耳下腺内のリンパ上皮性嚢胞（いわゆる鰓嚢胞）の1例 および文献的考察

藤林孝司・勝村浅樹・草間幹夫
小野富昭・伊藤秀夫

A case report of lymphoepithelial (so-called branchial) cyst within the parotid gland and review of the literature

Takashi FUJIBAYASHI・Asaki KATSUMURA・Mikio KUSAMA
Toaki ONO・Hideo ITOH

緒 言

耳下腺内の嚢胞性疾患は比較的まれで、臨床的に耳下腺腫瘍と診断されることが多い。一方、リンパ上皮性嚢胞（いわゆる鰓嚢胞）の好発部位は側頸部で、下顎角下方、胸鎖乳突筋前縁部付近にみられることが最も多いが、まれに耳下腺内にも発生することが報告されている。

今回、われわれは耳下腺腺体内に発生したリンパ上皮性嚢胞を経験した。本嚢胞の発生由来に関して、種々の説が提唱され、多くの論議がなされているが、この症例は本嚢胞の発生由来を考えるうえに、興味ある所見を呈していたので、その概要を報告するとともに、過去の報告例をまとめて文献的考察を行った。

症 例

患 者：27歳 女性。

初 診：昭和53年3月■日。

主 訴：右側耳下腺部の腫脹。

既往歴、家族歴：特記すべき事項なし。

現病歴：約2か月前に疲労感とともに右耳下腺部に腫脹が生じ、内科医から抗菌剤の投与を受け、徐々に消退した。約2週間前から再び同様の症状を呈し、紹介されて来院した。

現 症：体格、栄養状態ともに良好で、全身的には特記すべき事項はなかった。局所的には、右側耳介下前方

に30×35 mm程度のびまん性の腫脹があり、硬さは弾性硬、圧痛なく、表面皮膚と癒着なく、皮膚面に発赤はなかった。口腔内には特に異常所見なく、耳下腺管開口部からの唾液の流出も正常であった。開口障害および顔面神経麻痺もなかった。

臨床検査所見：血液一般検査、血清生化学的検査、尿一般検査の結果は正常範囲内であった。

×線所見：頭部単純×線写真には異常は認められなかったが、右側耳下腺の造影写真（図1）では、その浅葉下半部にくるみ大でほぼ円形の陰影欠損の部分が認められ、浅葉内の導管分枝は外側に圧迫された像で、この部分を丸く取り囲んでいた。

臨床診断：耳下腺良性腫瘍の疑い。

治療および経過：同年5月■日に入院、5月■日全麻下で摘出手術が施行された。すなわち、耳前部より耳介下部にかけてS字状の約6 cmの皮膚切開、次いで広頸

図1 耳下腺造影写真（治療前）

東京医科歯科大学歯学部第2口腔外科学教室（主任：伊藤秀夫教授）

The Second Department of Oral Surgery, Dental Faculty, Tokyo Medical and Dental University (Chief: Prof. Hideo Itoh)

受付日：昭和54年9月13日

図 2 手術時所見

図 3 手術後6か月の耳下腺造影写真

図 4 摘出した嚢胞内面の写真

図 5 嚢胞壁の組織写真 (H-E 染色, $\times 40$) 図 6 空胞細胞を含む上皮 (H-E 染色, $\times 100$) 図 7 嚢胞壁の深部にのびた上皮性細胞
(H-E 染色, $\times 100$)

筋切開を行って、耳下腺表面を露出した。次に胸鎖乳突筋の乳様突起付着部より同筋の前縁と耳下腺後縁との間を顎二腹筋の後腹を確認する深さまで剝離し、顔面神経の本幹を茎乳突孔の出口にて確認した。同神経を耳下腺内に少し入ったところまで露出し、それからは電気刺激器を使用して分枝を確認しつつ浅葉と深葉の間を注意深

図 8 嚢胞壁にみられた唾液腺組織 (H-E 染色, ×100)

表 1 嚢胞内容液, 血清, 唾液の生化学的分析結果

		嚢胞内 容 液	血 清	唾 液
Ca	mg/dl	n.t.	9.2	6.7
Na	mEq/l	137	146	4
K	mEq/l	5.2	3.9	17.0
Cl	mEq/l	101	107	22
Mg	mg/dl	3.5	2.2	3.2
total protein	Gm/dl	8.0	7.5	n.t.
uric acid	mg/dl	3.5	3.3	1.7
total acid phosphatase	KA unit	10.1	1.4	6.7
amylase	IU/l	6,200	476	197,500
glucose	mg/dl	34	72	n.t.

