

症例報告

舌下部に生じた側方型類皮嚢胞の1例

馬場 隼一^{1,2)}, 岩井 俊憲¹⁾, 南山 周平¹⁾, 杉山 聡美¹⁾,
吉井 悠¹⁾, 北島 大朗¹⁾, 矢島 康治¹⁾, 小栗 千里¹⁾,
山中 正二³⁾, 光藤 健司¹⁾

¹⁾横浜市立大学大学院医学研究科 顎顔面口腔機能制御学

²⁾済生会横浜市南部病院 歯科口腔外科

³⁾横浜市立大学附属病院 病理診断科・病理部

要旨: 類皮嚢胞は口腔領域では舌下部正中に生じることが多く、側方部に生じるとは4.3%と極めてまれである。側方型類皮嚢胞はラヌーラなどの他病変との鑑別が必要である。今回われわれは、舌下部に生じた側方型類皮嚢胞の1例を経験したのでその概要を報告する。

症例は15歳、女児。右側顎下部の膨隆のため、当科紹介受診となった。CTでは右側舌下隙に単房性嚢胞性病変を認め、MRIでは病変の内部に複数の小結節様構造を認めた。USでは病変は不均一で角化物を伴い、病変内の血流は認めなかった。右側舌下部類皮嚢胞の臨床診断のもと、全身麻酔下に口内法での嚢胞摘出術を施行した。舌神経麻痺や血腫などの合併症は生じず、術後2日目に退院となり、病理診断は類皮嚢胞であった。術後6年経過するが、再発は認めず経過良好である。側方型類皮嚢胞はまれであるため、舌下隙に生じる病変との鑑別を確実にし、顎舌骨筋と嚢胞の解剖学的位置関係を把握したうえで手術のアプローチを決定することが重要であると思われた。

Key words: 側方型類皮嚢胞 (lateral dermoid cyst), 舌下 (sublingual), 鑑別診断 (differential diagnosis), 口内法 (intraoral approach)

緒言

類皮嚢胞は外胚葉の先天性の迷入、皮膚や粘膜の後天的な封入によって生じる嚢胞であり、口底部に生じる頻度は1.6%とされる¹⁾。口底部類皮嚢胞は舌下部正中に生じることが多く、側方部に生じるとは4.3%と極めてまれである^{1,2)}。側方型の舌下部類皮嚢胞は舌下隙や顎下隙に生じるため、ラヌーラとの鑑別が困難なことがある^{3,4)}。また、舌下隙の類皮嚢胞が増大すると顎舌骨筋が菲薄化するため、オトガイ下型類皮嚢胞と混同されることもある⁵⁾。今回われわれは、舌下部に生じた側方型類皮嚢胞の1例を経験したので、その概要を報告する。

症例

患者: 15歳、女性。

初診: 2007年5月。

主訴: 右側顎下部の膨隆。

既往歴: 小児喘息。

家族歴: 特記事項なし。

現病歴: 以前から右側顎下部の膨隆を自覚していたが、放置していた。徐々に膨隆が増大してきたため、2019年4月に某病院耳鼻咽喉科を受診した。顎下型ラヌーラと診断され、OK-432の注入療法あるいは舌下腺摘出術が提案されたが、最適な治療法の相談のために2019年5月に当科紹介受診となった。

現症:

