副咽頭間隙に発生した巨大な嚢胞例

佐藤 玲子・辺土名 仁・村岡 秀樹
真栄田宗慶・小松崎 篤

Parapharyngeal Cyst ; A Case Report

Reiko Sato, Hitoshi Hentona, Hideki Muraoka,
Soukei Maeda and Atsushi Komatsuzaki
(Tokyo Medical and Dental University)

A rare case of parapharyngeal cyst arising from the second branchial cleft is reported. Radiologic imaging, especially CT and MRI, were useful in locating the cyst and showing that it extended from the lateral wall of the oropharynx to the base of the skull.

A fenestration was made at the bottom of the cyst producing a communication between it and the oropharynx, since it was impossible to remove the cyst completely.

Two years later there is no sign of recurrence of the cyst.

Key words: parapharyngeal cyst, second branchial cleft, fenestration

はじめに

副咽頭間隙には多彩な組織型の腫瘍が発生することが知られている^{1)~3)}。その主なものは唾液腺由来の腫瘍と神経原性腫瘍であり、嚢胞は稀である。しかし近年CTやMRIなどの画像診断の発達により嚢胞の報告もみられるようになってきた^{4)~6)}。今回私たちは副咽頭間隙に発生し頭蓋底まで達する嚢胞の症例を経験したので、その起源についての考察をまじえ報告する。

症 例

患者：28歳，男性。

主訴：右咽頭腫脹感，咽頭痛。

既往歴：約1年前より若年性糖尿病のためインスリン48単位の自己注射を行っていたが、血糖値は200 mg/dl前後であった。今までに重症感染症や他の糖尿病合併症の既往はない。

現病歴：平成元年6月頃軽い上気道炎罹患後

に右咽頭腫脹感，咽頭痛が出現した。近医にて抗生剤の処方を受け咽頭痛は消失したが，腫脹感は徐々に増悪した。8月15日当科を紹介されて初診した。右咽頭腫瘍を指摘され，精査加療目的にて入院となった。

初診時全身所見：血算正常，血液生化学は空腹時血糖256 mg/dlの他異常なし。尿中カテコールアミン値は正常範囲であった。心電図，胸部レ線も正常であった。

初診時局所所見：右後口蓋弓の後方に表面平滑，黄色の腫瘍を認めた。腫瘍により右口蓋弓は内前方へ，口蓋垂は左方へ圧排されていた(図1)。触診上はやや軟らかい腫瘍であり，圧痛はなく可動性があった。下顎骨後縁や頸部からは腫瘍を触知しなかった。耳下腺も正常であった。頸部リンパ節は触知しなかった。後鼻鏡所見では右耳管咽頭口の前唇が腫瘍により圧排さ

れていた。鼻閉はなかった。脳神経症状は認めなかった。

画像所見：

①CT；右副咽頭間隙の茎状突起よりも前方 (pre-styroid space) に内部が均一で低吸収域を示し、造影されない陰影を認めた。周囲との境界は明瞭であり、内頸動脈、静脈は後方へ圧排されていた。耳下腺との境界には脂肪組織 (lucent line) があり耳下腺との連続はなかった。また陰影はくびれをもち、亜鈴型になっていた。骨破壊像などは認めなかった (図2)。

②MRI；T1, T2 強調画像ともに、境界明瞭で内部が均一な高信号を示す陰影があり、上方は頭蓋底に達していた。冠状断ではくびれのために内下方と外上方に双頭があることがわかった (図3, 4)。

③血管撮影；内頸動脈が腫瘍のために後方へ圧排されていたが、腫瘍による血管の狭窄や栄養血管は認められなかった (図5)。外頸動脈とその分枝に異常はなかった。

耳管機能検査：音響耳管機能検査では左は正常、右は嚥下による耳管開放が障害されており、腫瘍による圧迫のためと思われる。しかし鼓膜所見は正常で、ティンパノグラムは両側ともA型であった。

以上視診、触診、およびCTより嚢胞が疑われた。しかし血管撮影、MRIからは副咽頭間

隙に発生する乏血管性の腫瘍、たとえば神経鞘腫なども否定できないと思われた。

診断確定および全摘出を目的として手術を施行した。

手術所見：平成元年9月25日気管切開を行い全身麻酔下に手術を施行した。腫瘍が頭蓋底まで達しているの、下顎骨の正中離断を用いた頸部外切開法¹⁾ (cervical transpharyngeal approach) で扁桃床より外側に切開線を延長し腫瘍に到達した。腫瘍壁は周囲との癒着が強く剝離が困難で、剝離の際に腫瘍壁に穿孔を生じ黄色の内容物が流出した。腫瘍は嚢胞であろうと判断し、また全摘出は困難と思われたので開放術とした。嚢胞の下端を半球状に切除し、嚢胞壁前方断端を後口蓋弓粘膜に、嚢胞壁後方断端を咽頭後壁粘膜に吻合して長径約2cmの開口部を作成した。示指にて開口部より嚢胞の内腔を触診すると内面は平滑で頭蓋底の高さまで触診することができた。術前の画像診断でみられ

