

症例報告

口底部に生じた巨大な類皮嚢胞の一例

野上 以織, 豊島 貴彦, 栗原 祐史, 佐藤 華
代田 達夫, 新谷 悟

要旨：無痛性に増大した50 mmを超えた舌下型類皮嚢胞を経験したので報告する。症例は29歳女性で、近歯科にて口底部の腫脹を指摘され、平成21年6月、紹介により当科を受診した。初診時、口底部に無痛性、弾性軟の膨隆を認め、二重舌を呈していた。咬頭嵌合位をとることは可能で、舌の運動、構音、摂食嚥下などの明らかな機能障害は認めなかったが、就寝時に呼吸苦を自覚していた。MRI所見ではT2強調画像において辺縁部分に強い高信号、内部に不均一な低信号を示す50×30×30 mm大の類円形、境界明瞭な嚢胞性病変を認めた。平成21年9月、全身麻酔下で口内法による嚢胞摘出術を施行した。術後、口底部の腫脹による気道狭窄が懸念されたため、挿管および鎮静を18時間継続して経過観察を行った。嚢胞は病理組織学的に類皮嚢胞と診断された。

類皮嚢胞および類表皮嚢胞は、先天的には胎生期の迷入外胚葉組織、後天的には炎症や外傷などにより迷入した上皮組織に由来する軟組織由来嚢胞である。好発部位は卵巣や肛門であるが、顎口腔領域では口底部正中に好発するといわれている¹⁾。しかし、顎口腔領域では50 mmを超える病変は比較的多い¹⁻³⁾。今回われわれは、無痛性に増大し、最大径が50 mmを超えた舌下型類皮嚢胞を経験したので文献的考察を加え症例の概要を報告する。

症 例

患者：29歳、女性。

初診：2009年6月18日。

主訴：口底部の腫脹。

既往歴・家族歴：特記事項なし。

現病歴：2009年5月、近歯科医院で口底部の腫脹を指摘され、精査加療を目的に当科を紹介され来院した。

現症：全身所見；体格は中等度、栄養状態良好で全身状態に異常は認められなかった。

口腔外所見：顔貌は対称性で、オトガイ下部、顎下部には腫脹を認めなかった。また、所属リンパ節にも腫大などの異常はなかった (Fig. 1A, B)。

口腔内所見：口底部に小児手拳大の軟泥様感の無痛性腫瘍を認めた。表面性状は平滑で正常粘膜色を呈し、舌下小丘からの唾液流出障害は認めなかった。舌は後上方へ圧排され二重舌を呈していた (Fig. 2A, B) が咬頭嵌合位をとることは可能であった。舌の運動、構音、摂食

などの機能障害は認めなかった。しかし、数か月前より就寝時に軽微な呼吸苦を自覚していたが、放置していた。

CT所見：垂直的に舌下部から顎舌骨筋上縁まで、水平的に後方は舌骨に近接する境界明瞭、表面平滑な50×30×40 mmの透過性病変を認めたが、顎骨には骨吸収などの異常所見は見られなかった (Fig. 3A, B, C)。

MRI所見：T2強調画像で類円形、境界明瞭、辺縁部分が高信号、内部が不均一な低信号 (Fig. 4A, B)、T1強調画像では低信号、50×30×30 mm大の腫瘍性病変を認めた。

臨床診断：触診にて軟泥様感を呈したことや、T2強調画像にて内部が不均一な低信号を認めたことから、内部にオカラ状の角化物を含む嚢胞である口底部類皮嚢胞あるいは類表皮嚢胞と診断した。

処置および経過：上記診断のもとに平成21年9月4日に全身麻酔下にて嚢胞摘出術を施行した。口内法にて舌小帯に沿って嚢胞直上の粘膜に切開を加え、嚢胞皮膜に沿って鈍的に剥離操作を進め、深部においては用手剥離を行い、一塊として嚢胞を摘出した (Fig. 5A, B, C)。摘出標本は52×40×30 mm大、軟泥様感を示す表面平滑な類球形の腫瘍であった (Fig. 5D)。術後に口底部の腫脹による気道狭窄が懸念されたため、挿管した状態で帰宅し、翌日腫脹による気道狭窄の危険がないことを確認してから抜管した。術後は合併症の出現もなく、口腔底の形態は改善され、経過良好である (Fig. 6A, B)。

