いわゆる頸部血液嚢胞の一症例

西平 茂樹・山内 博幸

A Case Report of So-Called Cervical Blood Cyst

Shigeki Nishihira and Hiroyuki Yamauchi

(Okachi Chuo Hospital)

An eight-year-old boy with a dark red color fluid containing cyst adjacent to the internal jugular vein beneath the carotid sheath is reported. He had had no operations or trauma on his neck before. Pathological examination of the cyst wall revealed its origin to be a medium-size vein. Although we could not find the term "cervical blood cyst" in the current classification of head and neck tumors, we found the term used in the Japanese literature before 1970.

Key words: cervical blood cyst, CT, MRI, carotid sheath

はじめに

血液嚢胞とは、静脈と直接交通した流動性静脈血を内容とする嚢胞、あるいは血管との関係が失われ凝血や血性液などの変性血液を内容とする嚢胞の総称で、1814年に W Hey が初めて報告して以来、また本邦では、1904年に小島が報告して以来、1970年後半までの頸部腫瘍の分類統計^{1)~4)}や報告^{5)~8)}では稀な疾患として扱われていた。最近の分類統計報告^{9)~12)}にはその名称を見出し得ないが、著者らは、最近、右側頸部に発生した嚢胞性疾患がその頸部血液嚢胞に合致すると思われた8歳男子の1症例を経験したので若干の考察を加えて報告する。

症 例

患者：■■■■■，8歳，男子。

主訴：右側頸部腫瘍，圧痛。

現病歴：1991年7月4日右側頸部痛出現。その2日後より同部に腫脹があるのに気付いた。7月9日近医受診。MRI 検査にて側頸部嚢胞

を疑われ、当科に紹介された。以前に同部分の外傷や穿刺等の医療行為を受けたことはない。

局所所見および経過：初診時（腫瘍発生後より8日目），右側頸部胸鎖乳突筋のほぼ中央裏面に母指頭大の腫瘍が存在（図1）。ごく軽度の圧痛は有るが皮膚に炎症所見なし。バルサル

図1 初診時頸部所見

右側頸部，胸鎖乳突筋ほぼ中央部に軽度の膨隆を認める。

バにて大きさに変化なし。胸鎖乳突筋の裏面に位置していたが、腫瘤の境界は比較的明瞭で、弾性軟に感じられた。受診後約10日間の抗生剤、消炎剤投与により圧痛は消失したものの、腫瘤はむしろやや増大したように感じられたため、

8月8日手術を施行した。術後経過は順調で7日目に抜糸後退院した。術後8カ月後の現在、特変なし。

CT 所見：胸鎖乳突筋直下に筋組織とほぼ同等の吸収値を有する境界不明瞭な腫瘤陰影が存

図2

a ; CT 像

c ; MRI 冠状断 T₁ 強調画像 (造影後)

b ; MRI 冠状断 T₁ 強調画像

d ; MRI 水平断 T₂ 強調画像

在する。周囲血管との関係は不明瞭である（図2a）。

MRI 所見：腫瘍は胸鎖乳突筋のほぼ中央に位置し、冠状断 T1 強調画像では、胸鎖乳突筋とほぼ同等の信号強度を呈し輪郭は不明瞭であるが、ガドリニウム DTPA 造影後その輪郭は明らかとなった。T2 強調画像では強度の高信号を示す円形腫瘍として描出されており（図2b, c）、内頸静脈に接して存在する嚢胞性腫瘍であろうと考えられたが、水平断像で一般に経験される側頸嚢胞のような円形あるいは類円形でなく、内頸静脈を多少内前方に圧排してはいものの腫瘍内側面が腫瘍内面に凸のカーブを描き、且つ胸鎖乳突筋との間で前方が扁平におし潰されたような特殊な形状をしている（図2

d）。

手術所見：全身麻酔下に、腫瘍直上で約 5 cm の皮膚横切開を置き、広頸筋直下を剝離、胸鎖乳突筋前縁よりアプローチした。腫瘍の前面から外側面は胸鎖乳突筋と癒着していたため癒着部分は腫瘍に付着させて切除した。腫瘍は頸動脈鞘内に存在し、内側面は内頸動脈と接していたが、ほとんど癒着なく剝離することができた。内頸静脈と腫瘍間に明らかな血管の交通は認められなかった。腫瘍内側に内頸静脈、迷走神経、総頸動脈をそれぞれ確認した。腫瘍は、約 30×20×25 mm 大の小さなもので、黄白色の被膜を有し、内腔には暗赤色の液体が充満していた（図3上）。