全身所見: 特記すべき異常は認めなかった。

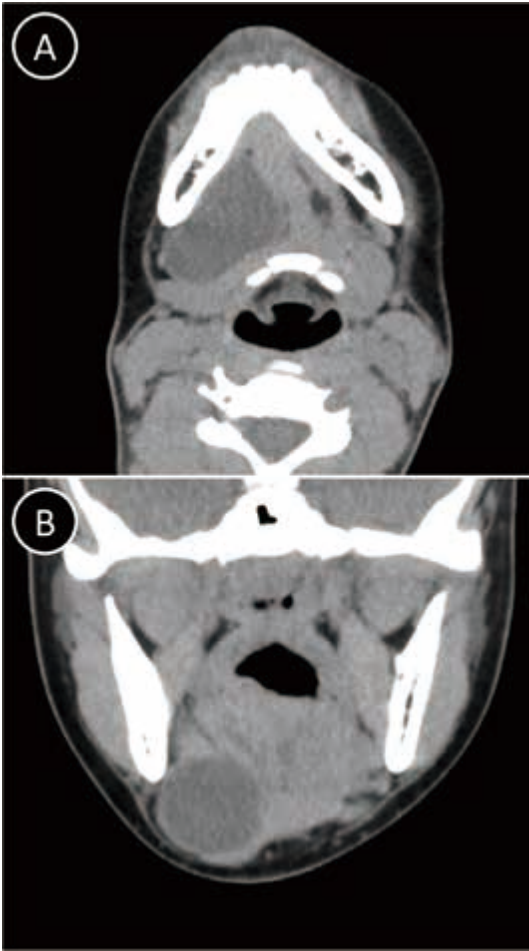


写真1 CT画像

A：右側舌下隙に43×22×33mmの単房性嚢胞性病変を認める
B：顎舌骨筋は嚢胞性病変によって下方に圧排され被薄化している

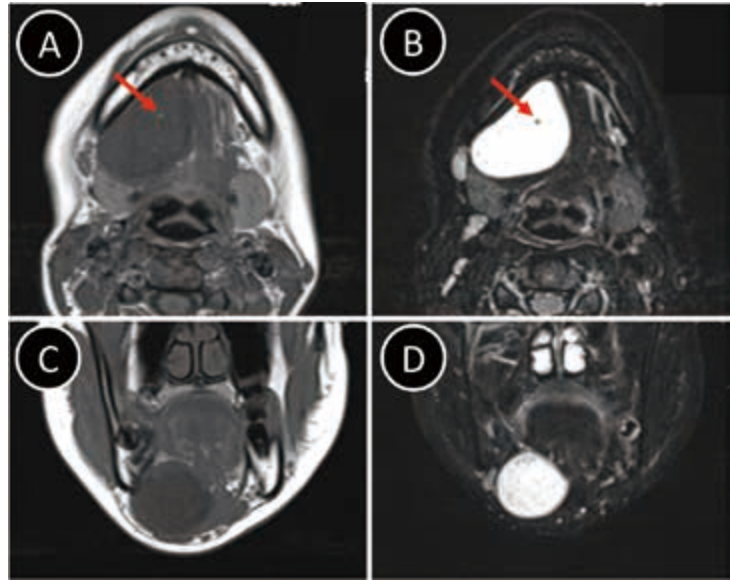


写真2 MRI画像

右側舌下隙にT1強調画像で低信号, short tau inversion recovery (STIR) 像で高信号を示す長径43mmの単房性嚢胞性腫瘤を認めた. 内部には小結節様構造が散見された(矢印). A：T1強調画像 (Axial), B：STIR像 (Axial), C：T1強調画像 (Coronal), D：STIR像 (Coronal)

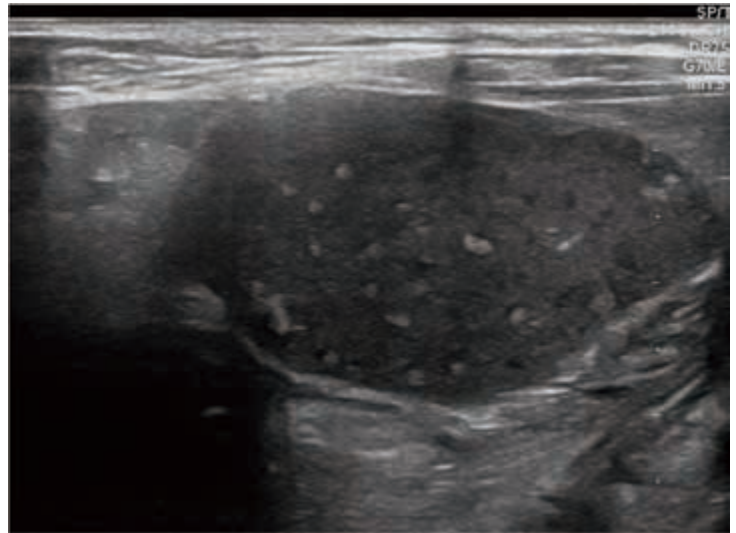


写真3 US画像

内部に複数の小結節様構造を伴う不均一な嚢胞性病変を認めた

口腔外所見；右側顎下部の膨隆を認めた.

