

## ◁症例▷

# OK-432注入療法が著効した舌根部甲状舌管嚢胞疑い症例

宮崎 かつし 中川 英幸 金村 亮 太原 一彦

**要旨：**OK-432注入療法が著効した舌根部甲状舌管嚢胞疑い症例を報告する。症例は67歳男性で嚥下時の引っかかり感を主訴に来院した。喉頭蓋谷に嚢胞様病変を認めたため、経口的に洞病変摘出を行った。摘出術後11ヶ月で再発を認めたためOK-432注入療法を行った。薬剤注入は経皮的、超音波ガイド下に施行し、同時に経口的に観察した。舌根部嚢胞病変に対するOK-432注入療法は、安全性が高く、治療法の選択肢の一つとなり得る。

**Key words：**舌根部嚢胞，再発，OK-432注入療法，超音波ガイド下

## はじめに

舌根部嚢胞に対する治療の第1選択は、外科的切除が行われることが多い。しかし、嚢胞壁の薄い病変や、基部が広い例では壁の破綻から摘出が不完全になり、再発を来す例も経験する。

今回、外科的切除後の再発舌根嚢胞例に対して、OK-432注入療法を行い著効した例を経験したので報告する。

## 症例呈示

**症例** 67歳 男性

**主訴** 嚥下時の引っかかり感、呼吸困難

**現病歴** 2012年8月20日同様の主訴で近医耳鼻科受診、舌根部に嚢胞認め当科に紹介された。2012年9月13日当科で経口的に喉頭蓋腫瘍摘出した。

手術時の病理組織所見（初回摘出時所見）は組織器学的には重層扁平上皮で覆われた嚢胞形成で、間質にはリンパ濾胞の形成がみられた。上皮に異型無く、悪性所見もみとめなかった。

2013年7月22日にのどの引っかかり感が再燃したため当科受診した。

**既往歴** 高血圧、20歳の時副鼻腔炎、痔瘻術後

## 検査所見

喉頭ファイバー所見（図1）

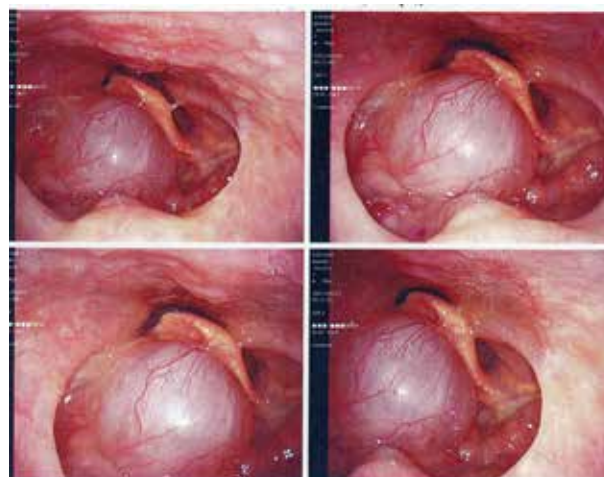


図1：術前喉頭ファイバー所見：喉頭蓋谷に嚢胞様病変を認める。声門は明視できない。

喉頭蓋谷右側よりに嚢胞様の球形腫瘍を認めた。喉頭蓋は後方に圧排されており、声門は明視できなかった。

MRI上、喉頭蓋谷やや右側よりにT1強調画像で等信号から低信号、T2強調画像で高信号の球形占拠性病変認め、嚢胞様病変の再発が疑われた。（図2）

さらに、術前に頸部超音波検査を行い、頸部皮下に嚢胞を確認した。

前回と同様の摘出術を行った場合、嚢胞壁破綻に続発する再々発の可能性が懸念されたため2013年8月8日OK-432注入療法を施行した。

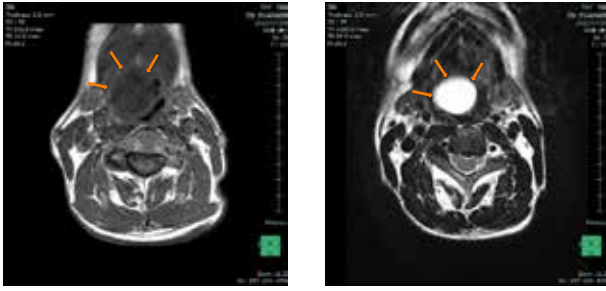


図2：MRI所見  
舌根部右側にT1強調画像で等信号から低信号，T2強調画像で高信号の球形占拠性病変を認めた



図3：術中のレイアウト (イメージ)



図4：術中のレイアウト (イメージ)

## 手術

まず、経口挿管を行い、WEERDA 喉頭鏡で嚢胞様病変を明視下に置いた。嚢胞は喉頭蓋谷やや右側よりに存在し、舌根部に広基性の茎を有していた。次に頸部よりエコーで嚢胞を確認し、エコーガイド下に嚢胞を穿刺した。内容の吸引を試みたが粘度の非常に高い液体であったため、ごく少量の液体をを吸引した。その後ピシバニール0.1KE/mlを

4ml嚢胞内に注入した。いずれの操作も経口的に顕微鏡下に観察しながら施行した。(図3, 4)

