

感染により喉頭蓋炎を反復し手術的に摘出し得た 口腔底甲状舌管嚢胞の一例

丸山 裕美子¹⁾ 北川 典子¹⁾ 伊藤 真人²⁾ 吉崎 智一²⁾

1) 黒部市民病院 耳鼻咽喉科

2) 金沢大学 耳鼻咽喉科・頭頸部外科

Thyroglossal duct cyst in the floor of the mouth as the cause of recurrent epiglottitis

Yumiko MARUYAMA M.D., Ph.D.¹⁾, Noriko KITAGAWA M.D.¹⁾,

Makoto ITO M.D., Ph.D.²⁾, and Tomokazu YOSHIZAKI M.D., Ph.D.²⁾

1) Departments of Otolaryngology-Head and Neck Surgery, Kurobe City Hospital

2) Department of Otolaryngology-Head and Neck Surgery, Division of Neuroscience,
Kanazawa University Graduate School of Medical Science

Objective: Both recurrent adult acute epiglottitis and thyroglossal duct cyst in the floor of the mouth are very uncommon. We report an adult case of thyroglossal duct cyst in the floor of the mouth related to recurrent acute epiglottitis.

Case report: A 34-year-old man presented with three occurrences of acute epiglottitis over a 25-month period. MRI revealed two connected cystic lesions in the floor of the mouth and suprahyoid region, extending to the root of the tongue. Suppurative change of the cystic lesion in the mouth floor appeared to have caused epiglottitis. Excision of the cysts with the central portion of the hyoid was done the pathological diagnosis was thyroglossal duct cyst. Epiglottitis did not recur after the surgery.

Conclusion: To our knowledge, there has been no previous reports suggesting a relationship between recurrent episodes of epiglottitis and thyroglossal duct cyst. Thyroglossal duct cysts might be considered one of the causes of epiglottitis.

はじめに

喉頭蓋炎をふくめた喉頭浮腫は耳鼻咽喉科専門医が的確に診断し、対処すべき病態の一つである。とくに喉頭浮腫の反復をきたす場合には、反復の原因を究明し、その原因に対する対応が必要となる。

今回、急性喉頭蓋炎の発症を契機に、口腔底から頸部の嚢胞性病変が確認され、同病変の感染性変化とともに急性喉頭蓋炎を反復する症例を経験した。病変の位置や性状より甲状舌管嚢胞を疑い、Sistrunk手術に準じて病変の摘出をおこなったところ、病理学的にも甲状舌管嚢胞の診断を得ることができ、また急性喉頭蓋炎の反復を制御できた症例を経験したのでここに報告する。

症例提示

症例は初診時34歳の男性。特記すべき既往歴や家族歴なし。

現病歴：2008年4月X日午前3時より咽頭痛が出現した。痛みのため嚥下不能な状態となり、近医耳鼻咽喉科医を受診。急性喉頭蓋炎の診断のもと同日当院初診となった。

初診時現症：体温36.5度、SpO₂99%。ふくみ声を認めた。両側口蓋扁桃はマッケンジー分類のI度であり、扁桃周囲炎や周囲膿瘍を疑う所見は認められなかった。喉頭内視鏡検査を施行したところ、喉頭蓋舌面の浮腫性変化に加え、右喉頭蓋披裂襞から右披裂部に至る浮腫性変化を認めた。血液学的検査では、白血球17,200/ μ l(好中球88.5%、リンパ球7.7%)、CRP0.99mg/dlであった。肝機能障害は認められず、クレアチニンキナーゼは正常範囲内、尿蛋白および尿酸ケトンはいずれも陰性であり、血液ガス分析に異常なく、バイタルサインも安定していた。

細菌感染性の喉頭浮腫であり、全身状態は比較的良好と考えられたが、急激に発症した嚥下不能なレベルの強い咽頭痛であること、および披裂部にも浮腫が及んでいることより、深頸部膿瘍の存在の有無確認のためCT検査を施行したところ、オトガイ舌筋間やや左側にリング状濃染を呈する

