鰓 原 嚢 胞 の 4 例

杉山 忠正・福田 広志・玉井 達人
河内 四郎・増田 正樹・大谷 隆俊

Four cases of branchial cyst

Tadamasa SUGIYAMA・Hiroshi FUKUDA・Tatsundo TAMAI
Shiro KAWACHI・Masaki MASUDA・Takatoshi OHTANI

緒 言

鰓原性嚢胞は胞生期鰓裂部組織に由来する比較的稀な先天性嚢胞で、その発生に関しては未だ不明の点が多く、発生学的に興味深い疾患である。我が国では外科、耳鼻科、口腔外科領域から幾多の報告がある。最近我々は側頸部に生じた鰓原性嚢胞の4例を経験したので報告する。

症 例

症例 1

患 者： 21才 女性

初 診：昭和45年10月

主 訴：右側頸部の腫脹

家族歴、既往歴：特記事項はない。

現病歴：昭和42年頃より右側頸部に鶏卵大の無痛性腫脹を生じ、某病院にて穿刺を行い、乳白色の内容液約50mlを吸引。腫脹は消失した。昭和44年5月頃から再び同部が腫脹したため、当科を受診した。

現症：全身所見：体格中等度、栄養良好。

局所所見：顔貌正常、右側頸部、胸鎖乳突筋上部前縁に鶏卵大、半球形、びまん性腫脹を認め、硬度は弾性軟で波動を触れた（写真1・A）。表面皮膚は異常なく、皮膚との癒着はない。穿刺により黄白色の漿液性内容液約20mlが吸引され、細菌培養検査は陰性であった。

口腔内および所属リンパ節所見：異常は認められない。

臨床検査所見：血液、尿検査所見などには異常は認められない。穿刺部X線造影にて境界明瞭な卵形の不透過像を認めた（写真1・B）。

臨床診断：側頸嚢胞

処置及び経過：11月、全麻下で摘出手術を行った。手術は胸鎖乳突筋の前縁に沿って切開を加え、広頸筋を排除し、嚢胞に達した。嚢胞は筋膜の直下、内頸静脈の外側に接しており、一塊として摘出した。術後の経過は良好で、再発はない。

摘出物肉眼的所見：大きさは6×5×5cmの卵円形の嚢胞で表面は比較的平滑であり、多胞性であった（写真1・C）。

病理組織学的所見：嚢胞内面は数層の扁平上皮で被われ、壁の厚さは種々で上皮組織下層にはリンパ組織が見られ、その中には胚中心を有するリンパ濾胞とリンパ洞が認められた。また、嚢胞壁の比較的薄い部分ではリンパ組織は乏しく、線維性組織より成っていた（写真1・D）。

症例 2

患 者： 49才 女性

初 診：昭和46年2月

主 訴：右下顎角部より頸部にかけての腫脹。

家族歴、既往歴：特記事項はない。

現病歴：昭和44年11月頃、右下顎下縁部の腫脹と発熱のため、某外科受診。穿刺および抗生剤の投与を受け、腫脹は消失した。その後、昭和45年2月および7月に腫脹し、同様な処置をくり返した。昭和46年2月にまた腫脹を来とし、当科を紹介された。

現症：全身所見：体格中等度、栄養良好。

局所所見：顔貌正常、右側頸部、胸鎖乳突筋上部前縁に鶏卵大、半球形のびまん性腫脹を認め、硬度は弾性軟で波動を触れた。表面皮膚に異常はなく、皮膚との癒着はない（写真2・A）。穿刺により濃黄色の粘調性内容液約10mlが吸引され、細菌培養検査は陰性であった。

口腔内および所属リンパ節所見：特記事項なし。

一般諸検査所見：異常は認められない。穿刺部X線造影にて境界明瞭な卵円形の不透過像を認めた（写真2・B）。

臨床診断：側頸嚢胞

横浜市立大学医学部口腔外科学教室（主任：大谷隆俊教授）
Department of Oral Surgery, School of Medicine, Yokohama City University (Chief: Prof. Takatoshi Ohtani)
受付：昭和51年6月7日

