舌甲状腺の1例

宮内重幸・榎本昭二

Lingual thyroid: Report of a case

Sigeyuki MIYAUCHI・Shoji ENOMOTO

Abstract: During the fourth week of development, the thyroid gland originates from the pharyngeal endoderm of the foramen cecum positioned at the first branchial cleft. Passing down in front of or within the body of the hyoid bone, it descends and migrates to the level of the third or fourth tracheal cartilage. Ectopic thyroid gland occurs by interference with the descent of the original thyroid gland. It can be seen in A. lingual region (lingual thyroid), B. sublingual region, and C. hyoid region.

A 28-year-old woman was referred to our clinic with the complaint of diffuse hemorrhagic spot followed by pulpectomy of the upper premolar tooth. Oral examination revealed a round mass in the base of her tongue. With a CT scanner, the CT number recorded a high score of 117 HU, and the shape showed a characteristic appearance of a lingual thyroid. In addition, scintigraphy using ^{99m}Tc -pertechnetate revealed a marked isotope intake in that round mass. These examinations strongly supported a diagnosis that the lesion was a lingual thyroid.

Key words: lingual thyroid, ectopic thyroid, thyroglossal duct

緒 言

甲状腺は胎生4週期頃に、第一鰓嚢の高さの舌盲孔部に咽頭腸の肥厚として出現し、その後、第3から第4気管軟骨前方の高さにまで下降する¹⁾。この甲状腺原基の下降が途中で障害され、正常部位以外に甲状腺が存在する状態を異所性甲状腺という。そのなかでは舌根部に存在する舌甲状腺が半数以上を占めている。

われわれは、14を抜髄中に誤って次亜塩素酸ナトリウムを根尖孔外に溢出させ、頬部に広範囲な出血斑が生じた症例を検索中に、偶然舌甲状腺が発見された症例を経験したので報告する。

症 例

患 者： 28歳 女性。

東京医科歯科大学歯学部第2口腔外科

(主任：榎本昭二教授)

The Second Department of Oral Surgery, Faculty of Dentistry, Tokyo Medical and Dental University (Chief: Prof. Shoji Enomoto)

受付日：昭和62年10月9日

初 診：昭和59年9月 日。

主 訴： 14抜髄後の左頬部の腫脹と疼痛。

現病歴：昭和59年9月 日に、某歯科医院にて14を抜髄した際に、誤って次亜塩素酸ナトリウムを根尖外に溢出させたところ、根管口よりの出血と左頬部の腫脹、膨隆をきたし、自発痛および顔面頬部皮下と頬部粘膜下に広範囲な出血斑を生じた。腫脹が徐々に増大してきたため、翌日、 病院歯科口腔外科を紹介され来院した。

既往歴：10歳時虫垂炎、14歳時急性肝炎、16歳時帯状疱疹。

家族歴：特記事項なし。

現 症

全身所見：37.5°Cの軽度発熱および食欲不振あるも、頻脈、呼吸促迫、多汗などなし。

局所所見：左頬部に腫脹と膨隆が著明であったが、自発痛および圧痛はそれほど強くなかった。また、左眼窩下部から口角部、頬部皮下と左頬粘膜下に広範囲な出血斑をきたしていたため、同日より入院させ、抗生物質とステロイドによる消炎療法を7日間行った。腫脹と出血斑はほとんど軽快したが、左上顎小白歯根尖部に拇指頭大の腫脹と圧痛が残った。

