内容液が高いアミラーゼおよび γ -GTP 活性を示した
側頸部鰓原囊胞の2例

松本 憲・森下正明*・松村智弘*
北野栄一郎*・渡辺林三*

Cervical branchial cyst showing high activities of amylase
and γ -GTP of its content: Report of two cases

Ken MATSUMOTO・Masaaki MORISHITA*・Tomohiro MATSUMURA*
Eiichiro KITANO*・Rinzo WATANABE*

結 言

側頸部に腫脹をきたす疾患のうち、いわゆる鰓原囊胞はそのごく一部であるが、診断学的にはあまり問題とならず、主としてその発生学的見地から論じられており、その報告は口腔外科、外科、耳鼻科にわたっている。
最近われわれは側頸部鰓原囊胞の2例を経験し、その内容液について生化学的検討を加えたところ、非常に高いアミラーゼ活性と γ -GTP 活性を認めたので報告する。

症 例

症例 1
患者： 22歳 女性。
初診：昭和53年12月 日。
主訴：左側頸部の腫脹。
家族歴：特記すべき事項なし。
既往歴：昭和53年6月腎盂炎にて1週間加療を受けた。結核等他に特記すべき事項なし。
現病歴：昭和53年8月初旬、左顎下部から頸部にかけて急激に、開口障害もなく無痛性に腫脹をきたすも放置

表 1 囊胞内容液および血清の生化学検査値

	症例 I	症例 II
Na	128 (140)	123 (141) mEq/l
K	1.7 (3.7)	1.0 (4.3) mEq/l
Cl	105 (107)	94 (105) mEq/l
TP	2.5 (7.6)	3.1 (7.7) g/dl
Alb	1.1 (4.6)	1.4 (4.7) g/dl
A/G	0.8 (1.5)	0.8 (1.6)
GOT	14.6 (14.3)	497 (16.2) K.U.
GPT	2.0 (3.7)	7.0 (8.0) K.U.
γ -GTP	513 (3.8)	232 (32.0) mI.U./ml
ALP	5.6 (5.8)	2.3 (11.0) K-A.U.
Amylase	44600 (81)	68781(87) I.U./l

() 内は血清

していた。12月初旬、左下顎臼歯の治療のため受診した近医より紹介され当科を受診した。

現 症
全身所見：体格中等度、特記事項はない。
局所所見：左顎下部から側頸部で胸鎖乳突筋上部前縁に57×68 mm の境界比較的明瞭な腫瘍を認める。硬度は弾性軟で周囲組織との癒着はなく、波動を認める。圧痛はなく顎下リンパ節は触知しない(写真1)。
口腔内所見：異常は認めない。
臨床検査所見：血液・尿検査および血清生化学検査で異常は認めない。心、肺機能も異常はない。唾液腺造影では、腺全体がやや内側で前方に圧迫された感じがあり、外側後部に filling defect (?) がみられた(写真2)。穿刺によりミルクコーヒー色の比較的漿液性内容液を吸引し、生化学的検査で高アミラーゼ活性と高 γ -GTP 活性を認め(表1)、またその細菌培養検査は陰性であった。
臨床診断：左側側頸囊胞(鰓原囊胞)。

島根医科大学医学部附属病院 歯科 口腔外科 (主任：吉村安郎教授)
* 大阪大学歯学部第2口腔外科学教室 (主任：作田正義教授)
Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Shimane Medical University (Chief: Prof. Yasuro Yoshimura)
* The Second Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Osaka University Dental School (Chief: Prof. Masayoshi Sakuta)
受付日：昭和56年2月2日

写真1 症例1の顔側面

写真2 顎下腺造影で一部欠損を認める

写真3 症例1 摘出物(上)とその断面(下)

写真4 症例1 嚢胞壁
一部に胚中心を認める (H-E 染色, ×100)

手術所見：昭和54年2月■日，全麻下で摘出手術を施行した。左下顎下縁より3 cm 下方で下縁に平行に切開し，広頸筋を排し，胸鎖乳突筋前縁で内頸静脈の外側に存在する嚢胞に至り，これを一塊として鈍的に摘出した。索状物は認めなかった。

摘出物肉眼的所見：6×4.5×4 cm の卵球形の嚢胞で表面は平滑であるが，壁の厚みは均一でなく，内面は皺壁を有していた(写真3上，下)。

病理組織学的所見：嚢胞壁は collagenous な結合織よりなり，内腔側は薄い重層扁平上皮で被われ角化が認められた。上皮下結合織には多くのリンパ球を認め，胚中心を形成しているものも認められた(写真4)。

