上皮小体嚢胞の 4 症例

田中 治・松永 喬・宮原 裕
高橋ひとみ・南 有紀・家根 旦有

Nonfunctioning Parathyroid Cysts ; Report of Four Cases

Osamu Tanaka, Takashi Matsunaga, Hiroshi Miyahara,
Hitomi Takahashi, Yuki Minami and Katsunari Yane
(Nara Medical University)

Four nonfunctioning parathyroid cyst are reported in this article. In the Japanese literature only 78 cases have been reported.

Three women and one man, aged 41 to 79 years, presented with an asymptomatic neck mass thought to originate from the parathyroid gland. The lesions ranged in size from 37 to 77 mm in length. All were located on the left side of the neck. None of the patients had symptoms of hyperparathyroidism. In all cases, water-clear fluid was aspirated from the neck mass. The level of parathyroid hormone in the cyst fluid was greatly elevated. In 3 patients the cyst was excised ; one patient was followed conservatively after aspiration.

It is emphasized that needle aspiration of water-clear fluid high in parathyroid hormone is diagnostic and may be curative in some cases.

Key words: neck tumor, parathyroid gland, cyst

はじめに

本邦での上皮小体嚢胞に関する報告は少なく、しかもその報告の多くは一般外科領域からのもので、耳鼻咽喉科領域からの報告はほとんどない。临床上、上皮小体嚢胞はその発生部位から特に甲状腺腫瘍との鑑別を要するが、本症の疑いさえ持てばその診断は比較的容易である。最近、当科では甲状腺腫瘍の手術症例が増加し、それに伴い 4 例の上皮小体嚢胞を経験したので、若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

症例の一覧を表 1 に示す。症例は男性 1 例、女性 3 例の計 4 例で、初診時年齢は 41~79 歳、

平均年齢は 54.3 歳であった。主訴はいずれも前頸部腫瘍であったが、症例 1 と症例 4 は頸椎精査のため行った MRI 検査で偶然上皮小体嚢胞が発見されていた。腫瘍長径は最長が 77 mm、最短が 37 mm で、原発部位はいずれも左下上皮小体であった。

超音波検査では、全例嚢胞状パターンであった。穿刺液は全例水様で、色調は 2 例は透明、2 例は淡黄色であった。穿刺液中の C-PTH 値（正常値は 0.5 ng/ml 以下）は全例 25.6 ng/ml 以上の高値を示した。なお、いずれの症例も甲状腺機能と上皮小体機能は正常で、血清カルシウム値と血清リン値も正常であった。

症例 1 は穿刺吸引のみで経過観察をしているが, 症例 2, 3, 4 は摘出した. 摘出を行った 3 症例の病理組織像は, いずれも内腔は一層の偏平な円柱または立方上皮で被われた嚢胞であった. なお, 症例 4 には嚢胞壁に上皮小体組織を認めたが, 症例 2 と症例 3 では認められなかった.

以下, 代表症例として症例 4 を提示する.

症例 4. 43 歳, 女性.

初診日: 平成 4 年 11 月 26 日.

主訴: 前頸部腫瘍.

既往歴: 特記すべき事なし.

家族歴: 特記すべき事なし.

現病歴: 初診の 1 カ月前, 肩こりが強く某整形外科を受診した. その際, 頸部の MRI 検査で偶然前頸部腫瘍を発見され, 精査と加療を目的として当科を紹介された.

入院時所見: 体格, 栄養は中等度で, 全身所見には特記すべき事はなかった. 局所所見は甲状腺左葉下極付近に, 直径約 30 mm 大の表面平滑で軟らかい境界不明瞭な腫瘍を触知した. 圧痛はなく, 咽喉頭にも異常はなかった.

頸部 CR 撮影所見: 気管が腫瘍に一致してやや右方に圧排されている以外, 特別な所見は認められなかった.

超音波検査所見: 甲状腺左葉下極に, 直径 34 mm 大の嚢胞状の腫瘍を認めた. なお, その腫瘍が甲状腺内に存在するのかどうかは判別できなかった.

MRI 検査所見: 水平断では超音波検査所見と同様, 約 35 mm 大の嚢胞状の腫瘍を甲状腺左葉下極に認めた. 腫瘍は T1 強調画像では低

信号, T2 強調画像では高信号を示した. 冠状断では, 腫瘍は甲状腺左葉下極に接して存在し, 甲状腺をやや右上方に圧排していた. 気管も右方に圧排され, 腫瘍下端は左鎖骨下静脈に接していた.

