耳下腺内鰓性嚢胞例

白石 浩・木村 裕毅・杉原 功一・蔦 佳明
磯野 道夫・細井 裕司・村田 清高

Branchial Cyst within the Parotid Gland ; A Case Report

Hiromu Shiraishi, Hiroki Kimura, Kouichi Sugihara, Yoshiaki Tsuta,
Michio Isono, Hiroshi Hosoi and Kiyotaka Murata
(Kinki University School of Medicine)

Branchiogenic cysts occurring within the parotid gland are rare developmental anomalies and can be preoperatively misdiagnosed as benign parotid tumors.

A 54-year-old female had a painless swelling in the right parotid region. The swelling was elastic hard, nontender, and slightly mobile. It had a smooth surface and was 33×33 mm in size. Ultrasonography, CT scan and MRI suggested a benign cystic tumor in the superficial lobe of the parotid gland. A superficial lobectomy of the parotid gland was performed, with care not to injure the facial nerve. Subsequent histopathological examination revealed a branchial cyst.

Key words : branchial cyst, parotid gland, ultrasonography, CT scan, MRI

はじめに

耳下腺内に生じる嚢胞性疾患は比較的まれであり、その多くは耳下腺腫瘍として診断される。嚢胞性疾患には、先天性疾患が含まれており、鰓性嚢胞と呼ばれている。鰓性嚢胞は側頸嚢胞とも呼ばれ、主に第2鰓溝が残存し嚢胞化したもので、側頸部に好発し、耳下腺内に発生することはまれである。今回我々は、右耳下腺内に生じた鰓性嚢胞を経験し、診断上および治療上の問題点について考察を加えたので報告する。

症 例

患者：54歳，女性。

主訴：右耳下部腫瘍。

既往歴，家族歴：特記すべき事なし。

現病歴：平成7年10月中旬頃，右耳下腺部腫瘍に気付くも疼痛その他自覚症状はないため放置していたが，周囲の人に勧められ11月14日当科外来を受診した。

初診時所見：右耳下部に，弾性硬，表面平滑で可動性がやや制限された直径33×33 mmの腫瘍を触知した。疼痛，圧痛はなく，顔面神経麻痺や頸部リンパ節腫脹も認められなかった。

血液所見：血液検査ではコレステロール値の軽度上昇を認めたが，その他の異常は認められなかった。

画像所見：超音波所見では，右耳下腺内に下顎角より約1横指上に嚢胞性疾患と思われる直径24×20 mmの境界明瞭で内部均一な円形の腫瘍を認めた(図1)。CT所見では，右耳下腺内に直径2 cm 強の辺縁整な腫瘍性病変が認められた(図2)。MRIでは，右耳下腺内にT1強調像で低信号，T2強調像で高信号の辺縁整，内部均一の腫瘍性病変が認められた(図3，4)。^{99m}Tc シンチでは，左耳下腺に比して右耳下腺への集積が不均一であり，Ga シンチでは，同部位に集積を認めなかった。以上より右耳下腺内に生じた良性嚢胞性腫瘍を疑い，平成8年2月5日全身麻酔下に右耳下腺浅葉摘出術を施行し

図1 超音波断層像
境界明瞭で内部均一な嚢胞性所見を呈する。

た。

手術所見：S字状皮膚切開を加え耳下腺被膜を露出，耳下腺後下縁で顔面神経の本幹を求め，末梢へ追いつつ浅葉の剥離を進めると，腫瘍は顔面神経の枝である頬骨枝と頬枝との間に陥入するように存在し，腫瘍の深部は神経と接していた．顔面神経を損傷しないよう慎重に剥離し，腫瘍を浅葉組織と共に一塊として摘出した．摘出した腫瘍は28×20 mmの嚢胞性腫瘍で，周囲との癒着はなく，弾力のある壁を有し，割を入れると内腔は平滑で淡血性の液体を有していた(図5)．胸鎖乳突筋を一部上部有茎にして顔面神経の上を被覆して死腔を補い，ドレーンを留置し手術を終了した．