口腔内所見；右側口底部の膨隆を認めたが, 粘膜表面は正常であった. 右側舌下小丘からの唾液の流出は良好であった.

画像所見；Computed tomography (CT) では右側舌下隙に43×22×33mmの単房性嚢胞性病変を認めた(写真1). Magnetic resonance imaging (MRI) では右側舌下隙にT1強調画像で低信号, short tau inversion recovery (STIR) 像で高信号を示す長径43mmの単房性嚢胞性病変を認め, 内部には小結節様構造が散見された(写真2). Ultrasonography (US) では, 病変は不均一で角化物と思われる高輝度結節を伴い, 病変内の血流は認めなかった(写真3).

臨床診断：右側顎下部類皮嚢胞.

処置および経過：病変は舌下隙に存在していたため, 全身麻酔下にて口内法による嚢胞摘出術を施行した. 局所麻酔後, 右側口底粘膜を舌下小丘から後方にかけて切開した(写真4A). 舌下腺の外側を剝離すると, 嚢胞が確認された(写真4B). 嚢胞周囲の剝離を進め, 舌神経を同定・温存しながら, 下方で顎舌骨筋より剝離することで嚢胞を摘出した(写真4C). シリコン製のドレーンを留置し, 口底粘膜を縫合した. 舌神経麻痺や血腫といった合併症は生じず, 手術翌日にドレーンを抜去し, 術後2日目に退院となった. 術後6年経過するが, 再発は認めていない.

病理組織学的所見：嚢胞壁は角化重層扁平上皮で被覆され, 毛包や脂腺様構造を伴っていた. 嚢胞内腔には層状の角化物が充満していた(写真5A, B).

