

甲状舌管嚢胞の摘出により改善の認められた 閉塞型睡眠時無呼吸症候群の1例

宮原貴彦^{1)*} 中塚厚史¹⁾ 倉科憲治¹⁾
藤本圭作²⁾ 漆畑一寿²⁾ 久保恵嗣²⁾

1) 信州大学医学部歯科口腔外科学教室

2) 信州大学医学部内科学第1講座

A Case of Obstructive Sleep Apnea Syndrome Successfully Treated by Removal of Thyroglossal Duct Cyst

Takahiko MIYABARA¹⁾, Atsushi NAKATSUKA¹⁾, Kenji KURASHINA¹⁾
Keisaku FUJIMOTO²⁾, Kazutoshi URUSHIBATA²⁾ and Keishi KUBO²⁾

1) *Department of Dentistry and Oral Surgery, Shinshu University School of Medicine*

2) *Department of Internal Medicine, Shinshu University School of Medicine*

A 48-year-old woman was referred to us because of swelling of the oral floor. Intraoral examination revealed an elastic and soft mass in the middle of the oral floor, measuring 40×35mm. The patient complained of difficulty in tongue mobility. Clinical diagnosis of a cyst was made and the lesion was surgically removed. Histopathological diagnosis was a thyroglossal duct cyst.

The patient had been treated for obstructive sleep apnea syndrome (OSAS) at the department of internal medicine in our hospital. The body mass index was 37.11kg/m², indicating obesity. On preoperative polysomnography (PSG) examination, apnea hypopnea index (AHI) was 42.1/h, the lowest SpO₂ was 52.0 % and average SpO₂ was 96.0 %.

After removal of the cyst, swelling of the oral floor and dysfunction of the tongue disappeared. Snoring and daytime sleepiness were reduced. On PSG examination after the operation, AHI was 22.7/h, the lowest SpO₂ was 67.0 % and the average SpO₂ was 97.0 %. Moreover, on cephalographic evaluation, MPH, which shows the linear distance from the mandibular plane to the hyoid bone, had decreased from 27mm to 23mm, and IAS, which indicates airway aperture, had increased from 9mm to 11mm.

The patient is now under treatment for obesity at the department of internal medicine to further control the OSAS. *Shinshu Med J 52 : 21-24, 2004*

(Received for publication October 6, 2003 ; accepted in revised form October 29, 2003)

Key words : obstructive sleep apnea syndrome, polysomnography, apnea hypopnea index, cephalometry, thyroglossal duct cyst

閉塞型睡眠時無呼吸症候群, 終夜睡眠ポリソムノグラフィー検査, 無呼吸低換気指数, セファログラム分析, 甲状舌管嚢胞

I 緒 言

睡眠時無呼吸症候群 (sleep apnea syndrome : 以下 SAS) は, 睡眠障害や突然死の原因として注目さ

れており, 最近生活習慣病との関連についても取りざたされている疾患である。SAS は気道の閉塞による閉塞型睡眠時無呼吸症候群 (obstructive sleep apnea syndrome : 以下 OSAS), 呼吸中枢からの換気応答消失による中枢型睡眠時無呼吸症候群 (central sleep apnea syndrome : 以下 CSAS), およびその混合型

* 別刷請求先 : 宮原 貴彦 〒390-8621
松本市旭 3-1-1 信州大学医学部歯科口腔外科



図1 初診時顔貌写真

顔貌は左右対象で、オトガイ下に腫脹、発赤、圧痛は認めなかった。

の3種類に分類されている¹⁾。この内、OSASは口腔疾患や、口腔咽頭の解剖学的形態と関連していることが知られており²⁾、病因として、形態的異常と機能的異常の2つが挙げられる²⁾。前者には小下顎症、アデノイド、扁桃肥大、顎関節や下顎骨の形態異常、あるいは口底部の嚢胞・腫瘍などがあり、後者には上気道の開存に関与する上気道筋（口蓋帆張筋やオトガイ舌筋やオトガイ舌骨筋など）の活動低下が挙げられている²⁾。今回、口底部に発生した甲状舌管嚢胞を摘出することにより著しい症状の改善を示したOSASの1例を経験したので報告する。

