臨床報告

生下時に認められた舌下部甲状腺管嚢胞の1例

深 本 真 央   加 藤 恵 三   吉 田 浩 明
畠 山 大 二 郎   牧 田 浩 樹   柴 田 敏 之

A Case of Thyroglossal Duct Cyst Occurring in Lower the Tongue at Birth

MAO FUKAMOTO, KEIZO KATO, HIROAKI YOSHIDA,
DAIJIRO HATAKEYAMA, HIROKI MAKITA AND TOSHIYUKI SHIBATA

Abstract : Thyroglossal duct cyst is a congenital cyst derived from epithelial remnants of the thyroglossal duct of the fetus and occurs between the foramen cecum of the tongue and the thyroid gland, though it rarely arises in the oral cavity. We report here a case of the cyst occurring in the lower tongue at birth.

The patient, an 11-day-old male infant, was referred by his obstetrician to our department with a chief complaint of swelling in the lower tongue. Physical examination revealed an elastic soft mass of 15 mm in diameter at the hypoglossal region, though functional disorders including lactation were not noted. Magnetic resonance imaging (T2 emphasis) showed a 14×12×18 mm cystic lesion having a clear boundary in the lower front of the tongue. A clinical diagnosis of lower tongue cyst was made. The removal was carried out under general anesthesia following serial observations until the body weight reached 10 kg. Histopathological findings did not contradict the thyroglossal duct cyst. The post-operative course was uneventful.

Key words : thyroglossal duct cyst (甲状腺管嚢胞), at birth (生下時), newborn (新生児), hypoglossal region (舌下部)

[Received Oct. 19, 2018]

緒 言

甲状腺管嚢胞は胎生期の甲状腺管の遺残上皮に由来する先天性嚢胞で、舌盲孔から甲状腺の間に発生し、舌舌下部に好発することが知られているが、口腔内に発生することは比較的まれである¹⁻⁴⁾。また、発症年齢は若年者が大半を占めると報告され、生下時に認められる例は少ない⁵⁾。今回われわれは、生下時に認められた舌下部甲状腺管嚢胞の1例を経験したので報告する。

症 例

患者：生後11日目、男児。

主訴：舌下部の腫瘍。

初診：201X年2月上旬。

現病歴：201X年2月上旬、近医産婦人科にて吸引分娩にて出生した。出生時体重は4,082gで、Apgarスコア（アプガー指数）は10/10であった。出生時に舌下部の腫

瘍を指摘されたため、生後11日で精査目的に同産婦人科医より当科紹介初診となった。

既往歴：特記すべき事項なし。

家族歴：特記すべき事項なし。

現症：

全身所見：出生時に新生児黄疸および高ビリルビン血症を認めたため、近医産婦人科にて生後4日より光線療法が施行され、その後、高ビリルビン血症にて当院小児科紹介受診中であった。

口腔内所見：舌下正中部に幅径約15mm大の弾性軟の腫瘍を認めたが、授乳等の機能障害は認められなかった（写真1）。

画像所見：MRI検査で、舌下部にT2強調像で著明な高信号を呈する14（左右径）×18（上下径）×12（前後径）mm大の境界明瞭で内部均一な類円形の嚢胞様病変を認めた（写真2）。造影MRIも施行したが、明らかな増強効果はなく充実成分がないことから、嚢胞性病変と考えた。

岐阜大学大学院医学系研究科口腔病態学分野（主任：柴田敏之教授）

Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Gifu University Graduate School of Medicine (Chief: Prof. TOSHIYUKI SHIBATA) 1-1 Yanagito, Gifu-shi, Gifu 501-1194, Japan.