n.t. は非測定

表 2 耳下腺内リンパ上皮性嚢胞の報告例の概要（原著を確認した21例について）

著 者	年	症 例 数	年 齢	性 別	左 右 別	大 き さ	治 療 法	上 皮			リ ン 組 織 パ	リ ン 胞 パ
								扁 平	円 柱	立 方		
Sultan ²⁾	1898	1	44	男	左	榛実大	摘 出	+	+		+	—
Cunningham ³⁾	1929	1	16	男	右	洞および瘻孔	洞切除および 耳下腺部分切除		+	+	+	—
Moore ⁴⁾	1940	1	60	男	両側 性	小ブラム大, ビク トリアブラム大	摘 出	+			+	—
Hoffman ⁵⁾	1960	2	42	女	右	4 cm	浅葉切除			+	+	+
			50	男	左	4 cm	浅葉切除			+	+	+
Karlan, et al. ⁶⁾	1963	2	49	男	左	5×3 cm	摘 出	+			+	—
			49	女	左	1.5 cm	浅葉切除	+			+	—
Sobieski, et al. ⁷⁾	1965	1	19	女	右	1.5×1.2×1.0 cm	摘 出	+			+	—
Lentrod ⁸⁾	1966	1	24	男	右	榛実大	姑息的耳下腺切 除	+			+	+
Leonard, et al. ⁹⁾	1968	2	69	女	左	1.2×0.8 cm	浅葉切除	+			—	—
			36	男	左	2.5×2.5 cm	摘 出		+		—	—
Sisson and Summers ¹⁰⁾	1972	1	56	男	右	2×1.5 cm	浅葉切除		+	+	+	+
浅野, 北村 ¹¹⁾	1972	1	38	男	左	半鶏卵大	摘 出	+			+	—
山下ら ¹²⁾	1973	1	56	男	右	3×3×2 cm	摘 出	+	+		+	+
Weitzner ¹³⁾	1973	1	30	男	右	1.5 cm	浅葉切除	+			+	+
Stewart, et al. ¹⁴⁾	1974	1	51	男	右	6×4×1 cm	摘 出	+	+		+	+
Miglets ¹⁵⁾	1975	1	64	男	左	3×3 cm	浅葉切除	+			+	—
Černý and Mačák ¹⁶⁾	1976	4	49	男	左	鶏卵大	浅葉切除	+			+	+
			47	男	右	ブラム大	浅葉切除	+			+	+
			40	女	右	ブラム大	摘 出	+			+	—
			34	男	不明	榛実大	耳下腺部分切除	+	+		+	—
著者ら		1	27	女	右	2.5×2×2 cm	摘 出			+	+	+

く剝離していくと、帯青褐色の柔らかい嚢胞様組織が認められた。そこで顔面神経分枝を損傷しないよう注意しながら嚢胞様組織を周囲より剝離し、一塊として摘出した(図2)。同組織は耳下腺腺体内にあって、上下、前