病理学的所見：唾液腺組織内に嚢胞性腫瘍が観察され，その壁は線維結合織よりなり，内面は胚中心を伴う豊富

図2 CT像
右耳下腺内に辺縁整な腫瘍性病変を認める(矢印)。

図3 MRI像(T1強調像)
低信号に描出された腫瘍陰影。

なリンパ組織を有していた．表層の上皮は多くが失われているが，一部で多列円柱上皮が観察された(図6)．以上の所見より鯉性嚢胞と診断された．

図4 MRI像(T2強調像)
高信号に描出された腫瘍陰影。

図6 病理組織像
結合組織の壁の内面には胚中心を伴う豊富なリンパ組織を有し、表層の上皮に多列円柱上皮が認められる。

図5 摘出標本
弾力のある壁を有し、内腔は平滑で淡血性状の液体を認める。

術後、顔面神経麻痺は認められず経過は良好である。

考 察

耳下腺に生じる嚢胞性疾患は比較的多くあり、貯留

嚢胞、皮様嚢胞、鰓性嚢胞などが報告されているにすぎない^{1)~3)}。また、耳下腺腫瘍の中には、嚢胞性変化を呈するものもある。耳下腺内に生じる鰓性嚢胞は Hildebrand⁴⁾ が1895年に最初に報告して以来、Lathrop⁵⁾ の耳下腺良性腫瘍243例中3例(1.2%)、Eneroth¹⁾ の耳下腺腫瘍864例中5例(0.6%)、金子ら³⁾ の耳下腺腫瘍340例中1例(0.3%)、Richardson ら²⁾ の耳下腺摘出術708例中16例(2.3%)、田中ら⁶⁾ の耳下腺腫瘍103例中3例(2.9%)、Scott⁷⁾ の耳下腺浅葉摘出術133例中5例(3.8%)、岩井ら⁸⁾ の耳下腺腫瘍392例中9例(2.3%)などの報告があり、比較的多い疾患であると考えられる。

1) 成因について：

現在もお議論があるが、胎生期の鰓溝性組織の遺残から生じるという説が有力^{9)~12)}である。竹生田⁹⁾は、第1鰓溝より生じるものと第2鰓溝より生じるものの2つに分類した。第1鰓溝性は耳前部に発生し、瘻孔を外耳道に形成するなど外耳道と密接な関係を有する。粥状内容物を有し、嚢胞壁は重層扁平上皮によって覆われている。上皮下にリンパ組織は存在するが豊富ではない。第2鰓溝性は耳下腺の下極に生じ、内容物は淡黄色漿液性または粘性の液体で、内腔の上皮は一層または重層扁平上皮、立方上皮、線毛円柱上皮など多彩である。内腔下のリンパ組織は豊富で胚中心を形成しているとされる。本症例の場合、部位的には耳下腺下極ではなかったが、病理組織学的には上皮は多列円柱上皮であり、内容物は淡血性状の液体で、上皮下には胚中心を伴う豊富なリン

ば組織を有していたため、竹生田の分類に従うと第2 鰓溝性嚢胞と考えられる。

2) 診 断:

術前に鰓性嚢胞と診断できる可能性は低い。なぜならば、耳下腺実質内に生じる嚢胞性疾患は固い腫瘤として触れ、混合性腫瘍との鑑別は困難であるため⁹⁾である。しかし、皮膚面に瘻管が開口していれば、診断に役立つこともある。第1 鰓溝性嚢胞ならば耳前部の膿瘍切開の既往、外耳道への瘻孔形成などが診断に役立つが、第2 鰓溝性嚢胞は瘻管を欠くことが多いため診断に役立たない。

超音波検査やMRIは嚢胞性疾患に対する診断率は高く、嚢胞内腔の情報をよく把握できる。しかし、内容物が非漿液性であれば嚢胞は充実性として描出されるが、嚢胞性疾患の内容物は漿液性から粥状、粘土状を呈し、感染があれば膿状と多様であることから、互いの鑑別は困難であるとされている⁸⁾。今回の報告例でも画像上は典型的な嚢胞性所見を示しているが、質的診断までは無理であり、画像所見のみによる確定診断は困難であると考ええる。

3) 瘻管の確認について:

我々の検索した限りでは皮膚面に瘻孔のある場合を除いて術中に瘻管を確認したと記述された報告はなかった。今回の症例も瘻管は確認されていない。第2 鰓溝における瘻管の多くは頸部下方の胸鎖乳突筋の前縁に当たる皮膚開口部に始まり、広頸筋を貫通し胸鎖乳突筋の前縁に沿って上行し、舌骨大角部で内方に向かい、内外頸動脈の間を通り斜上方に向かい、顎2 腹筋の下方で中咽頭方向に屈曲し茎状舌骨筋と交叉し、口蓋扁桃上窩付近に開口すると言われており¹³⁾、術前に耳下腺部に嚢胞性疾患を認めた場合、咽頭の丹念な観察も必要である。しかし、実際には咽頭への開口を確認できることは少ない。

4) 治療法について:

本疾患のような良性腫瘍の場合、手術をする必要があるのかどうか、手術をすればどの程度切除するのかが問題となる。我々は耳下腺腫瘍であれば、原則的に摘出し病理組織診断を行うことが重要であると考えている。切除範囲に関しては議論が多い。良性疾患であっても、再発、悪性化するかどうかということが切除範囲に対する考え方と大きく関係する。耳下腺腫瘤を形成する疾患の治療は、手術による摘出が必要で、しかも正常耳下腺組織を一部合併切除することが一般的である。岩井