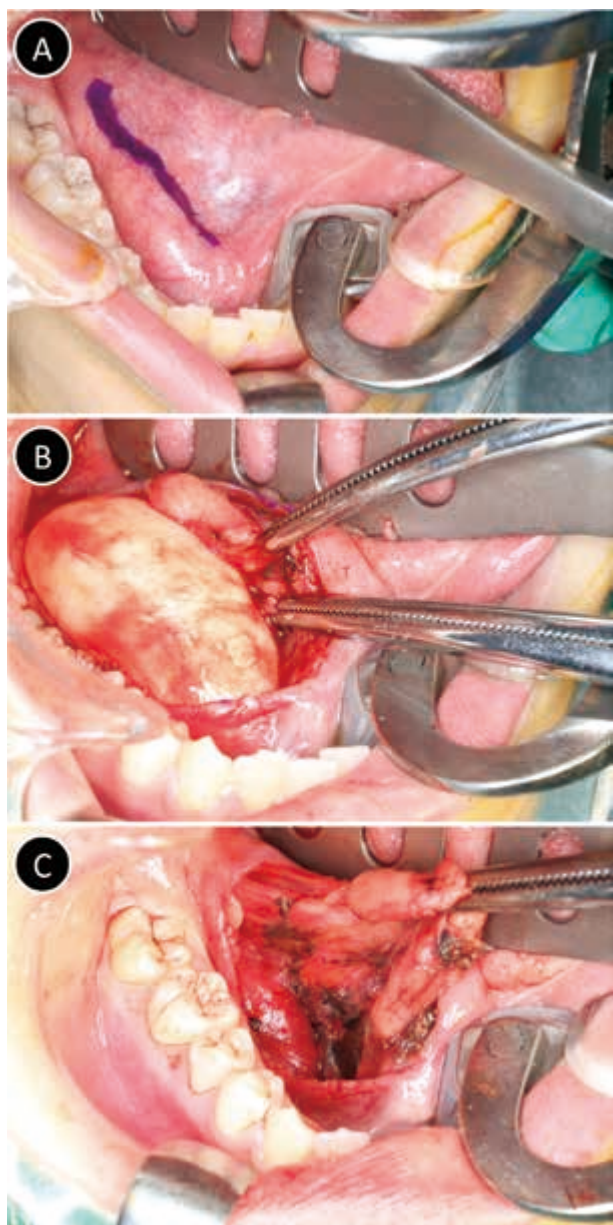


写真4 術中写真

- A: 舌下小丘後方の右側口底粘膜に切開線を設定した
- B: 舌下腺の外側を剝離して嚢胞を確認した
- C: 下方で顎舌骨筋から剝離して嚢胞を完全に摘出した

病理組織学的診断：類皮嚢胞。

考 察

類皮嚢胞は全身に生じる疾患であるが、好発部位は肛門を含む直腸や卵巣とされており、口底部に生じる頻度は1.6%程度と比較的まれである^{1,5,6,7)}。一般的に思春期以後の青壮年期に発見されることが多く、10~20歳代が好発年齢とされる^{2,5)}。これは汗腺、皮脂腺などの機能が活発になる思春期に急速に増大するためと考えられている²⁾。本症例も15歳であり、好発年齢と一致していた。

頭頸部の類皮嚢胞は皮膚上皮成分が胎生期の皮膚癒合

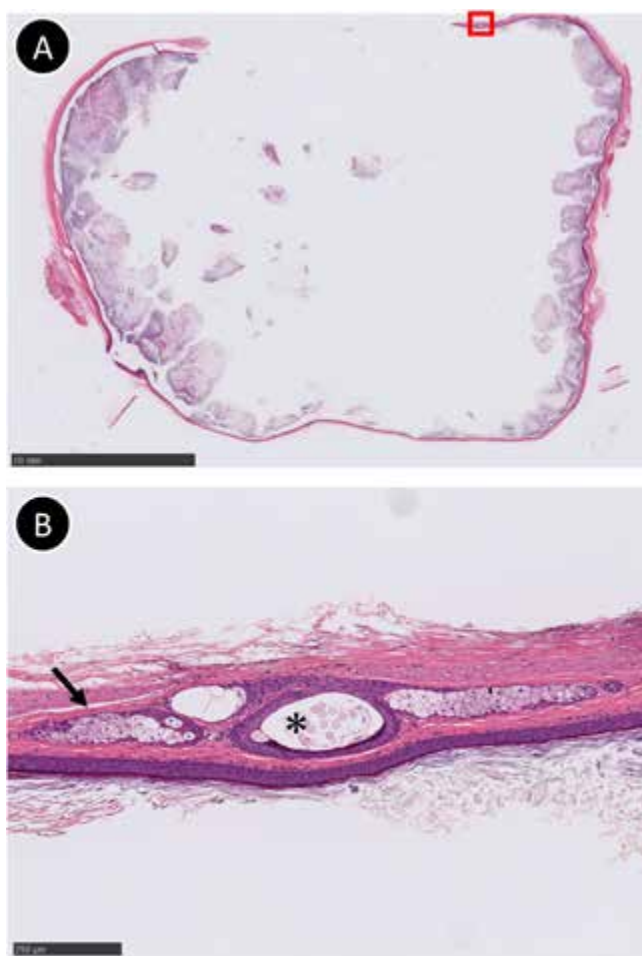


写真5 病理組織写真

- A: 嚢胞内腔に角化物を認める
- B: Aの赤枠部を強拡大。嚢胞壁に脂腺様構造(矢印)や毛包(*)を認める

の際に深部の結合組織内に迷入して生じると考えられており、腹側あるいは背側の正中線上に発生する⁶⁾。口底部に生じる類皮嚢胞は第一・咽頭弓の正中癒合の際に上皮成分が迷入して生じるとされるが⁶⁾、まれに癒合線が側方に偏位して上皮遺残が生じると側方型の類皮嚢胞が発生すると考えられる⁷⁾。1908年にDebounelleが正中型と側方型に分類し、正中型が圧倒的に多いと報告しており^{2,8,9)}、大野ら²⁾は口底部類皮嚢胞のうち側方型は4.3%と報告している。また、Bergmann-萩崎の分類では顎舌骨筋の上方にあるものを舌下型、下方にあるものをオトガイ下型、両者に跨がるものを舌下-オトガイ下型の3つに分類され^{2,8,9)}、Teszlerら¹⁰⁾は口底部類皮嚢胞を正中型と側方型のみならず、顎舌骨筋、オトガイ舌骨筋との位置関係も加えて7つのカテゴリーに分類する方法を提唱している。Seward¹¹⁾は真の側方型類皮嚢胞は内側ではオトガイ舌骨筋とオトガイ舌骨筋、外側では顎舌骨筋によって囲まれる部位に生じると定義している。本症例は舌下隙に存在していたため、真の側方型類皮嚢胞に矛盾しない所見を呈していた。