写真 1 症 例 2

A : 初診時側貌

B : 嚢胞造影像

C : 摘出物剖面

D : 組織像

写真2 症例2

A: 初診時側貌

C: 摘出物

B: 嚢胞造影像

D: 組織像

処置及び経過: 8月■に全麻下にて摘出手術を行った。手術は胸鎖乳突筋の前縁に沿って切開を加え、鈍的に広頸筋を排除し嚢胞に達した。嚢胞は頸動脈分枝部の間を通り、深部に及んでいた。術後の経過は良好で再発はない。

摘出物肉眼の所見: 大きさはほぼ $3.5 \times 4 \times 3$ cm の卵

球形の嚢胞で表面の一部に凹凸があった(写真2・C)。

病理組織学的所見: 嚢胞壁は線維性結合織よりなり、内腔面は薄い平坦な重層扁平上皮でおおわれ、一部は剥離し線維素の析出が見られた。上皮組織の下層にはリンパ性組織があり、胚中心が認められた(写真2・D)。

写真 3 症 例 3

A: 初診時側貌

B: 顎下腺造影 (前方に圧迫像)

C: 摘出物剖面

D: 組織像

症例 3

患 者: 43才 女性

主 訴: 右側頸部腫脹

初 診: 昭和50年 1 月

現病歴: 昭和47年頃より右側頸部に1個の雀卵大, 無痛性の腫瘍に気づいた。無症状の為放置していたが徐々に増大し, 鶏卵大になったため, 昭和50年 1 月に当科へ来院した。

既往歴, 家族歴: 特記事項なし。

現 症:

全身所見: 体格栄養中等度。

局所所見: 顔貌正常, 開口障害, 嚥下障害はない。右

側頸部上部, 胸鎖乳突筋前縁に境界明瞭, 可動性, 弾性軟, 鶏卵大の腫瘍が触知できる。表面皮膚は正常で, 腫瘍は周囲組織と癒着はない (写真 3. A)。

口腔内所見: 左右顎下腺からの唾液の流出は正常であり, 右下顎臼歯部舌側より双手診により卵形の腫瘍に触れ, 深部組織との癒着もない。試験穿刺により極く少量の灰黄白色を帯びた粘稠な内容液を吸引できた。細菌培養検査は陰性であった。口腔内および所属リンパ節には異常はない。

一般諸検査所見には異常は認められない。右顎下腺造影の結果, 顎下腺前方に半円型の圧迫像を認めた (写真 3. B)。

写真4 症 例 4

A : 初診時側貌
C : 摘出物

B : 嚢胞造影像
D : 組織像

臨床診断：側頸嚢胞

処置及び経過：3月[redacted]。全麻下にて摘出術を行った。右下顎下縁内側に切開を加え、広頸筋直下、胸鎖乳突筋前上方、顎下腺の外側は線維性結合組織におおわれた嚢胞を鈍的に剥離、摘出した。周囲組織との癒着は認められなかった。

摘出物肉眼的所見：大きさはほぼ $3 \times 4.5 \times 2.5$ cm の卵形の嚢胞で表面は比較的滑沢、色調は帯黄白色であった。内容物はチーズ様のものが充満していた(写真3.C)。

病理組織学的所見：薄い嚢胞壁で、内腔面は薄く平坦な扁平上皮に被われ、嚢胞壁はリンパ組織より成ってい

た(写真・D)。

症例 4

患者: 25才 女性

初診: 昭和50年 9月

主訴: 右側頸部の腫脹

既往歴, 家族歴: 特記事項はない。

現病歴: 昭和50年 9月 頃より, 無痛性に右頸角部後方の側頸部が徐々に腫脹した。某医受診し唾液腺炎, またはリンパ節炎の疑いにて, 抗生剤を投与された。9月 日より発熱を伴った疼痛を生じ, 耳下腺管通過障害の疑いで当科を紹介され来院した。

現 症:

全身所見: 体格栄養中等度,

局所所見: 顔貌正常, 右側頸部, 頸角部後方, 胸鎖乳突筋前縁に, 5×6cm の表面平坦, 半球状の腫瘤を認めた。皮膚との癒着はなく可動性で弾性硬であり, 圧痛軽度にあるも波動は触れにくかった。皮膚は正常色であった(写真4・A)。

口腔内所見: 特記事項はない。

所属リンパ節所見: 異常は認められない。

一般諸検査所見: CRP 3+。血沈値軽度亢進, その他は異常は認められない。穿刺にてコレステリン含有の粘稠な液 5ml 吸引した。腫脹部X線造影にて卵円形の不透過像を認めた(写真4・B)。

