舌下面正中に腫大を示した甲状舌管嚢胞の1例

鈴木 円^{*,**}・坂下英明^{**}・江田 哲^{*,**}
須賀則幸^{**}・鈴木正二^{**}・草間 薫^{***}

A case of thyroglossal duct cyst showing swelling in the middle of the sublingual surface

SUZUKI Tsubura ^{*,**}・SAKASHITA Hideaki ^{**}・EDA Akira ^{*,**}
SUKA Noriyuki ^{**}・SUZUKI Seiji ^{**}・KUSAMA Kaoru ^{***}

Abstract: Thyroglossal duct cyst is thought to originate from the epithelial remnant of the thyroglossal duct. A cyst usually arises between the cecal foramen of the tongue and the thyroid gland. We report a rare case occurring in the tongue. A 61-year-old man was referred to the Department of Dentistry and Oral Surgery, ■■■ Hospital because of swelling of the tongue. The mass of the tongue, 18 × 20mm, was elastic soft and purplish red. Magnetic resonance imaging indicated the presence of a cystic lesion. The lesion was enucleated for a clinical diagnosis of a cyst of the tongue. The pathological diagnosis was a thyroglossal duct cyst. There has been no evidence of recurrence as of 6 months after the operation, and the function of the tongue has improved.

Key words: thyroglossal duct cyst (甲状舌管嚢胞), tongue (舌)

緒 言

甲状舌管嚢胞は胎生期の甲状舌管の残遺に由来する嚢胞である。舌盲孔と甲状腺の間に発生するが、多くは舌骨付近の正中頸部にみられる。今回われわれは舌に生じた本嚢胞の1例を経験したので報告する。

症 例

患 者：61歳，男性。

初 診：2003年8月■■日。

主 訴：舌下部の腫瘍。

家族歴：特記すべき事項なし。

既往歴：1990年に脊椎損傷にて下半身麻痺となった。2003年4月，左側大腿骨骨折後壊死により左側大腿切断術を受けた。術後，脳梗塞を発症し，右半身不全麻痺となった。以後，抗凝固剤を服用中である。

現病歴：リハビリ目的にて■■■病院に入院中であったが，担当医より舌下部の腫瘍を指摘され，精査・加療目的にて歯科口腔外科を紹介され受診した。

現 症：舌下面から口底正中部に18 × 20mm大，弾性軟の腫瘍を認めた。被覆粘膜は菲薄化し暗赤色を呈していた。触診により偽波動を触れたが圧痛は訴えなかった（写真1）。舌運動は著しく制限され，前方運動，側方運動ともにほとんど不可能であった。また頸部やオトガイ下部に腫脹は認めなかった。

画像検査所見：MRIでは舌前方部に直径2.5cm，類球形の嚢胞性病変を認めた。内部はT1強調像，T2強調像ともに高信号を呈していた（写真2）。

臨床検査成績：血液一般，血清生化学検査で特に異常は認めない。

言語機能評価：単語明瞭度検査を施行したところ，単語明瞭度は76.6%であった。

臨床診断：舌嚢胞。

処置および経過：上記診断の下，抗凝固剤の服用を中止した上で，2003年9月■■日，全身麻酔下に口腔内より嚢

* 東邦病院歯科口腔外科
(主任：鈴木 円医長)

** 明海大学歯学部口腔外科学第2講座
(主任：坂下英明教授)

*** 明海大学歯学部口腔病理学講座
(主任：草間 薫教授)

* Department of Dentistry and Oral Surgery, Toho Hospital
(Chief: SUZUKI Tsubura)

** Second Department of Oral and Maxillofacial Surgery,
Meikai University School of Dentistry (Chief: Prof.
SAKASHITA Hideaki)

*** Department of Oral Pathology, Meikai University School
of Dentistry (Chief: Prof. KUSAMA Kaoru)
受付日：2004年3月18日
採択日：2004年4月20日