口底部に生じる腫瘍は類皮嚢胞のほかにもラヌーラ、嚢

胞性リンパ管奇形, 甲状舌管嚢胞 (正中顎嚢胞), 脂肪腫などが挙げられる。このうち, 嚢胞性リンパ管奇形は筋肉, 血管などの正常構造物間に入り込むように進展し, 内部に隔壁が生じたり, 時に多発性に生じたりする特徴があるため画像で鑑別が可能である⁴⁾。また, 甲状舌管嚢胞は正中線上に生じ, 舌骨に接しているという特徴がある⁴⁾。脂肪腫はMRIのSTIR像で鑑別が容易となる⁷⁾。一方, ラヌーラとの鑑別は時に困難である。類皮嚢胞は周囲の組織を押しよけるような圧排拡張型の像を呈するが, ラヌーラは漏出性嚢胞であるため, 周囲の筋肉などの構造を避けるように増大し, 顎下隙へと入り込む像 (tail sign) を呈することがある⁴⁾。また, 類皮嚢胞はCTやMRIでは皮脂や角化物が混在したはじき石状の内部構造を呈することがあるが⁴⁾, 内部構造が正確に描出されないこともある¹²⁾。USはCTやMRIに比べて空間分解能に優れており, 表在性の小さな病変の内部構造を詳細に描写することが可能であり, 本症例でも複数の小さな角化物と思われる高輝度結節が描出されていた。Kutuyaら¹²⁾は類皮嚢胞を正確に診断するにはUSが最も有用であり, MRIは病変と隣接組織の解剖学的関係を明確にすることに役立つ。CTは補助的なものであると述べている。本症例でも当初は顎下型ラヌーラとして紹介されていたが, USにおいて嚢胞内に不均一な内容物が確認されたため, 術前に類皮嚢胞と診断することが可能であった。USでも顎下型ラヌーラとの鑑別が困難な場合は穿刺吸引が有用であり, 一般的にラヌーラであれば黄色で粘稠な内容物が吸引され, 類皮嚢胞であれば吸引されないか, 粘度の低い白色・茶色の泥状物が少量吸引される⁴⁾。

口底部類皮嚢胞の治療方法は外科的摘出であり, そのアプローチ法は類皮嚢胞と顎舌骨筋の位置関係によって決定され, 顎舌骨筋の上方に嚢胞が存在すれば口内法, 下方に嚢胞が存在すれば口外法で類皮嚢胞は摘出可能である¹⁰⁾。しかし, 門田ら¹⁾の舌下型嚢胞の検討では, 正中型の81%が口内法で摘出されているのに対し, 側方型では50%しか口内法が選択されていなかった。その理由としては, 口底側方には舌神経や舌下神経などの損傷リスクを考慮し視野を十分確保できる口外法が選択されていたと考えられる¹⁾。しかし, 本症例のように舌下腺の外側からアプローチして舌神経やワルトン管を丁寧に同定して温存すれば, 口腔内から嚢胞を摘出することが可能である。複雑な解剖学的形態を示す口底部の手術を安全に行うためには, 術前に正確に鑑別診断を行い, 病変の解剖学的位置関係に基づいた適切なアプローチ方法を選択することが重要であると思われた。

結 語

舌下部に生じた側方型類皮嚢胞の1例を経験した。側方型類皮嚢胞はまれであるため, 舌下隙に生じる病変との鑑別を確実にを行い, 嚢胞と顎舌骨筋との位置関係を把握したうえで, 手術のアプローチを決定することが重要であると思われた。