図1 初診時口腔内所見
腫瘍のため右口蓋弓は内前方に圧排されている。

図2 造影CT所見
右副咽頭間隙に亜鈴型の腫瘍陰影(▲)を認める。→は茎状突起。

図3 MRI 所見(水平断)

T1(左), T2(右)強調画像ともに高信号を示す境界明瞭な腫瘤を認める.

図4 MRI 所見(冠状断)

腫瘤は内下方から外上方に垂鈴状になっており, 上縁は頭蓋底に及んでいる.

図5 血管撮影(側面)

内頸動脈は後方へ圧排されている.
腫瘤への栄養血管は認められない.

たくびれの部分も触知できたが、硬く、押し広げることは困難であった(図6)。

嚢胞壁の術中迅速組織検査では悪性所見を認めなかった。

組織学的検査：壁の組織学的検査では上皮細胞下に組織球が集簇しているのが認められたが、標本が小さく嚢胞が鰓弓性嚢胞であるか、唾液腺の貯留嚢胞であるかなどの起源を組織学的に

図6 手術所見

下顎骨を離断して観音開きにし、切開線を右口蓋弓まで延ばして腫瘍に到達した。

図8

上左：術後20日目、造設した開口部より懸垂頭位にて造影剤を注入。(下図参照)

上右：軸位撮影にて注入された造影剤が嚢胞に溜まっているのが確認された。

図7 組織所見(弱拡大)

図9 術後15カ月目のCT所見(水平断)
嚢胞のあった部位に空気が入っており、嚢胞と口腔内の交通が保たれている。

同定できなかった(図7)。

術後経過：術後下部脳神経および交感神経の脱落症状は認められなかった。術創の治癒も良好で、下顎骨離断による機能的また美容上の問題もなかった。

術後20日目、口腔内の開口部より造影剤(バリウム)を注入し、嚢胞内腔と中咽頭腔の交通を確認した(図8)。

術後15カ月後、CTにて嚢胞のあった部位に空気が入っており、咽頭との交通が保たれているのが確認された(図9)。現在術後2年経過したが再腫脹を認めていない。

考 察

副咽頭間隙に発生する腫瘍はほとんどが良性腫瘍で唾液腺腫瘍と神経原性腫瘍が主であり嚢胞は稀である^{1)~3)}。本症例は視診、触診、画像診断では嚢胞が最も疑われたが、発生頻度からはしばしば嚢胞化をみる神経原性腫瘍等も否定できなかった。

嚢胞の起源については第二鰓弓由来のものが報告されている⁴⁾。Bailey⁶⁾、Kassey⁷⁾らは扁桃窩より発生し、頭蓋底に達する第二鰓弓由来の嚢胞を報告している。Himalstein⁸⁾は発生部位を区分して表1のような第二鰓弓性嚢胞の分類を提唱した。本症例は組織学的には鰓弓性嚢胞に特徴的な上皮細胞下のリンパ濾胞がみられなかったので断言できないが、過去の報告にみられる発生部位から第二鰓弓由来が考えられた。また、表1の分類に当てはめると5と7に当たると思われた。

表1 第二鰓弓性嚢胞の分類
(Himalstein: 1980⁸⁾より改変)

1. 胸鎖乳突筋前縁に開口部を有するもの。
2. 広頸筋、頸筋膜直下にあるもの。
3. 頸動脈鞘表層にあるもの。
4. 頸動脈分岐部から腹側にあるもの。
5. 咽頭壁または口蓋扁桃付近にあるもの。
6. 扁桃窩に開口部を有するもの。
7. 扁桃窩から耳管咽頭口までの高さにあるもの。

術前の画像診断、術中触診で認められた嚢胞の“くびれ”について形成要因を推測してみた。MRIから“くびれ”の部分は耳管周辺に位置しており、特に冠状断MRIでは耳管軟骨が関与しているように描出されていた。耳管と“くびれ”の関係については第二鰓弓性嚢胞の発生的特徴も示していると思われる。つまりsecond branchial pouch(第二鰓嚢)はventral angle, dorsal angleに分けられる。ventral angleは扁桃窩を形成する。一方dorsal angleは普通は痕跡程度であるがfirst branchial pouchと共に耳管を構成するといわれている⁹⁾。双頭の下内側は手術所見では扁桃窩への瘻孔をもっていなかったがventral angleと考えられる。更に上外側がdorsal angleからなっているとすれば、耳管に沿って頭蓋底まで達することも理解し易い。