病理組織所見：嚢胞内腔には赤血球が多数認められた。嚢胞壁の内層では単層の扁平な内皮細胞が所々に残存して認められた。中層では多少の乱れはあったがほぼ輪状に配列する平滑筋線維とその間に存在する多量の結合組織が観察され、さらにその外側では疎性結合組織中に拡張した毛細管が認められた。すなわち、嚢胞壁はほぼ中等大の静脈壁の構成を示すものであり、静脈由来の嚢胞性疾患と診断された（図3下）。

考 察

ここに報告した症例は、従来血液嚢胞と呼ばれてきた疾患群に属するものと考えられる。静脈系の病変に関する記載は、成書でも少なく、欧米でも静脈拡張症や静脈瘤を扱っているのみであるが、本邦の文献にはここ十数年前まで血液嚢胞の存在が記されている。最近出版された（1991年）新外科学大系¹³⁾には症例の供覧および分類がなされているが、詳細についての記載はない。これまで報告された血液嚢胞に関してまとめた。

1. 発生頻度および分類

1973年～1977年の5年間に千葉大学第一外科で扱った頸部腫瘍343例中6例（1.75%）¹⁾、1978年度の昭和大学耳鼻咽喉科外来における頸部腫瘍122例中1例（0.82%）²⁾、1953年～1975年の23年間に信州大学第二外科で扱った頸部腫

図3 黄白色の被膜を有し、内腔には暗赤色の液体が充満。

上；摘出標本

下；病理組織像

瘤3054例中3例(0.001%), 頸部嚢胞性腫瘤82例中0.04%³⁾, 1958年~1971年の13年間に慶大外科で扱った頸部腫瘤284例中8例(0.03%), 頸部嚢胞性腫瘤87例中0.1%に⁴⁾ 頸部血液嚢胞症例の統計報告が有る. 分類の範疇としては, 先天性奇形その他¹⁾ に分類したもの, 脈管由来の先天性あるいは炎症性疾患として, 血管腫やリンパ管種と同様に分類したもの¹³⁾, 頸部嚢胞性腫瘤の中の一つとして分類したもの³⁾⁴⁾, がある.

成因分類に関しては, 工藤(1957年)¹⁴⁾, 村上(1966年)⁷⁾ が検討を行っている. 村上は1966年までに本邦で報告された血液嚢胞34例に自験例4例を加えた40例をもとに, それまで用いられてきた Spannaus 分類にかわる新分類を唱えた(表1).

2. 好発部位・発症年齢・性別その他

伊藤¹⁾ は, 小児の胸鎖乳突筋内側部に認められ, 大きくなると外側頸三角より鎖骨上窩に及ぶことがあると記載している. 松浦は¹³⁾ 左上頸部で胸鎖乳突筋表層の筋膜下に存在した12歳男子の症例を供覧している. 児島⁶⁾ の本邦における22症例のまとめによると, その発生に好発年齢は認められず, 性別では, 記載のあった20症例中男性7例, 女性13例で若干女性に多く, 発生側は左側が右側より多い. 好発部位は, 側頸部, 鎖骨上窩, 前頸部であり, 大きいものでは一部腋窩, 一部上胸部に及んでいる. 静脈と交通していたものでは外頸静脈11例, 内頸静脈6例. 腫瘤の形状は一定せず, 単房性, 多房性の両者が有り, 大きさは母指頭大から鶏卵大, 鵝卵大, 手拳大と様々である.