臨床検査所見：表1に示すごとく特に異常は認められ

表 1 臨床検査所見

血液一般		生化学検査	
赤血球数	425万	総蛋白質	7.2 g/dl
ヘマトクリット値	37.0%	アルブミン	4.4 g/dl
血色素量	12.3 g/dl	A/G 比	1.59
血小板数	21万1千	尿素窒素	11.2 mg/dl
網赤血球数	7%	クレアチニン	0.7 mg/dl
白血球数	6,900	尿酸	3.9 mg/dl
白血球像		Na	139 mEq/l
棒状核球	3%	K	3.7 mEq/l
分節核球	65%	Cl	102 mEq/l
好酸球	6%	LDH	359 U/l
好塩基球	2%	GOT	21 U/l
単球	3%	GPT	10 U/l
リンパ球	21%	γ -GTP	15 U/l
CRP	(+)	LAP	143 U/l
血沈 (1時間値)	9 mm	ALP	4.6 U/l
(2時間値)	25 mm	Ch-E	0.74 Δ pH
出血時間	4分30秒	CPK	76 U/l
尿検査 蛋白	(-)	T. bil	1.0 mg/dl
糖	(-)	D. bil	0.5 mg/dl
潜血	(-)	血糖値	99 mg/dl

ず、急性炎症の所見も CRP の陽性以外は著明でなかった。また広範囲に出血斑をきたしていたため頰部の血管腫も疑い CT 検査を行ったところ、左上顎骨前方に蜂巣状の病巣が描記された。

RI 血管造影所見：20 mCi の ^{99m}Tc -HSA を用いて RI-Angiography の3相検査を行った。その結果は血流動態像では特に異常はなかったが、初期充血像では軽度集積像がみられた。また1時間後の静態像では写真1のごとく、舌根部に境界明瞭で球形の高度集積像が認められ、一見海綿状血管腫かと思われる所見を呈した。

CT 検査所見：再度舌根部の CT を撮影したところ写真2のごとく舌根部に、直径が約 2.5 cm で内容が均一、充実性の腫瘍が認められ、その CT 値は単純 CT で 117 Hounsfield units (HU)、造影 CT で 125 HU とかなり高い値を取った。すなわち、CT 値は造影の前後ではほとんど変わらず、甲状腺の CT 値とほぼ同様の高い値を取り、また特徴ある CT 像を示したことから異所性甲状腺のうち舌甲状腺であると思われた。また舌根部以外には、正常の部位にも他の異所性にも甲状腺組織は認められなかった。

よって RI-Angiography で舌根部に集積像が見られたのは、時間とともに基材であるアルブミンから ^{99m}Tc が単体として遊離し、甲状腺組織に選択的に取り込まれたものと思われた。また左上顎小白歯根尖部の腫脹の生検所見では血管腫は認められず単なる炎症反応で、左頰

写真 1 RI-Angiogram

^{99m}Tc -HSA 静注 1 時間後の 頭部左側面像。舌根部に球形の高度集積像が認められる。

写真 2 造影 CT 所見

舌根部に球形の腫瘍が認められ、同時に関心領域を設定して CT 値を測定すると、125 HU と高値を示した。また、造影前は 117 HU で、造影前後ではほとんど変わらない高い値を取った。

部の腫脹はやはり次亜塩素酸ナトリウムによる薬剤性炎症と思われた。

口腔内所見：写真3のごとく舌根部は膨隆し、舌背を圧排しても咽頭後壁は直視できず、触診により舌根部に弾性硬で境界明瞭な胡桃大の腫瘍を触れたが圧痛はなかった。自覚症状としては軽度の嚥下障害と、歯科診療を水平位で行うと誤嚥しやすいことぐらいで、全体的には問題なかった。

内視鏡所見：写真4のごとくで、写真下方が口腔内の前方であるが、有郭乳頭より後方の舌根部に、表面が淡紅色で凹凸を呈する半球形の腫瘍がみられ、その表面には小血管が拡張し、咽頭部の狭窄が認められた。

写真3 口腔内所見

写真4 内視鏡所見

写真下方が口腔内前方で、舌根部に半球形の腫瘍が認められる。上方にみえるのは咽頭後壁で咽頭部の狭窄が認められる。

甲状腺機能検査：甲状腺および副甲状腺の機能は、表2のごとくカルシトニンがやや高い値を取った以外は、TSH, FT_4 などに異常はなく、甲状腺の機能低下などはなかった。