さらに、術後の浮腫による上気道狭窄対策として中気管切開を行った。

術後19日で喉頭蓋谷の腫瘍が確認できなくなった。軽度の咽頭痛の訴えがあったが、術後の発熱は認めなかった。(図5)

術後軽度の咽頭痛の訴えがあったが、舌根部の腫脹や発熱を認めなかった。

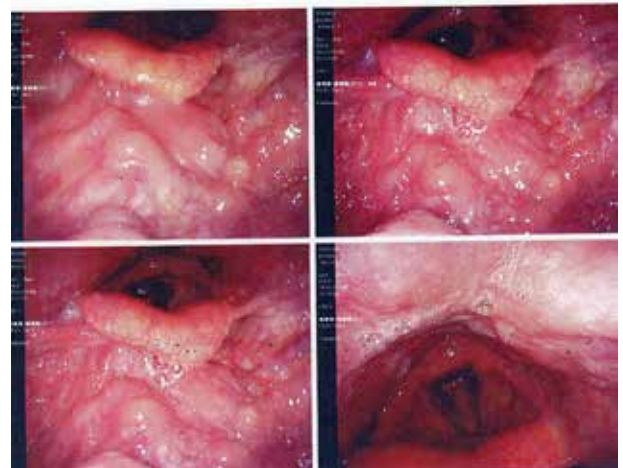


図5：術後2ヶ月喉頭ファイバー所見：喉頭蓋谷の腫瘍病変は視診上確認できない

## 考察

### 舌根部嚢胞の治療について

舌根部嚢胞は増大すると容易に上気道狭窄を来す可能性がある。特に小児では呼吸困難を来した症例の報告が多数みられ<sup>1)2)3)</sup>、緊急対応を迫られることのあり得る疾患と考えるべきである。

その治療については、直達鏡下の経口的切除術、開窓術、頸部外切開による摘出、穿刺吸引などが考えられる。経口的切除は、やや手技が煩雑であるが侵襲が少ない利点がある。しかし、症例によっては嚢胞が広基性で切除部が広範囲に及び、嚢胞壁の脆弱性、癒着による剥離困難から壁の破綻を来たし、不完全な摘出に終わり、再発して治療に難渋することもある<sup>4)</sup>。頸部外切開による摘出法の工夫として、Li-Chun Zang,ら<sup>4)</sup>の報告では再発例に対しては経口的に嚢胞内に染色液を注入し、ろう管を確実に確認し、頸部外切開により舌骨の一部とともに嚢胞を摘出する Sistrunk 変法を勧めている

本症例も初回手術は経口的、直達鏡下に摘出を



試みたが、手術操作中に嚢胞壁の破綻を来し、11ヶ月後に再発した。初回手術と同様の摘出も検討したが、広基性の茎部の完全切除困難が予測されたため、OK-432 注入療法を選択した。観察期間は短い、嚢胞は視診上消失し、再発傾向を認めない。

OK-432 の注入経路としては、経口腔と経皮に2種類が考えられる。経口腔では直視下に嚢胞を穿刺できるが、嚢胞内容液と注入する OK-432 の咽頭腔への漏出のリスクがある。経皮的注入は、盲目的に行うと嚢胞の穿刺および薬剤の注入が不確実である。本症例で行った、直達鏡下に嚢胞を観察しながら、経皮的に超音波で嚢胞を確認し、内容物を廃液、OK-432 注入を行う方法は経皮と経口腔の2カ所で嚢胞をモニターしながら手技を行えるため、嚢胞壁破綻による OK-432 の咽頭腔への漏出のリスクが少なく、薬剤注入が確実で、頸部外切開に比べ低侵襲である点で優れていると考える。

#### 術後の上気道狭窄について

OK-432 注入療法後の一般的な経過として、注入翌日に嚢胞内に強い炎症が起こり 38～39℃の発熱が2、3日認められ、嚢胞が腫脹し、それが1から2週間持続するとされる<sup>5)</sup>。舌根部の腫脹は上気道の高度狭窄に直結するので、上気道管理は必須である。本症例では OK-432 注入療法後に気管切開を行い、気道確保の上経過をみた。幸いなことに舌根部の腫脹、注入後の発熱は見られなかった。小児例等では経口挿管のまま呼吸管理を行い、腫脹の消退を確認して抜管するか、気管切開を行って経過をみる等の対応が必要であろう。

#### OK-432 注入療法の方法、適応

OK-432 は A 群溶連菌の Su 株をペニシリンで不活化した製剤であり、癌の免疫療法剤として開発された。その作用は IFN- $\gamma$ 、TNF などの炎症性サイトカインを誘導することにより、局所に強い炎症を引き起こされることによる。本剤を癌性胸膜炎、癌性腹膜炎患者の胸腔や腹腔内に注入すると腔内に強い炎症が生じ、その後癒着を促し胸水や腹水の貯留に対して有効であることが報告されている<sup>6)</sup>。耳鼻咽喉科領域の疾患に対しては、1987年に萩田ら<sup>7)</sup>が嚢胞状リンパ管腫に対する注入療法を報告して以来、嚢胞状リンパ管腫以外に、ガマ腫、耳介血腫、舌嚢胞、正中頸嚢胞、甲状腺嚢胞、側頸嚢胞、口唇