表1 Spannaus の成因分類

A) 真性血液嚢胞; 静脈そのものの異常によって生じるもの

第1型: 静脈の胎生期形成不全によるもの(頸部の比較的大きな静脈が欠如し, その位置に血液嚢胞があるもの)

第2型: 静脈瘤性拡張によるもの(血液嚢胞と発生血管との間になお交通のあるものと既に交通のないものとがある)

B) 非真性血液嚢胞; 上記以外のもので臨床的に血液嚢胞の像を呈するもの

第3型: 鰓弓嚢胞より発生するもの

第4型: 血管腫より発生するもの

第5型: リンパ管腫より発生するもの

第6型: 胎生期リンパ腺奇形により発生するもの

村上の新分類

A) 真性血液嚢胞; 脈系の異常によって発生するもの

第1型: 胎生期の形成不全により, あるいは出生後の静脈瘤性拡張により発生するもの. 発生血管との間の交通の有無によらない.

[Spannaus 分類の第1型, 第2型を含む]

B) 偽血液嚢胞; 上記以外のすべての血液嚢胞を含める.

第2型: 鰓弓嚢胞より発生するもの

第3型: 血管腫より発生するもの

第4型: リンパ系の異常によって発生するもの

[Spannaus 分類の第5型, 第6型を含む]

第5型: そのほかの血液嚢胞, ほとんど全部は後天的な原因によって発生するものであり, 基礎疾患は外傷, 腫瘍, 炎症等.

3. 組織学的特徴

Spannaus や村上の分類に見るように、非真性あるいは偽性のものではその基礎となる病変の病理組織学的特徴を有するものと考えられるが、実際にその記載があるもの⁷⁾は少ない。真性のものは、基本的に静脈壁の構造を有し、内腔に血液を貯留している^{6)~8)}。

血液嚢胞という名称の問題点：先に述べたように、1970年代後半以降の頭頸部の腫瘍性疾患分類では松浦の記載¹³⁾以外に血液嚢胞という名称は見出し得ない。その理由に関しては、推論の域を出ないが、先ず、Spannaus 分類、村上分類のいずれもが包括的すぎて実用的でなかった事があげられる。非真性あるいは偽性血液嚢胞に関しては、現在では、それぞれが既に独立した疾患として扱われており、鰓弓由来の嚢胞、血管腫、リンパ管種、他の腫瘍それぞれの内部で出血し、血液嚢胞の形態を呈したとしても、原疾患の名称をそのまま用いた方が混乱が少ない。あえて臨床診断名を血液嚢胞とする必要はなく、恐らく徐々に使用されなくなってきたものと考えられた。

真性血液嚢胞に関しては、多少議論の余地がある。1969年、田代ら¹⁵⁾が内頸静脈の静脈瘤性拡張をきたした症例を内頸静脈瘤として報告、血液嚢胞とは異なるものであると考察したが、翌年、北ら⁸⁾は同様の症例を真性血液嚢胞〔Spannaus 分類A)の第2型あるいは村上分類A)の第1型に相当する〕と報告し、内頸静脈の限局性拡張すなわち内頸静脈瘤は真性血液嚢胞であると解釈している。1975年には荒井ら¹⁶⁾が内頸静脈の一部が息をつめることで膨隆する症例を内頸静脈の奇形として報告、1979年には丸山ら¹⁷⁾が内頸静脈拡張症 (internal jugular phlebectasis) として5症例を報告し、1980年には、小林ら⁹⁾が特発性内頸静脈拡張症として報告している。Spannaus や村上の分類による真性血液嚢胞は、“静脈そのものの、あるいは静脈系の異常により静脈瘤性拡張が生じたもの”であるが、内頸静脈拡張の原因として、

Pataro ら (1961年) は、静脈壁に弾力線維の消失と結合組織の増生を認めることから壁そのものの病変が原因¹⁸⁾であるとし、丸山らは、頸動脈鞘の先天性あるいは後天性の菲薄脆弱化が関与しており、静脈壁そのものの菲薄化は繰り返して起こる膨出による二次的变化によるもの¹⁷⁾と唱えた。従って、Pataro らの説では内頸静脈拡張症は真性血液嚢胞の定義の範疇に含まれる事になるが、丸山の説では別の疾患ということになる。確かに、村上ら⁷⁾や児島ら⁶⁾のまとめにみる真性血液嚢胞の症例の中には、内頸静脈や外頸静脈と交通する血液嚢胞の報告が成されていたが、内頸静脈そのものが拡張したものは含まれておらず、Spannaus および村上の分類の基礎に内頸静脈そのものの拡張した症例は含まれていなかったものと考えられた。現在、内頸静脈拡張症は既に一つの独立した疾患として扱われている。その原因についても明らかでなく、ここで真性血液嚢胞か否かをあらためて論ずる意義は少ないと考える。