病理組織学的所見：嚢胞壁は角化のみられる重層扁平上皮からなり、毛包は認められなかったが一部に皮脂腺

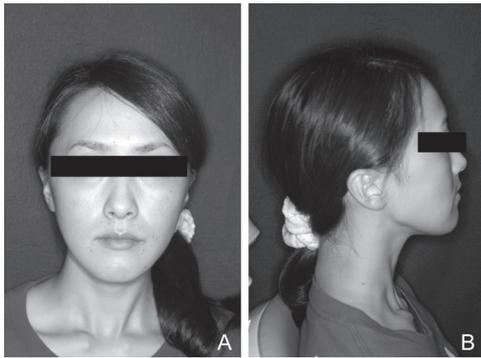


Fig. 1 Pre-operative facial view. No pre-operative facial swelling is seen. (A: Front view, B: Lateral view)

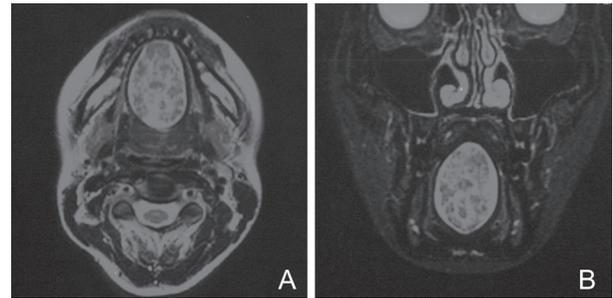


Fig. 4 MR images. In T2 weighted image, nodule-like lesion with clear boundary is observed. (A: Axial section (T2w), B: Coronal section (fat suppression T2w))

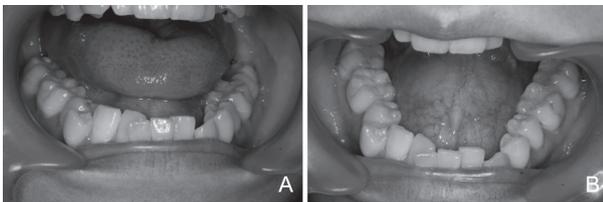


Fig. 2 Pre-operative intraoral view indicating. A: The tongue is raised at rest. B: Swelling is observed in floor of the mouth.

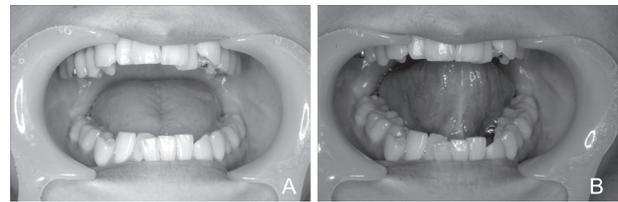


Fig. 6 Post-operative oral view. No complication is observed. (A: Rest position B: Raising position)

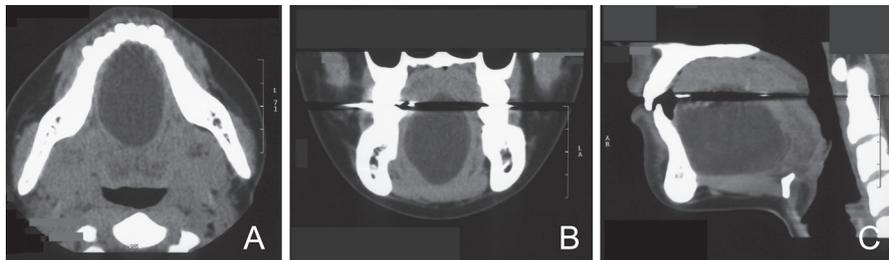


Fig. 3 CT images showing. A bulge of transmitted image (50×30×40 mm) with clear boundary. Low density area in the lesion is observed. Vertically it is near to the upper border of the mylohyoid muscle. Horizontally it is near to the hyoid bone at the back side. (A: Axial section, B: Coronal section, C: Sagittal section)

