耳下腺内に発生した鰓原性嚢胞例

秋定 健・折田 洋造

山本 英一・秋定久仁子

Branchiogenic Cyst within a Parotid Gland ; A Case Report

Takeshi Akisada, Yozo Orita,
Hidekazu Yamamoto and Kuniko Akisada
(Kawasaki Medical School)

A 71-year-old male complained of painless swelling in the left parotid region. It was elastic hard to palpation, non-tender, mobile, and measured 2.5×3.0 cm. Facial nerve function was normal. The preoperative diagnosis was mixed tumor, and the mass was removed surgically, with care not to injure the facial nerve. On gross examination, the lesion was cystic with a small lumen containing yellow serous fluid. The histologic examination revealed a branchiogenic cyst. The postoperative course was uncomplicated, and there has been no recurrence to the present time.

Key words: painless swelling, parotid gland, branchiogenic cyst

はじめに

耳下腺部に生じる嚢胞性疾患は比較的少ないが、その多くは Warthin 腫瘍に認められるように腫瘍などの別疾患が嚢胞状を呈したもので、鰓原性や導管由来の単純嚢胞はかなり稀である。鰓原性嚢胞は胎生期に一時的に生じる鰓裂組織の発育異常により発生すると推定されている疾患であるが、今回我々は耳下腺内に発生した鰓原性嚢胞の一例を経験したので報告する。

症 例

症例：71歳，男性。

主訴：左耳下腺部腫脹。

既往歴：胆石症，結核，不整脈。

家族歴：特記すべきことなし。

現病歴：昭和60年10月初旬に左耳下部の腫瘤に気付くも自発痛，圧痛などの自覚症状がない

ため放置していたが，不整脈で入院したことを期に精査目的で10月23日当科を受診した。

初診時全身所見：血圧130/90，ECG上I度房室ブロックを認める以外，血液，尿検査では異常を認めなかった。

初診時局所所見：左耳下腺下極部に約2.5×3.0 cm 大の境界明瞭，表面平滑，可動性良好で皮膚との癒着のない，弾性硬の腫瘤を触知した(図1)。自発痛，圧痛はなく顔面神経麻痺も認められなかった。嚥下障害，開口障害はなく唾液の流出も正常であった。

超音波所見：2.2×2.3 cm 大の境界明瞭な円形の hypoechoic lesion を認め，内部エコーはほぼ均一で，後方エコーの増強を認めた(図2)。

CT 所見：左下顎骨後方で耳下腺浅葉部に比較的境界明瞭な円形の low density area を認め，

造影にて周囲がわずかに high density を示した (図 3)。

RI シンチグラフィー所見：唾液腺シンチ ($^{99m}\text{Tc} \cdot \text{O}_4$) では左耳下腺上極部に cold defect が認められたが、腫瘍との関連はないと思われた。Ga シンチでは異常集積を認めなかった (図 4)。以上の所見から良性腫瘍の診断で昭和60年11月19日全身麻酔下に腫瘍摘出術を施行した。S字皮膚切開を加え耳下腺を露出し、耳下腺後

下部で顔面神経の本幹を確認すると、この前下方に接して耳下腺浅葉より発生したと思われる腫瘍を認めた。顔面神経の分枝を同定後一部に耳下腺組織を付けた状態で腫瘍を摘出した。腫瘍は嚢胞状で薄い被膜を有し $2.3 \times 2.5 \times 1.0$ cm 大の楕円形で、割を入れたところ淡黄色漿液性の分泌物を有した単房性の嚢胞であった (図 5)。

病理組織診断：嚢胞の内壁は2～3層の扁平

図 1 初診時および手術時局所所見

左耳下腺下極部に約 2.5×3.0 cm 大の境界明瞭な弾性硬の腫瘍を触知した。

図 2 超音波所見

境界明瞭な円形の hypoechoic lesion を認める。

図 3 CT 所見

左耳下腺浅葉部に円形の low density area を認める。

な上皮で、周囲の結合組織には豊富なリンパ球浸潤、リンパ濾胞が認められ、嚢胞の内腔にもリンパ濾胞、リンパ球、血管が豊富で中心部には出血、炎症細胞、コレステリン結晶が存在していた(図6)。以上の所見から病理組織学的に鰓原性嚢胞と診断された。