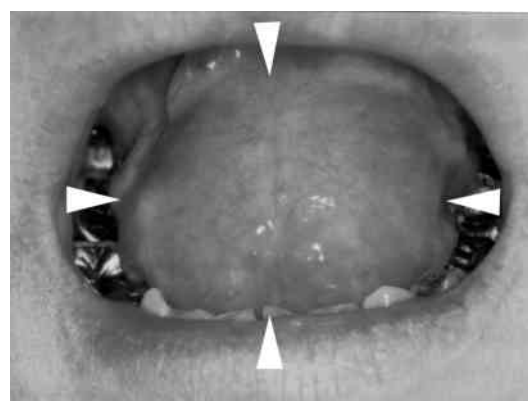


図2 初診時口腔内写真

II 症 例

患者：48歳，女性。

初診日：平成14年2月15日

主訴：口底部の腫脹。

現病歴：20歳時より口底部の腫脹を自覚するも、特に症状がないため放置していた。その後、経年的に増大傾向を示し、平成14年は舌の可動性も制限され、違和感を生じるようになった。近歯科医にて精査を勧められ、当科（信州大・歯科口腔外科）へ紹介され受診した。

既往歴：平成11年よりアトピー性皮膚炎を認め、近皮膚科にて加療中であった。また、以前より日中傾眠傾向といびきを認め、本年1月より当院第1内科にてOSASとの診断のもと、cPAP（continuous Positive Airway Pressure）にて加療中であった。しかし、違和感が強く、一晩中cPAP装着するのは困難であった。

家族歴：父親が心不全，母親が脊椎カリエスであった。

入院時現症：

全身所見；身長154cm，体重88kg，BMI 37.11kg/m²であり，肥満であった。

口腔外所見；顔貌は左右対象で，オトガイ下に腫脹，発赤，圧痛は認めなかった。顎下リンパ節は左右ともに触知しなかった（図1）。

口腔内所見；口底正中部に直径40×35mm大の腫瘤を認めた。腫瘤は弾性軟で表面は正常粘膜に被われており，自発痛，圧痛，発赤，波動は認めなかった。舌は後上方に挙上され運動障害がみられた。嚥下障害，発音障害は認めず，左右舌下小丘からの唾液の流出は良好であった（図2）。その他，特別な異常所見は認められなかった。

画像所見；MRIでは，舌正中から口底の正中に境界明瞭な瓢箪型の腫瘤を認め，内部に一部隔壁状の構造を伴っていた。明らかな造影効果は見られず，嚢胞性病変と考えられた。甲状舌管嚢胞，ガマ腫，類皮嚢胞，類表皮嚢胞が疑われたが，それぞれの疾患に典型的な所見を欠き，鑑別は困難であった（図3）。

臨床診断：口底部嚢胞。

処置および経過：平成14年4月11日、全身麻酔下に口腔内より嚢胞を摘出した。嚢胞は粘膜直下にあり、下後方でオトガイ舌筋に挟まれており、さらにその下方部で周囲軟組織と癒着しており、摘出はやや困難であった。摘出物の大きさは40×30mmで赤褐色、

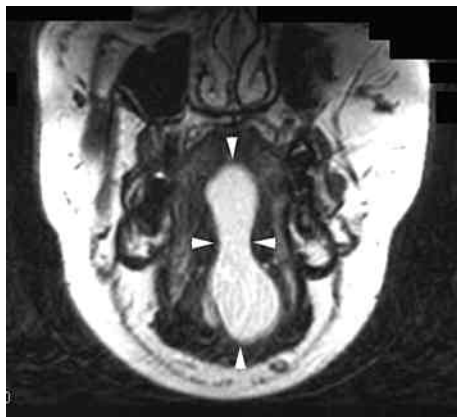
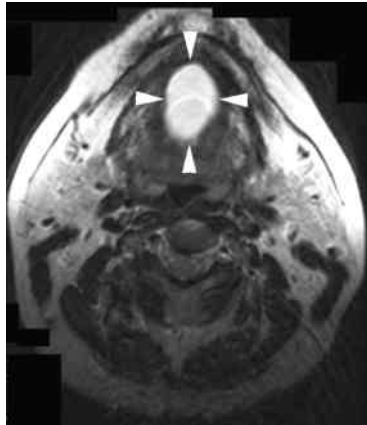