後および外側は浅葉に覆われ、後半分と内側には深葉が位置していた。摘出後、浅葉を元に戻し、一次縫合を行い手術を終了した。

術後経過は良好で、顔面神経麻痺もみられず、同年6

表 3 耳下腺内リンパ上皮性嚢胞に関するその他の報告例

著 者	年	症例数	全 対 象
嚢嚢胞あるいは耳下腺疾患に関する総説論文より			
Bhaskar and Bernier ¹⁷⁾	1959	5	嚢嚢胞 468 例中
Lathrop ¹⁸⁾	1962	3	耳下腺良性腫瘍 243 例中
Eneroth ¹⁹⁾	1964	5	耳下腺腫瘍 864 例中
Karlan, et al. ²⁰⁾	1965	4	嚢嚢胞 32 例中
Richardson, et al. ²¹⁾	1978	16	耳下腺腫瘤手術 708 例中
他の原著論文より			
著 者	年	症例数	引 用 論 文
Hildebrant ¹⁾	1895	1	Moore (1940) ⁴⁾ , Mihalyka (1962) ³⁴⁾
Morestin ²²⁾	1902	1?	Moore (1940) ⁴⁾
Lecène ²³⁾	1908	2	Cunningham (1929) ³⁾ , Moore (1940) ⁴⁾ , Mihalyka (1962) ³⁴⁾ , Sobeiski, et al. (1965) ⁷⁾
Albrecht and Arzt ²⁴⁾	1910	1?	Moore (1940) ⁴⁾ , Mihalyka (1962) ³⁴⁾
Glass ²⁵⁾	1912	1?	Moore (1940) ⁴⁾ , Mihalyka (1962) ³⁴⁾
Mazza and Ivanissevich ²⁶⁾	1922	1?	Mihalyka (1962) ³⁴⁾
Warthin ²⁷⁾	1929	複数	Moore (1940) ⁴⁾ , Mihalyka (1962) ³⁴⁾
Hanford ²⁸⁾	1931	1?	Moore (1940) ⁴⁾ , Mihalyka (1962) ³⁴⁾
Kraissl and Stout ²⁹⁾	1933	1?	Moore (1940) ⁴⁾ , Mihalyka (1962) ³⁴⁾
Gill ³⁰⁾	1936	2	Moore (1940) ⁴⁾ , Mihalyka (1962) ³⁴⁾
Pratt ³¹⁾	1965	1	Hoffman (1960) ⁵⁾
Vichnar ³²⁾	1966	2	Leonard, et al. (1968) ⁹⁾
Purcelli ³³⁾	1967	1	Sisson and Summers (1972) ¹⁰⁾

月■日退院した。その後の経過にも異常なく、唾液の流出も正常であった。また、約6か月後の昭和54年1月■日の右耳下腺造影では陰影欠損像は全くみられず、異常像もなかった(図3)。

摘出物の肉眼的所見：摘出物は2.5×2×2 cm大の比較的薄い被膜を有するほぼ円形の単胞性の嚢胞で、穿刺により内部から5 mlの赤褐色の混濁した内容液が得られた。嚢胞内面には小顆粒状の隆起がみられ、黄褐色ないし赤褐色、ところにより多少淡青色を帯びた膜様物で覆われていた(図4)。

病理組織学的所見および診断：嚢胞の内面は2ないし数層の立方上皮で覆われ、上皮層内には粘液の分泌を思わせる空胞細胞様の所見も散見された。上皮下結合織内には多数のリンパ球を有するリンパ組織の集簇が著明であり、外層には薄い線維性被膜が存在していた。リンパ球の部分では嚢胞壁が厚く内方に隆起していた(図5)。リンパ組織は非常に密で、上皮下結合織のほぼ全層にわたっており、ところにより上皮層内にも浸潤像がみられた(図6)。また、上皮性細胞が嚢胞壁の比較的深部に向かって上皮脚様にのびているところもあり(図7)、また管状構造を呈する唾液腺上皮組織も散在していた(図8)。この腺組織は線維性被膜の内側にあるこ

とから嚢胞外の耳下腺組織とは考えられなかった。以上の組織学的所見からリンパ上皮性嚢胞と診断された。

内容液の生化学的分析：採取された内容液の生化学的分析結果と患者の血清および混合唾液の分析結果との比較は表1のごとくであった。すなわち、内容液のNaおよびClは血清に近い値であったが、Mgは唾液に近く、総酸性ホスファターゼおよびアミラーゼは明らかに血清より高値で、特にアミラーゼ値は6,200 IU/lで、唾液ほどではないにしても血清の約10倍以上の高い値であり、内容液が唾液由来の成分を含む可能性を示唆していた。

考 察

発生頻度：耳下腺内のリンパ上皮性嚢胞は極めてまれなものである。最初の記載はHildebrant (1895)¹⁾の20例の頸部嚢嚢胞中の1例で、その20例は同じ発生由来であったと報告されている。それ以来、われわれが渉猟した範囲では約70例が報告されているが、そのうち原著で確認されたのは54例で、そのうちの21例は症例報告として15の文献²⁻¹⁶⁾に記載され、33例は嚢嚢胞あるいは耳下腺疾患に関する5つの総説¹⁷⁻²¹⁾に記載されている。残り

約17例は13の文献^{1,22-33)}に記載されているものであるが、われわれは直接確認してはいない。そこで詳細を直接確認できた21例の概要を表2にまとめ、その他は表3に症例数のみをまとめた。