X線所見：写真5は左顔側面像であるが、舌根部に矢印で示すごとく半球形の腫瘍影が認められた。

甲状腺シンチグラム： $^{99m}TcO_4^-$ (^{99m}Tc -pertechnetate) を用いて甲状腺シンチグラムを行ったところ、写真6, 7のごとく舌根部と耳下腺に一致して集積像がみられ、舌根部の腫瘍が舌甲状腺であることが確認された。また本来の甲状腺部や、舌根部以外の頸部、上縦隔などには甲状腺組織の描出は認めなかった。

以上より舌根部の腫瘍を異所性甲状腺のなかの舌甲状腺と診断した。

写真5 X線所見

顔側面像で舌根部に矢印で示すごとく半球形の腫瘍影が認められる。

表2 甲状腺および副甲状腺機能検査

甲状腺機能検査		
トリヨードサイロニン	(T_3)	1.1 ng/dl
サイロキシシン	(T_4)	6.8 μ g/dl
トリヨードサイロニン摂取率	(T_3U)	29.9 %
遊離サイロキシシン	(FT_4)	1.16ng/dl
甲状腺刺激ホルモン	(TSH)	3.3 μ U/ml
サイロイドテスト		陰 性
マイクロゾームテスト		陰 性
副甲状腺機能検査		
副甲状腺ホルモン	(PTH)	0.2 ng/ml 以下
カルシトニン		200 pg/ml

写真 6 甲状腺シンチグラム
正面像

写真 7 甲状腺シンチグラム

右側面像：舌根部と耳下腺部に高度集積像が認められる。

考 察

甲状腺原基は胎生3週期に、第1、第2鰓弓の間の高さの咽頭腸腹側壁正中線上で上皮性増殖として出現し、無対舌結節とコブラの間の舌盲孔となる地点で咽頭腸底の内胚葉性細胞集塊が肥厚して発生する²⁾。ついでその

甲状腺原基を先端に有する憩室が左右両葉に分かれ、咽頭壁を貫いて咽頭腸の前面を、ついで第1咽頭弓(鰓弓)および第2咽頭弓の間を通り下降する。すなわち下降経路は下顎骨の後方で舌骨の前方を通り、舌盲孔より続く甲状舌管を生じ、その先端に甲状腺が生じる。甲状舌骨膜は舌骨体の後端の稜に付着し Hyoid bursa を形成するが、甲状腺はこの最も近くを通り下降する³⁾(図1)。その際に発生途上の舌骨体の前方あるいは舌骨体内、ときには後方を通過する。そのため、下記のごとく甲状舌管が残存すると舌骨体を切除しなければならなくなる。異所性甲状腺はこの経路に沿って存在し、胎生7週期には半月体様の甲状腺原基は気管前面の正常位置まで移動する¹⁾。

その間、胎生期6週位までに甲状舌管は萎縮退化するが、この甲状舌管が遺残すると正中頸瘻や甲状舌管嚢胞を生じる。また甲状舌管が閉鎖しても約40%に甲状腺より上方に延びる錐体葉 (Lobus pyramidalis) が残る⁴⁾。胎生期甲状腺原基の下降が途中で障害され、正常の甲状腺の部位である前頸部以外に甲状腺組織が存在する状態を異所性甲状腺 (Ectopic thyroid) といい¹⁾、甲状腺が正常部位の前頸部になく他の部位に全部集中した場合には、迷入性甲状腺 (Aberrant thyroid) という⁵⁾。異所性甲状腺が舌根部に存在した場合は舌甲状腺と呼ばれ、舌根部以外に生じた場合は副甲状腺 (Accessory thyroid) と呼ばれる⁵⁾。

異所性甲状腺の好発部位は、図1に示すごとく、舌根部、舌下部、舌骨部に多くみられる⁶⁾が、複数個存在したり、鎖骨下⁷⁾、胸腔内⁸⁾などに生じることもある。これらの異所性甲状腺は、線維束あるいは甲状腺組織にて固有の甲状腺と連結している場合と、連結せずに存在する場合がある⁵⁾。