病理組織診断：鰐原嚢胞。

症例2

患者：■ 37歳 男性。

初診：昭和54年11月■日。

家族歴：特記すべき事項なし。

既往歴：小学校6年時に両側蓄膿症の手術。高校1年時に足の外傷で全麻下で手術。小児期と高校1年から3年にかけて喘息。

現病歴：昭和54年初め頃より右側下顎角部の腫脹を認め，某病院で穿刺吸引するも以後数回再発，その度ごとに20～35 ml の茶褐色，漿液性内容液を吸引したとのことであった。腫瘍が大きくなった時は，声が哽れたような感じがあったという。精査のため，当科へ紹介され受診した。

現症

全身所見：体格良，筋肉質で特記所見はない。

局所所見：右側下顎角部から側頸部で，胸鎖乳突筋前縁上方に約10×4 cm のびまん性の腫脹を認める。硬度は弾性軟であるが，波動は触れず圧痛もない。両側顎下リンパ節は小指頭大に触知するが圧痛はない。開口および嚥下障害なく，皮膚知覚異常もない(写真5)。

写真 5 症例 2 の顔側面

写真 6 症例 2 唾液腺造影 (左) と嚢胞造影 (右)

写真 7 症例 2 摘出物

口腔内所見：下顎右側智歯の抜歯創があり，治癒状態はやや不良。

臨床検査所見：尿酸の軽度上昇以外，血液，尿，血清生化学検査で異常はない。穿刺によりミルクコーヒー色の漿液性内容液を吸引。結核菌も含め，細菌培養検査は陰性であった。内容液の生化学的検査で，高アミラーゼ活性と高 γ -GTP 活性を認めた (表 1)。耳下腺，顎下腺造影では腫瘍との関係も認められず，穿刺部造影で下限を $C_4 \sim C_5$ の高さにおく境界明瞭な卵球形の不透過像を認めた (写真 6 左，右)。

臨床診断：右側側頸嚢胞 (鰓原嚢胞)。

手術所見：昭和54年12月■日，全麻下で摘出手術を施行した。右下顎下縁より 4 cm 下方で，下縁に平行に切開を加え，広頸筋下部，胸鎖乳突筋前縁に存在する嚢胞

写真 8 症例 2 嚢胞壁

上皮下に多数のリンパ球と胚中心を認める (H-E 染色， $\times 100$)

に至り下方よりこれを鈍的に摘出した。嚢胞は一部内頸静脈鞘に強く癒着し，また一部は内外頸動脈分岐部間を通り深部に至っていた。嚢胞内側上方においては，顎二腹筋内側を通る，また嚢胞外側下方において胸鎖乳突筋深部に至る索状物を認め，可及的に追及し結紮，切除した。

摘出物肉眼的所見：5.5×3.5×3.5 cm の卵球形の嚢胞で表面はほぼ平滑である。内面は皺壁状であり，所々に白い膿球様小腫瘍を有していた。また壁の厚みは均一ではなかった (写真 7)。

病理組織学的所見：嚢胞壁は薄い重層扁平上皮で被われ，上皮下組織は層状のリンパ組織よりなり一部には胚中心もみられた。肉眼的に「白い膿球様小腫瘍」としてみられた部分は，角化物を入れた小さな嚢胞様組織であった (写真 8)。

病理組織診断：鰓原嚢胞。

考 察

鰓原嚢胞について

鰓原嚢胞は Hunczowski¹⁾ により初めて記載され、Langenbeck²⁾ が最初に手術の報告をしたとされているが、側頸部に腫脹をきたす疾患のうち鰓原嚢胞の占める割合は比較的少なく、Skolnik ら³⁾ は2,348例の頸部腫瘍のうち鰓原嚢胞は30例(1.3%)であったと報告している。左右差および性差は認められず⁴⁾、主として20~30歳代で発症し、ときには80歳や生下時に発症を認めた例⁵⁾もある。

その発生部位は側頸部上方1/3~1/2で胸鎖乳突筋の前縁が多いが口腔粘膜⁶⁾や口腔底^{7,8)}、耳下腺^{9,10)}などでもみることがある。Bailey¹⁰⁾は嚢胞と頸動脈、胸鎖乳突筋との位置の関係からⅠ~Ⅳ型に分類しており、側頸部の鰓原嚢胞を論じる上で便利である。本症例Ⅰはこの分類によるとⅠ型で、他はⅢ型であった。