鰓嚢胞の好発部位は上側頸部に耳下腺内はまれである。Karlan ら²⁰⁾の32例についての統計では耳下腺部発生は4例(12.5%)となっているが、一般にはこれよりもはるかに低いとされており、Bhaskar and Bernier¹⁷⁾はAFIPにおける資料468例について検討して、耳下腺部に5例(1.1%)の発生を認めている。

一方、耳下腺疾患としても極めてまれなもので、Lathrop¹⁸⁾はLahey Clinicにおける耳下腺良性腫瘍と臨床診断された243例中、非腫瘍性のものが20例あり、うち10例が嚢胞で鰓嚢胞に属するものはそのうちの3例(1.2%)のみで、その3例は耳下腺の後縁および下縁に位置していたと記載している。Eneroth¹⁹⁾の統計も同様で、Karolinska 病院における耳下腺の腫瘍様疾患864例のなかに非腫瘍性嚢胞が20例あり、そのうち15例は停滞嚢胞、5例(全体の0.6%)が鰓嚢胞である。最近のRichardson ら²¹⁾の報告でも、耳下腺腫瘍の手術症例708例中、耳下腺内嚢胞は23例で、うち5例は停滞嚢胞であり、鰓嚢胞の基準に合致するのは16例(全体の2.3%)であった。

これら総説論文の統計には各症例に関する記載がないので、耳下腺腺体内のみでなく、その周辺に発生したものも含まれている可能性も考えられる。われわれの症例は位置的に明らかに耳下腺腺体内に発生した単胞性の嚢胞であった。

臨床的特徴：表2に示した21例の臨床的特徴を検討すると、患者の年齢は16歳より69歳までで、平均年齢は44歳であった。性別は男16例、女5例で、男性が女性の約3倍の頻度であった。左右別では右側が10例、左側が9例で、左右差はほとんどなかった。Černý and Mačák¹⁶⁾の4例中の1例は左右別が不明であるが、20例は片側性で、両側性はMoore⁴⁾の1例のみである。われわれの症例は27歳、女性の右側に発生したものであった。

臨床症状は耳下腺部の限局性腫脹が最も多く、治療前には耳下腺良性腫瘍と診断されるものが最も多い。通常は無痛性であるが、炎症を伴うと痛みが出現することもあり、排膿を伴う瘻孔がみられた症例も古い文献³⁾には報告されている。顔面神経麻痺は通常みられないが、Miglets¹⁵⁾は治療前には顔面神経麻痺が存在し、手術後にそれが回復した1例を報告している。

治療：治療法は嚢胞のみの摘出に相当するものが9例、嚢胞を含めての耳下腺腺体の部分切除に相当するものが12例で、再発例は報告されていない。後者が比較的多いのは、治療前の臨床診断が耳下腺腫瘍とされることが多いためと考えられる。Mihalyka³⁴⁾は造影写真で両側の耳下腺に多数の小嚢胞がみられた症例が抗菌剤によ

る薬物療法と放射線照射で根治したと報告し、その由来は鰓原性であろうと考えている。しかしこの症例はそれを確認できる資料の記載がないので、鰓嚢胞であったかどうか疑わしい。

手術は顔面神経を損傷しないよう十分な注意を払うことが重要なポイントで、そのためには耳下腺切除術に準じて、今回われわれが行ったように、最初に顔面神経の本幹を確認し、次いでその分枝を確認しつつ次第に末梢に向かって剝離していくことが肝要である。しかし、顔面神経の分枝はしばしば不規則なことがあり、Leonard ら⁹⁾は耳下腺内鰓嚢胞の症例で、顔面神経が茎乳突孔の出口ですでに5枝に分枝していたことを報告し、このような症例があったことは、ほかにも同様の神経分枝の異常がある可能性を訴えて注意を喚起している。