MRI 検査は当院小児科に依頼し, 入院・静脈内鎮静下に実施した。静脈内鎮静にはラボナール® (一般名: チオペンタールナトリウム) を使用した。検査前後で児の呼吸・循環状態に異常はなく, 検査翌日に退院可能であった。

臨床診断: 舌下部嚢胞。

処置および経過: 授乳等の機能障害は認めず緊急性のある疾患ではないと判断し, 外来にて経過観察を行い, 体の成長を待つこととした。体重が 10kg を超えた 201X + 1 年 8 月, 全身麻酔下に舌下部嚢胞摘出術を施行した。尚, この間嚢胞の著明な増大等は観察されなかった。舌下部嚢胞直上に縦切開を加え, 嚢胞壁を露出させた。嚢胞壁は比較的厚く弾力性を有していた。嚢胞は, 縦舌筋前方, オトガイ舌筋前方に位置していた。嚢胞と周囲組織との癒着や索状瘢痕等は認められず剥離は容易であった。また, ワルトン管との関連も認められなかった (写真 3)。手術創が

写真 1 初診時口腔内所見
舌下正中部に幅径約 15mm 大の弾性軟の腫瘤を認める。

前方部であり剥離面も小さかったため, 摘出後, ドレーンの留置等を行わず縫合し閉鎖創として手術を終了した。術後約 2 年経過した現在, 再発等の異常所見は認められず経過は良好である。

摘出標本所見: 摘出物は, 比較的厚い被膜に覆われ, 白色の内容物を認めた (写真 4)。

病理組織学的所見: H-E 染色では, 嚢胞は杯細胞の混在する多列線毛円柱上皮や粘液を有する高円柱上皮に裏装されていた。また, 甲状腺や肺において陽性所見を示す TTF-1 で免疫染色を行ったところ, 多列線毛円柱上皮で陽性所見を示していた (写真 5)。

病理組織診断: 舌下部甲状舌管嚢胞。

考 察

甲状腺原基は, 胎生 3 ~ 4 週頃に舌盲孔付近に発生し, その後舌骨・喉頭の前方を甲状舌管を形成しながら下降する。この甲状舌管は通常胎生 8 ~ 10 週で退縮するが, 甲状舌管の上皮遺残が生じるとその経路の途中で嚢胞化し甲状舌管嚢胞が発生すると考えられている。このため, 本嚢胞は舌盲孔と甲状腺との間に発生するとされている。また, 発生部位は垂直的に分類すると大きく分けて甲状腺部, 舌骨下部, 舌骨部, オトガイ下部, 舌根部に分けられるが, その中で最も多いのが頸部正中の舌骨下部とされている。本嚢胞の発生頻度は, 86,000 人中 31 人 (0.36%) とする Sistrunk の報告³⁰⁾ や, 甲状腺疾患 6,582 例中 74 例 (1.12%) とする Clute らの報告³¹⁾, 甲状舌管嚢胞 105 例中 4 例 (3.81%) に舌に認めたとする Ward らの報告³²⁾ がある。さらに Bailey³³⁾ は発生部位により舌盲孔, 口底部, 舌骨上部, 舌骨下部, 舌骨体部, 輪状軟骨部, 胸骨上窩部の 7

写真 2 MR 像 (T2 強調像)

A: 水平断, B: 矢状断

T2 強調像で著明な高信号を呈する左右径 14 × 上下径 18 × 前後径 12mm 大の境界明瞭な類円形の病変を認める。

つに細分類しそれぞれの発生頻度を述べており、口底部は 92 例中 6 例 (6.5%) であったとしている。いずれの報告からも、本嚢胞が舌下口底部に発生することはまれと考えられる^{6, 7, 23)}。好発年齢としては、本嚢胞が先天性疾患であることより、若年者に多く、50%が 20 歳までに、70%が 30 歳までに見い出されているが生下時より腫張等の症状を呈した報告は少ない²⁾。性差は男性にやや多いとする

