第2鰓裂性側頸瘻の2症例

櫻井 弘徳¹⁾・花田 誠²⁾・北嶋 和智²⁾・村田 忠行³⁾

Lateral Cervical Fistulae Originating from the Second Branchial Cleft ; A Report of Two Cases

Hironori Sakurai

(Kouga Public Hospital)

Makoto Hanada and Kazutomo Kitajima

(Shiga University of Medical Science)

Tadayuki Murata

(Hikone City Hospital)

Two cases with lateral cervical fistulae originating from the second branchial cleft are reported. Case 1, a 19-year-old female, presented with a complete fistula. Case 2, a 14-year-old male, showed an incomplete fistula. Both cases were treated by a total excision of the fistula under general anesthesia. We also discuss the embryological characteristics of the fistulae originating from the second branchial cleft on the basis of our histopathological observations.

Key words : lateral cervical fistula, second branchial cleft, complete fistula, embryological characteristics

はじめに

側頸嚢胞・瘻は胎生期における鰓性器官の遺残により生ずる先天奇形であり、比較的取り扱うことの多い先天性頸部疾患である。

今回我々は先天性側頸瘻の2症例を経験したので、その特徴について若干の文献的考察を加え報告する。

症 例

症例1 : 17歳, 女性。

主訴 : 右前頸部瘻孔からの膿汁分泌。

家族歴・既往歴 : 特記すべきものなし。

現病歴 : 幼少時より右前頸部瘻孔から膿汁分泌を反復していたが放置していた。最近になり増悪傾向を認めた

ため近医受診したところ、右側頸瘻と診断され平成6年2月24日当科を紹介受診した。

初診時所見 : 視・触診上耳鼻咽喉頭に異常所見はなかったが、右鎖骨上約3 cm, 胸鎖乳突筋前縁に膿汁分泌を伴う瘻孔を認めた(図1)。

検査所見 : 血液学的検査および生化学的検査所見に異常は認められなかった。ガストログラフンによる瘻孔造影検査では右前頸部より右扁桃窩まで続く完全瘻が認められた(図2)。

手術時所見 : 平成6年8月29日入院の上、経鼻挿管による全身麻酔下に瘻管摘出術を施行した。瘻孔開口部および頸下部に水平切開を加えた(階段状切開)(図3)。手術開始時にピオクタニンを外瘻孔より注入し、右扁桃窩

1) 公立甲賀病院耳鼻咽喉科

2) 滋賀医科大学耳鼻咽喉科学教室

3) 彦根市立病院耳鼻咽喉科

図1 症例1の頸部所見
右前頸部に瘻孔を認める(矢印).

図3 症例1の皮膚切開

下部にピオクタニンにて着色した針穴ほどの内瘻孔とピオクタニンの流出を確認した。瘻管は頸部皮膚から広頸筋下へ突き抜け、胸鎖乳突筋前縁を上方へ走行し、舌骨の高さで内側へ向かい、舌下神経の外側から頸動脈分岐の間を通り、顎二腹筋の内側に入り込んで扁桃窩へ達していた(図4)。口腔内より内瘻孔を用手的に押し出した後、瘻管を粘膜下にて結紮し一塊にして摘出した。瘻管

の周囲との癒着はなく、摘出物は全長約7.5 cmであった(図5)。

病理組織学的所見：瘻孔内腔は外瘻孔側および内瘻孔側共に多列線毛上皮で構成され、軽度の炎症細胞の浸潤が認められた(図6)。

以上より第2鰓裂性完全瘻と診断された。

術後経過は良好で術後2年経た現在も再発の徴候は認

図2 症例1の瘻孔造影
右前頸部より右扁桃窩まで続く完全瘻が造影されている。

図4 症例1の手術所見の模式図

めていない。

症例2：14歳，男性。

主訴：左前頸部瘻孔からの膿様分泌物の流出。

家族歴・既往歴：特記すべきものなし。

図5 症例1の摘出物

現病歴：4歳頃より頸部瘻孔からの分泌物を自覚していたが，最近増悪してきたため近医受診し，側頸瘻と診断され平成6年8月24日当科を紹介受診した。

初診時所見：視・触診上耳鼻咽喉頭に異常所見はなかったが，左鎖骨上約3cm，左胸鎖乳突筋前縁に瘻孔を認めた(図7)。

検査所見：ガストログラフィンによる瘻孔造影検査で

図6 症例1の病理組織(HE染色 ×200)

左：外瘻孔側，右：内瘻孔側

共に内腔には多列線毛上皮を認める。

図7 症例2の頸部所見
左前頸部に瘻孔を認める(矢印).

は外瘻孔から第3頸椎の高さまで達する不完全瘻が認められた(図8).

頸部のCT, MRI 検査を施行したが有意な所見は得られなかった.

