耳前部より副咽頭間隙へ至る鰓性瘻孔例

小形 哲也・山本 悦生・大村 正樹
佐藤 進一*・篠原 尚吾*・八木 伸也*

Branchiogenic Fistula from Preauricular Region to Parapharynx ; A Case Report

Tetsuya Ogata, Etsuo Yamamoto and Masaki Ohmura
(Kobe City General Hospital)

Nobuya Yagi, Shogo Shinohara and Shin-ichi Sato
(Kurashiki Central Hospital)

A 15-year-old girl had a branchiogenic fistula from the preauricular region to the parapharynx. Her chief complaint was pain in the right parotid region and in the pharynx. The right lateral wall of the pharynx was red and swollen. There was discharge from the ipsilateral preauricular fistula. After the location of the fistula had been verified by contrast X-ray, the fistula was extirpated. Its course was medial to the facial nerve and reached the pharyngeal constrictor muscle. The histological diagnosis was branchial cleft fistula, a subtype of the first branchial anomaly that is neither type 1 nor type 2 of Work's classification.

Key words: congenital fistula, subtype, first branchial anomalies, Work's classification

はじめに

側頸部瘻孔の多くは第2鰓裂由来のものであり、第1鰓裂由来のものは比較的稀である¹⁾。また、第1鰓裂性瘻孔であると考えられる疾患において、その存在部位が典型的でない症例も報告されている^{2)~4)}。今回我々は、扁桃周囲膿瘍で発症し、耳前部より顔面神経の内側を経て副咽頭間隙へ至るという極めて稀な経路を示した鰓性瘻孔の1例を経験したので、若干の文献的考察を加え報告する。

症 例

患者：15歳，女性。
主訴：右耳下部より咽頭にかけての疼痛，発熱。
現病歴：平成3年3月右扁桃周囲膿瘍にて倉敷中央病院耳鼻咽喉科入院。抗生剤点滴などの保存的治療を受けたが，難治のため口蓋扁桃摘出術を受けた。その後経過良好であったが，平成4年11月13日頃より右耳下部より咽頭にかけての疼痛，発熱，摂食不良が出現し，同16日同科受診した。

既往歴：8歳の時某医にて右先天性耳瘻孔を指摘され、切除を勧められたが放置。

家族歴：特記すべき事なし。

現症：局所所見として右咽頭側壁の発赤，右耳前部瘻孔よりの膿流出，右耳下部より顎下部にかけての圧痛を認めた。さらに血液検査では白血球 13000，CRP 2.4 と炎症所見が認められた。

経過：翌日入院，CTにて右副咽頭間隙に膿瘍所見を認めた(図1)ため，緊急に全麻下において頸部外切開による排膿を行なった。その際に右耳前部瘻孔より色素を注入し副咽頭間隙膿瘍の近傍へ至る瘻孔を確認したが，周囲との癒着が強く，顔面神経損傷の可能性も考慮し，消炎と精査の結果を待って根治術を行なう方針とした。ドレーンを挿入し閉創した(図2)。以後ドレーンよりの排膿は徐々に減少，血液検査の炎症所見も改善した。なお，経過中の同20日に右耳前部瘻孔より造影剤を注入して瘻孔造影を行い，右耳前部より中咽頭近傍へ達する瘻孔を確認した(図3)。瘻孔摘出術を同25日，切開排膿8日後に行なった。耳下腺手術に準じた皮切

を行ない，顔面神経を確認し，耳下腺浅葉を後方より剝離挙上した(図4)。耳前部より追跡し

図2 切開排膿術後の局所所見
耳垂前方に瘻孔開口部(矢印)を認める。

図3 瘻孔造影所見
中咽頭近傍へ達する瘻孔(矢印)が造影されている。

図1 CT像
副咽頭間隙に膿瘍像(矢印)を認める。

図4 術中所見
瘻孔を顔面神経の付近まで剝離したところ。
顔面神経本幹の後方に瘻孔開口部(矢印)がみえる。

た瘻孔は、外耳道軟骨と強い癒着を起こしていたために、軟骨の一部とともに切除した。さらに瘻孔を追跡し顔面神経の内側を走行するのを確認し、周囲から剝離し咽頭収縮筋のレベルで切断した。術野に肉眼的に瘻孔の残存は認めなかった。耳下腺浅葉を元の位置に戻し閉創した。摘出瘻孔は長さ約 65 mm であった(図5)。

病理組織検査：瘻孔は扁平上皮で構成され、その周辺にリンパ球の集簇を伴う鰓性瘻孔の所見を示した(図6)。患者は術後経過良好で、同12月6日退院した。

考 察

耳介周辺に発生する瘻孔の多くは先天性耳瘻孔であるが、先天性耳瘻孔は耳介の発生ときわめて深い関係を持つ先天性奇形である⁵⁾。その

図5 摘出瘻孔

図6 病理組織所見

瘻孔内腔は扁平な上皮で構成され、その周辺にリンパ球の集簇(矢印)を認める。

多くは浅在性で、瘻管の長さは普通1~1.5 cm 以内で最長3 cm である。外耳道やそれより深部へ伸展している瘻孔は、先天性耳瘻孔ではなく第1鰓裂性瘻孔であるとされている^{5)~7)}。