臨床診断: 側頸嚢胞

処置及び経過: 11月 頃, 全麻下にて摘出手術を行った。手術は嚢胞直上部皮膚に切開を加え, 広頸筋を鈍的に剥離し嚢胞に達した。嚢胞は筋膜の直下にあり胸鎖乳突筋前縁で内頸静脈上にあり, 鈍的に剥離し摘出した(写真4・C)。

病理組織学的所見: 嚢胞壁は線維性結合組織よりなり, 内腔面は薄い平坦な重層扁平上皮でおおわれ, 一部は剥離し線維素の析出も見られ, 上皮組織の下層にはリンパ性組織があり, 胚中心も認められた(写真4・D)。

考 察

側頸嚢胞は1789年 Huncyowski¹⁾ が最初に報告し, 日本では1905年宇野²⁾ がはじめて発表したと言われ, 以来外科, 耳鼻科, 口腔外科領域から多数の報告がある。

本嚢胞の発生機序は胎生期における鰓原性器官の発生異常に基づく先天性疾患と考えられているが, 一方腺上皮がリンパ節内に迷入し嚢胞化するという腺上皮迷入説もある。

鰓原説は胎生期鰓裂部発生の複雑なことから本疾患の発生に関しては種々の説が唱えられ, 未だ定説はないようである。

胎生期の鰓原性器官は胎生 4 週頃, 胚子頸部の外胚葉と内胚葉にくびれが生じ, それぞれ 4 つの外鰓溝と 5 つの鰓嚢となり, その間にある中胚葉鰓弓となる。その後

第 2 鰓弓は著明に発育し, 次第に尾方へ成長し, 第 3, 第 4 鰓弓を被い, この成長の結果第 2, 第 3, および第 4 鰓溝は埋没され, 外界との連絡を失ない, 一過性に外胚葉性上皮で被われた 1 つの腔, 即ち頸洞を形成する。発育がさらに進展すると通常は完全に消失する。これに対し, 鰓嚢の発育は第 1 鰓嚢からは鼓室, 耳管, 耳管咽頭口の原器ができ, 第 2 鰓嚢は退化し, 扁桃洞となる。第 3 鰓嚢は内下方に向かって下降し, 胸腺咽頭管を形成し, 末端は胸腺となる。第 4 鰓嚢の末端は上皮小帯となる³⁾⁶⁾。

鰓原説にも種々な説があり, Ascherson⁷⁾ は頸洞の癒着不全が原因として鰓溝説を提唱しているが, Kostanacki⁸⁾ は統計的観察より第 2 鰓嚢の発育障害による鰓嚢説, また Hanmer¹⁰⁾ は第 3, 第 4 鰓嚢説, さらに Wenglowski¹¹⁾ は側頸嚢の走行が胸腺咽頭管の走行と一致することから胸腺咽頭管説を述べている。以上の説に対し各々の可能性があるとする Lorenz¹²⁾ の折衷説がある。

これらの鰓原説に対し King¹³⁾, Bernier¹⁴⁾ 等は本嚢胞は頸部, 耳下腺部あるいは口腔底部にあるリンパ節の中に迷入した耳下腺上皮細胞が増殖し, 嚢胞化したために生ずるものとしている。しかし Little と Rickles¹⁶⁾¹⁷⁾ は 149 例の本症および胎児や成人の頸部リンパ節について検索し, 上頸部に生ずる本嚢胞は一部はリンパ節中に迷入した耳下腺組織由来であろうが, 大部分のものは鰓原性器官由来であろうと推測している。

臨床症状は多くは片側の側頸部, 胸鎖乳突筋前縁に孤立性, 表面平滑, 境界明瞭な無痛性腫瘤として現われ, 周囲との癒着はなく可動性である。通常波動は触れるが, 後述する Bailey¹⁸⁾ II, IV 型の如く深部に存在する場合は不明のこともあり, 穿刺により内容液を認める。経過は緩慢で自覚症状は少ないが, 二次感染を起こし来院する場合が多い。稀には嚙声¹⁹⁾ や食事時の圧迫感, 新産児²⁰⁾, 幼児における呼吸困難, チアノーゼ等を引き起こした例も報告されている。