手術時所見:平成6年12月26日入院の上, 経鼻挿管による全身麻酔下にて症例1と同様の切開により瘻管摘出術を施行した. 瘻管は周囲組織と軽度の癒着を持ち, 走行は症例1と同様であったが, 外瘻孔より約5 cm, 舌骨よりやや下のレベルで盲管となり, その後扁桃窩まで索状物が続いていた. 瘻管および索状物は左扁桃窩にもっとも近いところで結紮切離し, 一塊にして摘出した(図9).

図8 症例2の瘻孔造影
瘻は盲端となっている(矢印).

図9 症例2の摘出物
口腔側は索状になっている(矢印).

病理組織学的所見:瘻管の内腔は外瘻孔側は重層扁平上皮, 盲管側は線毛上皮で構成され, 炎症細胞の浸潤が認められた(図10).

以上より左第2鰓裂性不完全外瘻と診断された.

術後経過は良好で1年半経た現在も再発の徴候は認めていない.

考 察

ヒトの鰓性器官は顔面と頸部を形成する原基であり, 胎生2週から7週にかけて発生し分化する. これは, 外胚葉面の4つの鰓溝とそれぞれに対応した内胚葉面の4つの鰓嚢, およびこれらにより分けられた中胚葉性の実質的構造である5つの鰓弓とから成る. 鰓溝と鰓嚢が接して一時的な中胚葉の形成がない部分を鰓膜, 1組の鰓溝と鰓嚢を鰓裂と呼び, これらには頭側から尾側への順に番号が付けられている¹⁾²⁾.

発生学的に, 外胚葉面では, 第1鰓溝から外耳道が形成され, 第2・3・4鰓溝は頸部の皮膚に覆われることになり, 内胚葉面では, 第1鰓嚢から中耳腔・耳管が, 第2鰓嚢から口蓋扁桃・扁桃窩・第3鰓嚢から梨状窩前上部, そして第4鰓嚢から梨状窩後下部・上部食道が形成されるとされている³⁾.

今回提示した症例はその走行および開口部の位置から第2鰓裂性と診断し, 症例1は内瘻孔を扁桃窩, 外瘻孔を側頸部に持つ完全瘻で, 症例2は内瘻孔を持たず, 外瘻孔を側頸部に持つ不完全外瘻であった.

第2鰓裂由来が鰓性奇形の大部分を占めるが, その約

図10 症例2の病理組織(HE染色 ×200)

内腔は外瘻孔側(左)で重層扁平上皮, 盲管部側(右)で線毛上皮を認めた.

80%が不完全外瘻であり³⁾, 症例1の完全瘻については比較的まれな症例であったことが分かる.

鰓裂性の完全瘻が他の鰓裂より第2鰓裂に多い理由を考えると, 過去の観察で第2鰓溝は深く, その形成期間が長いこと, さらに鰓膜の形成頻度が高いことなどが認められており, 鰓膜の貫通の可能性も他の鰓膜より高いと想像され^{4)~6)}, そのような条件の複合によるものと考えられる. また, 不完全外瘻が不完全内瘻に比べて多いことも理解し得る.

病理組織学的に瘻管の内壁を被う上皮は重層扁平上皮なら外胚葉の鰓溝由来, 線毛・円柱上皮なら内胚葉の鰓嚢由来とされている³⁾⁵⁾. ただ鰓嚢由来でも, 上皮が中・下咽頭粘膜と同様に分化し, 重層扁平上皮を呈することがあるという報告もある⁷⁾.

完全瘻である症例1において摘出した瘻管の内皮は, 咽頭側・頸部皮膚側のいずれも多列線毛上皮であった. 過去に報告のあった第2鰓裂性の完全瘻で瘻管内皮の組織学的所見の記述があるものの一部を見てみると(表1)^{8)~13)}, 線毛上皮・円柱上皮などの鰓嚢由来の上皮が中心となっている. Neelら¹⁴⁾は, 瘻管内皮の92%は重層扁平上皮, 6%円柱上皮, そして2%は両者の混合と報告している. 入学ら¹⁵⁾は, 外瘻孔付近は混合の上

表1 第2鰓裂性完全瘻の報告例

報告者	年齢	性別	患側	内腔上皮
Howieら ⁸⁾ (1982)	12	女	左	線毛上皮
	30	女	右	線毛上皮
	47	女	右	線毛上皮
松井ら ⁹⁾ (1985)	15	男	右	線毛上皮
金田ら ¹⁰⁾ (1990)	14	男	不明	扁平上皮, 円柱上皮
横森ら ¹¹⁾ (1989)	4	男	右	扁平上皮, 線毛上皮
Zafarら ¹²⁾ (1990)	15	女	右	円柱上皮
田中ら ¹³⁾ (1993)	14	男	左	扁平上皮, 円柱上皮
自験例 (1994)	17	女	右	線毛上皮