臨床症状としては通常無痛性に、比較的境界明瞭な波動性を示す孤立性腫瘍としてあらわれるが、側頸部でも深部に存在する Bailey のⅢ、Ⅳ型や耳下腺部に存在する場合には波動は触れにくい。稀にはあるが、症例2にもみられたように嘔声¹¹⁾や呼吸困難¹²⁾、声帯麻痺¹³⁾を起こしたり、耳下腺部では顔面神経麻痺をきたす¹⁴⁾こともある。

頸部に腫脹をきたす疾患との鑑別診断としては、まず悪性腫瘍の頸部リンパ節転移が最も多く、悪性新生物ではホジキン病、甲状腺悪性腫瘍、唾液腺悪性腫瘍など、良性新生物では唾液腺良性腫瘍、血管腫、リンパ管腫、脂肪腫などがある。炎症性疾患では非特異性のリンパ節炎、結核性リンパ節炎、伝染性単核症があげられ、その他非炎症性非新生物としての甲状腺疾患、甲状舌管嚢胞などが鑑別すべき疾患である。初めにも述べたように、頸部に腫脹をきたす疾患のうち鰓原嚢胞はごく一部であるが、その発症部位、臨床経過および臨床症状、穿刺による内容物の性状や嚢胞造影、唾液腺造影等により比較的容易に鑑別できるが、最終診断は摘出物の病理組織学的検索を要する。

鰓原嚢胞に特徴的な病理組織像として、壁の内面は多く扁平上皮であるが、円柱上皮、絨毛上皮のこともある。上皮下には96.6%という高率¹⁵⁾でリンパ組織が存在し、胚中心を認めることも多い。壁の外層は線維性結合組織よりなっている。本症例では2例とも扁平上皮よりなる嚢胞壁下にリンパ組織と胚中心を有していた。また、汗腺や皮脂腺を備えていることもある¹⁴⁾。唾液腺上皮や構造が認められることもある。上皮下にリンパ組織が認められることが特徴ではあるが、鰓原嚢胞に特異的なものではない。

発生由来については、本嚢胞が、branchial cyst, bran-

chiogenic cyst, branchial cleft cyst, lymphoepithelial cyst などと呼称されることからわかるように、いろいろな説がある。von Ascherson¹⁶⁾をはじめとする鰓原器由来説、顎洞由来説¹⁷⁾、Wenglowski¹⁸⁾による胸腺咽頭管由来説があり、またそれらのいずれからも起こりうるという Frazer¹⁹⁾の説がある。これら鰓原器由来説に対して King²⁰⁾、Bhasker ら¹⁵⁾は、嚢胞はリンパ節内に迷入(封入)した上皮に由来するものであり、branchial cyst というより lymphoepithelial cyst というべきだと主張しているが、Little ら^{21,24)}は、全症例でリンパ節内に耳下腺組織が迷入したと考えるのは無理だとしている。Maran ら²²⁾は綜説の中でそれぞれの説に対し反論を加え、リンパ節内封入上皮由来説を結論づけているが、Dr. Hutter が Karlan ら⁹⁾の論文の discussion で述べているように "must be careful not to fall into the trap of saying that since I do not believe this is the origin of the cyst, then that must be the origin" という言葉は傾聴に値する。さらに家系的にも発生をみる^{23,24)}ことも考慮すれば、同じようにみえる症例においても発生由来はおのおの異なっている可能性があり、また嚢胞と瘻では由来が違っているという方がよいのかも知れない。

嚢胞内容液について

内容液の生化学検査結果は2例とも類似し、電解質、蛋白は血清値より低い値を示した。しかしアミラーゼは2例とも血清値と比べて高い活性(550倍、790倍)を示した。アミラーゼ活性は副交感神経刺激剤、モルヒネ、ステロイド等薬物投与や、種々疾患で上昇するが、本症例において血清アミラーゼ値は正常であり、純粋に局所の上昇と考えざるを得ない。鰓原嚢胞内容液中のアミラーゼ値についての記載はほとんどなく、ただ1例、耳下腺内のリンパ上皮性嚢胞について最近報告⁹⁾をみるのみである。耳下腺部ではリンパ節中に腺組織が封入されることがあり¹⁵⁾、その症例でも嚢胞壁に一部唾液腺上皮組織と分泌細胞様の空胞細胞を認めているが、側頸部においてはリンパ節内に上皮組織が封入されていた例はなく²¹⁾、本症例でも唾液腺上皮は認め得なかった。アイソザイム測定は行っていないが、局所的高活性のアミラーゼが膵臓型とは考えにくく、組織学的検索で見出し得なかった部分に腺組織が残存していたか、または完全に分化していなくともアミラーゼを分泌しうる腺細胞が存在することが考えられる。

