BRANCHIOGENIC CARCINOMA: REPORT OF A CASE.

AKIHIRO HIGUCHI, M. D., MAKITO OKAMOTO, M. D.
and HIROOMI TAKAHASHI, M. D.

Department of Otolaryngology Kitasato University Medical School, Kanagawa
(Director: T. Shitara, M. D.)

A forty seven year-old male suffering from branchiogenic carcinoma was reported.

The patient noticed a swelling in the left cervical region without other symptoms. Two months after detection of the tumor, he visited a local clinic where he had an exploratory excision of the tumor. Histopathologically, the specimen was diagnosed as squamous cell carcinoma arising from the epithelial lining of a lateral cervical cyst and he was referred to Kitasato University Hospital. A careful physical examination failed to reveal any other lesions except for the tumor in the left lateral neck. Therefore, the treatment was performed under a clinical diagnosis of branchiogenic carcinoma. The patient underwent radical neck dissection following radiation therapy (4000 rads). There was no recurrence of the tumor thirteen months after the surgery.

A82-1456-92304

鰓 性 癌 の 1 例

北里大学医学部耳鼻咽喉科学教室 (主任: 設楽哲也教授)
樋口彰宏, 岡本牧人, 高橋広臣

I はじめに

頸部腫瘍を主訴としてわれわれ耳鼻咽喉科医を訪れる患者は多いが、その中に頻度は少ないが頸部原発性腫瘍もあることを忘れてはならない。

その1つに胎生期の特殊残器より発生すると考えられる腫瘍のあることが古くから提唱され、1882年、Volkmann¹⁾がこれを Branchiogenes Karzinom と命名し、深頸部に発生する先天性頸嚢胞あるいは嚢嚢と関係が深い特殊な嚢腫例として報告した。それ以来、諸家によりいくつかの症例報告がなされている。

わが国では鰓性癌あるいは鰓原性癌などと呼ばれ、非常に稀な疾患である。

われわれは最近、鰓性癌の1症例を経験したので報告する。

I 症 例

患者: 47歳、男性、運転士。

主訴: 左側頸部腫瘍。

初診: 昭和53年5月22日。

家族歴・既往歴: 特記すべきことなし。

現病歴: 昭和53年3月、左側頸部の鶏卵大の腫瘍に気付いたが、疼痛などの自覚症状がないため放置していた。しかしその後、腫瘍が徐々に増大して来たため、同年4月27日に某病院外科を受診し、5月8日腫瘍試験切除を受けた。この結果、扁平上皮癌で鰓性癌との病理組織診断を受けたため、昭和53年5月22日、紹介されて当科を受診した。

初診時所見: 大きさ4×5×3cmの腫瘍が、某病院における試験切開痕を中心に、左耳介直下より胸鎖乳突筋の走行に沿って存在した。腫瘍は弾性を有し、皮膚およ

図 1

び基底部との癒着があって移動性に乏しく、中心付近には前回手術後のドレナージによって生じたと思われる瘻孔があり膿性分泌物の排出を認めた(図1)。

左側頸部に腫瘤を触知する以外には、鼻副鼻腔、口腔、咽頭、喉頭など耳鼻咽喉科領域に異常所見はなかった。

検査所見: 尿、血液一般検査に著変はなく、頸部、胸部のX線単純撮影および耳下腺造影を行なったがいずれも異常所見はなかった。Bスコープ方式による頸部エコーグラムは腫瘤内部エコーは均一性でありいわゆる cystic pattern は示さなかった。

治療: 以上の検査結果よりわれわれは鰓性癌の診断のもとに治療を開始した。

5月24日より1日200rad、計4000radのLinac照射とプレオマイシン計45mgの投与を行なったところ、腫瘤は著明に縮小した。次いで6月23日、腫瘤摘出術および左頸部廓清術を施行した。

手術所見: 前回の手術切開痕に沿って耳後部から鎖骨上まで moderate neck incision に準じた皮膚切開を加えた。腫瘍の中心は総頸動脈分岐部の高さから顎下部、一部耳下部にかけて存在し、胸鎖乳突筋内および皮下への浸潤が認められたが、総頸動脈、内頸静脈、迷走神経などへの浸潤はなかった。顎下腺は保存したが、耳下腺は下1/3を切除し、腫瘍塊、胸鎖乳突筋および皮膚を含めた前回の手術瘢痕組織を一塊として摘出した(図2)。

摘出した標本は放射線治療などによる結合組織化がみられたが、壊死部および嚢胞形成はなかった(図3)。

病理組織所見: 図4および図5は腫瘍試験切除時の組織標本である。腫瘤は不規則な形の嚢胞を有し、上皮下にはリンパ球の著明な増殖を伴っている。これは鰓性嚢胞の特徴的な組織像であり、この嚢胞上皮が癌化し、周囲に向かって浸潤発育している所見が認められ、組織学

