先天性頸部嚢胞の臨床統計

鶴田 至宏・佐藤 武男・宮原 裕

吉野 邦俊・馬谷 克則

Clinical Statistics of Congenital Cervical Cysts

Yoshihiro Tsuruta, Takeo Sato, Hiroshi Miyahara,

Kunitoshi Yoshino and Katsunori Umatani

(Center for Adult Disease, Osaka)

Twenty seven congenital cervical cysts were treated surgically in our clinic from January, 1980 to December, 1984.

Thyroglossal cysts were found in 11 males and 3 females aged eight to 60 years. These cysts were painless; 78% were located behind the hyoid bone. We resected the hyoid bone if the cysts were adherent to it. This surgery can be performed under local anesthesia.

Lateral cervical cysts were present in 5 males and 8 females aged 12 to 51 years. They were painless in 11 and painful in two cases. One patient had a cervical fistula. In 10 patients (77%) the cysts were type I or II (according to Bailey's classification, superficial group). They were treated generally under local anesthesia, but types III and IV (deep group) may require general anesthesia.

Another case of congenital fistula originating from the apex of the left piriform sinus was reported.

Key words: congenital cervical cyst, thyroglossal cyst, lateral cervical cyst, congenital fistula

緒 言

頸部腫瘍は良性、悪性を含んでその疾患は多彩であり、頸部腫瘍の初期鑑別診断は重要である¹⁾。それらのうち嚢胞性疾患は鑑別診断上からは比較的簡単ではあるものの、再発の問題などもあり、慎重に取扱う必要がある。今回、1980年1月から1984年12月までの5年間に当科で加療した一次例の先天性頸部嚢胞27例について臨床統計的検討を加えたので報告する。

対象および統計結果

1980年1月から1984年12月までの5年間に当科を受診した患者のうち、頸部腫瘍を認めた症例で、頭頸部領域からの転移性リンパ節を除いた新鮮一次例は合計277例であり、そのうちわけは表1に示す如くであった。先天性嚢胞疾患は27例で全体の9.7%を占めていた。そのうち正中頸嚢胞は14例、側頸嚢胞は13例であった。

1. 正中頸嚢胞

正中頸嚢胞14例についてみると性別では男性

11例, 女性3例で, 男性に多くみられた. 初診時の年齢は8歳から72歳にわたり, おもに30歳から60歳までに分布していた (表2). 腫瘍に気付いてから受診までの期間は2日間から32年間にわたり, かなり長期間放置している患者も

多くみられた (表3). 症状としては全例, 無痛性腫瘍であり, 皮膚に瘻孔を形成していた症例はなく, また1例のみ受診直前に急速増大傾向を認めていた. 腫瘍の大きさは長径で20mmから50mmであり, 平均して30mm程度で大きいばら

表1 頸部腫瘍の病理組織学的分類 (N=227)

良 性	168	悪 性	109
1. salivary gland tumor		A. primary	
parotid gland	40	1. salivary gland tumor	
submandibular gland	10	parotid cancer	9
2. thyroid gland tumor	68	submandibular cancer	7
3. congenital cyst		2. thyroid cancer	74
thyroglossal duct cyst	14	3. branchiogenic cancer	2
lateral branchial cleft cyst	13	4. malignant lymphoma	10
4. lymphadenopathy		5. non-epithelial malignancy	1
ly. colli. tbc	2	malignant fibrous histiocytoma	
lymphadenitis	5	B. metastatic	
5. carotid body tumor	1	1. lung cancer	2
6. other		2. esophageal cancer	1
lipoma	7	3. thyroid cancer	1
neurinoma	3	4. primary unknown	2
hemangioma	1		
lymphangioma	1		
blood cyst	1		
granulation	1		
abscess (piriform sinus fistula)	1		

(1980~1984)

表2 先天性嚢胞の初診時年齢分布

	正中頸嚢胞	側頸嚢胞
0~10歳	1	
11~20歳		2
21~30歳		6
31~40歳	3	4
41~50歳	4	
51~60歳	3	1
61~70歳	1	
71~ 歳	2	
計	14例	13例

表3 自覚症状の出現から受診までの期間

	正中頸嚢胞	側頸嚢胞
1ヵ月以内	2	4
6ヵ月以内	5	3
1年以内		3
5年以内	5	
5年以上	2	3
計	14例	13例

つきはなかった (表4). 腫瘍の性状は全例が表面平滑の緊満した嚢胞状であり, 表皮との癒着はみられなかったが, 多少可動性に制限のある例が6例に認められた. 発生部位では舌骨と甲状軟骨の間に発生した例が11例と大部分を占め, 舌骨前部が2例, 舌骨上部が1例で, 甲状軟骨下部に発生した例はなかった (図1).