図3 MRI像

T2強調像において、舌正中から口腔底の正中にかけて均一な高信号を呈する病変を認める。内部に一部隔壁状の構造を伴っており、周囲との境界は明瞭で、明らかな造影効果は見られず、嚢胞性病変と考えられる。

表1 術前後のPSGの結果

	Pre-operation	post-operation
AHI (/h)	42.1	22.7
Lowest SpO ₂ (%)	52.0	67.0
Average SpO ₂ (%)	96.0	97.0

表2 術前後の頭部X線規格写真分析結果

	Pre-operation	post-operation
MPH (mm)	27	23
IAS (mm)	9	11

弾性軟であり、嚢胞腔内には黄褐色、粘稠性の内容物が存在していた。

手術後は舌下部の腫脹は消失し、舌の挙上、運動障害は消失した。

OSASの症状としては、いびきが軽減し日中傾眠傾向の改善も認めた。

病理組織所見および病理組織診断：内腔全域が線毛上皮に覆われた嚢胞性病変であり、周囲には膠原線維や骨格筋層が認められ、甲状舌管嚢胞と診断した。

術前後のPSG (polysomnography) 結果：術前、AHI (apnea hypopnea index) が42.1/h, Lowest SpO₂ が52.0%, Average SpO₂が96.0%だった。術後はAHIが22.7/h, Lowest SpO₂が67.0%, Average SpO₂が97.0%といずれの値も改善した(表1)。

頭部X線規格写真分析結果：舌骨の高さを表す下顎下縁平面 (Mandibular plane) に対し舌骨上縁 (H) から下ろした垂線の長さである MPH (Mandibular plane-hioidal) は術前では27mmであった。術後には23mmと減少し、舌骨の挙上を認めた。気道口径として、GonionとPoint Bを結ぶ線上の気道の前後壁と交わる線分の長さである IAS (Inferior airway space) を用いた。術前で9mmだったものが術後には11mmと増加し、気道口径の前後幅径の増加を認めた(図4, 表2)。

III 考 察

甲状舌管嚢胞は、胎生期の甲状舌管の遺残上皮に由来する嚢胞である。甲状舌管は、胎生3週頃に舌根部

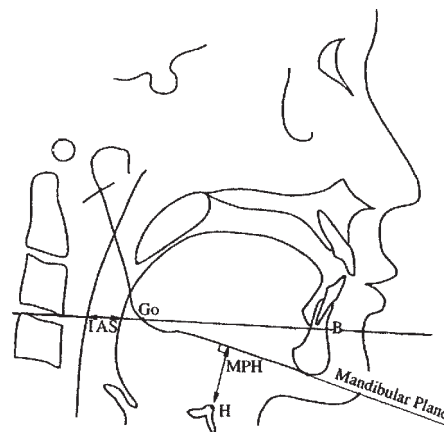


図4 頭部X線規格写真の分析項目

MPH：舌骨の高さ（下顎の下縁平面 (Mandibular Plan) に対し舌骨上縁(H)から下ろした垂線の長さ)
IAS：気道口径 (GonionとPoint Bを結ぶ線上の気道の前後壁と交わる線分の長さ)

中央の上皮が陥凹することで形成され、甲状腺ができると消失する³⁾。従って、甲状舌管嚢胞の発生する部位は舌根部より甲状腺に至る正中線上であるが、特に舌骨下部に最も好発し⁴⁾、本症例のように口底正中中部など口腔にみられる症例は比較的まれであるとされている⁵⁾。一般に自覚症状を欠くことが多く、嚢胞が舌骨に癒着している場合には嚥下障害、発音障害が認められる。口腔内に発生する例では、舌を挙上するために生じる嚥下障害、発音障害が認められる³⁾⁻⁶⁾。呼吸障害に関連したものでは、竹田ら⁷⁾の舌背前方部に生じた甲状舌管嚢胞により仰臥位での呼吸苦を認めた症例報告がある。また、堀内ら⁴⁾は、舌骨に癒着している嚢胞により、呼吸困難、チアノーゼ、哺乳障害がみられることがあると報告している。しかしながら、我々の渉猟した範囲では本症例のように OSAS と診断された報告はみられない。