安部ら⁹⁾は、異所性甲状腺の患者を固有位置に甲状腺を有する群と欠く群とに分けて検討したところ、甲状腺原基が下降経路内で下降不全を起こして異所性甲状腺を形成した場合と、甲状腺が固有位置に定着後さらに近位組織に侵入した場合に分けられたという。

舌甲状腺は、1869年に Hickman¹⁰⁾ が生後まもなく窒息死した嬰兒の舌根部に腫瘤があることを発見し、病理検査で甲状腺であることを確認して報告したのが最初で、それ以後数百例が報告されている。本邦では、明治32年(1899年)の若林の報告¹¹⁾が最初で、佐藤ら⁶⁾によれば昭和59年までに異所性甲状腺の報告例は197例を数え、その内訳は舌根部169例、舌下部22例、舌骨部3例であったという。口腔外科領域では小森ら¹²⁾、佐藤ら⁶⁾について本例が3例目と思われる。

異所性甲状腺を有するものでは一般に正常部位に甲状腺を有することは少なく、異所性甲状腺が正常と同様に機能してなんら症状を呈さないことが多い。また異所性甲状腺も正常と同様に間脳、下垂体系より影響を受けて

図 1 甲状腺と甲狀舌管の発生図

甲状腺の下降経路は図に示すごとくで、舌盲孔部より発生し、舌骨体の前方ないし舌骨体内を通る。その下降経路に沿って途中で下降不全を起こすと異所性甲状腺を生ずる。部位としては、A. 舌根部（舌甲状腺）、B. 舌下部、C. 舌根部の順に多い（図は Keyes ら³⁾より改変-）。

いるが、甲状腺ホルモンの需要量が増大した際には異所性甲状腺が腫大し腫瘤を形成することがある¹³⁾。その際にはチロキシンなどの投与が効果的¹³⁾、機能している唯一の異所性甲状腺を誤って摘出すると甲状腺機能低下により粘液水腫などを生じるので注意を要する。

また前頸部の異所性甲状腺を甲狀舌管嚢胞と誤って摘出し、術後に機能低下となった症例もある^{14,15)}ので、舌根部、前頸部などで、特に正中線上にこれらの腫瘤が認められた際には、甲状腺でないことの確認が必要である¹⁵⁾。

甲状腺組織は ¹²⁵I や ^{99m}Tc を選択的に取り込むので、これらによるシンチグラフィは甲状腺の存否と局在の判定に有用である。ただし本症例のごとく ^{99m}Tc-HSA を用いて RI 血管造影を行う際には、非常にまれではあるが、たまたま遊離した ^{99m}Tc が甲状腺に取り込まれ、それが海綿状血管腫様にみえることがあるということも覚えておくべきである。また甲状腺組織はヨード成分を多く含み、その CT 値は 100~120 HU と他の軟組織よりはるかに高い値を取るため、CT 検査も鑑別に使用できる。本症例の CT 所見は舌根部正中で球形を呈し、舌甲状腺の典型的な像と思われた。

ここで鑑別すべき疾患としては、甲狀舌管嚢胞、リンパ管腫、血管腫、類皮嚢胞、脂肪腫、線維腫、癌腫などがある。また異所性甲状腺から乳頭状腺癌¹⁶⁾や濾胞癌¹⁷⁾が発生することもあり、急速な増大がみられた場合には注意を要する。

異所性甲状腺のうち舌甲状腺の臨床症状としては、咽頭部違和感、嚥下障害、発声障害、呼吸困難、吐血、頸

部腫大などがあげられる。治療法としては、(1) 経過観察、(2) 甲状腺ホルモン投与などの内科的治療、(3) 摘出、移植などの外科的治療などがあるが¹²⁾、症状がなく甲状腺機能にも問題がなければ定期的経過観察が最も良いと思われる¹²⁾。また、甲状腺刺激ホルモンの低下がみられた場合には、チロキシンの補充などが適当で、舌根部の腫大で呼吸困難が生じた場合や、急速な増大により悪性変化が疑われた場合にはじめて外科的治療の対象となる¹⁸⁾。

