オトガイ下部に著明な腫脹をきたした類皮嚢胞の2例

斉藤麻里・北島晴比古・金子忠良・大島玲子
小森康雄・松尾敏明・成田令博・内田安信

Two cases of dermoid cyst with remarkable swelling on sub-mental region

Mari Saito・Haruhiko KITAZIMA・Tadayoshi KANEKO・Reiko OSHIMA
Yasuo KOMORI・Toshiaki MATSUO・Yoshihiro NARITA・Yasunobu UCHIDA

I. 緒 言

口腔外科領域の類皮嚢胞は、類表皮嚢胞とともに下顎突起癒合部への胎生期の上皮迷入によって発生する疾患である。両者は一般に、嚢胞壁の上皮付属器官の有無により、類皮嚢胞と類表皮嚢胞に区別されているが、統計的には類皮嚢胞は少なく、類表皮嚢胞の約1/2であるとされている¹⁻⁴⁾。最近、われわれは、オトガイ下部に著明な腫脹をきたした類皮嚢胞の2症例を経験したので報告する。

II. 症 例

症例 1

患 者：51歳 女性。

初 診：昭和56年6月■日。

主 訴：下顎右側舌下部およびオトガイ下部の腫脹。

家族歴および既往症：特記事項なし。

現病歴：約30年前に、オトガイ下部の腫脹に気づき某医院を受診、ガマ腫と診断されたが、特に処置はおこなわれず、そのまま放置していた。昭和56年5月、同部の腫脹が右側口底部から舌下部にも拡大波及したため、某医院を受診し、当科を紹介され来院した。

現 症・全身所見：体格は中等度で栄養状態は良好。甲状腺機能低下症のため、サイロキシン製剤を服用中であつた。

局所所見・口腔外所見：顔貌は左右対称性で、オトガイ下部に約3×5cm大の半球状の比較的硬い境界明瞭な膨隆が認められ、二重頤を呈していた(写真1)。

口腔内所見：正中より右側舌下部から口底部にかけて約2×4cm大の半球状、弾性硬の境界明瞭な腫瘤を触

知した。同部被覆粘膜は軽度の発赤が認められていたが、圧痛、自発痛および舌の機能障害は認められなかった(写真2)。

臨床検査所見：特記事項なし。

処置および経過：オトガイ下部正中の腫脹により、ガマ腫の顎下型あるいは類皮嚢胞、類表皮嚢胞が考えられたので、摘出手術を目的として昭和56年8月■日入院した。診断のためオトガイ下部より穿刺を実施したところ、吸引された内容物は軟泥状帯黄色の粥状物であり、

写真1 症例1 正面像

写真2 症例1 口腔内所見

東京医科大学口腔外科学教室

(主任：内田安信教授)

Department of Oral Surgery, Tokyo Medical
College (Chief: Prof. Yasunobu Uchida)

受付日：昭和57年5月25日

写真 3 造影X線撮影 (正面像)

写真 5 症例 1 病理組織像 (弱拡大)

写真 4 造影X線撮影 (側面像)

その中に数本の白髪を認めたことから臨床診断を類皮嚢胞とした。穿刺後、ヨウ素系造影剤を注入しX線造影撮影を実施した結果、病変は右側舌下部からオトガイ下部におよぶことが確認された(写真3, 4)。昭和56年8月■日、全身麻酔下でオトガイ下部に下顎下縁に平行な半月状皮膚切開をくわえ、周囲組織から鈍的に剝離し嚢胞を全摘出した。しかし、嚢胞の周囲組織は癒着が著しく剝離はきわめて困難であった。

術後の経過は良好で、9か月後の現在まで再発や異常

は認められていない。

摘出物の肉眼的所見：摘出物の表面は平滑であったが、周囲の結合組織が付着して剝離は困難であり、嚢状を呈していた。内部は単房性で帯白色の厚い嚢胞壁で被覆され、帯黄色粥状の内容物を容れ、白色の毛髪の混入がみられた。