病理組織学的所見：本嚢胞の内面は通常重層上皮で囲まれている。上皮の多くは扁平上皮であるが、ときには円柱上皮または立方上皮のこともあり、まれには線毛がみられることもある。21報告例の内訳は、扁平上皮が12例、扁平上皮の部分と円柱上皮の部分の共存が4例、立方上皮が2例、円柱上皮と立方上皮よりなるものが2例、円柱上皮が1例であった。扁平上皮層にはふつう角化はみられないが、Weitzner¹³⁾は角化重層扁平上皮の1例を報告している。また Sisson and Summers¹⁰⁾の例は杯細胞を含む多列線毛円柱上皮と低い立方上皮とからなっていた。われわれの症例では嚢胞上皮は数層の立方上皮であったが、一部には低層の扁平上皮様のところがあり、そこでは既往の炎症のためか基底膜が明らかでなく、リンパ球様細胞が上皮層内で浸潤しており、上皮細胞に変性像のみられる部分もあった。一方、上皮層の一部には分泌細胞を思わせる空胞細胞も散見され、また嚢胞壁の一部に管状構造を呈した唾液腺上皮が存在していたことが特徴的であった。

本嚢胞の組織学的特徴は嚢胞壁にリンパ組織の集簇がみられることで、この所見は鰓嚢胞と診断する重要な鑑別点とみなされている。集録された21例のなかには、Leonard らの2例⁹⁾のようにリンパ組織の有無についての記載のないものもあるが、他の19例に程度の差はあるがリンパ組織の集簇がみられ、そのうちの9例にはリンパ嚢胞の形成が認められている。Bhaskar and Bernier¹⁷⁾の468例の鰓嚢胞についての組織学的検索でも452例(96.6%)にリンパ組織の集簇がみられたと報告されている。われわれの症例でも、上皮下のリンパ組織はよく発達しており、リンパ嚢胞も多く、リンパ節様構造を思わせるものであった。

発生由来：この種の嚢胞は古来 branchial cyst (鰓嚢胞)、branchiogenic cyst (鰓原性嚢胞)、branchial cleft cyst, embryonal inclusion cyst, congenital lateral cervical cyst (先天性側頸嚢胞)、benign cystic lymph node, lymphoepithelial cyst (リンパ上皮性嚢胞)などのいろ

いなる名称で記載されている。このようにいろいろな名称が用いられているおもな原因は、この嚢胞の発生由来に関して種々の議論があり、統一した見解が得られていないことによると思われる。すなわち、本嚢胞は鰓弓原器の鰓溝（外胚葉性）に由来するものなのか、鰓嚢（内胚葉性）に由来するものなのか、そしてあとからリンパ組織により周囲を取り囲まれるようになったものであるのか、あるいはまた発生しつつあるリンパ節のなかに上皮性成分が封入されて発生したものであるのかなどの諸点が明らかでない。

この議論を耳下腺内のリンパ上皮性嚢胞の発生由来に限定しても同様である。すなわち、一般的には、鰓嚢胞の多くは第2または第3鰓溝に由来するもので、第1鰓溝に由来することは極めてまれであると考えられている。しかし、Frazer³⁵⁾は第1鰓溝の遺残の可能性を示唆して、これは耳管の下、口蓋帆張筋のうしろで、頸動脈および茎突咽頭筋の前方に位置すると述べている。Byars and Anderson³⁶⁾はこの考えをさらに発展させ、第1鰓溝の遺残は下顎角の後方、胸鎖乳突筋の前縁上半分で、舌骨の高さより上方の上頸部に瘻孔として存在することがあることから、耳下腺部にもこの遺残が生じうること示唆している。そこで耳下腺内の本嚢胞は第1鰓溝に由来すると考えた報告が多くみられる^{1,3,26,28)}。

このような鰓溝説に対して、Lecène は耳下腺内の本嚢胞の2例の報告で、その組織所見が胎児の扁桃組織に類似することを指摘し、扁桃は第2鰓嚢から発生する胎児組織の扁桃洞に由来することから、本嚢胞が第2鰓嚢に由来するものと考えている。この考えは本嚢胞にみられる上皮がしばしば円柱上皮や線毛上皮である点や、周囲に扁桃組織を思わせるリンパ組織がみられる点を説明するには好都合であるが、第2鰓嚢の遺残物が耳下腺内に存在する可能性があるかどうか疑問の残るところである。

Wenglowski³⁷⁾は一般に鰓嚢胞の上皮は第3鰓嚢由来で、その末端から胸腺および上皮小体が発生する胸腺咽頭管の遺残に基因すると考えた。この一般の鰓嚢胞の由来についての胸腺咽頭管説は Meyer³⁸⁾によって支持されており、その発生部位が舌骨より下方に位置する鰓嚢胞の由来の説明には有利であると思われる。しかし耳下腺内の本嚢胞の発生をこれで説明することは困難であり、集録した21例の症例報告でもこの説を支持する意見はみられない。