内頸静脈以外の静脈性の膨隆に関しては、外国では Lipshutz ら (1960年)¹⁹⁾、Derrick ら (1962年)²⁰⁾、Alonso ら (1970年)²¹⁾が外頸静脈で、1972年に Wadley ら²²⁾が後顔面静脈で、1972年には Gilbert ら²³⁾が前頸動脈で経験し、静脈拡張症あるいは静脈瘤として報告している。本邦では、先に記したように、内頸静脈や外頸静脈あるいは鎖骨下静脈と交通した腫瘍や、発生血管との交通は失われているが病理組織学的に壁が静脈あるいはその類似構造を示す静脈由来の嚢胞とを真性血液嚢胞として扱ってきた。今回我々が経験した症例は、定義上は発生血管との交通が既に失われた真性血液嚢胞と考えられるが、現在の頸部腫瘍分類では先天性奇形その他、あるいは分類不能の頸部嚢胞性腫瘍として扱わざるを得ない。今後、同様症例の蓄積をまって総括的な検討がなされるものと期待する。

4. 画像診断についての考察

本症例では、当初、MRI 所見が普通に経験される側頸嚢胞のように円形あるいは類円形で

なく、いびつな形をしている事に疑問を持ったが、非常に柔らかく且つ小さな嚢胞のためであろうかと考えていた。手術により、嚢胞が頸動脈鞘内に存在したことから、また、病理組織所見から、今回の検索が始まったわけであるが、術前に嚢胞と頸動脈鞘との関係を考察しておれば、一般に見られる側頸部嚢胞とは異なるものであろうとの予測がたてられたかも知れない。頸動脈鞘は²⁴⁾²⁵⁾、頭蓋底から縦隔に至る線維性の鞘で、pretracheal fascia と prevertebral fascia によって形成され、内頸動脈、総頸動脈、内頸静脈、迷走神経、頸神経ワナの一部、頸部交感神経幹を囲んでおり、頸動脈分岐部より下のレベルではっきりした鞘として確認され、いわゆる carotid space を形成する。鞘はかなり厚く強固であり、簡単な針子操作で破れるほど脆弱ではない¹⁷⁾。内頸動脈分岐部より上方では、鞘は内頸静脈や内頸動脈に密着して存在するため、いわゆる頸動脈鞘に囲まれた carotid space を形成せず、poststyloid space, retro-styloid space あるいは posterior or neurovascular component of the parapharyngeal space と称され、それぞれの component は疎な結合組織で隔てられるのみとなる²⁶⁾。今回の症例の場合、第2鰓溝由来の嚢胞との鑑別が最も重要と考えられる。発生学的に第2鰓溝由来の側頸部嚢胞の頸部への進展は、頸動脈分岐部より上方から側頸部に下降する経路をとる²⁷⁾²⁸⁾ため、頸動脈鞘外に存在することになる。従って、側頸部嚢胞 Bailey 分類Ⅲ型以外の症例では、嚢胞の発育を妨げるものがないため疎な結合組織で隔てられた周囲器官を均等に圧排して水平断画像上円形～類円形の腫瘤として描出されると考えられる。本症例では頸動脈鞘という障壁の張力²⁹⁾が加わった分、一般に経験される側頸部嚢胞と異なる、いびつな形状になったものと推察された。本嚢胞は、たまたま頸動脈鞘内に発生したものであろうが、これまで画像診断に際して頸動脈鞘の存在を意識することがなかった著者にとっては印象深い所見であった。