血液検査所見: 一般血液検査, 血清検査, 甲状腺機能検査はすべて正常であった. 血清カルシウム値は 8.8 mg/dl (正常値 8.7~10.3 mg/dl), 血清リン値は 3.2 mg/dl (正常値 2.4~4.1 mg/dl), 血清 C-PTH 値は 0.3 ng/ml (正常値 0.5 ng/ml 以下) と上皮小体機能亢進も認められなかった.

穿刺液検査所見: 腫瘍穿刺液を約 10 ml 吸引したが(図 1), 水様淡黄色で穿刺液中の C-PTH は 25.6 ng/ml 以上の高値を示した.

以上の所見より, 左下上皮小体に発生した上

図 1 腫瘍穿刺液(症例 4)
穿刺液は水様である.

表 1 症例の一覧

症例	年齢・性	主 訴	大きさ (mm)	部位	超音波	穿刺液 (PTH ng/ml)	治 療
1	79 歳・男	前頸部腫瘍	42×30	左下	嚢胞型	水様透明 (25.6 ↑)	穿刺吸引
2	54 歳・女	前頸部腫瘍	77×57	左下	嚢胞型	水様淡黄色 (25.6 ↑)	摘 出
3	41 歳・女	前頸部腫瘍	60×60	左下	嚢胞型	水様透明 (25.6 ↑)	摘 出
4	43 歳・女	前頸部腫瘍	37×37	左下	嚢胞型	水様淡黄色 (25.6 ↑)	摘 出

皮小体嚢胞と診断した。

手術所見：平成5年1月12日，全身麻酔下に上皮小体嚢胞摘出術を行った．甲状腺手術に準じ前頸部皮膚に弧状切開を加え，前頸筋群を白線上で左右に剝離し甲状腺を露出した．腫瘍は甲状腺左葉下極に接して存在し，周囲組織との癒着はほとんどなく，ほぼ用手剝離のみで簡単に摘出できた．甲状腺との連絡がなかったため腫瘍のみを摘出し，左反回神経も温存した．

摘出した腫瘍は $37 \times 27 \times 27$ mm で，被膜は薄く内容が透視できた(図2)．腫瘍内容液は術前の穿刺液と同様で，水様淡黄色であった．

図2 摘出標本(症例4)
被膜は薄く内容が透視できる。

図3 病理組織学的所見(症例4)
嚢胞壁の一部に上皮小体組織を認める。

病理組織学的所見(図3)：腫瘍内腔は1層の立方上皮で被われ，嚢胞壁の一部に上皮小体組織を認めたため，上皮小体嚢胞と診断した。

考 案

上皮小体嚢胞のまとまった報告としては，欧米では Rosenberg ら¹⁾ が113例，本邦では石田ら²⁾ が46例の報告をしている．いずれの報告も自験例を含めた，過去の報告症例を集計したもので，上皮小体嚢胞は稀な疾患と考えられる．ちなみに，当科で1981年から1992年の12年間に扱った甲状腺・上皮小体腫瘍の新鮮手術症例は433例で，上皮小体嚢胞の頻度は0.9%であった．

上皮小体嚢胞は上皮小体機能が正常である非機能性嚢胞と，機能亢進を伴う機能性嚢胞に大別される．両者は臨床上の特徴と成因に違いがあり，一般的には非機能性嚢胞のみを上皮小体嚢胞として扱う傾向にある³⁾．今回報告した症例はいずれも非機能性嚢胞である．

石田ら²⁾ が1983年に本邦での過去報告例を46例集計している．それ以降で1992年までに我々が渉猟し得た症例は28例^{4)~13)} で，自験例4例を加えると78例になる．その78例の要約を表2に示す．年齢は20~82歳で，平均年齢は45歳である．男女比は1:4.5と女性に好発する．自験例の治療時年齢は41~79歳で，平均年齢は54.2歳であった．男女比も1:3と女性に多く，やはり中年女性に好発する傾向を認めた．

臨床症状は無症候性の頸部腫瘍がほとんどであるが，時に嗄声や気管・食道の圧迫症状を訴える事もある．自験例では2例は頸椎疾患の精

表2 本邦報告例の要約

年 齢(n=61)：	平均45±13歳(20~82歳)
性 別(n=72)：	男性13例 女性59例 (性比1:4.5)
主 訴(n=60)：	頸部腫瘍58例 嗄声1例 異常感1例
部 位(n=71)：	左下50例 右下14例 右上2例 縦隔5例
大きさ(n=51)：	平均44±19 mm (13~100 mm)

(1992年, n=78)