OSAS が小下顎症、アデノイド、扁桃肥大、口底部の嚢胞・腫瘍などの形態異常や上気道筋の活動度の低下による機能異常で生じることは知られている²⁾。その中でも、OSAS が口底部の嚢胞によって生じることは知られており、米澤ら⁸⁾は口底部類皮嚢胞に起因した症例を報告している。本症例は胸郭、腹部の呼吸運動の一時的な停止は認められなかったため、中枢神経系の障害や呼吸中枢の機能傷害によるものではな

く、閉塞型であると考えた。本症例における睡眠呼吸障害の原因は、甲状舌管嚢胞が舌根部を後下方に圧排し、舌骨を沈下させ、上気道を狭窄させたためであると考えられた。頭部 X 線規格写真分析において、術前の MPH は 27mm, IAS は 9mm であったが、術後には MPH が 23mm と減少し、IAS は 11mm と増加した。手術により、舌骨の挙上、および気道口径の前後の幅径の増加を認め、舌根の後下方の圧排や運動障害は消失した。また、術前の AHI は 42.1/h, Lowest SpO₂ は 52.0%, Average SpO₂ は 96.0% であったが、嚢胞の摘出後は AHI が 22.7/h, Lowest SpO₂ が 67.0%, Average SpO₂ が 97.0% といずれの値も改善した。臨床症状ではいびきが軽減し、日中傾眠傾向も改善した。

本症の経験から、OSAS と診断された患者においては、口底部や顎下部を精査し、OSAS を引き起こす可能性のある嚢胞や腫瘍性病変の有無を確認することも重要であると思われた。

IV 結 語

今回、甲状舌管嚢胞を摘出することにより改善の認められた重篤な閉塞型睡眠時無呼吸症候群の 1 症例を経験した。

文 献

- 1) Phillipson EA : Sleep apnea. Fauci AS, Braunwald E, Isselbacher KJ, Wilson JD, Martin JB, Kasper DL, Hauser SL, Long DL (eds), Harrison's principles of internal medicine, 14th ed, pp 1480-1483, McGraw-Hill Companies, New York, 1998
- 2) 中川健三, 市岡正彦, 小野卓史, 井上昌次郎, 長谷川誠, 井川真理子, 神山 潤, 馬場一美, 藍 稔: いびきと睡眠時無呼吸症候群の歯科治療. 第 1 版, pp 16-29, 砂書房, 東京, 1999
- 3) 高井 宏: 嚢胞. 高橋庄二郎, 園山 昇, 河合 幹, 高井 宏 (編), 標準口腔外科学. 第 2 版, pp 152-177, 医学書院, 東京, 1994
- 4) 堀内敬介, 上林豊彦, 匠原悦雄, 吉田育弘, 植村和嘉, 中谷善幸, 岡田征夫, 杉村正仁: 甲状腺由来の頸部腫瘍—甲状舌管嚢胞の 3 例および異所性甲状腺の 1 例—. 日口外誌 33 : 2544-2550, 1987
- 5) 平野裕士, 篠原正徳, 川野芳春, 田中陽一, 堀之内康文, 岡増一郎, 左坐春喜, 田代英雄: 甲状舌管嚢胞の臨床的・病理組織的検索. 日口外誌 34 : 695-703, 1988
- 6) 宮澤利明, 杵淵孝雄, 寶田 博, 津山泰彦, 柴田達也, 小村 健: 嚥下困難を生じた甲状舌管嚢胞の 1 例. 日口外誌 41 : 1003-1005, 1995
- 7) 竹田 愛, 野口 誠, 原田雅史, 安永二良, 永井 格, 小浜源郁: 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) 米澤雅裕, 河野正己, 鈴木一郎, 中島民雄: 口底部類皮嚢胞に起因した重症な睡眠時無呼吸症候群の 1 治験例. 日口外誌 44 : 894-896, 1998

(H 15. 10. 6 受稿; H 15. 10. 29 受理)