因によるが外傷または炎症に由来することもあるとしている。さらに Meyer (1955)²⁶⁾は、口腔底の異個体発生的嚢胞を一括して、次のごとく分類した。

1) 表皮様嚢胞: 皮膚付属器官をもたない表皮性嚢胞。

2) 皮様嚢胞: 毛髪、毛嚢、脂腺、汗腺等の皮膚付属器官を有する表皮性嚢胞。

3) 奇型様嚢胞: 皮膚付属器官、結合組織の一部、線維、骨、筋、血管、呼吸器あるいは消化器系組織等を有する嚢胞。

Thoma²⁹⁾もほぼ同様の説を唱えたが、彼は表皮様嚢胞に一部皮膚付属器官を有するものを加えている。本邦諸家の説の中にも諸説があり、戸塚ら¹²⁾は脂腺を伴うが毛髪をもたない例を中間型皮様嚢胞とよび、塩田ら⁹⁾は本症は単純なものから卵巣にみる複雑な型のものまで移行型が多いとなし、岡端ら¹¹⁾は外胚葉組織の嵌入時期の遅速により、いろいろな型を生じ、1つでも皮膚付属器官を有すれば皮様嚢胞と解すべきであるとし、国見⁶⁾はこれらの差異は本質的なものではなく、内圧による皮膚付属器官の萎縮消失によるものと解すべきであるとしている。しかし佐賀⁷⁾は、上皮組織のみの残遺可能性もあるとしている。本症例は、2小嚢を伴う3個の皮様嚢胞とみられ、珍しい例といえることができる。このような皮様嚢胞の多発例は顎骨内に数例の報告⁹⁾がみられるが、口腔底には山泉¹⁴⁾、古本²⁾、山下¹⁰⁾、上田¹³⁾らの4報告をみるのみである。古本らの2個の皮様嚢胞は皮下結合組織相当部に皮脂腺のみがみられ、大嚢胞は正中矢状面にありオトガイ舌骨筋の上下にまたがり、長径51mmを示した。その小嚢胞は14mmの長径を有し、正中中部でオトガイ骨下縁に近く存在した。両者の間隙は約3cmであり、全く独立性に发育したものであらうとされている。古本および上田の症例にはすでに初回の手術既往(それぞれ8か月および10年の間隔)があり、手術の外傷による皮膚組織の迷入も一応、考えられないことはない。われわれの症例では、外傷、手術の経験は全くなく、3個の嚢胞が口腔底正中中部にあり、わずかに少量の結合組織により連絡していたことを考慮すると、これらは同一の機序により発生し、胎生期に複数の原基が迷入したことが考えられる。すなわち、われわれの例は、New & Erich の第3類に近いものと考えられる。胎生時複数の原基が迷入した場合、あるものは個体の発育とともに吸収され臨床的には1個の嚢胞として出現することもある。しかしいずれも吸収されずに存続したとすれば、局所環境の条件等により発育に遅速を生じ、あるときは本例のように大小の嚢胞として見出し出され、あるときは上田らのごとく相当期間を経て2個目の嚢胞が見出し出されることもある。この点より、処置時には手術野の十分な点検が望まれる。

McClintock は、甲状舌管嚢胞と皮様嚢胞とは特定の部位において鑑別が困難な場合があるといった。この点について石川らの著書を見ると、甲状舌管嚢胞との鑑別に注意を要する例は、舌下部またはオトガイ下部に発生した皮様嚢胞の4ないし10%にみられるようである。本症例を外科解剖学的および病理組織学的に検討すると、

次のような事がいえる。一般に甲状舌管嚢胞は堀越らの著書のごとく、オトガイ下部舌骨附近といっても甲状腺と舌盲孔の間に発生するものであり、外科的にはオトガイ下部皮膚切開により広頸筋と顎舌骨筋の間に嚢胞を見出し、索状物が舌骨を貫通し、あるいはその直上直下を通過して、オトガイ舌骨筋の間を舌盲孔の方向に發育するものである。したがって手術の要点は、舌骨の一部切除と顎舌骨筋正中切開により舌下部に到達し、オトガイ舌骨筋の間を舌盲孔に向けて剝離を進め、それにより嚢胞および索状物を完全切除することにある。本例の 2 個の小嚢胞は、口腔底深部でオトガイ舌骨筋の間に存在していた。局所は舌骨に近接する部位で、甲状舌管嚢胞の多くみられる部位である。しかし主嚢胞は口腔底粘膜直下に容易に見い出され、2 個の小嚢胞との関係も顎舌骨筋を貫通するものではなく、舌盲孔には遠いものであった。したがって外科的解剖学的には、甲状舌管嚢胞の可能性はきわめて少ないものといえる。また組織学的にも鑑別の困難な例が屢々みられるが、一般に甲状舌管嚢胞は立方上皮または線毛上皮を有するといわれるが、必ずしもすべてがかかる構造を示すものではない。田縁ら¹⁰⁾の報告例のように一部が重層扁平上皮化した線毛上皮を有する甲状舌管嚢胞もあり、平川ら⁴⁾、高橋⁹⁾のごとくガマ腫の中にも線毛を認めたという例がある。本例は、主嚢胞が多層の扁平上皮により被覆されていたこと、その一部ならびに小嚢胞にも皮脂腺が存在していたこと、また甲状腺組織や線毛上皮が認められないことから、皮様嚢胞と診断した。