図 2 手術所見

図 3 摘出標本

図 4 HE×5 鰓原性嚢腫の形態が残存している

図 5 HE 5×10 癌化した上皮, 拡大図

的には扁平上皮癌である。

術後経過: 患者の手術後の経過は順調で, 7月10日退院し, 術後約13カ月を経た現在において未だ再発をみず, 現在も経過観察中である。

Ⅲ 考 按

(1) 発生について: 前述したように 1882 年, Volkman¹⁾ が, 深頸部に発生する外皮や喉頭と関係のない癌腫が存在し, これは鰓器官の遺残または先天性頸嚢胞あるいは頸瘻より発生するものと考え, Branchiogenes Karzinom と命名した。以来, この腫瘍の発生に関して歴史的にさまざまな学説が出されて来たが, 結局現在ではこの Volkman 説が一般に認められている。一方, 側頸嚢胞あるいは瘻の発生に関しても, 古来より色々な学説があり, 主なものだけでも Konstanieski, Maeleski 説 (先天性頸嚢胞および頸瘻は全て鰓弓性のものとする)。Hammer 説 (第 3, 第 4 咽頭裂溝に由来する)。Wenglowski²⁾ 説 (胸腺咽頭管に由来する)。His, Streckeisen 説 (舌骨甲状腺管遺残に由来する) などがある。しかし, 上記のいずれの学説にせよ側頸嚢胞あるいは頸瘻は鰓性器官より発生するものということになり, したがってこれを発生母地とする癌腫を一括して Branchiogenes Karzinom として差し支えない訳である。

(2) 診断について: 鰓性癌は耳介直後から鎖骨に至る側頸部のどこにでも発生しうる。したがって本症の診断は側頸部に生じるあらゆる腫瘍性疾患との鑑別から始まる (表 1) がこの中でも特に重要でしかも鑑別が困難なものは転移性頸部腫瘍であり, 他器官における原発巣の否定が重要となる。Lorenz³⁾ は本症の絶対確実な診断は病理解剖学的詳細な検索によらなければならないと述べている程である。

表 1 鑑別を要する疾患

1. 唾液腺疾患
 - ・耳下腺腫瘍・顎下腺腫瘍
2. 甲状腺疾患
 - ・甲状腺腫瘍・異所性甲状腺
3. 炎症性腫瘍
 - リンパ節炎・結核
4. 良性, 悪性原発性腫瘍
 - ・神経鞘腫・脂肪腫
 - ・皮様嚢腫・頸動脈球腫瘍
5. 転移性頸部腫瘍
6. 悪性リンパ腫他

転移性頸部腫瘍に関しての詳細は成書にゆだねるが, 原発巣として重要なのは, 鼻副鼻腔, 口腔, 咽喉頭, 気管肺および消化管粘膜, 甲状腺, 唾液腺, 皮膚などであり, 頭頸部領域が特にその可能性が高いとされている⁴⁾⁵⁾。この点を念頭において耳鼻咽喉科的検索をくり返すことが重要で, ときに上咽頭や下咽頭の random biopsy も価値がある⁵⁾。同時に他科領域の一般臓器検査, 内視鏡検査なども必要で, 各科専門医の協力が大切となる。

このような原発巣の検索と同時に腫瘍自身の対する検査も自覚症状などの問診より始め, 視診, 触診, X線検査, 超音波検査なども診断の手助けとなる, 更に腫瘍の病理組織診も有用である。

鰓性癌の組織像はその発生母地からすれば, 種々の性状を呈してもよいが, 実際には扁平上皮癌と円柱上皮癌あるいは絨毛上皮癌の二型に大別され, このうちでも扁平上皮癌であることが圧倒的に多い。側頸嚢胞より発生した鰓性癌の場合には線維結合組織より成る厚い壁をもつ内腔を有し腫瘍の発育に伴って癌細胞の浸潤がおこる。腫瘍細胞は同心性層状体に配列し, 間質細胞は乏しく, 線維性で血管に乏しいためしばしば中心軟化をおこす。また, リンパ球や形質細胞が腫瘍細胞のまわりを取り囲むように増殖する。

われわれの症例でもみられたこのような典型的な鰓性癌の組織所見が得られたときは病理組織診は本症の最終的診断手段として大きな意義を持つ。しかし常にこのような組織像が得られる訳ではなく, この場合には鰓性癌であるという診断が下せないこともある。