報告²⁹⁾ や女性にやや多いとする報告¹⁵⁾ もあるが、性差はないとしている報告が多い^{2, 5, 7, 8, 12, 21, 26)}。われわれが渉猟し得た本邦における舌下部・口底部に発症した本嚢胞についての報告^{4, 6, 7, 10-29)}では、24 例中男性が 11 例、女性が 13

写真 3 術中写真
嚢胞壁は比較的厚く、弾力性を有する嚢胞様病変（矢頭）を認める。甲状腺舌管の遺残と思われる索状物は認められず、ワルトン管との関連も認められなかった。

写真 4 摘出物
比較的に厚い被膜に覆われ、白色の内容物を認める。

写真 5 病理組織像

- A: (H-E 染色) 嚢胞壁に杯細胞の混在する多列線毛円柱上皮や粘液を有する高円柱上皮を認める。
B: (H-E 染色)
C: (TTF-1 抗体を用いた免疫染色) 多列線毛円柱上皮で TTF-1 陽性所見を示す。高円柱上皮は TTF-1 陰性である。

例であり、諸家らの報告と同じく性差は認められなかった。

また報告例においては、舌下部ないし口腔内に本嚢胞が発生した場合、比較的まれな部位であるため、臨床診断として甲状舌管嚢胞と診断されることは少なく^{7, 25)}、舌下部や口底部に好発する他の嚢胞性病変、即ち類皮嚢胞、類表皮嚢胞、舌下型ガマ腫などと診断される場合が多く、自験例と同様に摘出後の病理学的検索により甲状舌管嚢胞と診断されていた。また、摘出物の内容液性状については乳白色や黄色を帯びたもの、褐色のものなど様々であったが、そのほとんどの例において粘稠性の高い内容液であることが報告されていた^{4, 7, 11, 13, 15, 17-21, 26, 29)}。

一般に本嚢胞の治療は、Sistrunk 法などの様に嚢胞と甲状舌管の遺残物を舌骨の一部を含め全摘出することがなされているが、口腔内に発生した場合には、瘻管の遺残の存在を含め甲状舌管嚢胞と診断すること自体が困難であり、上頸部からのアプローチは現実的ではないと考えられた。また、口腔内からアプローチし、術中に瘻管が確認された場合、これを口腔内より舌骨に達するまで追求することも困難であり、Sistrunk 法をそのまま適用することも難しいと考えられる。自験例の場合は、幸いにも瘻管遺残物と考えられる様な索状物が認められなかったため術中に術式を考慮する必要はなかったが、舌下、口底部に嚢胞様病変を認めた場合、頻度は低いものの甲状舌管嚢胞である可能性もあるため、術式を含めた治療計画を考慮しておく必要があると考えられた。摘出時期に関しては、生下時に認められた場合に、上気道の障害等を考慮し、早期に施行される場合もあるが、自験例では嚢胞は比較的小さく前方に局限していたため、身体の成育による耐侵襲性や術野を確保する観点より待機しながら経過観察を行った所、嚢胞の著明な増大は観察されず体重が 10kg に達した時点で摘出術を施行することが可能であった。

本嚢胞の病理組織学的特徴としては、口腔に近接した例では嚢胞が重層扁平上皮で裏装、下部の例では、線毛円柱上皮で裏装されていることが挙げられる。外層は線維性結合組織からなるが、二次感染を伴った例では肉芽組織がみられる。嚢胞に隣接して、迷入した甲状腺組織・リンパ組織・粘液腺組織がみられるものも報告されている³⁾。また甲状腺の遺残とされる索状物や嚢胞壁中に甲状腺類似組織や異所性甲状腺組織がみられることも知られている^{2, 3)}。われわれが渉猟し得た報告^{4, 6, 7, 10-29)}では、24 例中 6 例で索状物を認め、24 例中 2 例で嚢胞壁中に甲状腺類似組織を認めたものがあった。自験例においては、嚢胞内面は杯細胞の混在する多列線毛円柱上皮や粘液を有する高円柱上皮に裏装されており、嚢胞壁には線維性結合組織と少数の気管支腺類似の腺組織が観察された。また、甲状腺の濾胞上皮を由来とする腫瘍や、肺原発の腫瘍の診断に用いられている甲状腺濾胞上皮細胞や 2 型肺胞細胞およびクララ細