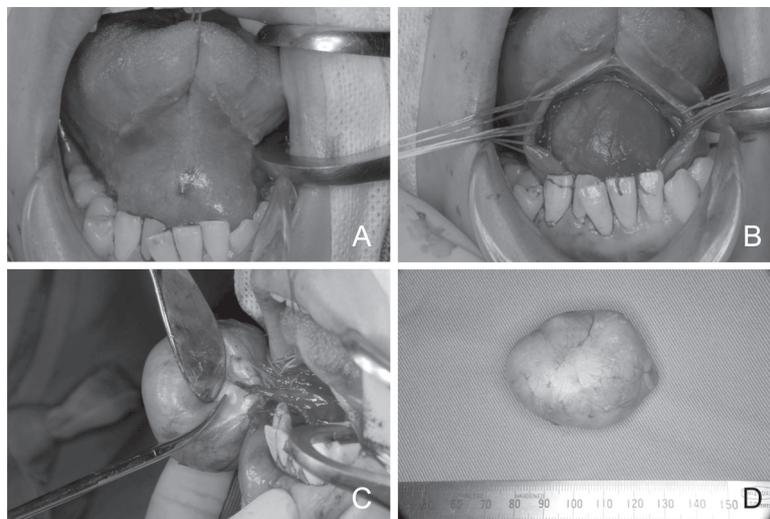


Fig. 5 Intraoperative view. A: The tongue was pulled from a thread, B: Appearance of the lesion, C: The cyst was denuded, D: The denuded cyst is measuring 52×40×30 mm and soft like clay.

を含み、内腔は剥離上皮細胞や角質変性物が貯留していた (Fig. 7).

病理組織学的診断：類皮嚢胞。

考 察

類皮嚢胞は身体各部に発生するが、New ら⁴⁾ は全身の類皮嚢胞 1495 例のうちで頭頸部領域の発生は 103 例 (6.9%) で、そのうち口腔領域の発生は 24 例 (1.6%)

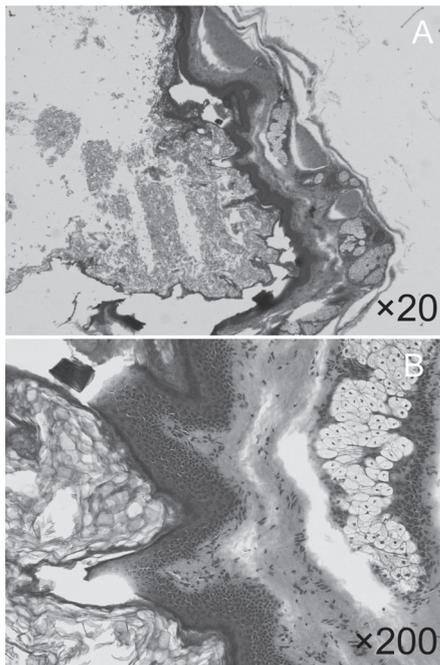


Fig. 7 Pathological tissue of the removed cyst. (H and E stain A: $\times 20$, B: $\times 200$). The cyst wall composed of keratinized stratified squamous epithelium of layer 7-8 contains sebaceous glands. The cyst lumen filled with dead skin cells and epithelial tissue degeneration detachment can be observed.

であったと報告している。一方、口腔領域では類皮嚢胞は類表皮嚢胞に比べて少なく、類皮および類表皮嚢胞 50 症例中、類皮嚢胞は 13 症例 (26.0%) であったと報告されている^{5,6)}。

口腔領域における好発部位は舌下・オトガイ下の正中および顎下部が大多数を占めており、病変が顎舌骨筋より上方にあるものを舌下型、下方に位置するものをオトガイ下型、両方に及ぶものを舌下-オトガイ下型としている^{1,7,8)}。本症例はこの分類によると舌下型であった。Msthews ら⁹⁾ は口底に発生する類皮嚢胞のうち舌下型は 52% であったとの報告している。嚢胞の大きさは 4 cm 以下のものがほとんどであるが¹⁻³⁾、5 cm を越えるものは比較的まれとされ、本邦での報告は自件例を含め 13 例が報告^{1,3,6,10-18)} されているにすぎない (Table 1)。さらにこれらのうち類皮嚢胞は 6 例であった¹⁾。

本疾患の発育は緩慢であり、20~30 歳代で発見されることが最も多く¹⁹⁾、自件例を含めた 13 例においても 20~30 歳代が 8 例 (61%) であった (Table 1)。また、本疾患は自覚症状を伴わないことから長期間放置され、機能的な障害を生じてから来院するため、口底部に発生した症例では舌を挙上して構音、咀嚼などの機能障害を訴えることが多いとされている²⁰⁾。さらに、嚢胞の増大により圧迫のために中咽頭部が狭窄した場合には睡眠時無呼吸症候群を発症したという報告もみられる¹⁷⁾。本症例では構音、咀嚼などの機能障害は認めなかったが、軽微な呼吸障害は存在していた。CT や MRI 所見では中咽頭部の明らかな狭窄を認めなかったが、手術後に呼吸苦症状が改善したとのことであり患者の治療に対する満足感を得ることができた。

本嚢胞の治療法は摘出術が適応になる。嚢胞が舌下型の場合は口内法、オトガイ下の場合は口外法、舌下-オトガイ下型では両者の併用が一般である¹⁾。本症例では

Table 1 Cases of large dermoid cyst and epidermoid cyst reported in Japan.