発生部位は Bhaskar と Bernier¹⁵⁾ は 468 例中, 不明の 295 例を除くと頸角部が最も多く, また Rickles¹⁷⁾ らは頸部を上, 中, 下頸部と分け, 中頸部が最も多いとしている。早坂²¹⁾ らは側頸嚢胞では胸鎖乳突筋の上 1/3, 側頸嚢では下 1/3 の部に位置する場合が多いと言っている。Sedgwick²²⁾ の 75 例, 大久保²³⁾ らの 9 例も中頸部で, 我々の 4 例も全例中頸部であった。

Bailey¹⁸⁾ は頸部水平断による頸部臓器との位置的関係に基づいて本嚢胞を 4 型に分類している。即ち I 型は表在性, 筋膜の直下で胸鎖乳突筋の前縁に位置するもの。II 型は最も普通の型で内頸静脈に種々の形で癒着しているもの。III 型は内外頸動脈の間を通り, 第 1 頸椎側塊や頭蓋底にまで侵入するもの。IV 型は咽頭壁に近く, 頸動脈より内方にあるものとしている。我々の 4 例では, 第 1 例, 第 3 例は I 型であり, 第 2 例は III 型, 第 4 例は II

図1 Bailey の分類

型であった。

左右別では Rickles¹⁷⁾ら、大久保²³⁾らは左右差はないとし、安藤⁹⁾ら、大谷²⁴⁾らは左側に多く、原科²⁵⁾は左側は右側の3倍であると言っている。我々の症例は4例共右側であった。

性別では大谷²⁴⁾らおよび安藤⁹⁾らはやや女性に多く、また女性は男性の3倍という報告もあるが、大久保²³⁾は男性に多く、原科は男性は女性の2倍としている。早坂²¹⁾の5例は全例女性であり、我々の4例も全例共女性であった。

年齢別では、Bhaskar¹⁵⁾らは468例中、61%が21~30に、大谷²⁴⁾らの36例では全例40才以下であるが、10代に33%、大久保²³⁾らは9例中8例が20代に、また Rickles¹⁷⁾らは137例が各年齢層にはほぼ等しく分布するが、38.5%が21才未満であるとしている。しかし生下時に認められた症例⁷⁾も報告されており、84才になってから発症した症例²⁶⁾もあることから、全年齢に発生するものであるが、比較的40代以前に発生するものであろう。我々の症例は20代2例、40代2例であった。

鑑別診断は側頸部に腫瘤を生ずる多くの疾患があるが、最も鑑別困難なものは側方型類(表)皮嚢胞で、その他悪性腫瘍の頸部転位、悪性リンパ腫、結核性および非特異性リンパ節炎、下部耳下腺腫瘍、唾石症等があり、小児では頸部嚢水腫との鑑別が重要である。

診断に際しては、触診、試験穿刺、X線造影などが行われるが、多くは穿刺により容易である。

穿刺内容液は混濁した乳白色のものが多く、感染した場合には膿性、血性もあり、時にコレステリン結晶も存在する。Bailey¹⁸⁾はコレステリンの存在の有無が本疾患の診断に重要であると言っている。我々の症例では、第4例にコレステリンの含有を認めた。

療法は嚢胞の全摘出である。手術は嚢胞直上の切開か、胸鎖乳突筋前縁に沿って切開を行い、鈍的剥離するが、その際注意を要することは嚢胞が深部にある場合、頸動脈、内頸静脈、舌下神経、副神経等の血管神経損傷に注意を要する。

摘出物の大きさは鶏卵大から、そら豆大まで報告されているが、鶏卵大が多いようである。我々の症例も3例が鶏卵大であった。

本嚢胞の病理組織学的所見は一般に嚢胞壁は外層は線維性結合組織、内層は重層扁平上皮または絨毛円柱上皮および二者の混合したものより構成されている。嚢胞壁の多くにはリンパ組織が認められ、Bhaskar¹⁵⁾は96.6%、Rickles¹⁷⁾らは149例中135例にリンパ組織を認めている。我々の症例も全例にリンパ組織(4例とも胚中心を有している)を認めた。

その他稀ではあるが、本嚢胞壁より癌が発生した報告²⁷⁾もあり、これは古くから鰓原性癌と言われている。Martin²⁸⁾らによれば、5,000例の鰓原性嚢胞のうち、鰓原性癌と思われるものは15例で極めて稀と考えている。組織学的には主として重層扁平上皮癌であるが、癌の頸部転位との関連に注意を要する。大久保も鰓原性癌の疑いで手術した6例のうち組織学的に鰓原性癌と証明できたのは1例であった。また、極めて稀に嚢胞壁に結核²⁹⁾や放線菌症³⁰⁾の合併した症例も報告されている。