本嚢胞の嚢胞壁にみられるリンパ組織の由来に焦点を合わせた議論として、Albrecht and Arzt²⁴⁾は発生過程にある耳下腺内のリンパ節中に咽頭由来の上皮が迷入して発生すると考えた。一方、Warthin²⁷⁾は上皮もリンパ組織とともに咽頭壁より由来し、それらが耳下腺内に封入されて嚢胞が生じることを推測している。ところが、King³⁹⁾は一般の鰓嚢胞の由来に関しての鰓溝説、鰓嚢

説、胸腺咽頭管説を否定し、鰓嚢胞の発生はリンパ組織またはリンパ節と強い関連があること、その上皮成分はリンパ節内の内皮細胞に由来すること、そしてリンパ組織が胸腺に由来すると考えられる場合には嚢胞上皮は Hassall 小体に由来することなどを主張した。

Bhaskar and Bernier¹⁷⁾は、この King の考えをさらに発展させ、いわゆる鰓嚢胞のほとんどは胎生組織として発生途中で頸部リンパ節のなかに耳下腺組織が封入されて生じるものと結論し、その根拠として、(イ)嚢胞壁には96.6%にリンパ組織がみられ、86.1%に被膜下および髄質内類洞がみられリンパ節様構造を示すこと、(ロ)発生過程の耳下腺周囲リンパ節中に腺組織がみられることがあり、頸部リンパ節中にも同様の上皮性封入物がみられること、(ハ)上気道感染や歯性感染に伴ってしばしば嚢胞に炎症症状が生じるのは、その所属リンパ節となっていると考えられること、などをあげている。また、嚢胞の上皮が鰓弓原器由来とは考えられないことについては、鰓溝は胎生26日後に発生して32日から45日の間に消失し、頸部のリンパ節は胎生2か月以後に発生しはじめるが、3か月以前にはそれと確認できないことから、両者の発生には時間的なずれがあるとしている。一方、耳下腺は胎生45日頃に発生しはじめ3か月頃に発達するので、リンパ節の発達時期と一致し、しかも位置的にも極めて近い関係にあることから、リンパ節内に耳下腺組織が迷入する可能性が強いことを強調している。したがって、これらの嚢胞が鰓弓原器遺残由来とは考えられず、その名称も *branchial cyst* とすべきではなく、*benign cystic lymph nodes* あるいは *benign lymphoepithelial cyst* とすべきであると主張している。

しかし、Little and Rickles⁴⁰⁾は胎児組織および頸部廓清術のリンパ組織の検索から、また、Rickles and Little⁴¹⁾は149例の鰓嚢胞上皮の検索から、Bhaskar and Bernier のリンパ節内耳下腺組織封入説に疑問を提起している。すなわち、耳下腺内やその周囲のリンパ節内には確かに腺組織の封入を認めることがあるが、他の頸部リンパ節にはそのような例がみられない⁴⁰⁾。したがって上頸部に発生する鰓嚢胞についてはリンパ節内に耳下腺組織が封入されて生じる可能性はあるにしても、それよりも下方に発生する鰓嚢胞の大多数に Bhaskar and Bernier の説をあてはめるのは無理ではなからうかと結論している。

このようないわゆる鰓嚢胞の発生由来に関する諸説を考慮した上で、耳下腺内発生のリンパ上皮性嚢胞の由来を考える場合には、耳下腺内のリンパ組織あるいはリンパ節に耳下腺の一部が封入され嚢胞化したものと考えると、Bhaskar and Bernier の説が合理的であるように思われる。しかし嚢胞上皮は21報告例にみられるように多くは重層扁平上皮であり、一部は円柱上皮あるいは立方上皮、まれに線毛上皮がみられる例も報告されている。

耳下腺の終末部は一般に低円柱状ないし立方状の漿液細胞からなっており、介在部は扁平ないし低立方状の細胞、線条部および導管は円柱状の細胞からなるといわれる。ところが耳下腺の発生過程において、リンパ節内に耳下腺組織の一部が取り込まれ、その内部が嚢胞化してリンパ上皮性嚢胞が発生すると仮定すると、嚢胞化という新しい環境下で上皮は立方上皮あるいは扁平上皮に化生する可能性は考えられよう。しかしそれでも Rickles and Little⁴¹⁾が指摘するように、鰓溝あるいは鰓囊などの上位の鰓弓原器に由来する可能性も否定できないように思われる。したがってその発生由来は各症例ごとに異なっている可能性があり、必ずしも一律には論ぜられないように考えられる。