胞の核において特異的に発現している核転写蛋白である Thyroid transcription factor-1 (TTF-1) の発現が本嚢胞において観察されるとの報告があったため⁸⁾、自験例においても TTF-1 の発現を免疫組織染色で検索したところ、多列線毛円柱上皮で陽性所見を示していた。以上の所見より自験例は、発生部位が非典型的であり、甲状舌管の遺残とされる索状物も観察されなかったが、嚢胞壁の裏装上皮が多列線毛円柱上皮や高円柱上皮であり、多列線毛円柱上皮で TTF-1 の発現を観察したことより甲状舌管嚢胞と診断した。

甲状舌管嚢胞が舌根部以外の口腔内に生じる原因として、発生の段階で Bochdalek 氏腺管と呼ばれる甲状舌管の側枝が舌下部に遺残し本嚢胞が発生したとする報告⁹⁻¹³⁾や、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などが推察されているが、不明なままとなっている。今後、本嚢胞の病態を明らかにするためには、TTF-1 の発現様式の観察等を含め症例を共有することが重要と考えられた。

結 語

今回われわれは、生下時に認められた舌下部甲状舌管嚢胞の 1 例を経験したので報告した。

謝辞ならびに利益相反 稿を終えるにあたり、病理組織学的診断において御多忙の中御指導下さいました岐阜大学医学部付属病院 病理診断科 酒々井夏子先生に深く感謝いたします。また自験例の放射線学的診断において御高診、御助言を頂きました岐阜大学医学部付属病院放射線科 加藤 博基先生に深謝致します。

本論文に関して、開示すべき利益相反状態はない。また本症例では、ヘルシンキ宣言を遵守し、投稿に関し患者および患者の保護者よりインフォームドコンセントを得ている。

引用文献

- 1) 高木 實：口腔病理アトラス、第 1 版、文光堂、東京、p. 205, 1998.
- 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—、日口誌、49：102-107, 2000.
- 3) 平野裕士、篠原正徳、川野芳春、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.
- 4) 喜多照雄、大亦哲司、中谷 現、他：生下時より認めた口底部甲状舌管嚢胞の 1 例、日口外誌、51：497-500, 2005.
- 5) 尾尻博也：甲状舌管嚢胞（正中頸嚢胞）の画像所見と臨床、耳展、49：381-384, 2006.
- 6) 鈴木 円、坂下英明、江田 哲、他：舌下面正中に腫大を示した甲状舌管嚢胞の 1 例、日口外誌、50：430-433, 2004.
- 7) 北村龍彦、西尾順太郎、古澤栄之、他：舌下部に発生した甲状舌管嚢胞の 1 例、日口外誌、36：1935-1939, 1990.
- 8) Kreft, A.: Thyroid transcription factor 1 expression in cystic lesions of the neck: an immunohistochemical investigation of the thyroglossal duct cysts, branchial cleft cysts and metastatic papillary thyroid cancer. Virchows