患者は術後顔面神経麻痺もなく経過良好で20日後に退院した。5年後の現在も再発を認めて

いない。

考 按

耳下腺に発生する嚢胞で、腫瘍に合併しない単純性嚢胞は比較的稀なものとされ、貯留嚢胞、皮様嚢胞、鰓原性嚢胞に分類される。その中で耳下腺内の鰓原性嚢胞は1895年に Hildebrandt¹⁾ が最初に報告し、Morris ら²⁾ によると現在までに約100例の報告があるがかなり稀であり、

図4 RIシンチグラフィー所見

a: 唾液腺シンチ($^{99m}\text{Tc} \cdot \text{O}_4$)ではcold defectが認められる。

b: Gaシンチでは異常集積を認めない。

図5 摘出標本

図6 病理所見

嚢胞の内壁は2～3層の扁平な上皮で結合組織および内腔にはリンパ球、リンパ濾胞が認められる。

その頻度について Lathrop³⁾ は耳下腺良性腫瘍 243 例中 3 例, Eneroth⁴⁾ は耳下腺腫瘍 864 例中 5 例, 田中ら⁵⁾ は耳下腺腫瘍 103 例中 3 例, Richardson ら⁶⁾ は 708 例の耳下腺摘出術中 16 例が鰓原性嚢胞とそれぞれ報告している。一側性がほとんどであるが Morris ら²⁾ と和多田ら⁷⁾ により両側性が報告されている。

鰓原性嚢胞の成因について Bhaskar ら⁸⁾ は 468 例の鰓原性嚢胞中 96.6% は重層扁平上皮に被われた嚢胞性リンパ節であり, 耳下腺組織と頸部リンパ節が接近しており, 同じ時期に発達するためリンパ組織に上皮が入り込む可能性があると考え benign cystic lymphnodes または benign lymphoepithelial cysts とよんだ方がよいのではないかと報告した。それに対して Rickles ら⁹⁾ は 149 例の鰓原性嚢胞中 28 例 (18.8%) で呼吸上皮を確認しており, これは耳下腺組織には存在しないため, 鰓原性嚢胞の一部はリンパ節に迷入した耳下腺組織由来のものだが, 大部分はやはり鰓原器由来のものであろうと報告しており一般的に支持されている。耳下腺の起源と嚢胞の鰓原器由来を決定することは困難であり, 議論のあるところだが, 田中ら⁵⁾ や Sobieski ら¹⁰⁾ は耳下腺内の鰓原性嚢胞は第 1 鰓溝由来と考えており, 相見¹¹⁾ も耳下腺下部に見られる嚢胞は第 1 鰓裂性とある程度推定可能なものとしている。しかし竹生田¹²⁾, 星野ら¹³⁾ や Sisson ら¹⁴⁾ は耳下腺内の嚢胞も第 1 鰓溝由来と第 2 鰓溝由来に分類しており, それぞれの特徴を整理すると, 第 1 鰓溝性嚢胞は外耳道の重複奇形であり, 外耳道と密接な関係を有し, 発生部位は耳前部に多く瘻孔形成などを合併することがある。感染を起こし切開排膿を繰り返すこともある。嚢胞内容は粥状で, 内腔は重層扁平上皮で被われ, 上皮下にリンパ組織は存在するが豊富ではない。第 2 鰓溝性嚢胞は耳下腺の下極, 浅葉に存在し混合腫瘍と診断されることが多い。内容物は淡黄色漿液性または粘性の液体で, 時に泥状。内腔の上皮は扁平上皮, 立方上皮, 線毛円柱上皮など多彩である。上皮

下のリンパ組織は豊富で胚中心を形成している。本症例は竹生田の分類に従ってみると, 耳下腺下極に存在し, 内容物は淡黄色漿液性で, 上皮下に豊富なリンパ組織を認めたことから第 2 鰓溝性嚢胞と推定される。本疾患の最も多い臨床症状は耳下腺部の腫脹であり, 感染を起こさない限り痛みはない。一般的には顔面神経麻痺はないが Miglets¹⁵⁾ により 1 例報告されている。

診断法については, 触診では耳下腺内に存在する嚢胞にしては波動がなく弾性硬の腫瘤として触れ, 今回の症例のごとく混合腫瘍などの良性腫瘍と診断されることが多い。検査は超音波, 耳下腺造影, RI シンチグラフィー, CT などが有用で, 最近では Kreipke ら¹⁶⁾ が MRI を使用し, CT に比べ解像力は劣るが, 周囲組織との関係はよくわかると報告している。しかしこれらの検査で他の腫瘍との鑑別を行い鰓原性嚢胞と診断することは困難で, 最近行われている穿刺吸引細胞診でも Weidner ら¹⁷⁾ は粘表皮癌や benign lymphoepithelial lesion との鑑別が難しいことがあると報告しており, 摘出標本で確定診断を行うべきであろう。