治療は全例, 手術が施行されており, 全身麻酔下および局所麻酔下に行った例はいずれも7例ずつであった. 手術時腫瘍より深部に向かって索状の管腔形成を認めた例は3例であったが, 舌盲孔部まで連続していた例はなかった. 舌骨の部分切除はその3例を含め6例に施行されている. 全例再発はみえていない.

2. 側頸嚢胞

側頸嚢胞13例についてみると性別では男性5例, 女性8例でやや女性に多かった. 初診時の年齢は12歳から51歳にわたり, おもに10歳から40歳までに分布していた (表2). 腫瘍に気付いてから受診までの期間は8日間から14年間にわたり, やはり長期間放置している例も多くみられた (表3). 症状では13例中11例が無痛性腫瘍であり, 2例が自発病を認め, うち1例は13例中唯一皮膚との間に瘻孔を形成していた例であった. また, 受診直前に急速増大を認めたのは2例あり, 1例が瘻孔を形成していた症例であった. 腫瘍の大きさは長径で10mmから90mmにわたり, 症例によりばらつきがかなりあるよ

うに思えた (表4). 腫瘍の性状は1例のみ弾性硬であったが, 他の12例はすべて表面平滑の嚢胞状であり, 皮膚との間に癒着のみられた例が1例, 可動性の制限のあった例が3例であった. 発生部位では従来より用いられているBaileyの分類¹⁾によると, 最も表在性にあり胸鎖乳突筋の前縁より前方にあるⅠ型が2例, Ⅰ型より深層で大血管より表層にあるⅡ型が8例, 内外頸動脈の間を通過してより深層に及ぶⅢ型が2例, さらに咽頭壁に近く大血管の内側に及ぶⅣ型が1例であった (図2).

治療は全例, 手術が施行されており, 全身麻酔下に行なわれた例が10例, 局所麻酔下に行なわれた例が3例であった. 全例とも咽頭に向かって索状管腔の形成はなく, 皮膚に瘻孔を形成した1例を除いて, 嚢胞の摘出のみにて治療を終えているが, 再発は1例も認めていない.

考 按

1. 正中頸嚢胞

胎生4週頃に第1, 第2鰓嚢の間の咽頭壁内

表4 先天性頸部嚢胞の大きさ (最大径)

	正中頸嚢胞	側頸嚢胞
10~19mm		1
20~29	4	2
30~39	6	1
40~49	3	2
50~59	1	4
60~		3
	14例	13例

a	舌骨上部	1例
b	舌骨前部	2
c	舌骨・甲状軟骨間	11
d	甲状軟骨下部	0

図1 正中頸嚢胞の発生部位別頻度

M: 胸鎖乳突筋 A: 頸動脈 C: 嚢胞 P: 咽頭 V: 内頸静脈
type I 2例, type II 8例, type III 2例, type IV 1例

図2 側頸嚢胞の発生部位別頻度 (Bailey の分類)

側に甲状腺原基が生じ、前頸部正中を甲状舌管となって下降し、甲状腺が形成され、胎生5, 6週に甲状舌管が消失し、その後方から舌骨が生じてくる。この甲状舌管が遺残組織から正中頸嚢胞が生じるとされている。

性別ではわれわれの症例では男性に多くみられたが、他の報告をみても極端な差はないが、性差はないと考えてよい^{3)~9)}。

受診年齢は諸家の報告では若年者に、特に10歳以下に多い⁴⁾⁶⁾とされているが、当科は成人病との名のため小児は稀となっており30~60歳に多く認めていた。したがって、受診までの期間も長期間になっていた。

症状は頸部の無痛性腫瘍が大部分であるが、その他に炎症性変化による圧痛や自発痛、皮膚への瘻孔があり膿汁が出るとか舌盲孔まで連絡があり圧迫によっていがい味がするなどの訴えもある。また小児では嚥下障害や嗄声をみる例もあるという⁶⁾。われわれも経験したが、上気道炎を契機に急速に増大した例もある。皮膚へ

の瘻孔形成は一般に少なく、過去の報告でも0~20%^{4)~9)}とされている。深部に向かって導管の開いている例では術後再発する可能性が高いことが予想され、手術の際には十分確認することが必要である。われわれの例でも14例中3例に舌骨下方や舌骨中央を通して深部にむかう索状の管腔を認めており舌骨を含めて切除している。