粘液嚢胞などに対する注入療法の報告がある<sup>5)6)</sup>。

注入方法は生理食塩水で 0.1KE/ml に希釈した OK-432 を用意して、嚢胞を 20G 程度の留置針で穿刺し、シリンジに陰圧をかけて嚢胞内溶液の吸引を確認した後留置針の内筒を抜き、外筒にシリンジを装着して内容液を吸引する。OK-432 の入ったシリンジを装着して吸引した内容液と同量の OK-432 を注入する。本症例では同様の注入を試みたが、内容液の粘性が強く、嚢胞が十分縮小するほどの内容液の吸引が出来なかった。やむを得ず OK-432 の注入量も 4ml にとどまった。しかしながら、OK-432 療法後 19 日経過して、嚢胞は肉眼的に確認できないほど縮小しており、内容液の大部分が OK-432 に置換されなくても治療効果は十分期待できると考えられた。これは、当科の他の嚢胞症例でも同様の結果を確認済みである。深瀬ら<sup>5)</sup>は我々と同様に、嚢胞内容液の吸引量、OK-432 の注入量はそれほど厳密に設定しなくても、生体に強い炎症が起こり、嚢胞内への内容液の貯留を停止できればよい、と報告している。

また、口腔底ガマ腫、下口唇粘液嚢胞、舌嚢胞など嚢胞壁が薄いにもかかわらず内容液が粘調な症例に対しては、内容液を吸引せず、2.5~5KE の高濃度 OK-432 を 0.2ml 程度注入する、高濃度 OK-432 注入療法の報告もある<sup>8)9)</sup>。

舌根部の嚢胞病変について、甲状舌管由来の嚢胞は、嚢胞内壁が重層扁平上皮や上皮で覆われ、60%以上の症例で甲状腺組織が認められるとされる<sup>10)</sup>（浜野文献内、岸本ら）本症例も嚢胞内壁が重層扁平上皮で覆われており、嚢胞の位置を考慮すると甲状舌管嚢胞である可能性が高いと思われた。

種々の嚢胞性疾患に対する OK-432 注入療法の報告がみられるが、舌根部の嚢胞に対して行った報告は渉猟し得た範囲では1例のみである<sup>11)</sup>。舌根部の広基性嚢胞は外科的切除が難しい例も少なからず存在するため、舌根部嚢胞に対する治療法の選択肢の一つとして OK-432 注入療法を検討すべきである。

#### まとめ

舌根部嚢胞、摘出術後再発例に対して OK-432 注入療法を行い著効した例を経験した。

経口的に嚢胞を明視下に置き、経皮的に OK-432 を注入する方法は嚢胞壁破綻による OK-432 の咽頭腔への漏出のリスクが少なく、薬剤注入が確実で、頸部外切開に比べ低侵襲である点で優れていると考える。

### 参考文献

- 1) Shigeaki Inoue, et al.: Four Cases of Thyroglossal Duct Cyst, which was Discovered in the Root of the Tongue in the Neonatal Phase and Early Phase of the Neonate and Infant. *Syouinji* Vol.22, No.2:53-56, 2001.
- 2) 橋田祐一郎ほか：乳児期早期に呼吸困難で発症し、人工呼吸管理を要した甲状舌管嚢胞の1例. *小児科臨床* Vol.65 No.2 : 297-301, 2012.
- 3) 堀下貴文ほか：未知の甲状舌管嚢胞により換気と挿管困難であった乳児の1例. *臨床麻酔* Vol.36 No.10:1476-1478, 2012.
- 4) Li-Chun Zhang et al.: Lingual Thyroglossal Duct Cyst with Recurrence After Cystectomy or Marsupialization Under Endoscopy: Diagnosis and Modified Sistrunk Surgery. *Laryngoscope* 121:1888-1892, September 2011.
- 5) 深瀬ほか：OK-432による硬化療法. *耳喉頭頸* 83 (2) :107-112, 2011.
- 6) 太田伸男ほか：嚢胞性疾患に対する OK-432 療法—その適応と限界—. *耳鼻免疫アレルギー* 28 (4) :285-289, 2010.
- 7) Ogita S et al.: Intracystic injection of OK-432: a new sclerosing therapy for cystic hygroma in children. *Br. J. Surg.* 74:690-691, 1987.
- 8) Fukase S. et al.: Treatment of ranula with intracystic injection of the streptococcal preparation OK-432. *Ann. Otol. Rhinol. Laryngol.* 112:214-220, 2003.
- 9) Ikarashi T. et al.: Cystic Lymphoangioma and plunging ranula treated by OK-432 therapy. *Acta Otolaryngol. (Stockh) Suppl* 511:196-199, 1994
- 10) 岸本麻子ほか：正中頸嚢胞と甲状腺組織. *耳鼻臨床* 91:191-194, 1998.
- 11) 岡良和ほか：OK-432硬化療法が著効した舌根部正中頸嚢胞の1例：耳喉頭頸 83 (10) :724-726, 2011.