以上のように本症の診断は極めて難しく, いくつもの検査結果を総合して初めて診断しうるものであって,

表 2 Martin 1950年

1. 腫瘍が耳介直後から鎖骨に至る胸鎖乳突筋の前縁に沿った線上にあること。
2. 組織学的に嚢胞上皮細胞に由来することを示唆する細胞であること。
3. 嚢性起源と推定される嚢胞または瘻との関係を指摘しうること。
4. 患者が少なくとも5年間は原発巣の可能性のある病巣を生ずることなく生存し、かつ定期検査を受けていること。

単に側頸部に発生した扁平上皮癌というだけで安易に聴性癌という診断を下すのは慎まなければならない。

現在、聴性癌の診断基準として最も多用されているのは Martin⁹⁾ の診断基準である(表2)。第1と第2の基準は本症が嚢性器由来の腫瘍ということを考えれば当然である。第3の基準は Martin⁹⁾ が最も重視したものであるが、今日では本症には胎生期の嚢裂あるいは鰓弓組織の遺残より発生する原発性癌腫と嚢性嚢胞壁上皮の二次的な癌性化による原発性癌腫があるとされている。第4の基準については、本症の予後が極めて悪く大半が

半年以内に再発し、早晩死亡するという事実や重複癌の可能性などの問題があり、あまり明確な診断基準とは言い難いようである。

(3) 症状について：一般に本症は定型的な症状を呈するとされており、Kocher¹⁰⁾ は聴性癌の局所症状を3期に分類している。これを簡単に記すと次のようである。

第1期：早期より限局性、可動性の表面凹凸な腫瘍を硬く触れるが、自覚症状は殆んどない。

第2期：腫瘍は増大し、可動性が消失して腫瘍による圧迫症状や浸潤による症状(神経痛様疼痛、知覚障害、嚥下障害、嚔声、呼吸困難、Horner 氏徴候など)が出現する。

第3期：腫瘍が浸潤性に発育し、中心軟化をおこし、波動を触れ、皮膚に癒着し潰瘍や瘻孔を作り全身状態も悪化する。

(4) 治療について：早期に手術を行ない腫瘍を摘出することが本症の治療の原則であり、術式は頸部廓清術が最適とされている。

しかし患者が根治手術可能な状態で来院することは極めて稀であると言われていて、腫瘍の存在に気付いて来院するまでの期間は、Crile¹¹⁾ は平均7カ月、Oliber¹²⁾ は4~7カ月と記載している。本邦でもその期間はほぼ同様

表 3

組織像

左右差

年齢

性差

であるが、最も早いものは2カ月、最も遅いものは20年であった。

手術不能例や術後照射として、放射線療法が用いられており、ある程度の効果をあげている。われわれの症例では、すでに他病院において腫瘍試験切除術を受けていたこともあって術前に4000 radのLinac照射を行った結果腫瘍は著明な縮小を示した。これ故、われわれは術前照射も本症の治療にある程度効果があるのではないかと考える。

化学療法も他の癌腫同様、効果が認められており、特にブレオマイシンが有効とされている。

(5) 転移、再発、予後について

本症の転移は、一般にリンパ行性におこるとされていて、多くは患側の頸部、鎖骨上窩、腋窩リンパ節などに転移し、末期には反対側のリンパ節にも転移することがある¹⁰⁾。血行性転移に関してはさまざまな意見があり、Lorenz²⁾、Joannowiczはこれを否定している。しかし、頸動脈への腫瘍浸潤による血行性転移の可能性を強調している報告¹¹⁾や腫瘍血栓を形成していたという報告¹²⁾もあり、Veau, 李¹³⁾らは血行性に広く転移をおこすとしている。われわれの症例では転移巣は認められなかった。

また本症における再発は不可避でしかも術後極めて早期におこるとされている。Veauの集計によると48例中1年以内に再発をみなかったものはわずか2例であった。またLorenz²⁾の集計では64例中29例の再発のうち全例が6カ月以内におこり、術後の再発は2～6カ月におこるとされている。

しかも再発癌は更に悪性で、諸種の治療に抵抗性で早晚死に至るといわれている。

われわれの症例は現在術後13カ月を経過したが、未だ再発は認められない。

(6) 統計的観察: 1962年、養島¹⁴⁾らは本邦において報告された42例の腮性癌についてその統計を行なった。その後約20年近く経過するが、この間における本邦での腮性癌の報告はわれわれの調べによると本症例を加えて17例^{15)~20)}であったので、これを養島らの統計に加え、計59例の腮性癌についてその統計的観察を行なった(表3)。