治療は顔面神経を温存した摘出術が適応であるが, Leonald ら¹⁸⁾ は顔面神経の奇形を報告しており注意が必要である。また瘻孔形成などを確認した場合はそれらを含めて慎重に摘出することが肝要である。

ま と め

耳下腺内に生じた鰓原性嚢胞の一症例について報告し, 若干の文献的考察を加えた。本疾患は比較的稀な疾患で, 臨床症状や諸検査での確定診断は困難であり, 摘出標本で診断される。

本論文の要旨は第 12 回日本耳鼻咽喉科学会中国地方部会 (昭和 61 年 6 月 22 日) において発表した。

参考文献

- 1) Hildebrandt O: Üeber angeborene epitheliale Cysten und Fisteln des Halses. Arch Klin Chir 49: 167~197, 1895.
- 2) Morris MR, Moore DW and Shearer GL:

- Bilateral multiple benign lymphoepithelial cysts of the parotid gland. *Otolaryngol Head Neck Surg* **97** : 87~90, 1987.
- 3) Lathrop FD : Benign tumors of the parotid gland ; a twenty-five year review. *Laryngoscope* **72** : 992~1006, 1962.
- 4) Eneroth CM : Histological and clinical aspects of parotid tumours. *Acta Otolaryngol Suppl* **191** : 1~99, 1964.
- 5) 田中克彦, 末永 通, 寺倉直明, 他 : 耳下腺嚢胞性疾患の臨床的検討. *日耳鼻* **89** : 1796~1804, 1986.
- 6) Richardson GS, Clairmont AA and Erickson ER : Cystic lesions of the parotid gland. *Plast Reconstr Surg* **61** : 364~370, 1978.
- 7) 和多田等, 長谷川等, 斎藤雄一郎, 他 : 両側耳下腺内鰓性嚢胞の1症例. *日耳鼻* **87** : 739, 1984.
- 8) Bhaskar SN and Bermier JL : Histogenesis of branchial cyst ; a report of 468 cases. *Am J Pathol* **35** : 407~423, 1959.
- 9) Rickles NH and Little JW : The histogenesis of the branchial cyst ; II. a study of the lining epithelium. *Am J Pathol* **50** : 765~777, 1967.
- 10) Sobieski EJ, Kleinhenz RJ and Metheny JA : Branchiogenic cyst within the parotid gland. *Arch Otolaryngol* **82** : 395~397, 1965.
- 11) 相見賢治 : 先天性側頸部瘻管及び嚢腫に関する考察. *日耳鼻* **69** : 1919~1933, 1966.
- 12) 竹生田勝次 : 耳下腺嚢胞. *JOHNS* **5** : 699~704, 1989.
- 13) 星野知之, 白石輝男, 石田正人, 他 : 耳下腺嚢胞3例. *耳喉* **53** : 603~608, 1980.
- 14) Sisson GA and Summers GW : Branchiogenic cysts within the parotid gland ; report of a case. *Arch Otolaryngol* **96** : 165~167, 1972.
- 15) Miglets AW : Parotid branchial cleft cyst with facial paralysis ; report of a case. *Arch Otolaryngol* **101** : 637~638, 1975.
- 16) Kreipke DL and Lingeman RE : Cross-sectional imaging (CT, NMR) of branchial cysts. *J Computr Assist Tomogr* **8** : 114~116, 1984.
- 17) Weidner N, Geisinger KR and Sterling RT, et al : Benign lymphoepithelial cysts of the parotid gland ; a histologic, cytologic, and ultrastructural study. *Am J Clin Pathol* **85** : 395~401, 1986.
- 18) Leonald JR, Maran AG and Huffman WC : Branchial cleft cysts in the parotid gland ; facial nerve anomaly. *Plast Reconstr Surg* **41** : 493~496, 1968.

(原稿受付 : 平成3年3月19日
原稿採択 : 平成3年9月25日
別刷請求先 : 秋定 健
〒701-01 倉敷市松島577
川崎医科大学耳鼻咽喉科学教室)