写真1 初診時口腔内写真
舌小帯部に弾性軟の腫瘍を認めた。

写真3 術中写真
舌下面粘膜に水平方向の切開を加え腫瘍を一塊として摘出した。

写真2 MRI像 (T2強調像)
舌前方部に類球形の嚢胞性病変を認めた。

写真4 摘出標本写真
腫瘍は類球形を呈していた。

嚢胞摘出術を施行した。舌下面粘膜に水平方向の切開を加え、嚢胞を周囲組織から鈍的に剥離して一塊として摘出した。嚢胞壁は厚く、剥離は比較的容易であった。なお、嚢胞から舌根部へ向かう索状の組織は認めなかった(写真3)。

その後、病理診断の結果を受け、内科にて血液検査、頸部ならびに甲状腺の超音波検査などの精査を行ったが、甲状腺ホルモンをはじめとする臨床検査成績に異常はなく、他部位、特に頸部に space occupying lesion (SOL) の存在は認めなかった。現在、術後約6か月を経過したが、再発などの異常は認めず、舌の運動機能障害は改善され、発音も明瞭となった。術後の単語明瞭度検査では単語明瞭度は87.5%であった。

摘出標本所見：腫瘍は20×23×25mm大の類球形を呈していた(写真4)。

病理組織学的所見：嚢胞腔内は滲出液、遊走細胞および少量の赤血球で満たされ、嚢胞壁は円柱線毛上皮により裏層され、一部では乳頭状を呈していた。上皮下の線維性結

合組織には甲状腺組織の随伴を認めた(写真5, 6)。

病理組織学的診断：甲状舌管嚢胞。

考 察

甲状舌管嚢胞は胎生期の甲状舌管が何らかの原因によってその一部もしくは全部が遺残することによって生じるとされている。その発生頻度は86000人中31人(0.36%)とされ¹⁾、まれな嚢胞と思われる。

垂直的な発生部位は大きく甲状腺部、舌骨下部、舌骨部、オトガイ下部、舌根部に分けられる²⁾。舌骨付近に生じるものがもっとも多く、約7割を占めるとされている^{2, 3)}。舌に生じるのは0.67～2.1%と報告されており^{4～6)}、本嚢胞のなかでもまれであるがそのほとんどは舌根部に生じたものであり、自験例のように舌前方部発生例の報告は少ない⁷⁾。舌前方部に生じた理由について竹田ら⁷⁾は舌盲孔が本来の位置よりも前方に異所性に位置していた可能性を指摘している。

写真5 病理組織像 (H-E 染色, 強拡大)

嚢胞壁は円柱線毛上皮により裏層され、一部では乳頭状を呈していた。

写真6 病理組織像 (H-E 染色, 弱拡大)

嚢胞腔内は滲出液、遊走細胞や赤血球で満たされ、上皮下の線維性結合組織には甲状腺組織の随伴を認めた。

発症年齢については10歳未満が大半を占めるとされているが⁸⁻¹⁰⁾、高齢者の占める比率が意外に高いという指摘もある¹¹⁾。本嚢胞は先天性疾患であるため、舌に生じた症例では早期に発見されることが多いとされ¹²⁾、われわれが渉猟し得た範囲では成人の舌に生じた本嚢胞の報告はなく、自験例はきわめてまれな症例と思われる。

臨床、甲状舌管嚢胞との鑑別を必要とする疾患には類(表)皮嚢胞、ガマ腫、脂肪腫、嚢胞状リンパ腫などがあげられる^{3, 13)}。自験例では画像検査所見を含め、臨床的に確定診断を得ることができず、舌嚢胞の臨床診断にて手術を行った。術中所見でも病変と連続する管状組織は認められず、摘出標本の病理組織学的所見により甲状舌管嚢胞と診断された。

治療法としては単純な摘出術、嚢胞および瘻管とともに舌骨体部を切除する術式¹⁴⁾、嚢胞と舌骨体部を一塊として剥離し、舌骨体部より舌盲孔に向かって芯状に切除することにより甲状舌管が遺残していると考えられる部位を摘出する術式^{1, 15)}などがある。頸部に生じたものは単純な摘出術では再発率が高いとされ、舌骨合併切除の必要性が指摘されている^{2, 10)}。再発率について和田ら²⁾は舌骨合併切除例で6.7%、単純摘出例で25.0%と報告している。またEinら¹⁶⁾は嚢胞摘出術を施行した270例中27例に再発を認め、その全例が3か月以内に再発したと報告している。一方、口腔内に生じたものについては一般に単純な摘出術が行われている^{2, 7)}。自験例では舌に生じたもので、術前に甲状舌管嚢胞と診断できなかったこと、術中に瘻管を思わせるような索状物を認めなかったことなどから摘出術のみを行った。