本論文に関して, 開示すべき利益相反状態はない。

文 献

- 1) 門田英輝, 中島寅彦, 福島淳一, 小池浩次, 小宗静男: 異なるアプローチにより摘出した口腔底類皮嚢胞の2例. 耳鼻と臨, **54**: 89-96, 2008.
- 2) 大野邦博, 曾田忠雄, 石田 恵, 伊藤秀夫: 口腔領域の類皮嚢胞50例の臨床統計ならびに本邦における文献的考察. 日口腔外会誌, **25**: 842-847, 1979.
- 3) 吉澤邦夫, 諸井明德, 上木耕一郎: 14歳男児の口底部に発生した側方型類皮嚢胞の1例. 日口腔診断会誌, **33**: 170-174, 2020.
- 4) 栢野香里, 鯉田篤英: 口腔底に発生した類皮嚢胞の1例. 頭頸部外, **23**: 175-179, 2013.
- 5) 竹田 敦, 山下陽介, 五味佳蓮, 他: 両側顎下まで進展した巨大なオトガイ下型類皮嚢胞の1例. 日口腔診断会誌, **35**: 41-45, 2022.
- 6) 重見英男, 平野 勝, 黒野祐一, 茂木五郎: 編側性に発生した口腔底類皮嚢胞. 口腔咽頭科, **8**: 435-438, 1996.
- 7) Gulati U, Mohanty S, Augustine J, Gupta SR: Potentially fatal supramylohyoid sublingual epidermoid cyst. J Maxillofac Oral Surg, **14**: 355-359, 2015.
- 8) 大山 茂, 竹内友康, 中村武之, 他: 口底部側方型類皮嚢胞の2例. 日口腔科会誌, **35**: 672-677, 1986.
- 9) 貞岡達也, 本山壮一, 杉田邦洋, 牧本一男: 口腔内への多量排膿をみた口腔底類皮嚢胞例. 耳鼻臨床, **84**: 49-53, 1991.
- 10) Teszler CB, El-Naaj IA, Emodi O, Luntz M, Peled M: Dermoid cysts of the lateral floor of the mouth: A comprehensive anatomico-surgical classification of cysts of the oral floor. J Oral Maxillofac Surg, **65**: 327-332, 2007.
- 11) Seward GR: Dermoid cysts of the floor of the mouth. Br J Oral Surg, **3**: 36-47, 1965.
- 12) Kutuya N: A case of dermoid cyst of the floor of the mouth: ultrasonography was more useful than computed tomography and magnetic resonance imaging in the preoperative diagnosis. J Med Ultrason, **36**: 27-31, 2009.

Abstract

A CASE OF LATERAL SUBLINGUAL DERMOID CYST

Junichi BABA^{1,2)}, Toshinori IWAI¹⁾, Shuhei MINAMIYAMA¹⁾, Satomi SUGIYAMA¹⁾,
Haruka YOSHII¹⁾, Hiroaki KITAJIMA¹⁾, Yasuharu YAJIMA¹⁾, Senri OGURI¹⁾,
Shoji YAMANAKA³⁾, Kenji MITSUDO¹⁾

¹⁾ *Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Yokohama City University Graduate School of Medicine*

²⁾ *Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Saiseikai Yokohamashi Nanbu Hospital*

³⁾ *Department of Pathology, Yokohama City University Hospital*

Dermoid cysts often occur in the middle of the sublingual region and are extremely rare in the lateral region. Lateral sublingual dermoid cysts require differential diagnosis of other lesions such as ranula. We report a case of lateral sublingual dermoid cyst.

A 15-year-old girl was referred to our department for right submandibular swelling. Computed tomography revealed a unilocular cystic lesion in the right sublingual space, and magnetic resonance imaging showed the lesion including nodule-like structures. Ultrasonography showed a heterogeneous lesion with keratinized materials and no blood flow. Clinical diagnosis was a right sublingual dermoid cyst, and intraoral cystectomy was performed under general anesthesia. The postoperative course was uneventful without complications such as lingual nerve palsy or hematoma, and the patient was discharged 2 days postoperatively. Pathological diagnosis was a dermoid cyst. There was no recurrence after 6 years. Because lateral sublingual dermoid cysts are rare, it is important to distinguish them from other lesions in the sublingual space, and determine the surgical approach based on the anatomical relationship between the mylohyoid muscle and the cyst.