皮, 中央付近は大部分扁平上皮で, 一部は円柱上皮である症例を報告しているが, 結合組織にリンパ球の浸潤が強いことから炎症により円柱上皮が重層扁平化したのではないかと推測している. 不完全瘻でも線毛上皮・円柱上皮の占める例もあり¹⁶⁾, 実際は線毛上皮・円柱上皮もしくは両者混在の占める割合がもっと大きく, 発生の段階で, 鰓裂から完全瘻が形成される場合, 鰓嚢の方が鰓

溝よりも優位に進展し易いのではないかと推察される。

治療については、瘻管の完全摘出が原則とされているが、特に症例1のように完全瘻の場合、咽頭側の処理が問題になってくるため、階段状切開によるアプローチが必要である。瘻管の咽頭側は、上咽頭収縮筋に近接した部位で結紮切離するのが従来の方法である。瘻管の咽頭側断端を口腔側へ反転重積させ結紮切離する方法などが報告されているが、神経や血管の損傷を招く恐れがある点などからこの方法を積極的に用いるという報告は少ない¹⁷⁾。症例2は不完全外瘻ではあったが、盲管となっている部位より頭側に索状物が扁桃窩外側に接するところまで存在したので、再発の危険性を減少させるためにも完全瘻に準じたアプローチで完全摘出を施行した。

ま と め

1) 第2鰓裂性側頸瘻のうち完全瘻1例、不完全外瘻1例を報告した。

2) 第2鰓裂性側頸瘻について文献的に考察し、完全瘻は発生学的および組織学的見地から鰓嚢優位に形成される可能性が示唆された。

3) 完全瘻、不完全瘻共に完全摘出が必要であり、階段状切開によるアプローチが最適の方法であると思われる。

本論文の要旨は、第59回日本耳鼻咽喉科学会京滋合同地方部会(平成6年12月、京都市)および、第5回日本頭頸部外科学会総会(平成7年1月、東京都)において口演した。

参考文献

- 1) 世良好史：先天性頸部嚢腫ならびに瘻管。小児外科・内科 **8** : 7~13, 1976.
- 2) Simpson RA : Lateral cervical cysts and fistulas. Laryngoscope **78** : 30~59, 1968.
- 3) 田中幹夫：側頸瘻。JOHNS **7** : 757~763, 1991.
- 4) Hollinshead WH : Branchial cysts and fistulas. The Head and Neck, vol 1. pp 522~526, Harper & Row, Philadelphia, 1982.
- 5) 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.
- 6) Maran AGD and Buchanan DR : Branchial cysts, sinuses and fistulae. Clin Otolaryngol **3** : 77~92, 1978.
- 7) 原普二夫, 佐々木信義, 小林俊三, 他：先天性頸部瘻孔症例の臨床的検討。日臨外医会誌 **53** : 498~503, 1992.
- 8) Howie AJ and Proops DW : The definition of cysts, sinuses and fistulas. Clin Otolaryngol **7** : 51~57, 1982.
- 9) 松井秀樹, 飯塚彦珍, 兵 行忠, 他：先天性完全型側頸瘻の1例。日口外誌 **31** : 264, 1985.
- 10) 金田規嗣, 鈴木正志, 渡辺徳武, 他：先天性完全側頸瘻の1例。日耳鼻 **93** : 126, 1990.
- 11) 横森欣司, 大蔵充久, 久保幸一郎：先天性側頸部瘻孔の家族発生。小児外科 **21** : 727~733, 1989.
- 12) Zafar A and Sadiq F : Internal branchial fistula. JPMA December : 298, 1990.
- 13) 田中隆博, 金田規嗣, 渡辺徳武, 他：先天性完全側頸瘻例。耳鼻臨床 **86** : 1603~1606, 1993.
- 14) Neel HB and Pemberton J : Lateral cervical (branchial) cysts and fistulas. Surgery **18** : 267~286, 1945.
- 15) 入学陽一, 福田仁一, 迫田隅男, 他：両側に現れた先天性側頸瘻の1例。九州歯会誌 **32** : 413~417, 1978.
- 16) 吉田 昌, 伊藤泰雄, 葦澤融司, 他：BOR 症候群と思われる家族性側頸瘻の1例。日小外会誌 **27** : 98~102, 1991.
- 17) 西 寿治, 山田亮二, 山本 弘, 他：側頸瘻(第2鰓裂性)の手術。小児外科 **21** : 44~49, 1989.

(原稿受付：平成8年11月19日
原稿採択：平成9年2月12日
別刷請求先：櫻井弘徳
〒611 宇治市小倉町春日森86
宇治徳洲会病院耳鼻咽喉科)