Cases	Age/Sex	Organization type	Size (cm)	Part	Approach
1	27/F	dermoid cyst	8.0×6.0×5.5	sublingual and submental	extraoral
2	28/F	dermoid cyst	7.8×5.0×3.0	submandibular	extraoral
3	51/F	epidermoid cyst	8.5×3.5×3.2	submandibular	extraoral
4	24/F	epidermoid cyst	5.5×3.5×3.0	submandibular	extraoral
5	19/M	epidermoid cyst	8.0×6.0×3.5	parapharyngeal spatium and submandibular	intraoral
6	15/F	epidermoid cyst	5.5×3.5	submental	extraoral
7	43/F	epidermoid cyst	6.5×3.0	sublingual	extraoral
8	31/M	epidermoid cyst	7.5×4.0×1.5	sublingual	intraoral
9	21/M	dermoid cyst	9.0×6.0×3.0	sublingual	intraoral
10	41/F	dermoid cyst	5.7×4.5×3.5	sublingual	intraoral
11	23/M	dermoid cyst	7.0×6.0×5.5	sublingual	intraoral→extraoral
12	29/M	epidermoid cyst	11.5×6.0×2.5	sublingual and both sides submandibular	extraoral
own case	29/F	dermoid cyst	5.2×4.0×3.0	sublingual	intraoral

病変が顎舌骨筋上にあることが画像上より判断できることから、口腔内から嚢胞壁や周囲組織を損傷することなく摘出することが可能であった。しかし、嚢胞が顎舌骨筋より下方に進展している場合、さらに巨大な場合、あるいは十分な術野の確保が困難な場合には舌神経や舌下神経、さらには舌下腺や顎下腺の損傷を回避するため、先に内容物を吸引し、減量後に口腔内から摘出する方法も推奨されている⁹⁾。さらに進展範囲によっては上咽頭動脈、内頸静脈、咽頭静脈叢、舌下腺、顎下腺などの周囲組織損傷や、口底咽頭部浮腫による気道狭窄トラブルを起こす可能性があると考えられ、安全に摘出を行うために口外法の併用を行ったとの報告もある⁶⁾。術後の合併症として舌、口底の腫脹による咽頭腔の狭窄による呼吸困難の出現の可能性を考慮して、気管切開²¹⁾やステロイド投与²²⁾が行われたとの報告も見受けられる。本症例では挿管した状態で帰宅し、翌日に抜管を行うことで術後の呼吸障害を予防し得た。