査のため行った MRI 検査で偶然発見され、2 例は自分で頸部腫瘤に気づいているが、臨床症状としてはいずれも無症候性の腫瘤であった。腫瘤は比較的大きなものが多く、通常表面平滑で柔らかく、時に波動を有する。圧痛などではなく嚥下運動で共動し、下上皮小体部に好発する。そのため、触診のみでは甲状腺腫瘍と区別がつかない。しかし、本症の疑いさえ持てば、後述するようにその診断は比較的容易である。

臨床検査では、甲状腺機能も上皮小体機能も正常である。甲状腺シンチグラムで甲状腺の辺縁部に欠損像を認める事もあるが、これは腫瘤による甲状腺の圧排を反映している¹⁴⁾。超音波検査では、完全に内部エコーを欠く嚢胞様の所見を得る。穿刺吸引細胞診で水様透明な穿刺液が得られれば、本症の疑いは濃厚である。さらに、穿刺液中の PTH が高値を示せば、ほぼ本症と診断して良い¹⁾²⁹⁾。しかし、穿刺液中の PTH 測定には若干の注意を要する。Silverman ら¹⁵⁾は本症の 3 例で、穿刺液中の C-PTH と N-PTH を同時に測定している。その結果 C-PTH は 3 例とも高値を示したが、N-PTH は 1 例は軽度上昇、2 例は正常域であった。このことから穿刺液中の PTH 測定には、C-PTH の測定が有用で N-PTH の測定は診断的価値がほとんどないと結論している。自験例については、全例水様の穿刺液を吸引した。また、穿刺液中の PTH 測定は C-PTH のみ行ったが、全例高値を示した。

Maxwell ら¹⁶⁾は本症の病理組織診断基準として、①嚢胞壁内に定型的な上皮小体組織が存在する、②嚢胞内面は立方または円柱上皮に被われている、③嚢胞は本来の上皮小体が存在する範囲内にある、の 3 点を挙げている。手術を行った 3 例の自験例では、いずれの症例も上記の②と③の診断基準は満たしているが、①については問題がある。すなわち、今回症例提示をした 1 例のみに嚢胞壁内に上皮小体組織を認めたが、他の 2 例では上皮小体組織を認めなかった。その理由として、1 剖面しか病理標本を作

成しなかった事が考えられる。当然、本症の病理組織学的診断をする上で、発生母地である上皮小体組織の存在が必須である。しかし、摘出標本全体に上皮小体組織が存在するとは考えにくい。そのため本症と考えられる症例では、数カ所の剖面で病理標本を作成する必要があると思われる。

本症の発生機序として、①上皮小体微小嚢胞が癒合して大きくなる、②上皮小体ホルモンの貯留嚢胞、③上皮小体腺腫の嚢胞変性による、④頸部の胎生期遺残物(第三、IV 鰓嚢)からの発生などが考えられている¹⁷⁾。機能性嚢胞の成因については、③の機序で病態を含めうまく説明できる。一方、非機能性嚢胞の成因については、最近では④の説が有力である。すなわち、胎児上皮小体に存在する腺様構造物である Kursteiner 管が出生後も消失せず、それが嚢胞化するとの考えである¹⁷⁾。下上皮小体は胸腺と共に第 3 鰓嚢より下降し、Kursteiner 管は下上皮小体に多く認められる。この所見は、本症の大部分が下上皮小体に発生する事実とよく一致する。また、本症が時に縦隔内に発生し、嚢胞周辺に胸腺組織が存在する事もうまく説明できる。さらに、嚢胞の電顕的観察所見からも、本症の発生母地が Kursteiner 管由来と考えられている²⁾¹⁷⁾。自験例では発生に関する特別な検索は行っていないが、いずれも左下上皮小体に嚢胞を認めた事から、やはり下上皮小体組織もしくはその発生に関連した組織から本症が発生すると考えて間違いのないようである。

本症の治療法には、手術的治療と保存的治療がある。手術的治療は根治的な治療法で、従来から行われている。しかし、術瘢痕や反回神経麻痺などの問題がある。一方、保存的治療には腫瘤内容液の穿刺吸引⁹⁾と穿刺吸引後にテトラサイクリンやエタノールを注入する硬化療法がある⁴⁾¹¹⁾¹⁸⁾。穿刺吸引のみより、硬化療法の方が効果的のようである。しかし、保存療法では長期観察すると再発する症例もある⁹⁾。本症は超音波検査、穿刺吸引細胞診、穿刺内容液の