病理組織学的所見：嚢胞壁内面は、角化性重層扁平上皮に被覆されており、上皮下には毛嚢、皮脂腺および汗腺が認められた(写真5)。

症例 2

患 者：29歳 男性。

初 診：昭和56年9月■日。

主 訴：オトガイ下部の腫脹および喉頭部圧迫感。

家族歴および既往歴：家族歴に特記すべきことはないが、全身の既往症として、約11年前に肺結核に罹患し、約6か月間の治療を受けた経歴がある。

現病歴：約7年前からオトガイ下部の腫脹に気付いていたが、無痛性であったためそのまま放置していた。約2年前、某大学病院での健康診断で、オトガイ下部の腫脹を指摘され、穿刺を受けたことがあるが、この時もそのまま放置し、結果も不明のままであった。昭和56年9月下旬より同部の腫脹が、増大し皮膚の発赤および違和感が出現したため、某病院を受診、当科に紹介され来院した。

現 症・全身所見：体格は中等度、栄養状態良好で特記すべき所見はない。

局所所見・口腔外所見：顔貌は左右対称性で、オトガイ下部正中に鶏卵大、弾性硬の半球状の膨隆が認められた。境界は明瞭で、表面の皮膚に軽度の発赤を認めた

写真 6 症例 2 正面像

写真 8 症例 2 病理組織像（強拡大）

写真 7 症例 2 病理組織像（弱拡大）

が、自発痛や圧痛は認められなかった（写真 6）。

口腔内所見：舌下部口底部には腫脹その他の異常は認められなかった。

臨床検査所見：特記事項なし。

臨床診断：症例 1 同様、オートガイ下部正中の腫脹から、オートガイ下型頬皮嚢胞あるいは頬表皮嚢胞と診断した。

処置および経過：昭和 56 年 11 月 日入院。同 日局所麻酔下でオートガイ下部に下顎下縁に平行した半月状の切開を加え、嚢胞壁を周囲より鈍的に剝離、腫瘤を一塊として摘出した。症例 1 と同様、周囲との剝離はきわめて困難であった。術後の経過は良好で、約 7 か月後の現在も全く異常を認めていない。

摘出物の肉眼的所見：摘出物の周囲は癒着した結合組織で被われ、内部は単房性で、帯白色の厚い嚢胞壁より

なっていた。内容物は軟泥状灰白色の粥状を呈し、毛髪 of 混在が認められた。

病理組織学的所見：嚢胞内面は、軽度の角化を伴う重層扁平上皮で覆われ、その上皮下には、毛嚢と思われる陥入部がみられる。

底部には明瞭な皮脂腺とその周囲の汗腺の腺房がみられる（写真 7）。

病歴が長期にわたったため、異物型多核巨細胞の浸潤も著明である（写真 8）。

III. 考 察

口底部に腫脹をきたす嚢胞形成性疾患には、舌下または顎下唾液腺の導管の閉塞によって生ずる滞留嚢胞の 1 つであるガマ腫と、上皮組織の間葉組織中への迷入によって生じる封入嚢胞である頬皮嚢胞および頬表皮嚢胞がその代表的なものである⁵⁾。臨床的にガマ腫はその原因となる大唾液腺の閉塞が左右いずれかに偏位して生ずる場合がほとんどのため、腫脹もその閉塞部位に応じて左右のいずれかに発現する⁶⁾。また、もし両側の唾液腺の閉塞によって腫脹が左右に発現しても、口底部を左右に 2 分する舌小帯のために中央が凹んだ状態となる。

一方、これに対して頬皮嚢胞、頬表皮嚢胞は、胎生期に組織内に迷入した外胚葉または、外傷によって迷入した上皮組織に由来するものとされており、臨床的には顎下正中部の腫脹を主症状とすることが大部分であるとされている。しかしながらその発生学的な迷入部位ならびに組織に関しては、推測の域を脱せず、諸説があげられている。すなわち、Bergmann⁷⁾ は、頬皮嚢胞、頬表皮

嚢胞の組織由来について胎生期外胚葉の異常埋没に依るものとして、その発生部位を次のようにあげている。

1) 第2および第3鰓弓間の胎生期裂溝。

2) 第1, 第2鰓弓癒合部位。

3) 第1鰓弓内においてなお癒合しない両側下顎半側部である。

これに対して Hassel⁹⁾ は、頬皮嚢胞、頬表皮嚢胞は、鰓弓とは無関係で顎洞の遺残物である両側顎嚢胞の異常埋没に起因するとした。さらに Colp⁹⁾ は、大部分は第1, 第2鰓弓癒合部の際に外胚葉の異常埋没が原因となり、一部分は無対結節の異常埋没によって起こると述べている。