ら⁸⁾によれば、鑑別診断の不完全な現段階では、単純性嚢胞性疾患が疑われても、腫瘍である可能性を考え、核出術の施行は慎重であるべきであり、腫瘤に耳下腺正常組織をつけた耳下腺部分切除術を選択することが望ましいとしている。宇野ら¹⁴⁾によれば、嚢胞被膜に顔面神経を巻き込んでいるものや、顔面神経麻痺を伴っているものもあり、顔面神経との関係に十分注意を払う必要があるため、その摘出方法は、通常の耳下腺腫瘍摘出術と同様に顔面神経を明視下に置きながら正常の耳下腺組織を含めて摘出するのがよいとしている。Leonaldら¹⁵⁾は顔面神経の奇形例を報告しており、顔面神経の取り扱いには十分に注意する必要がある。また、このような嚢胞性疾患の場合、再発という問題を考慮しなければならないが、我々の渉猟し得た範囲では再発に関する記載は認められなかった。

5) 癌化について:

本疾患の癌化に関していくつかの報告がある^{16)~19)}。相見¹³⁾によれば、頸部の癌には、口腔、咽頭、喉頭の原因癌からの転移が大部分であり、この中には原発癌の発見の困難なものもあり、鰓性癌と診断されたものの中には、転移癌が含まれていることに注意する必要があるとしている。また、Martinら²⁰⁾によれば、鰓性嚢胞の癌性変化を確定するためには、a)鰓性嚢胞が存在し、その一部に癌性変化の認められるもの、b)腫瘍摘出後5年以上経過しても他の部位に原発癌が確認できない場合とし、その条件下において検討した結果、今までに鰓性癌として報告された250例の中で、鰓性嚢胞の癌性変化と確認されたものは3例のみであったとしている。しかし、蓑島ら¹⁸⁾によれば、本邦で報告された鰓性癌症例42例のうち、嚢胞壁の確認された例が12例あったと報告しており、症例数にばらつきが見られている。今後、さらに検討を要する問題であるが、本疾患においても癌化および転移癌の可能性があるため、我々は核出術ではなく正常組織を含めた耳下腺葉部分切除術あるいは葉全摘術が良いのではないかと考える。

本論文の要旨は、第58回耳鼻咽喉科臨床学会、および第257回日耳鼻大阪府地方部会において発表した。

参考文献

- 1) Eneroth CM : Histological and clinical aspects of parotid tumors. Acta Otolaryngol Suppl (Stockh) 191 : 1~99, 1964.

- 2) Richardson GS, Clairmont AA and Erickson ER : Cystic lesions of the parotid gland. *Plast Reconstr Surg* **61** : 364~370, 1978.
- 3) 金子敏郎, 石川 哮, 内藤準哉, 他 : 口腔および唾液腺良性腫瘍. *耳喉* **49** : 849~855, 1977.
- 4) Hidebrand O : Ueber angeborene epitheliale Cysten und Fisteln des Halses. *Arch Klin Chir* **49** : 167~197, 1895.
- 5) Lathrop FD : Benign tumors of the parotid gland ; a twenty-five year review. *Laryngoscope* **72** : 992~1006, 1962.
- 6) 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.
- 7) Scott R : Branchial cysts in the parotid gland. *JR Coll Surg Edinb* **32** : 336~338, 1987.
- 8) 岩井 大, 山下敏夫, 友田幸一, 他 : 耳下腺鰓原性嚢胞 9 例の検討. *耳鼻臨床* **86** : 367~372, 1993.
- 9) 竹生田勝次 : 耳下腺嚢胞. *JOHNS* **5** : 699~704, 1989.
- 10) 山下佐英, 伊東隆利, 堂原義美, 他 : 耳下腺部に発生した Branchial cyst の 1 例. *口科誌* **22** : 608~614, 1973.
- 11) 星野知之, 白石輝男, 石田正人, 他 : 耳下腺部嚢胞 3 例. *耳喉* **53** : 603~608, 1981.
- 12) 内田 實, 里村廣司, 和多田等, 他 : 両側耳下腺内第 1 鰓溝嚢胞の 1 症例. *耳喉* **59** : 699~703, 1987.
- 13) 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.
- 14) 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.
- 15) Leonald JR, Maran AG and Huffman WC : Branchial cleft cysts in the parotid gland ; facial nerve anomaly. *Plast Reconstr Surg* **41** : 493~496, 1968.
- 16) von Volkman R : Das Tiefe Branchiogenen Haslcarcinom. *Zbl Chir* **9** : 49, 1882.
- 17) Collins NP and Edgerton MT : Primary branchiogenic carcinoma. *Cancer* **12** : 235, 1959.
- 18) 養島一郎, 篠田昭男, 山口寿夫, 他 : 鰓性癌の 4 剖検例. *癌の臨床* **8** : 137, 1962.
- 19) 東瀬浩三, 恩地浩二, 金子 実, 他 : 甲状腺類似の組織像を呈した先天性側頸部嚢腫症例. *耳鼻臨床* **56** : 511, 1963.
- 20) Martin H, Morfit HM and Ehrlich H : The case for branchiogenic cancer (malignant branchioma). *Ann Surg* **132** : 867, 1950.

(原稿受付 : 平成 8 年 8 月 9 日
原稿採択 : 平成 8 年 10 月 2 日
別刷請求先 : 白石 浩
〒589 大阪狭山市大野東 377-2
近畿大学医学部耳鼻咽喉科学教室)