- Arch, 447 : 9-11, 2005.
- 9) 大橋二郎, 山崎長夫: 氈毛上皮を有する特異なる口腔底嚢胞の1例. 口腔病学会雑誌, 22 : 50-54, 1955.
- 10) 古川哲夫, 大野暉八郎, 島原政司: 舌下部軟組織に発生した嚢胞性疾患の2例. 日口科誌, 20 : 152-159, 1971.
- 11) 田縁 昭, 堤 直文: 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. 日口外誌, 18 : 366-369, 1972.
- 12) 中島敏之, 本橋雪子, 玉井達人, 他: 舌下口底部にみられた甲状舌管嚢胞と思われる1例. 日口科誌, 24 : 156-159, 1978.
- 13) 町田圭介, 下山晴樹, 麻野和宏, 他: 乳幼児の口腔内に生じた甲状舌管嚢胞の3例. 北関東医学, 38 : 319-324, 1988.
- 14) 水谷雅英, 向井隆雄, 棚橋幸子, 他: 口底部に発生し構音障害と呼吸苦を伴った甲状舌管嚢胞の1例. 日口外誌, 54 : 679-682, 2008.
- 15) 平井英治, 黒川英雄, 山本晃三, 他: 口底部に発生した甲状舌管嚢胞の1例. 日口外誌, 54 : 611-615, 2008.
- 16) 高田広嗣, 小川 隆, 有坂隆一, 他: 小児の舌内に偏在性に発生した甲状舌管嚢胞の1例. 日口外誌, 17 : 44-46, 2007.
- 17) 竹田 愛, 野口 誠, 原田雅史, 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.
- 18) 賀来直美, 水城春美, 小野敬一郎, 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. 小児口外誌, 10 : 38-43, 2000.
- 19) 廣澤英夫, 大野 敬, 高田 訓, 他: 嚥下障害をきたした小児の甲状舌管嚢胞の1例. 小児口外誌, 9 : 55-58, 1999.
- 20) 立川隆治, 福島典之, 平川勝洋, 他: 口腔底に発生した甲状舌管嚢胞の1例. 耳鼻臨床, 補 102 : 141-144, 1999.
- 21) 鈴木 明, 大谷端夫, 小谷英二, 他: 先天性類皮嚢胞摘出後20年を経て出現した甲状舌管嚢胞の1症例. 日口外誌, 36 : 2556-2561, 1990.
- 22) 大越哲也, 伊賀原英子, 三島安世, 他: 口底部甲状舌管嚢胞の1例. 日口外誌, 36 : 2562-2565, 1990.
- 23) 伊藤 昇, 榎本道彦, 荒尾宗孝, 他: 甲状舌管嚢胞を伴った先天性類皮嚢胞の1例. 日口外誌, 35 : 2940-2944, 1989.
- 24) 亀井隆行, 桜庭 裕, 木村典子, 他: 甲状舌管嚢胞の1例. 日口外誌, 32 : 795-798, 1986.
- 25) 堀越 勝, 石田 恵, 草間幹夫, 他: 脂肪性分離腫を伴った甲状舌管嚢胞と思われる1例. 日口外誌, 31 : 2005-2010, 1985.
- 26) 岡野昌治, 小鹿典雄, 内山健志, 他: 呼吸困難を伴った新生児の舌下部甲状舌管嚢胞の1例. 日口外誌, 26 : 1047-1050, 1980.
- 27) 佐藤 匠, 姫野 宏: 新生児の口腔底に見られた年を経て出甲状舌管嚢胞の1症例. 日口外誌, 22 : 827-831, 1976.
- 28) 大里宏治, 東江良昭, 岡田忠久, 他: 口腔底に発生した甲状舌管嚢胞の1例. 日口外誌, 21 : 503-506, 1975.
- 29) 大野康亮, 石橋克礼, 岩城 博, 他: 口底部甲状舌管嚢胞の1例. 日口外誌, 20 : 370-374, 1974.
- 30) Sistrunk, W.E.: The surgical treatment of cysts of the thyroglossal tract. Ann Surg, 92 : 57-66, 1930.
- 31) Clute, H.M. and Cattel, R.B.: Thyroglossal cysts and sinuses. Ann Surg, 71 : 121-122, 1920.
- 32) Ward, G.E. and Hendrick, J.W.: Thyroglossal tract abnormalities-cysts and fistulas. Surg Gynecol Obstet, 89 : 727-734, 1949.
- 33) Bailey, H.: Thyroglossal cysts and fistulae. Br J Surg, 12 : 579-589, 1925.