本症例の嚢胞の由来を考えると、耳下腺内にみられたこと、組織学的所見で分泌細胞を思わせる空胞細胞や嚢胞壁に唾液腺上皮組織がみられ、リンパ組織もよく発達していたことなどは、Bhaskar and Bernier の推測することくリンパ節あるいはリンパ組織内に耳下腺上皮の一部が封入され嚢胞化した可能性を暗示するものといえよう。また嚢胞内容液の分析で高いアミラーゼ活性がみられ、内容液中に唾液由来の成分を含む可能性が示されたことは上述の仮定を支持する所見といえる。しかし、摘出されるまで上皮細胞が積極的な分泌作用を営んでいたことを示す組織学的所見はなく、また、嚢胞発生過程で唾液様物質を分泌していたと仮定しても、その内容液に長時間酵素活性が保持されるかどうか疑問のあるところであろう。

鰓嚢胞という名称は鰓弓原器由来を前提としたものであり、それに該当する症例もあるとは思われるが、どの症例にも通用する一般的名称としては必ずしも適当とはいえないので、その組織学的特徴を表現したリンパ上皮性嚢胞とよぶほうが適当であろうと思われる。このような傾向は最近の症例報告^{13,14)}にもみられている。本報告例の場合でも、その発生が鰓弓原器由来であることを積極的に否定することはできないが、その由来は明らかでないので診断名としてはリンパ上皮性嚢胞とよぶほうが適当であると思われる。

結 論

27歳の女性の右側耳下腺内にみられたリンパ上皮性嚢胞の1例を報告し、あわせて過去の報告例を集めて、発生頻度、臨床的特徴、治療法、病理組織学的所見および発生由来に関して文献的考察を行った。本例の嚢胞壁の組織学的所見および嚢胞内容液の生化学的分析結果は、その発生由来を考える上で興味あるものと思われた。

終わりに、本嚢胞内容液の生化学的分析に際しご協力いただいた歯学部付属病院検査部の金沢拓実学士に感謝

致します。

本報告例の概要は第113回日本口腔外科学会関東地方会において発表した。

引 用 文 献

- 1) Hildebrandt, O.: Über Angeborene Epitheliale Cysten und Fistula des Halses. Arch Klin Chir 49: 167 1895.
- 2) Sultan, G.: Zur Kenntniss der Halszysten und fisteln. Deut Zeit Chir 48: 113 1898.
- 3) Cunningham, W.F.: Branchial Cysts of the Parotid Gland. Ann Surg 90: 114 1929.
- 4) Moore, T.: Congenital Cysts of the Parotid Gland. Lancet (Jan 27): 168 1940.
- 5) Hoffman, E.: Branchial Cysts Within the Parotid Gland. Ann Surg 152: 290 1960.
- 6) Karlan, M.S., Pierce, M.K., and Smolin, A.: Branchiogenic Cysts in the Parotid Gland; Reports of Two Cases. Calif Med 99: 21 1963.
- 7) Sobieski, E.J., Kleinherz, R.J., and Metheny, J.A.: Branchiogenic Cysts Within the Parotid Gland. Arch Otolaryng 82: 395 1965.
- 8) Lentrodt, V.J.: Branchiogene Cysten im Bereich der Glandula Parotis, eine Anomalie der ersten Kiemenfurche. Deut Zahn Zeit 21: 1425 1966.
- 9) Leonard, J.R., Maran, A.G., and Huffman, W.C.: Branchial Cleft Cysts in the Parotid Gland; Facial Nerve Anomaly. Plast Reconstr Surg 41: 493 1968.
- 10) Sisson, G.A., and Summers, G.W.: Branchiogenic Cysts Within the Parotid Gland; Report of a Case. Arch Otolaryng 96: 165 1972.
- 11) 浅野 尚, 北村 武: 耳下腺腫瘍周辺の諸問題. 耳喉 44: 931 1972.
- 12) 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 1973.
- 13) Weitzner, S.: Lymphoepithelial (Branchial) Cyst of Parotid Gland. Oral Surg 35: 85 1973.
- 14) Stewart, S., Levy, R., Karpel, J., and Stoopack, J.: Lymphoepithelial (Branchial) Cyst of the Parotid Gland. J Oral Surg 32: 100 1974.
- 15) Miglets, A.W.: Parotid Branchial Cleft Cyst with Facial Paralysis; Report of a Case. Arch Otolaryng 101: 637 1975.
- 16) Černý, V.L., and Mačák, J.: Branchiogene Zysten der Parotis. Stomat. DDR 26: 130 1976.
- 17) Bhaskar, S.N., and Bernier, J.L.: Histogenesis of Branchial Cysts; A Report of 468 Cases. Am J Path 35: 407 1959.