もう一方で高い活性を示した γ -GTP は腎、膵、肝などに多く分布し、臨床的には肝胆道系酵素といわれているが、一面 carcinoembryonic な性格を有することでも知られている。したがって branchial apparatus remnant 由来の可能性、もしくは腺上皮封入の可能性と関係があるかも知れない。特に症例2では fistulous (?) tract を有しており、鰓原器由来を思わせるにもかかわ

らず高アミラーゼ活性を示したことは唾液腺上皮の関与が十分に示唆される。

今後、いわゆる鰓原嚢胞について内容液のアミラーゼ活性および γ -GTP 活性を調べてゆけば、発生由来についての手がかりが得られるものと思える。

結 語

いわゆる鰓原嚢胞の発生由来についてはいままでも解剖学的、組織学的見地から論じられてきたが、確立はされていない。

今回われわれは側頸部に発生し、病理組織学的にいわゆる鰓原嚢胞と診断された Bailey I 型と II 型の 2 例につき、その内容液の生化学的性状を調べたところ、高いアミラーゼおよび γ -GTP 活性を認めた。今後の鰓原嚢胞の症例についても、両酵素の定量とアイソザイムの検討を行えば、鰓原嚢胞発生由来についての新しい手がかりが得られるものと思われる。

引 用 文 献

- 1) Hunczowski, J.N. (1789): 22) より引用。
- 2) Langenbeck, B.: Exstirpation einer Dermoidzyste von der Scheide der grossen Halsgefasse. Verwundung der Vena jugularis communis. Stillung der Blutung durch Compression. Heilung. Archiv für klinische Chirurgie I 25 1859. 22) より引用。
- 3) Skolnik, E.M., et al.: Swelling of the Neck. Arch Otolaryng 81: 150 1965.
- 4) 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.
- 5) Karlan, M.S., et al.: Branchiogenic cysts: Congenital or Acquired. Am J Surg 110: 615 1965.
- 6) 長谷川 清, 他: 口腔粘膜にみられたリンパ上皮性嚢胞の 2 症例について. 阪大歯誌 20(1): 59 1975.
- 7) Gold, C. and Levittown, N.J.: Branchial cleft cyst located in the floor of the mouth: Report of a case. Oral Surg Oral Med and Oral Path 15: 1118 1962.
- 8) Robins, R.B.: Sublingual branchial cyst; A case report. Laryngoscope 79: 288 1969.
- 9) 藤林孝司, 他: 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. 日口外誌 26: 141 1980.
- 10) Bailey, H.: The clinical aspects of branchial cysts. Brit J Surg 10: 565 1922.
- 11) 井上乃婦世, 滝口 馨: 鰓原嚢胞の 1 例. 口外誌 5: 162 1959.
- 12) 根本泰昌, 他: 呼吸困難を伴った鰓原性嚢胞の 1 例. 東京慈恵医科大学雑誌 82: 1106 1968.
- 13) 山川強四郎, 他: 神経障害を伴った側頸嚢腫の 1 例. 日耳鼻 62: 2564 1959.
- 14) Miglets, A.W.: Parotid branchial cleft cyst with facial paralysis. Report of a case. Arch Otolaryng 101: 637 1975.
- 15) Bhasker, S.N. and Bernier, J.L.: Histogenesis of branchial cysts. A report of 468 cases. Am J Path 35: 407 1959.
- 16) von Ascherson, F.M.: De fistulis colli congenitis adjecta fissurarum branchialium in mammalibus avibusque historia succincta. Bertolini, Apud C H Jonas 1832. 22) より引用。
- 17) His: 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 1966. より引用。
- 18) Wenglowski, R.: Über die Halsfisteln und Zysten. Archiv für klinische Chirurgie 98: 151, continued in 100: 789 1912.
- 19) Frazer, J.E.: The disappearance of the pre-cervical sinus. J Anat 61: 132 1926.
- 20) King, E.S.J.: The lateral lympho-epithelial Cyst of the Neck ("Branchial" cyst). Australian and New Zealand J Surg 19: 109 1949.
- 21) Little, J.W. and Rickles, N.H.: The histogenesis of the branchial cyst. Am J Path 50: 534 1967.
- 22) Maran, A.G.D. and Buchanan, D.R.: Branchial cysts, sinuses and fistulae. Clin Otolaryng: 3: 77 1978.
- 23) Enbom, H., et al.: Lateral fistulae and cysts of the Neck. Heredity and Diagnosis. Acta Otolaryngol Suppl 360: 64 1979.
- 24) Anand, T.S., et al.: Seven cases of branchial cyst and sinuses in four generations. Hum Hered 29: 213 1979.