また一方では、Anderson¹⁰⁾ および Ackerman¹¹⁾ は、後天的原因すなわち、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生じうるとしている。石川¹²⁾ は顎骨内に生じたものは、原始性嚢胞あるいは歯源性角化嚢胞の可能性が強いと述べている。

New と Erich¹³⁾ は、全身に発生する頬皮嚢胞、頬表皮嚢胞を発生学上、次の3型に分類している。

1) 先天的な奇型様頬皮嚢胞：複合構造のあるもので、胎生期の分割細胞が迷入して休止状態となっていたものが徐々に活動的になって嚢胞を生じたもの。

2) 後天的な埋没頬皮嚢胞：外傷による埋没嚢胞であり、外傷部より深部に上皮片が迷入することによって生じたもの。

3) 先天的な埋没頬皮嚢胞：胎生期癒合線に上皮細胞が迷入することにより発生したものである。

このうち口腔領域に発生する頬皮嚢胞の大部分は2)または3)に属し、1)は婦人科領域に多いとされている¹²⁾。さらに Meyer¹⁴⁾ は病理組織学的に3型に分類している。すなわち、(1)嚢胞壁が、皮様構造を示し、さらに皮脂腺、汗腺、毛髪、毛嚢などの付属器官を全て有する頬皮嚢胞。(2)皮膚付属器官を全く有しないか、あるいはその数個を有する頬表皮嚢胞。(3)中胚葉、内胚葉成分の混在する奇形嚢様嚢胞である。しかしながら、本邦では多くの研究者により特に口腔外科領域では、皮膚付属器官の一部を有するのみでも、頬皮嚢胞であるとする意見が支持されている。また Török¹⁵⁾ および Johnston¹⁶⁾ は、以上のような組織像の違いは外胚葉の迷入時期によって生じるもので、早期に迷入した場合は、頬皮嚢胞となり、遅れて胎生後期に迷入した場合は、頬表皮嚢胞が発生すると述べている。また、国見¹⁷⁾ は頬表皮嚢胞の付属器が内胚葉性によって萎縮消失して頬表皮嚢胞の型になるのではないかと推測している。

頬皮嚢胞、頬表皮嚢胞はともに身体各部に発生するが、最も発生しやすいのは卵巣および直腸の部分で、その他、睪丸および腹腔などにも比較的多い⁹⁾。New および Erich¹³⁾ によれば、頭部、顔面、顎部も発生部位の1つにあげられ、6.9%がこの部位に発生したとしている。このうち、口腔領域に発生したものは1.6%であり、大

多数が口底部に発生すると報告している。また、頬皮嚢胞と頬表皮嚢胞の割合をみると口腔領域では、頬表皮嚢胞のほうが多く2:1の比率であるとしている。

本症の発生年齢は、一般に16~35歳代に多くみられるといわれており^{18,19)}、これは嚢胞の発育する時期が、皮脂腺、汗腺、毛髪などの皮膚付属器官の発育の最も活発な時期と一致するためとされている。性別の発生頻度をみると、New は男性と女性とはほぼ同数であったとし、三村¹⁸⁾、高橋¹⁹⁾ は女性にやや多いとしている。

本症の口腔領域の発生部位としては、おもにオトガイ下部、口底部があげられるが、頬部、舌、鼻咽腔、上唇、下顎骨、上顎骨、口蓋部にも生じることがある。Bergmann⁷⁾ は嚢胞が顎舌骨筋の上に位置するか、下に位置するかによって、舌下型、オトガイ下型の2型に分類しているが萩崎¹⁸⁾ は、顎舌骨筋を越えて舌下よりオトガイ下にわたる巨大な症例を舌下オトガイ下型として第3型とすることを推奨している。今回報告した症例1は、嚢胞が口底部から顎舌骨筋を越えてオトガイ下におよぶ巨大なもので、前記の第3型に相当するものといえる。また、ウログラフィン注入による術前の造影撮影は、嚢胞の位置と大きさを明らかにし診断および手術法の選択に際しての重要な指針となった。

本症の経過は一般に緩慢で、高橋¹⁹⁾ は、自覚より来院までの期間は、1年以内23.9%、1~5年が35.8%、6~10年が28.3%であったと報告している。今回のわれわれの症例では、1例は約30年間の経過が考えられ、1例は約7年間を経過していることから、嚢胞の発育が比較的緩慢で、患者の自覚症状が著明でなく長期間放置されやすいことがうかがえる。その間に穿刺などの姑息的療法がなされることが多い。腫瘍の増大に伴って、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、唾液分泌障害などの機能障害が起こるとされている²⁰⁾。症例2においても、喉頭部圧迫感および嚥下痛を覚えたために当科を受診している。