- 18) Lathrop, F.D.: Benign Tumors of the Parotid Gland; A Twenty-five Year Review. *Laryngoscope* 72: 992 1962.
- 19) Eneroth, C.M.: Histological and Clinical Aspects of Parotid Tumours. *Acta Otolaryng* 191(suppl): 1 1964.
- 20) Karlan, M.S., Michel, S.L., and Snyder, W.H.: Branchiogenic Cysts: Congenital or Acquired. *Am J Surg* 110: 615 1965.
- 21) Richardson, G.S., Clairmont, A.A., and Erickson, E.R.: Cystic Lesions of the Parotid Gland. *Plast Reconstr Surg* 61: 364 1978.
- 22) Morestin, H.: *Bull Soc anat Paris* 4: 709 1902. (4) より引用)
- 23) Lecène, P.: Adénomes et Kystes de la Parotide. *Rev Chir Orthop* 37: 1 1908.
- 24) Albrecht, H., and Arzt, L.: Papillare Cystadenome in Lymphdrüsen. *Frankfurt Z Path* 4: 47 1910.
- 25) Glass, E.: Über Ein Branchiogenes Papillares Cystadeno-Lymphom der Regio Parotidea. *Frankfurt Z Path* 9: 335 1912.
- 26) Mazza, S., and Ivanissevich, O.: Cysticus in Man. *Rev Asoc Med Argent* 35: 7 1922.
- 27) Warthin, A.S.: Papillary Cystadenoma-Lymphomatosum in Parotid Gland. *J Cancer Res* 13: 116 1929.
- 28) Hanford, J.M.: Tuberculosis of Cervical and Axillary Lymph Nodes With Erythema Induration of Neck Region. *Ann Surg* 94: 464 1931.
- 29) Kraissl, C.J., and Stout, A.P.: Orbital Inclusions-Cysts-Cystadenomas of Parotid Gland. *Arch Surg* 26: 485 1933.
- 30) Gill, E.G.: Cysts of the Neck. *Virginia Med Monthly* 63: 482 1936.
- 31) Pratt, L.W.: Cystic Lesions of the Parotid Region. *J Maine Med Ass* 56: 21 1965.
- 32) Vichnar, M.: Congenital Combined Abnormality of the First Branchial Arch and Adjacent Estoderm in Two Children. *Cesk Pediat* 21: 261 1966.
- 33) Purcelli, F.M.: First Branchial Cleft Anomalies. *Amer Surgeon* 33: 785 1967.
- 34) Mihalyka, E.E.: Congenital Bilateral Polycystic Parotid Glands. *JAMA* 181: 634 1962.
- 35) Frazer, J.E.: The Nomenclature of Diseased States Caused by Certain Vestigial Structures on the Neck. *Brit J Surg* 11: 131 1923.
- 36) Byars, L.T., and Anderson, R.: Anomalies of the First Branchial Cleft. *Surg Gynec Obstet* 93: 755 1951.
- 37) Wenglowski, R.: Über die Halsfisteln und Cysten. *Arch Klin Chir* 100: 789 1913.
- 38) Meyer, H.W.: Congenital Cysts and Fistulae of the Neck. *Ann Surg* 95: 1 1932.
- 39) King, E.S.J.: The Lateral Lympho-epithelial Cyst of the Neck("Branchial Cyst"). *Aust New Zealand J Surg* 19: 109 1949.
- 40) Little, J.W., and Rickles, N.H.: The Histogenesis of the Branchial Cyst. *Am J Path* 50: 533 1967.
- 41) Rickles, N.H., and Little, J.W.: The Histogenesis of the Branchial Cyst II. A Study of the Lining Epithelium. *Am J Path* 50: 765 1967.