PTH 測定などで術前診断が可能で、しかも良性疾患である。さらに女性に多発する事から、治療に際しては美容的な事も考慮しなければならない。そのため、まず保存的治療を行い、保存的治療で再発を繰り返す様な症例に手術的治療の適応があると思われる。自験例では1例は保存的治療、3例は手術的治療を行った。手術的治療を行った3例は、1例は穿刺吸引で短期間に再発したため、2例は本人の希望で手術を行った。

まとめ

上皮小体嚢胞について、自験例4症例を提示すると共に文献的に考察し、以下の知見を得た。

1. 中年女性に好発する。
2. 左下上皮小体に好発する。
3. 穿刺液が水様透明で PTH が高値を示せば、本症と診断できる。
4. 病理組織学的に本症の診断を行う場合、2 割面以上の標本の作成が望ましい。
5. 胎生期遺残物 (Kursteiner 管) が発生母地と考えられている。
6. 治療はまず保存的治療を行い、手術適応は慎重に行う必要がある。

本論文の要旨は、第55回耳鼻咽喉科臨床学会(平成5年7月、横浜市)において口述した。

文 献

- 1) Rosenberg J, Orlando R, Ludwig M, et al : Parathyroid cysts. *Am J Surg* **143** : 473~480, 1982.
- 2) 石田常博, 細野 治, 井上一英, 他 : 非機能性上皮小体嚢腫の4治験例 一症例報告と文献的集計例の検討一. *ホルモンと臨* **31** : 861~867, 1983.
- 3) 藤本吉秀, 岡 厚, 福光正行, 他 : 上皮小体嚢腫 一狭義の嚢腫と機能性腺腫の嚢胞化したもの, それぞれの発生と病態について一. *日外会誌* **77** : 900~908, 1976.
- 4) Takeichi N, Dohi K, Matsumoto H, et al : A parathyroid cyst effectively treated with a sclerosing agent. *Jpn J Surg* **15** : 405~407, 1985.
- 5) 松本幸子, 田伏洋治, 中井健裕, 他 : 上皮小体嚢胞の3例. *日臨外会誌* **47** : 894~897, 1986.
- 6) 榎山安弘, 八尾和雄, 高橋廣臣, 他 : 上皮小体のう腫症例の検討. *耳鼻臨床* **79** : 1297~1304, 1986.
- 7) 鈴木光也, 鳥山寧二 : 副甲状腺嚢胞の1症例. *耳喉* **59** : 671~675, 1987.
- 8) 高橋国広, 飯塚桂司, 広瀬正雄, 他 : 上皮小体嚢腫の1例. *耳喉* **59** : 421~425, 1987.
- 9) Kodama T, Obara T, Fujimoto Y, et al : Eleven cases of nonfunctioning parathyroid cyst; significance of needle aspiration in diagnosis and management. *Endocrinol Jpn* **34** : 769~777, 1987.
- 10) 須見高尚, 露口 勝, 大下和司, 他 : 上皮小体嚢腫の2症例. *外科診療* **29** : 213~216, 1987.
- 11) 岡村 建, 佐藤 薫, 池之上公, 他 : 非機能性上皮小体嚢胞における Sclerotherapy. *臨と研* **67** : 1135~1140, 1990.
- 12) 稲垣朝子, 岩瀬克己, 大谷 享, 他 : 非機能性上皮小体嚢胞の2例. *外科診療* **33** : 1545~1549, 1991.
- 13) 東 雄三, 藤本泰久, 柳川憲一, 他 : 上皮小体嚢腫4例の臨床的検討 一とくにその発生について一. *内分泌外科* **8** : 433~437, 1991.
- 14) Harada T, Shimaoka K, Okamura Y, et al : Nonfunctioning cystic disease of the parathyroid. *Clin Nucl Med* **12** : 929~934, 1987.
- 15) Silverman JF, Khazanie PG, Norris T, et al : Parathyroid hormone (PTH) assay of parathyroid cysts examined by fine - needle aspiration biopsy. *Am J Clin Pathol* **186** : 776~780, 1986.
- 16) Maxwell DB, Horn RC and Rhoads JR : Cysts of the parathyroid; report of three cases clinically simulating nodular goiter. *Arch Surg* **64** : 208~213, 1952.
- 17) Trostr M, Chiu HF and McLarty TD : Parathyroid cysts; report of a case with ultrastructural observations. *Surgery* **83** : 238~242, 1978.
- 18) Prinz RA, Peters JR, Kane JM, et al : Needle aspiration of nonfunctioning parathyroid cysts. *Am Surg* **56** : 420~422, 1990.

(原稿受付: 平成5年8月16日

原稿採択: 平成5年9月2日

別刷請求先: 田中 治

〒634 橿原市四条町840

奈良県立医科大学耳鼻咽喉科学教室)