発生部位では舌骨と甲状軟骨との間にもっとも多く、次いで舌骨前部に多いとの報告が多く²⁾⁸⁾、今回の結果も同様であった。実際の臨床では、嚢胞がある程度大きくなると舌骨前部と舌骨甲状軟骨間の区別は困難なことが多く、またあまり意味のあることでもないと思われる。舌骨上部の発生は少なく、甲状軟骨下部には稀である。

嚢胞壁は組織学的には一層または重層の扁平上皮とされているが、われわれの例ではむしろ線毛上皮が主体で部分的に一層もしくは重層の扁平上皮がみられており、全体が重層扁平上皮である例は認められなかった。炎症を伴った例

では上皮が欠損していたり、肉芽組織となることが多いが、われわれの例でも急速増大を示した1例は炎症のためかほとんど全体が肉芽組織におきかわり、内容物をとどめた部分のみに上皮細胞を認めていた。癌化例の報告もあるが、経験はなかった。上皮組織下に異所性の甲状腺組織が稀に認められる場合があるとされているが、われわれの例では14例中3例に認められた(図3)。

嚢胞の内容物はコレステリン結晶や剝脱した上皮細胞を含む粘稠な黄色半透明もしくは混濁液であることが多かった。

手術は古くから、舌根部舌盲孔までの周囲組織を含めた摘出を行う **Sistrunk**¹⁰⁾ 法が知られているが、われわれの例では舌盲孔まで摘出した例はなく、索状物または茎状管腔が舌骨までのびている場合は舌骨正中部分切除を加え、他は単純摘出にとどまった。現実には舌盲孔まで摘出を要する例はあまりないと思われる。要は嚢胞とそれに連続的にのびる索状物を完全に取ることであり、その際必要であれば舌骨切除を加えればよいと思われる。また、この程度の手技であれば十分局麻下に行い得ると考えられる。手術は舌骨切除例が14例中6例あり、うち4例は局所麻酔で行っていた。再発例は認めなかった。

2. 側頸嚢胞

側頸嚢胞の発生は頸部正中嚢胞と違い意見が

図3 正中頸嚢胞：主に線毛上皮から成り上皮下に甲状腺組織を認める(H E, ×40)

若干わかれていて、典型的な症例は第2鰓裂由来と考えられているが、そのほか頸洞説、胸腺咽頭管説や頸部遺残組織由来などがある。本症と診断された例では、皮下に孤立性に存在していた例や咽頭まで瘻孔となっていた例のほか、頸部での位置が多少異なっている例も含まれ、いずれの説もあてはまるような印象をうける。

性別はわれわれの症例では女性に多くみられたが、一般には頸部正中嚢胞と同様に、大差はないと考えられる⁴⁾⁵⁾¹¹⁾。

受診年齢は20～40歳代に多いとされ³⁾、われわれの集計でも同様の結果であった。本邦の報告では比較的10歳以下にも多数認められるとされているが⁴⁾⁵⁾、当科では少なかった。受診までの期間は、正中頸嚢胞と同様にかなり長期間放置されている症例もみられた。

症状は嚢胞状の無痛性腫瘍であり、発育も大部分が緩徐であったが、急速に増大を示した2例のうち1例は他院にて穿刺をうけたのち急性炎症を呈した例である。また上気道炎に伴い増大したとの報告もある²⁾。腫瘍の大きさについてみると、正中頸嚢胞に比べてばらつきが大きく、最大径が9.0cmにもなった症例を経験している。皮膚への瘻孔形成は13例中1例に認めたが、嚢胞から深部に向かって索状物が認められた例はなく、全例孤立性と考えられ、嚢胞摘出のみで再発例はなかった。

今回対象とした13例のほかに左下咽頭梨状窩と側頸部の間に瘻孔を形成し頸部膿瘍として受診した例が1例あり、第3鰓裂由来と思われる鰓性瘻と診断した(図4)。このような症例は従来、急性化膿性甲状腺炎と診断されていた症例の1部であり¹²⁾、宮内、高井ら¹³⁾¹⁴⁾によって梨状窩から *m. cricopharyngeus* を貫いて頸部へ通じる瘻孔が甲状腺周囲の頸部膿瘍をもたらし、二次的に急性甲状腺炎をひきおこすと報告されている。われわれの経験した症例は13歳の女児で、彼らの述べる小児期に多く、左梨状窩の瘻孔であるという特徴にも一致していた。また、この症例は、**Simpson**¹¹⁾ の述べる第3

図4 鰓性瘻：左梨状窩から側頸部にのびる瘻孔を認める
(左：正面，右：側面 レントゲン所見)