結 語

側頸部に生じた鰓原嚢胞は比較的稀な疾患であるが、最近われわれは、本疾患の4例を経験したので発表した。

尚、本論文の要旨は、第1例は昭和46年3月13日、第88回日本口腔外科学会関東地方会(東京医科大学)で、第3例は昭和50年7月19日、第103回日本口腔外科学会関東地方会(日本歯科大学)においてそれぞれ発表した。

稿を終るにあたり、病理組織学的所見につき御教示頂いた東京医科歯科大学口腔病理学教室、小守昭助教授に深謝致します。

文 献

- 1) Huncyowski : 2) より引用。
- 2) Buckingham, J. M., and Dynn, H. B. : Branchial

- cleft cysts and sinuses in children. Mayo Clin Proc 49: 178 1974.
- 3) 字野: 4) より引用.
 - 4) 富田喜内, 他: 先天性側頸嚢胞の1例. 口外誌 3: 86 1957.
 - 5) 沢野十蔵訳: 人体発生学, 第2版, 医歯薬出版. 東京, 1971, 223頁
 - 6) 津崎孝道: 人体発生学, 第8版, 金原出版, 東京. 1973, 67頁
 - 7) Ascherson: 8) より引用.
 - 8) 安藤龍男: 前後8回の切開排膿をくり返した側頸部嚢胞の1例. 口外誌 12: 150 1966.
 - 9) Kostanecki: 31) より引用
 - 10) Hanmer: 31) より引用
 - 11) Wenglowski: 31) より引用
 - 12) Lorenz: 31) より引用
 - 13) King: 15) より引用
 - 14) Bernier, J. L., and Bhaskar, S. N.: Lymphoepithelial lesions of classification and histogenesis. Cancer 11: 1156 1958.
 - 15) Bhaskar, S. N., and Bernier, J. L.: Histogenesis of branchial cysts. A report of 468 cases. Am J Path 35: 407 1959.
 - 16) Little, J. W., and Rickles, N. H.: The histogenesis of the branchial cyst. Am J Path 50: 534 1967.
 - 17) Rickles, N. H., and Little, J. W.: The histogenesis of the branchial cyst A study of the lining epithelium. Am J Path 50: 765 1967.
 - 18) Bailey, H.: The clinical aspects of branchial fistulae. Brit J Surg 21: 173 1933.
 - 19) 井上乃婦世, 滝口 馨: 鰓原嚢胞の一例. 口外誌 5: 162 1959.
 - 20) Sinniah, D., and Somasundaram, K.: Lateral cervical cyst. A case of respiratory distress in the newborn. Amer J Dis Child 124: 582 1972.
 - 21) 早坂 滉, 白松幸爾: 先天性頸瘻と頸嚢胞. 外科診療 13: 1043 1971.
 - 22) Sedgwick, C. J., and Walsh, J. F.: Branchial cysts and fistulas. A study of seventy-five cases relative to clinical aspects and treatment. Am J Surg 83: 3 1952.
 - 23) 大久保高明, 他: 最近8年間に経験せる頸部嚢腫について. 日本臨床外科医学会雑誌 24: 216 1963.
 - 24) 大谷 晃, 他: 先天性側頸嚢腫の2症例ならびに文献的考察. 耳鼻咽喉科学会誌 44: 127 1972.
 - 25) 原科孝雄: 頸部嚢腫及び瘻の治験. 形成外科 XV: 494 1972.
 - 26) 高橋広臣: 頭頸部先天性嚢腫の3例. 耳喉 44: 396 1972.
 - 27) Benish, B. H., Som, L. S.: Branchial cleft carcinoma. Arch Otolaryngol 98: 208 1973.
 - 28) Martin: 23) より引用
 - 29) Bourke, J. B., Smith, P. G., Obraki, M.: Tuberculosis in the wall of a branchial cyst. Br J Surg 61: 970 1974.
 - 30) Adeniyi-Jones, Minielly, J. A. and Matthews, W. R.: Actinomyces viscosus in a branchial cyst. A J C P 60 711 1973.
 - 31) 朝倉昭人, 他: 側頸嚢胞の3例. 口科誌 18: 126 1968.