組織像ではやはり扁平上皮癌が圧倒的に多く、59例中47例とその80%近くを占めている。

本腫瘍は、いわゆる上顎部三角に発生することが圧倒的に多いと言われるが、その左右差は一般に有意差はないとされている。われわれの統計でも右側30例、左側25

例とその差は殆んどなかった。両側発生は3例(5%)に認められる。

年齢に関しては、40～60歳代のいわゆる癌年齢に多いと言われ、Lorenz²⁾は40～65歳の者が74%、笠井¹⁴⁾は40歳以上が90%であると記載している。われわれの統計では40～60歳が59例中26例(43%)、60歳以上が23例(38%)とやはり40歳以上が殆んどであった。

性差については、Oliber⁹⁾は男女比は9:1であると述べており、その他の報告でも男子は女子よりもはるかに多い、われわれの統計によると男女比は4:1であった。

IV 結 語

腮性癌は極めて稀な疾患とされているが、最近、われわれは本症の典型例を経験したので報告した。併せて文献的考察と本邦において現在までに報告された59例の腮性癌についての統計的観察を行なった。

参 考 文 献

- 1) Volkman, R.: Das tiefe branchiogene Halskarzinom. Zentralbl Chir 4: 49-51, 1882.
- 2) Wenglowski, R.: Zur Frage von der Entstehung der mittleren Halsfisteln. Zentralbl Chir 10: 289-291, 1908.
- 3) Lorenz, H.: Das branchiogene Carcinom. Beitr Klin Chir 85: 599-632, 1913.
- 4) 佐藤文彦 ほか: 頸部腫瘍の臨床的観察—原発巣不明頸部転移性癌の検討—癌の臨床 18: 274-278, 1972.
- 5) 松村祐二郎: 原発巣不明の頸部転移性癌—耳鼻臨床 71: 83-85, 1978.
- 6) Martin, M.: The case for branchiogenic cancer (malignant branchioma). Ann Surg 132: 867-887, 1950.
- 7) 28) より引用
- 8) Crile, G. et al: Branchial Carcinoma. Surg Gynecol Obstet 60: 703-709, 1935.
- 9) Oliber, R.: Malignant Epithelial Tumors of the Neck. Am J Cancer 23: 16-44, 1935.
- 10) 真鍋欣也 ほか: Migrating Phlebitis を伴った腮性癌の1例 外科 30: 402-409, 1968.
- 11) 小林延寿 ほか: 腮管原性癌の1例検例 日病会誌 50: 13-17, 1961.
- 12) 養島一朗 ほか: 腮性癌の4例検例 癌の臨床 8:

- 137-141, 1962.
- 13) 李 祐吉: 腮弓性癌腫の2例に就いて 実地医家と臨床 18: 659-665, 1941.
- 14) 笠井善三: 鱈性癌腫 耳鼻臨床 26: 199-200, 1931.
- 15) 山崎郁雄: 所謂鱈性癌と疑われる1例(会) 米子医誌 10: 553, 1959.
- 16) 岩谷一夫 ほか: 鱈性癌の1例 外科 25: 868-871, 1963.
- 17) 松尾 武: 原発性鱈性癌と思われる1例検例(会) 長崎医学会誌 37: 421, 1962.
- 18) 吉村克俊 ほか: 右頸部リンパ腺腫(?)実は右頸部鱈性癌 日胸 17: 153-160, 1963.
- 19) 原 薫 ほか: 鱈性癌の1例及び剖検例(会) 日耳鼻 62: 1124, 1959.
- 20) 宮竹 昭 ほか: 鱈性癌を原発性と考えられる喉頭癌症例について(会) 日耳鼻 64: 1835, 1961.
- 21) 菱山博文 ほか: 鱈性癌の1例(会) 日耳鼻 69: 1801, 1966.
- 22) 尾藤孝生 ほか: Branchial carcinoma (鱈性癌) の1例(会) 日外会誌 66: 109, 1965.
- 23) 北村 武: 鱈性癌 外科診療 13: 1069-1076, 1971.
- 24) 重須昭弘 ほか: 鱈性癌の1症例(会) 日外会誌 73: 748, 1966.
- 25) 田所立身 ほか: 鱈性癌の1例(会) 日臨外 34: 308, 1973.
- 26) 海野徳二 ほか: 側頸部腫瘍症例—鱈性癌と思われる1例— 耳喉 46: 426-429, 1974.
- 27) 京谷 勉 ほか: 甲状腺腫を伴った鱈性癌の2症例癌の臨床 20: 1065-1068, 1974.
- 28) 山添信幸 ほか: 頸部鱈性癌と思われる1症例 外科診療 19: 979-982, 1977.

稿を終るに臨み、ご校閲をいただきました殿英哲也教授に感謝いたします。

本論文の要旨は第23回日本耳鼻咽喉科学会神奈川地方部会において発表した。

(原稿受付 昭和 54. 7. 27日)

別刷請求先 〒228 相模原市麻溝台1

北里大学医学部耳鼻咽喉科学教室 樋口 彰宏