本症例では甲状腺機能や全身状態には問題ないが、咽頭部の狭窄が認められるため、気道閉塞や甲状腺の機能低下などに十分注意しながら経過観察を行っている。

結 語

われわれは、14 を抜髄中に誤って次亜塩素酸ナトリウムを根尖孔外に溢出させ、頬部に広範囲な出血斑が生じた症例を検索中に、偶然舌甲状腺が発見された症例を経験したので報告した。

最後に、診断に際し適切なご助言を頂いた [] に深く感謝の意を表します。

本論文の要旨は、第 [] 回 [] 学会 [] 会（昭和60年6月 [] 日、東京）において発表した。

引用文献

- 1) 萩島恭子：異所性甲状腺。小内科 14: 55-60 1982.
- 2) Snell, R.S., 山内昭雄訳：スネル臨床発生学。(Clinical Embryology, 3rd Ed.) メディカルインターナショナル(株), 東京, 1985, 232-233頁.
- 3) Keyes, G.R. and Tenta, L.T.: Diagnostic parameters in thyroid disorders. Otolaryngol Clin North Am 13: 3-12 1980.
- 4) 広戸幾一郎, 竹田千里編：臨床耳鼻咽喉科, 頭頸部外科全書, 第8巻B, 第1版, 金原出版, 東京, 1985, 371頁.
- 5) 渡辺克司, 稻倉正孝, 他：舌根部甲状腺について, 臨放線 16: 361-371 1971.
- 6) 佐藤言葉, 田川俊郎, 他：舌甲状腺の1症例ならびにその文献的考察, 日口外誌 31: 754-759 1985.
- 7) 新美仁男, 松本 生, 他：胸骨右縁の鎖骨下に甲状腺を有するクレチニズムの一乳児例, 小診 38: 728-731 1975.
- 8) 安藤武士, 横沢忠夫, 他：機能亢進を伴った胸腔内甲状腺腫の1治験例, 日胸部外会誌 25: 1519 1977.
- 9) 安部治彦, 小林武夫：舌根部と舌下部に発生した異所性甲状腺の1例, 耳喉 54: 357-364 1982.
- 10) Hickman, W.: Congenital tumour of the base of the tongue passing down the epiglottis on the larynx and causing death by suffocation sixteen hours after death. Trans. Pathol. Soc. Lond. 20: 160-161 1869.
- 11) 若林虎吉：舌根部甲状腺腫ノ実験及其手術, 東医事新誌 1082: 3087-3090 1899.
- 12) 小森常喜, 石井保雄：舌甲状腺の1症例, 日口外誌 28: 1964-1967 1982.
- 13) 新美仁男, 佐々木 望, 他：前頸正中部舌骨下および舌部の2カ所に異所性甲状腺を有する euthyroid の2女児例, 小臨 34: 756-760 1981.
- 14) Conklin, W.T., Davis, R.M., et al.: Hypothyroidism following removal of a "Thyroglossal duct cyst". Plast Reconstr Surg 68: 930-932 1981.
- 15) Strickland, A.L., Macfile, J.A., et al.: Ectopic thyroid glands simulating thyroglossal duct cysts: Hypothyroidism following surgical excision. JAMA. 208: 307-310 1969.
- 16) Stith, J.A. and Johnson, J.T.: Papillary adenocarcinoma in ectopic thyroid. Otolaryngol Head Neck Surg 89: 34-37 1981.
- 17) Kamat, M.R., Kulkarni, J.N., et al.: Lingal thyroid: A review of 12 cases. Br J Surg 66: 537-539 1979.
- 18) Jones, J.A.H.: Lingual Thyroid. Br J Oral Maxillofac Surg 24: 58-62 1986.