また、側頸部瘻孔および嚢胞の多くは第2鰓裂由来のものであり、第1鰓裂由来のものは比較的稀である^{1)8)~10)}。Work はそれをⅠ型とⅡ型に分類している¹¹⁾。すなわち、Ⅰ型は耳介下部より外耳道と平行して深部に向かい、側頭骨鼓室部の近くで盲端に終わっているもので、Ⅱ型は下顎骨と舌骨の間の側頸部から顔面神経近傍を経て外耳道に達するものである。しかし、第1鰓裂由来と考えられる瘻孔または嚢胞でⅠ型にもⅡ型にも分類できない症例も存在する。

Ⅰ型にもⅡ型にも分類できない症例として、例えば耳下腺内鰓性嚢胞は数多く報告されている²⁾³⁾。その他のⅠ型にもⅡ型にも分類できない症例として、耳管に沿って上咽頭に達するものも報告されている⁴⁾。

第1鰓裂は、胎児の発生初期において、第1鰓弓(下顎骨、咀嚼筋、三叉神経、耳介等の原基)と第2鰓弓(舌骨、茎状突起、顎二腹筋、顔面神経、上頸部皮膚等の原基)の間に存在する。しかし、それぞれの鰓弓が融合する過程において消失する。第1鰓裂性瘻孔はそれらの鰓弓が融合する過程において遺残することによって生じると考えられている¹⁾。すなわち、原則的には、第1鰓弓由来の器官と第2鰓弓由来の器官の間に想定される複雑な形態の面のどこにでも、遺残瘻孔または嚢腫は発生する可能性があると考えられる。Work の提唱したⅠ型、Ⅱ型はその部に瘻孔形成する頻度が高いということを示しているが、他の発生部位の存在を否定してはいない。

さて、本症例は耳前部より顔面神経の内側を経て副咽頭間隙へ至り咽頭収縮筋へ達する鰓性瘻孔であったが、同様の症例は我々の検索した範囲では見当らなかった。周囲器官との位置関係より Work のⅠ型、Ⅱ型のいずれにも該当しないが、第1鰓裂由来の瘻孔であったと考え

られ, かつ非常に稀な走行を示す鰓性瘻孔であったと考えられる。

また, 本症例は, 当初右扁桃周囲膿瘍で発症し, この時には鰓性瘻孔が原因とは考えていなかった。しかしながら, その膿瘍が難治性であった事, 以前より右先天性耳瘻孔と診断されていた右耳前部の瘻孔開口部の位置が低すぎる事などから考えると, 初回入院の際に第1鰓裂性瘻孔を鑑別診断として考えるべきであった。第1鰓裂性瘻孔を想定してさえいれば, 扁桃周囲膿瘍と耳前部の瘻孔の関連性を疑っていたのではないかと反省される。

まとめ

1) 第1鰓裂由来と考えられる, 耳前部より顔面神経の内側を経て副咽頭間隙へ至る稀な鰓性瘻孔の1例を報告した。

2) 耳介周囲の瘻孔を診断する際に, 第1鰓裂性瘻孔を鑑別診断として挙げる必要があると考えられた。

本論文の要旨は, 第55回耳鼻咽喉科臨床学会, および第114回日耳鼻兵庫県地方部会において口演した。

文 献

- 1) 相見賢治: 先天性側頸部瘻管および嚢腫に関する考察. 日耳鼻 69: 1919~1933, 1966.
- 2) Sisson GA and Summers GW: Branchiogenic cysts within the parotid gland. Arch Otolaryngol 96: 165~167, 1972.
- 3) 宇野芳史, 斉藤龍介, 松岡寿子, 他: 耳下腺内に発生した鰓性嚢胞例. 耳鼻臨床 85: 601~605, 1992.

- 4) Randall P and Royster HP: First branchial cyst anomalies; a not-so-rare and apotentially dangerous condition. Plast Reconstr Surg 31: 497~506, 1963.
- 5) 平出文久: 先天性耳瘻孔. 耳鼻咽喉科・頭頸部外科 MOOK No. 5(石井哲夫編). 22~31頁, 金原出版, 東京, 1987.
- 6) Aronsohn RS, Batsakis JG, Rice DH, et al: Anomalies of the first branchial cleft. Arch Otolaryngol 102: 737~740, 1976.
- 7) Work WP and Proctor CA: The otologist and first branchial cleft anomalies. Ann Otol Rhinol Laryngol 72: 548~562, 1963.
- 8) Takimoto T, Ito M, Furukawa M, et al: Branchial cleft (pouch) anomalies; a review of 42 cases. Auris Nasus larynx 18: 87~92, 1991.
- 9) 中島 健, 藤本誠一, 立石 晃, 他: 第1鰓裂由来と思われる鰓嚢胞の1例—成因ならびに文献的考察—. 日本口腔外科学会雑誌 37: 1480~1484, 1991.
- 10) 松山四郎, 倉繁徹昭, 黒岩 実, 他: 第一咽頭溝・咽頭嚢由来の側頸瘻—治療の特殊性—. 小児外科 21: 7; 38~43, 1989.
- 11) Work WP: Newer concepts of first branchial cleft defects. Laryngoscope 82: 1581~1593, 1972.

(原稿受付: 平成5年9月21日
原稿採択: 平成5年11月15日
別刷請求先: 小形哲也
〒650 神戸市中央区港島中町4-6
神戸市立中央市民病院耳鼻咽喉科)