本論文の要旨は、第188回日本口腔外科学会関東地方会（2009年12月、東京）において発表した。

文 献

- 1) 日比弓紀子, 大野清二, 本田博之, 笹部衣里, 山本哲也: 顎二腹筋の破格を伴う巨大な舌下型類表皮嚢胞の1例. 日口外誌, **55**: 61-65, 2009
- 2) 小林 裕, 木野孔司: 口腔顎顔面領域の類表皮嚢胞および類表皮嚢胞の臨床的観察. 口科誌, **47**: 101-107, 1998
- 3) 石原茂人, 黒岩裕一郎, 石田洋一, 横井 共, 山本浩司, 有馬知子, 前田早苗, 水野 進, 栗田賢一: 巨大な舌下型類表皮嚢胞の1例—本邦における報告例との大きさの比較—. 愛院大歯誌, **43**: 233-237, 2005
- 4) New GB, Erich JB: Dermoid cysts of the head and neck. Surg Gynecol Obstet, **65**: 48-55, 1937
- 5) 大野邦博, 曾田忠捷, 石田 恵, 伊藤秀夫: 口腔領域の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**: 842-847, 1979
- 6) 坂田朋子, 安田真也, 木下浩二, 小西 綾, 鈴木克彦, 別所和久: 左側口底部に生じた比較的大きな類表皮嚢胞の1例. 日口外誌, **20**: 395-398, 2007
- 7) Bergmann E: Handbuch der praktischen Chirurgie. 4 Auf. Bd. 1. Stuttgart, 1913, pp 976-978
- 8) 萩崎為行: 巨大なる口腔底皮様嚢腫の一例. 耳鼻喉, **2**: 562-569, 1929
- 9) Msthews J, Lancaster J, O'Sullivan G: True lateral dermoid cyst of the floor of the mouth. J Laryngol Otol, **115**: 333-335, 2001
- 10) 稲守浩一郎: 巨大な口腔底皮様嚢腫の1例. 耳鼻臨床, **50**: 620-623, 1957
- 11) 山崎 正, 細野 純, 木村一雄: 巨大な顎下部側方型類表皮嚢胞の1例. 日科誌, **29**: 392-397, 1980
- 12) 嬉野智子, 久保秀郎, 田中洋一, 堀之内康文, 迫田祐二, 竹之下康治, 岡増一郎: 手拳大の顎下部類表皮嚢胞の1例. 日口外誌, **34**: 927-930, 1988
- 13) 小林園生, 木村 進, 宮崎千佳, 伊藤 健, 川辺良一, 遠藤盛孝, 増田元三郎, 藤田浄秀: 顎下型ラヌーラを疑った片側性類表皮嚢胞の1例. 口科誌, **39**: 698-703, 1990
- 14) 土井上輝夫, 天野大助, 尾田充孝, 岡田実継, 斎藤滋夫: オトガイ下部に腫脹をきたした巨大な口底部類表皮嚢胞の一例. 北海道歯誌, **16**: 303-307, 1995
- 15) 樫田 裕, 石川好美, 小泉 文, 榎本雅宏, 川田賢介: 傍咽頭間隙と顎下隙に及んだ類表皮嚢胞の1例. 日口外誌, **47**: 459-461, 2001
- 16) 栗田ゆかり, 高久 暹, 龍田恒康, 野玉智弘, 南 清和, 嶋田 淳, 山本美郎: オトガイ下部に生じた比較的大きな類表皮嚢胞の1例. 明海大歯誌, **31**: 130-133, 2002
- 17) 石川 均, 長谷川和樹, 宮本日出雄, 飯島 伸, 天笠光雄: 閉塞性睡眠時無呼吸症候群を生じた舌下型類表皮嚢胞の1例. 日口外誌, **51**: 303-306, 2005
- 18) 金子允子, 新井康仁, 内田 稔, 柳下寿郎, 足立雅利: 長期経過をたどった口底部類表皮嚢胞の一例. 日口外誌, **51**: 303-306, 2005
- 19) 高木純一郎, 宮田 勝, 岡部浩一, 鈴木 丹, 齋藤一郎, 坂下英明, 車谷 宏: オトガイ下部に生じた大きな類表皮嚢胞の1例. 日口外誌, **13**: 486-490, 2000
- 20) 藤田 耕, 原田浩之, 生田 稔, 原田 清, 岩佐俊明, 小村 健: 口底に生じた巨大な奇形腫様嚢胞の1例. 日口外誌, **48**: 280-283, 2000
- 21) 竹内 啓, 善浪弘善, 石尾健一郎, 加瀬康弘, 水野正浩: 口腔底に発生した巨大類表皮嚢胞の1症例. 耳鼻喉頭頸, **68**: 890-894, 1996
- 22) 西池季隆, 入船盛弘, 馬谷克則: 巨大な口腔底類表皮嚢胞. 耳鼻臨床, **93**: 559-564, 2000

A Case of Large Dermoid Cyst in the Floor of the Mouth

Iori Nogami, Takahiko Toyoshima, Yuji Kurihara, Hana Sat o,
Tatsuo Shir o t a and Satoshi Shint ani

*Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Showa University School of Dentistry
2-1-1 Kitasenzoku, Ohta-ku, Tokyo, 145-8515 Japan*

(Received February 23, 2010 ; Accepted for publication April 14, 2010)

Abstract : We report a case of sublingual dermoid cyst which painlessly enlarged to a diameter of over 50 mm. A 29-year-old woman was noted to have a swelling of the mouth floor during treatment at a local dental clinic, and was referred to our department on June 18, 2009. On initial examination, a painless, elastic, soft swelling of the mouth floor was noted, presenting with the appearance of a double tongue. Intercuspatation was possible, and tongue movement, articulation, and eating were not impaired. The patient experienced dyspnea at bedtime. T2-weighted MRI revealed a 50 × 30 × 30- mm oval, well-defined, cystic lesion with a strongly hyperintense border and heterogeneously hypointense interior. She underwent intraoral cystectomy under general anesthesia on September 4, 2009. Tracheal intubation and sedation were maintained because of the fear that postoperative airway stenosis might develop due to swelling of the oral floor, and the patient was followed-up. It was histopathologically diagnosed as a dermoid cyst.

Key words : dermoid cyst, sublingual type, intraoral approach.