自験例においては嚢胞が舌口底部に存在したため、舌運動が障害され、発音障害を認めていたが、単語明瞭度検査では術前の76.6%から術後は87.5%と改善を認めた。本

来、器質的病変による発音障害は、病変の消失とともに100%に近い改善を示すと考えられるが、自験例では脳梗塞の後遺症による失語症と発語失行を合併していたため、術後の単語明瞭度は87.5%にとどまった。しかしながら、手術の施行により10.9%の増加を認め、今後も言語療法を行うことによりさらなる改善が期待される。

術後の精査では頸部にSOLの存在を認めず、現在術後約6か月を経過し、再発の徴候は認めないが、2年6か月後に再発した報告²⁾や遺残上皮より癌が発生した症例の報告¹⁷⁾もあることから今後も慎重に経過を観察する予定である。

結 語

今回われわれは、61歳男性の舌に生じた甲状舌管嚢胞の1例を経験したので報告した。

引 用 文 献

- 1) Sistrunk, W.E.: The surgical treatment of cyst of the thyroglossal tract. *Ann Surg* 71: 121-124 1920.
- 2) 和田重人, 小村 健: 甲状舌管嚢胞の臨床病理学的検討—舌骨合併切除について—, *口科誌* 49: 102-107 2000.
- 3) 宮澤利明, 杵渕孝雄, 他: 嚥下困難を生じた二房性の甲状舌管嚢胞の1例. *日口外誌* 41: 1003-1005 1995.
- 4) Allard, R.H.B.: The thyroglossal cyst. *Head Neck Surg* 5: 134-146 1982.
- 5) Santiago, W., Rybak, L.P., et al.: Thyroglossal duct cyst of the tongue. *J Otolaryngol* 14: 261-264 1985.
- 6) Solomon, R.J. and Rngcroft, L.: Thyroglossal-duct lesions in childhood. *J Pediatr Surg* 19: 555-561 1984.
- 7) 竹田 愛, 野口 誠, 他: 舌背前方部に生じた甲状舌管嚢胞の1例. *日口外誌* 47: 634-636 2001.
- 8) 平野裕士, 篠原正徳, 他: 甲状舌管嚢胞の臨床的,

- 病理組織学的検索. 日口外誌 34: 695-703 1988.
- 9) 小川 透, 田中純一, 他: 甲状舌管嚢胞の1例. 日口外誌 36: 2341-2345 1990.
- 10) Miyaji, Y., Sakashita, H., et al.: Thyroglossal duct cyst: report of case. Jpn J Diag/Oral Med 9: 435-438 1996.
- 11) 森下正明: 甲状舌管嚢胞(正中頸嚢胞). 宮崎 正監修; 口腔外科学Ⅱ. 第2版, 医歯薬出版, 東京, 2000, 351-352 頁.
- 12) 賀来直美, 水城春美, 他: 重篤な心奇形を有した小児の舌下部にみられた甲状舌管嚢胞の1例. 小児口外 10: 38-43 2000.
- 13) 齋藤貴一郎, 坂下英明, 他: 多房性甲状舌管嚢胞の1例. 日口外誌 44: 780-782 1998.
- 14) Schlang, H.: Ueber die Fistulla colli congenita. Arch Klin Chir 46: 390-392 1893.
- 15) Sistrunk, W.E.: Technique of removal of cysts and sinuses of the thyroglossal duct. Surg Gynecol Obst 71: 109-112 1928.
- 16) Ein, S.H, Shandling, B., et al.: The problem of thyroglossal duct. J Pediatr Surg 19: 437-439 1984.
- 17) 長嶺信夫, 宮城 靖, 他: 甲状舌管遺残組織に発生した癌の1例. 癌の臨床 22: 793-797 1976.