嚢胞性腫瘍が認められた(Fig.1)。膿瘍として矛盾しない像であること、位置的には甲状舌管嚢胞に関連した病変の可能性もありえること、ただし壊死性腫瘍性病変の可能性も否定できないことなどが考えられた。細菌感染性頸部膿瘍に伴う喉頭浮腫の可能性が高いこと、膿瘍と考えられる病変はサイズや位置からも切開排膿は容易ではないこと、保存的加療開始数時間後にも疼痛および腫脹の改善が得られないことより気管切開をおこなった。なお、気管切開の後、経口的に口腔底の病変の穿刺を試行したが、排膿は得られなかった。その後、喉頭浮腫は改善し、血液学的炎症所見も改善したが病変の残存の有無、および壊死性腫瘍性病変の否定を目的にMRI検査をおこなったところ、オトガイ舌筋間に辺縁が造影される液体貯留性病変をみとめ、初診時のCTに比較し縮小しており、感染性嚢胞性病変と考えられた。また近接する舌骨上方の正中部に小嚢胞をみとめ、甲状舌管の関連が示唆された(Fig.2)。気管切開閉鎖のうえ、咽頭痛やふくみ声の出の場合は早急に受診するよう説明し、入院11日目に退院となった。6ヶ月後のMRI検査において、オトガイ舌筋間の病変は縮小傾向にあるも残存、近接する正中の小嚢胞病変は著変なく残存することが確認された。以後咽頭痛なく2年が経過したが、2010年4月Y日に咽頭痛出現し来院、喉頭蓋喉頭面の浮腫性変化と右披裂部浮腫をみとめ、CTにて舌骨内側やや上方にリング状濃染を呈する嚢胞性腫瘍が認められた。

甲状舌管嚢胞と考えられる頸部腫瘍に感染性変化が反復し、これにともない喉頭浮腫を生ずる状態と判断し、消炎治療に加え、5月Z日に頸部膿瘍摘出を予定した。喉頭浮腫の改善と消炎を確認の上一旦退院したが、手術2週間前に再度咽頭痛および同様の喉頭浮腫を発症し保存的加療を必要とした。

2010年5月Z日に頸部膿瘍摘出術を施行した。甲状舌管嚢胞に対するSistrunk法に準じ舌骨上で皮膚横切開を加えた。舌骨前面を露出し、舌骨正

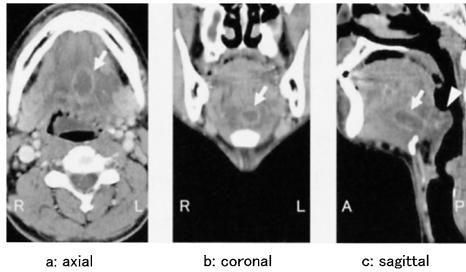


Fig. 1 Findings of computed tomography (CT) on first visiting day. The ring-enhanced low density area was detected in oral floor intra-geniohyoid space (white arrow). This abscess like lesion was close to the epiglottis (arrowhead). a : axial, b : coronal, c : sagittal, R : right, L : left, A : anterior, P : posterior

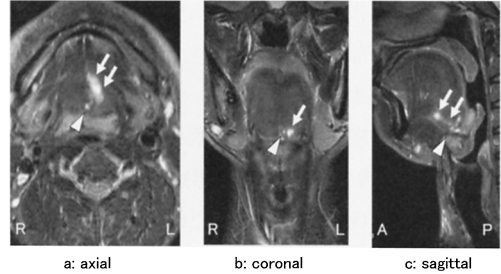


Fig. 2 Findings of magnetic resonance imaging (MRI) in 6th day of hospitalization. Cystic lesion was remained at intra-geniohyoid space (white arrow). Small cystic lesion was also detected at median suprahyoid (arrowhead). a : axial, b : coronal, c : sagittal, R : right, L : left, A : anterior, P : posterior



Fig. 3 Intraoperative findings. The lesion was removed to apply to Sistrunk procedure. The tract structure was found at upper middle side of hyoid bone (arrowhead). The tract was excised with midportion of the hyoid bone (white arrow), extending close to foramen cecum.

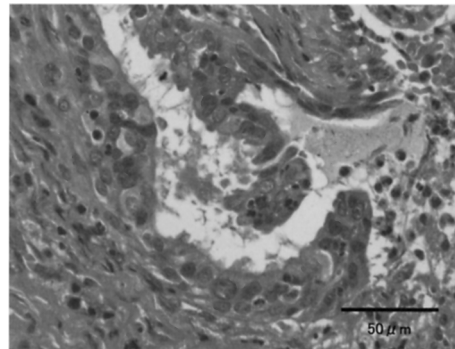


Fig. 4 Histologic section of resected specimen. Thyroglossal duct cyst was diagnosed due to appearance of columnar epithelium with cilia in cyst wall.