おわりに

8歳男子の側頸部に発生した静脈由来の嚢胞について報告した。文献検索の結果従来頸部血液嚢胞と称されていた疾患群が最も類似するものであった。

参考文献

- 1) 伊藤健次郎：頸部腫瘤の臨床診断。外科 Mook 7：1～14, 1979.
- 2) 窪田哲昭：頸部腫瘤における悪性腫瘍と open-biopsy の適否。耳鼻 25：1316～1318, 1979.
- 3) 黒田孝井, 川村信之, 宮川 信, 他：頸部腫瘤, とくに頸部嚢胞性腫瘤の病態ならびに治療。外科治療 38：11～16, 1978.
- 4) 植草 稔, 米山桂八, 三村 孝, 他：頸部腫瘤の臨床診断。外科診療 9：1123～1129, 1971.
- 5) 沢田 啓：側頸部血液嚢胞の1例。臨床外科 7：466～468, 1952.
- 6) 児島 保：頸部血液嚢胞の1例。外科の領域 7：1228～1231, 1959.
- 7) 村上国男, 上野 明, 菱田泰治, 他：頸部血液嚢胞 —新分類法の提唱—。外科 28：163～169, 1966.
- 8) 北 陸平, 三崎英生：頸部真性血液嚢胞の1例。外科 32：1087～1089, 1970.
- 9) 小林武夫, 本多清志, 山本英史：頸部のコンピュータ断層撮影。耳展 52：1013～1018, 1980.
- 10) 高橋広臣：頸部腫瘤をきたす疾患の種類・頻度。臨外 42：433～438, 1987.
- 11) 金子まどか, 古川 滋, 高畑喜廷, 他：当科における頸部腫瘤の検討。耳鼻 35：179～188, 1989.
- 12) 林崎勝武：頸部腫瘍の臨床。外科治療 65：127～132, 1991.
- 13) 松浦秀博：頸部腫瘍および類似疾患, 頭頸部の外科。新外科体系 第14巻(和田達雄監修)。287～311頁, 中山書店, 東京, 1991.
- 14) 工藤達之：頸部血液嚢胞。日本外科全書 13：235～256, 1957.
- 15) 田代豊一, 谷川清一, 坂本英明, 他：内頸静脈瘤の1手術治験例。手術 22：658～660, 1969.
- 16) 荒井和夫, 末光迪生, 関 伸二, 他：内頸静脈奇形の一例。耳展 18：275～278, 1975.
- 17) 丸山 毅, 村上 泰：小児内頸静脈拡張症。日

耳鼻 82 : 1361~1364, 1979.

- 18) Pataro, VF, Crosbie JC and Conde RM : Jugular phleb ectasia. J Cardiovasc Surg 2 : 3~8, 1961.
- 19) Lipshutz SN and Rubin MH : External jugular phlebection. Arch Surg 80 : 571~573, 1960.
- 20) Derrick JR and Spencer DC : Localized cervical venectasia, presented as a neck tumor. Am J Surg 103 : 521~522, 1962.
- 21) Alonso WA and Chambers RG : Aberrant jugular vein simulating a cervical cyst. Laryngoscope 80 : 244~248, 1970.
- 22) Wadley JK : Aneurysm of the posterior facial vein. Laryngoscope 82 : 821~823, 1972.
- 23) Gilbert MG, Greenberg LA, Brown WT, et al : Fusiform aneurysm of the neck in children ; report of four cases. J Pediatr Surg 7 : 106~111, 1972.
- 24) Davies DV and Coupland RE : Myology fasciae and muscles of the neck. Gray's anatomy 34 edition (ed by DV Davies), pp 605, Longmans, London, 1972.
- 25) Som PM : The pharynx and oral cavity. "Carotid space" Head and Neck Imaging (ed by Som PM and Bergron RT). pp419, Mosby Year Book, St Louis, Missouri, 1991.
- 26) Som PM : The Neck. "Non nodal pathologic conditions of the neck" Head and Neck Imaging (ed by Som PM and Bergron RT). pp 531~557, Mosby Year Book, St Louis, Missouri, 1991.
- 27) 高橋廣臣 : 先天性頸部腫脹. 耳喉 55 : 847~856, 1983.
- 28) 西條 茂 : 側頸部嚢胞. JOHNS 5 : 725~730, 1989.
- 29) Garrow E, Kirschstein M and Som ML : Internal jugular phleb ectasia. Am J Surg 108 : 380~383, 1964.

(別刷請求先 : 西平茂樹
〒012 湯沢市表町2-3-15
秋田県厚生連雄勝中央病院耳鼻咽喉科)