頬皮嚢胞の診断に際しては、発症部位、問診による発育速度の推定、自覚症状、腫瘍の硬さ、波動の有無などの臨床所見ならびに、試験穿刺、単純X線撮影、高圧X線撮影、造影撮影などの諸検査が有効である²¹⁾。また、口底部における本嚢胞と鑑別を要する疾患としては、前述のガン腫のほか、鰓裂嚢胞、甲状舌管嚢胞、粉瘤、唾石、唾液腺炎、唾液腺腫瘍、口底蜂窩織炎、口底膿瘍などがあげられるが^{20,21)}、これらも全身状態および局所の状態を精細に観察し、術前の嚢胞穿刺および嚢胞造影撮影を積極的に行うことにより、より正確な臨床的確定診断が得られると考えられた。

IV. 結 語

1) 今回、われわれは舌下オトガイ下型およびオトガイ

イ下型の頬皮嚢胞の2例を経験した。

2) 舌下オトガイ型の症例では、毛髪ならびに嚢胞壁に皮脂腺がみられ、オトガイ下型には毛嚢、汗腺がみられた。

3) ウログラフィンの嚢胞内注入によるX線造影撮影により、より明瞭に嚢胞外形を把握することができ、診断ならびに手術法の選択に有効であった。

本論文の要旨は、第109回東京医科大学医学会総会において講演発表した。

引用文献

- 1) 中村平蔵, 他: 最新口腔外科学, 第2版, 医歯薬出版, 東京, 1974, 833頁.
- 2) 高橋庄二郎, 他: 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.
- 3) 大野邦博, 他: 口腔領域の頬皮嚢胞50例の臨床統計ならびに本邦における文献的考察. 日口外誌 25: 842 1979.
- 4) 高橋顕仁, 他: 側頸部に発生した頬皮嚢胞の1例および本邦報告文献における統計的観察. 東北歯大誌 8: 28 1981.
- 5) 金森虎男, 他: 金森口腔外科学, 第4版, 医歯薬出版, 東京, 1975, 222頁.
- 6) 堂原義美, 他: 口腔底に発生した先天性頬皮嚢胞の1例. 日口外誌 24: 103 1978.
- 7) Bergmann, E.: Handbuch der praktischen Chirurgie. Bd 1, 4 Auf. Ferdinand, Stuttgart, 1913, s 976.
- 8) Hassel R.: Die Mundbodendermoide Entwicklungsgeschichtliches Diagnostisches und Therapeutisches. Beitr klin Chir 83: 332 1913.
- 9) Colp, R.: Dermoid cysts of the floor of the mouth. Surg Gynec Obstet 40: 183 1925.
- 10) Anderson, W.D.D.: Pathology. Mosby Co, St Louis, 1957, p 1185.
- 11) Ackerman, L.V.: Surgical Pathology. Mosby Co, St Louis, 1953, p 94.
- 12) 石川梧朗, 他: 口腔病理学(Ⅱ). 増補版, 永末書店, 京都, 1971, 860頁.
- 13) New, G.B. and Erich, J.B.: Dermoid cysts of the head and neck. Surg Gynec Obstet 65: 48 1937.
- 14) Meyer, I.: Dermoid cysts (Dermoids) of the floor of the mouth. OS OM OP 8: 1149 1955.
- 15) Török: 文献2)より引用.
- 16) Johnston, W.H.: Cysts of the floor of the mouth. Ann Otol 51: 917 1942.
- 17) 国見正明: 口腔底皮様嚢腫の2例. 耳喉 27: 391 1954.
- 18) 三村房雄: 巨大なる口腔底皮様嚢腫症例. 大日本耳鼻咽喉科会報 46: 862 1940.
- 19) 萩崎為行: 巨大な口腔底皮様嚢胞の1例. 耳喉 2: 562 1929.
- 20) 山下佐英, 他: 皮様嚢胞の11例. 日口外誌 19: 480 1973.
- 21) 土井 尚, 他: 頬部に発生した頬表皮嚢胞の1例. 日口外誌 18: 140 1972.