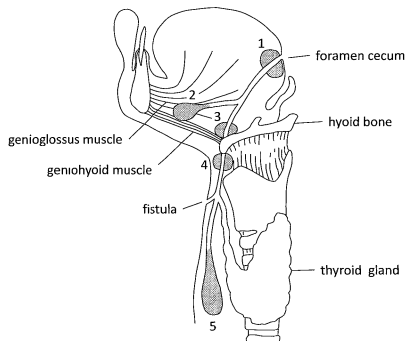


Fig. 5 Developmental schema of thyroglossal duct cyst, reproduced from Developmental Anatomy. A Textbook and Laboratory manual of Embryology. Seventh Edition In : Aray LB, editor. The Thyroid Gland. Philadelphia, WB Saunders ; 1965². Gray zones (1-5) show the developmental patterns of thyroglossal duct cyst. It may occur in the floor of the mouth.

中内側上方に索状物を確認した。索状物の付着する舌骨体中央部を両側で切断し、索状物を舌根方向に追求した。経口的舌根部触診により舌根上皮直下にまで索状物の追求が及んでいることを確認のうえ、索状物を可及的深部で結紮切断した (Fig. 3)。病理学的検査にて、線維化の目立つ癒痕様組織内に線毛を有する多列円柱上皮からなる嚢胞構造を認め、甲状舌管嚢胞として矛盾しないことが確認された (Fig. 4)。2010年7月に咽頭痛と採血上の細菌感染所見を認めましたが、喉頭浮腫は認められず、CT上も深頸部膿瘍は認められなかった。

考 察

甲状舌管嚢胞の発生部位としては、舌骨下部から甲状軟骨前部の発生が多く、全体の83.7%¹⁾～

86.9%²⁾と報告されているが、発生の過程で舌盲孔から胸骨上部まで様々な高さで遺残し、嚢胞や瘻孔が形成される場合があり (Fig. 5), 希少ではあるが口腔底部甲状舌管嚢胞の報告も認められる³⁻⁶⁾。甲状舌管嚢胞は時に感染により膿瘍形成を生ずるが、我々が渉猟しえた範囲では喉頭蓋炎の反復の原因となった報告は認められなかった。

急性喉頭蓋炎や喉頭浮腫は時に致死的となり、上気道疾患を扱う耳鼻咽喉科専門医が的確に診断し、対処すべき病態の一つであるが、特に反復する場合には、その原疾患を究明し適切に対応することが重要であると感じた。

ま と め

- 甲状舌管嚢胞と考えられる頸部腫瘤に感染性変化が反復し、これにともない喉頭浮腫の併発を繰り返したと考えられる症例を経験した。
- Sistrunk 法に準じた頸部腫瘍摘出をおこなったところ、舌骨正中に付着し舌根方向に延びる索状物を見とめた。病理学的に甲状舌管嚢胞の診断を得、術後喉頭浮腫の反復が制御された。

文 献

1) 山村幸江, 今井隆之, 吉原俊雄: 正中頸嚢胞, 耳喉頭頸, 77 : 371-374, 2005

2) 清水一雄, 吉川晃, 内山喜一郎 他: 正中頸嚢胞 (甲状舌管嚢胞) - 扁平上皮癌 1 例を含めた 23 例の臨床学的検索 -, 日臨外医会誌, 53 : 504-509, 1992

3) Dolata J. Thyroglossal duct cyst in the mouth floor: an unusual location, *Otolaryngol Head Neck Surg*, 110 : 580-3, 1994

4) Nakayama S, Kimachi K, Nakayama K, Ikebe T, Ozeki S: Thyroglossal duct cyst occurring in the floor of the mouth: report of 2 cases, *J Oral Maxillofac Surg*. 67 : 2690-3, 2009

5) 清水義貴, 佐伯忠彦, 寺下健洋: 口腔底に発生した甲状舌管嚢胞の 1 例, 耳鼻咽喉科・頭頸部外科, 73 : 302-4, 2001

6) 水谷雅英, 向井隆雄, 棚橋幸子, 美馬淳子, 永田雅英, 吉岡秀郎: 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, 日本口腔外科学会雑誌, 54 : 679-82, 2008

連絡先: 丸山裕美子
〒 938-8502
富山県黒部市三日市 1108 - 1
黒部市民病院 耳鼻咽喉科
TEL 0765-54-2211 FAX 0765-54-2962
E-mail maruyama@med.kurobe.toyama.jp