鰓嚢腫と類似の病態と考えられる。

発生部位については Bailey²⁾ の分類が古くからなされているが、この分類自体が腫瘍存在の境界が不明瞭であり、判別しにくい症例も多い。一応の分類を行ってみると、頸静脈より表層に存在するⅡ型が多く認められ、従来の報告に一致した²⁾⁴⁾¹¹⁾。内外頸動脈の間をとるものや頸動脈より深部に存在するものは稀である。

組織学的には嚢胞壁は重層扁平上皮に被われ、上皮下にはリンパ球の集簇と多数のリンパ濾胞の形成を認め、あたかもリンパ節内に上皮が迷入したかのように見える (図5)。一般には線毛上皮も存在することがあるとされているが、われわれの例でははっきりと認めたものはなかった。癌化例はいわゆる鰓性癌として知られており、われわれも2例経験がある。いずれも大きさは4.0cm前後で、弾性硬の無痛性腫瘍であり、1例は他院にて穿刺を受けて扁平上皮癌の診断がつけられていた。2例とも根本的頸部郭清術ののち頸部に放射線照射を加え、5年および6カ月の間、腫瘍の再発なく経過良好で

図5 側頸嚢胞：重層扁平上皮から成り上皮下にリンパ濾胞の形成を認める (H E, ×100)

ある。

嚢胞の内容は黄色～暗黄色の粘液や膿液であり、コレステリン結晶やリンパ球、剝離上皮を認め、正中頸嚢胞とほぼ同様の所見であった。

治療は外科的に摘出することであるが、急性炎症を伴う例では抗生物質の投与を行い、頸部膿瘍となった例では切開排膿を必要とする。摘出に際しては正中頸嚢胞に比べて、総頸動脈、内頸静脈、迷走神経など重要な組織の存在する部分であり慎重さを要し、われわれの症例でも

13例中10例が全身麻酔下で摘出しているが、実際に摘出を行ってみると、本症の大部分が頸静脈より表在であり、嚢胞壁に沿って剝離していけば特に問題が生じることはないようである。しかし、稀であるが、咽頭に向かって交通のある例では、内外頸動脈の間を通過して扁桃付近まで及ぶとされているため、頸動脈の拍動を腫瘍をとおして触れたり咽頭腔に膨隆するような深在性の例では摘出に全身麻酔が必要と思われる。特に、Bailey のⅢ、Ⅳ型に属する症例では術前に、CT、咽頭造影などの検査によって腫瘍と重要組織の関係を十分に把握しておくべきであろう。

結 語

1980年1月から1984年12月までの5年間に当科で加療した先天性頸部嚢胞27例について臨床統計的検討を行い、本症の発生、治療について文献的考察と若干の知見を加えて報告した。

参考文献

- 1) 宮原 裕：頸部腫瘍。今日の治療指針 26 : 733, 1984.
- 2) Bailey H : The clinical aspects of branchial cysts. Brit Jour Surg 10 : 565~572, 1922~3.
- 3) 高橋廣臣：先天性頸部腫脹。耳喉 55 : 847~856, 1983.
- 4) 大石雄一郎，他：先天性頸部嚢胞の検討。耳喉 56 : 1023~1027, 1984.
- 5) 村嶋克之，他：当科9年間における先天性頸部嚢胞の検討。耳鼻臨床 76 : 1160~1166, 1983.
- 6) 綿貫幸三，他：正中頸部嚢胞12例。耳喉 53 : 167~172, 1981.
- 7) 三好 茂，他：先天性頸部嚢腫および瘻の22例。耳鼻臨床 71 : 1281~1286, 1978.
- 8) Ward EG, et al : Thyroglossal tract abnormality ; Cysts and fistulas. Surg Gynec Obstet 89 : 727~734, 1949.
- 9) Pollock WF, et al : Cysts and sinuses of the thyroglossal duct. Amer J Surg 112 : 225~232, 1966.
- 10) Sistrunk WE, et al : Technique of removal of cysts and sinuses of the thyroglossal duct. Surg Gynec Obstet 46 : 109~112, 1928.
- 11) Simpson RA : Lateral cervical cysts and fistulas. Laryngoscope 79 : 30~59, 1969.
- 12) 竹内裕美，他：反復性急性化膿性甲状腺炎の1例。耳鼻 29 : 24~28, 1983.
- 13) 宮内 昭，他：急性化膿性甲状腺炎の感染経路—下咽頭梨状窩瘻について。日外会誌 80 : 948~954, 1979.
- 14) Akira Miyauchi, et al : Piriform sinus fistula. Arch Surg 116 : 66~69, 1981.

（ 原稿到着：昭和60年8月20日
別刷請求先：鶴田至宏
〒537 大阪市東成区中道1丁目3番3号
大阪府立成人病センター耳鼻咽喉科 ）