副咽頭間隙腫瘍に対する手術法は大きく分けて口内法と外切開法があり、必要に応じ一時的な下顎骨離断が併用される¹¹⁾¹⁰⁾。

本症例の術式に関しては、開放術だけでなく口内法でも充分であったと思われる。しかし一部嚢胞化した充実性腫瘍も否定できず、当初全摘出を目的としていたため、頭蓋底まで達した腫瘍および大血管を明視下にすることが可能な下顎骨離断、外切開法を採用した。

副咽頭間隙の腫瘍に対して、口腔内よりの生検は大血管等を盲目的に損傷する恐れがあり、悪性が強く疑われるとき以外は一般に禁忌とされている^{10)~12)}。本症例でも術前の口腔内穿刺や生検は嚢胞の診断に役立つ可能性があったが、以上のような理由から施行しなかった。

腫瘍の大きさ、形、進展範囲をみるのにはCT、MRIが有効であった²⁾⁴⁾¹³⁾。今後はこれら画像診断により嚢胞症例の発見が増えてくると思われる。また、偶然発見される無症状の症例も出てくるであろう。治療は全摘出が最も望ましいが、頭蓋底まで達するような場合や手術侵襲の大きい場合は開放術も有効である。しかしCT、MRIまた術中所見から充実性腫瘍を完全

に否定できないときは、全摘出できるような方法で手術を行うべきである。

まとめ

1. 28歳男性の副咽頭間隙に発生し頭蓋底まで達した嚢胞の症例を報告した。

2. 嚢胞の起源は組織学的には明らかにできなかったが、鰓弓性由来が考えられた。

3. 頭蓋底まで明視下における下顎骨正中離断を併用した外切開法で全摘出を試みたが、癒着が強く開放術とした。

4. 嚢胞の大きさ、形態、進展範囲の術前診断には CT, MRI が有用であった。

本論文の要旨は、第53回耳鼻咽喉科臨床学会(平成3年7月、札幌)にて口演した。

文 献

- 1) Som PM, Biller HF and Lawson W : Tumor of the parapharyngeal space ; preoperative evaluation, diagnosis and surgical approaches. *Ann Otol Rhinol Laryngol Suppl* 80 : 3~15, 1981.
- 2) Som PM, Biller HF and Lawson W : Parapharyngeal space masses ; an updated protocol based upon 104 cases. *Radiology* 153 : 149~156, 1984.
- 3) 小崎寛子, 庄司 稔, 平塚宗雄, 他 : 巨大な副咽頭間隙腫瘍の4例. *耳鼻臨床* 83 : 429~442, 1990.
- 4) Harnsberger HR, Mancuso AA, Muraki AS, et al : Branchial cleft anomalies and their mimics ; computed tomographic evaluation. *Radiology* 152 : 739~748, 1984.
- 5) 栗山啓子, 鳴海善文, 藤田 真, 他 : 傍副咽頭腫瘍のCT診断. *臨床放射線* 32 : 495~499, 1987.
- 6) Bailey H : The clinical aspects of branchial fistulae. *Br J Surg* 21 : 173~182, 1933.
- 7) Kassey D : Incomplete internal branchial fistulae. *Eye Ear Nose Throat Mon* 48 : 170~173, 1969.
- 8) Himalstein MR : Brachial cyst and fistulas. *Ear Nose Throat J* 59 : 23~29, 1980.
- 9) Proctor B : Lateral vestigial cysts and fistulas of the neck. *Laryngoscope* 65 : 355~401, 1955.
- 10) 高岡佳弘, 窪田哲昭, 吉田篤正, 他 : 副咽頭間隙腫瘍の診断と治療. *日耳鼻* 89 : 142~151, 1986.
- 11) Work WP and Hybels RL : A study of tumors of the parapharyngeal space. *Laryngoscope* 84 : 1748~1755, 1974.
- 12) Bass RM : Approaches to the diagnosis and treatment of tumors of the parapharyngeal space. *Head Neck Surg* 4 : 281~289, 1982.
- 13) 高橋光明, 林 浩, 金井直樹, 他 : 副咽頭腔腫瘍の診断と治療. *耳喉* 59 : 617~623, 1987.

(原稿受付: 平成3年12月26日
原稿採択: 平成4年2月10日
別刷請求先: 佐藤玲子
〒113 東京都文京区湯島1-5-45
東京医科歯科大学医学部耳鼻咽喉科学教室)