家兎の顎下部に皮膚弁を移植した露崎¹¹⁾の実験的研究では、皮様嚢胞が發育腫大する場合に、扁平上皮下に存在する皮脂腺は漸次上皮と互に接するようになり、のちに上皮が脱落して嚢胞腔に皮脂腺が開腔する。しかし皮脂腺上皮による被覆は永続せず、扁平上皮は皮脂腺の底部に伸展増殖し、最終的には皮脂腺は排除されて、嚢胞壁は扁平上皮化して終わるといわれている。また感染等の合併により、この過程にも多少の変化がみられる。臨床的にも国見ら⁵⁾は皮様嚢胞が嚢胞内圧の変化あるいは感染の合併等により、その所見に影響を受けることをあげている。一概に皮様嚢胞、類皮様嚢胞、甲状舌管嚢胞といっても、その発生母胎、経過、局所の環境等により、上述のごとく嚢胞の組織学的所見にもかなりの偏差がみられるので、摘出物は可及的連続切片により検討することが大切である。

皮様嚢胞は、男性より女性にわずかに多く、年齢的には 16~35 歳に多いようである。

Meyer²⁰⁾は、これを皮膚附属器官の活動が最も活発な生理学的な条件と結びつけている。その意味では、本例も 23 歳の男子という生理的活性の最も高い年代のものであった。また皮表嚢胞は口腔底における発現部位により、多くの学者^{3, 20, 22)}はこれを舌下型、オトガイ下型、

舌オトガイ型に分類しており、そしてまた舌下型が 52~71% と高い頻度を示している^{10, 17)}。しかしまれには、頬部、舌、口唇、下顎骨、上顎骨、口蓋等に発生した例もみられる。本例もまた顎舌骨筋上で両オトガイ舌骨筋の間に発生した、舌下型皮様嚢胞といえることができる。

結 語

23 歳男子の舌下部正中にみられたクルミ大の主嚢胞と、その底部のオトガイ舌骨筋間に存在した 2 個の小嚢胞よりなる、口腔底皮様嚢胞の 1 例を報告した。このように数個の小嚢胞を随伴する例はきわめてまれらしく、また嚢胞壁の一部に皮脂腺の上皮の被覆がみられたことも特異的であった。

引 用 文 献

- 1) 瀧端 孟, 他: 口腔底皮様嚢胞の 6 例. 口科誌 13: 49 1964.
- 2) 古本克磨, 他: 頰部及び舌下頰下部に 2 コの皮様嚢胞を有する 1 例. 九州歯科学誌 13: 341 1959.
- 3) 荻崎爲行: 巨大なる口腔底皮様嚢胞の 1 例. 耳鼻咽喉科 2: 562 655 1929.
- 4) 平川正輝, 他: 嚢胞内に頰毛を有するガマ腫の例. 歯科学雑誌 8: 103 1951.
- 5) 国見正明: 口腔底皮様嚢胞 2 例. 耳鼻咽喉科 27: 391 1955.
- 6) 成田令博, 他: 顎骨内に発生した Epidermoid cyst の 2 例. 口科誌 11: 187 1962.
- 7) 佐賀宗行: 口腔底皮様嚢胞の 1 例. 山口医学 9: 1613 1960.
- 8) 塩田重利, 他: 口腔底皮様嚢胞の 1 例. 口病誌 24: 385 1957.
- 9) 高橋利貞: 蝦蟇腫病理知見補遺口. 病誌 13: 22 1939.
- 10) 田縁 昭, 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. 口外誌 18: 366 1972.
- 11) 露崎孝二: 皮様嚢胞, 表皮様嚢胞の成因に関する知見補遺. 口外誌 22: 452 1976.
- 12) 戸塚善之助, 他: 口腔底皮様嚢胞の 6 例に関する臨床経験, 及びその組織像より観た種類について. 日本歯科医学会会誌 37: 150 1939.
- 13) 上田 忠, 他: 興味ある皮様嚢胞の 1 例. 口外誌 20: 767 1974.
- 14) 山果 晋, 他: 二個独立して発見した舌下部皮様嚢胞の 1 症例. 古本より引用.
- 15) 山下佐英, 他: 皮様嚢胞の 11 例. 口外誌 19: 480 1973.
- 16) 河合 幹, 他: 口腔底皮様嚢胞の 1 例ならびに文献的考察. 口外誌 11: 244 1965.
- 17) 平野一弥, 他: 皮様嚢胞の 1 例. 歯科月報 29:

- 165 1955.
- 18) Ackermann, L.V.: Surgical Pathology. Mosby Co, St Louis, 1957, p 1185.
- 19) Anderson, W.A.D.: Pathology. ed 3, Mosby Co, St Louis, 1957.
- 20) Bergmann, E.: Handbuch der prakt Chir. Colp より引用.
- 21) Colp, R.: Dermoidcysts of the floor of the mouth. Surg Gynec & Obst 40: 183 1925.
- 22) Debonnele: Meyer, I. より引用.
- 23) Hassel, R.: Die Mundbodendermoide. Beiträge kl Chir 83: 332 1913.
- 24) Kaufman: 荻崎, Colp より引用.
- 25) McClintock, J.C.: Lesions of the thyroglossal tract. Arch Surg 33: 890 1936.
- 26) Meyer, I.: Dermoid cysts (Dermoids) of the mouth. OS OM OP 8: 1149 1955.
- 27) New, G.B., Erich, J.B.: Dermoid cysts of the head and neck. Surg Gyne & Obst 65: 48 1937.
- 28) Rosar: Colp より引用.
- 29) Thoma, K.H.: Oral Pathology. ed 5, Mosby Co, St Louis, 1960.
- 30) Ward, G.E., Hendrick, J.W., Chambers, R.G.: Thyroglossal tract abnormalities—cysts and fistulas. Surg Gynec & Obst 89: 727 1949.
- 31) Montgomery, H.: Dermatopathology. Harper & Row, New York, Evanston and London, 1967.
- 32) Knapp, M.J.: Lingual sebaceous glands and a possible thyroglossal duct. Oral Surg 31: 70 1971.
-