比較的大きな鰓嚢胞の1例

樋田謙二郎・亀山嘉光・山田長敬

A case of large branchial cyst

Kenjiro HIDA・Yoshimitsu KAMEYAMA・Nagayoshi YAMADA

Abstract: Branchial cyst is a comparatively rare disease of embryological interest, which is considered to be originated from the embryonal branchial apparatus. This cyst, which occurs preferably at the cervix positionally adjacent to the jaw and the oral cavity, is often questioned on its correlation with odontopathies.

Recently, we have experienced a case of branchial cyst, which occurred at the right mandibular angle of a 20-year old woman.

The patient, who became aware of some swelling at her right mandibular angle with pyrexia three months before her visit to our department, was diagnosed as something like epidemic parotitis and submandibular gland cyst, and received several suctions and punctures without success at other department, and then came to our department where she underwent its total resection. At present, she shows good prognosis without relapse. Histopathologically, diagnosis was definitely made as branchial cyst.

In the present case clinical symptoms and findings in the resected specimens supposed that the pyrexia with unknown origin was partially responsible for the occurrence of the cyst. Subsequently, several suctions seemed to lead to the secondary infection, thus affecting the enhancement of the growth of the cyst. In terms of the differential diagnosis, We gave some literary considerations and reported above.

Key words: branchial cyst, lateral cervical cyst, tumors of the neck

緒 言 症 例

鰓嚢胞 (branchial cyst) は胎生期の鰓性器官に由来して生じると考えられ、発生学的に興味ある比較的な疾患である。

本嚢胞は多種類の原発性ないし続発性疾患の発生する頸部に好発し、この部が顎口腔の隣接領域に相当する関係から、しばしば歯科的疾患との関連を問われる場合がある。

今回、われわれは他科にて治療中、漸次増大傾向を示し、来科した本嚢胞の1例を経験したので、その概要を報告する。

患 者：20歳 女性。

初 診：昭和57年7月

主 訴：右側下顎角部の腫脹。

既往歴・家族歴：特記事項はない。

現病歴：昭和57年4月頃、発熱とともに右側下顎角部に腫脹を自覚したため某内科を受診し、流行性耳下腺炎の診断のもとに、抗生物質、消炎鎮痛剤などの投与を受けた。まもなく解熱したが、腫脹は縮小せず、このため某外科を受診し、顎下腺嚢胞と診断された。その後、2か月間通院にて数回の穿刺吸引を受け、一時的に腫脹の縮小をみるものの、再び増大するといった経過をくりかえしたため、当科を紹介され来院した。

現 症

全身所見：体格、栄養とも中等度で、特記事項はない。

九州歯科大学口腔外科学教室第1講座

(主任：山田長敬教授)

First Department of Oral Surgery, Kyushu Dental College (Chief: Prof. Nagayoshi Yamada)

受付日：昭和60年3月8日

写真 1 初診時ならびに3週経過後の術前顔貌所見

写真 2 摘出物所見

写真 3 病理組織所見（全割標本）

←肥厚部

局所所見：右側下顎角部内下方に、半球状、小児手拳大の腫瘤を認め、皮膚表面は平滑で健康色を呈していた。触診により腫瘤は弾性軟で、波動を触れ、圧痛を認めるが、皮膚との癒着はなかった。顎下ならびに頸部リンパ節は触知されなかった。

口腔内所見：開口障害、嚥下障害、呼吸障害など認められず、Wharton氏管からの唾液の流出も良好であった。

外来ならびに入院時経過：初診後3週目の術前所見では腫瘤は手拳大にまで増大し、頭部を直立させると腫瘤部付近に放散痛が生じるため、常に頭部を左側に傾斜させていた。なお唾液腺造影では異常はみられなかった（写真1）。

臨床検査成績：血液一般、血清生化学、尿検査などの結果は正常範囲内であった。

臨床診断：嚢胞の疑い。

処置ならびに経過：昭和57年8月、全麻下にて腫瘤の摘出術を施行した。手術は腫瘤中央部にあたる頸部横皺に沿って切開を加えた。すると広頸筋直下、胸鎖乳突筋の内側で内頸静脈との間に胸鎖乳突筋を押し上げるように存在している嚢胞に達した。嚢胞は周囲組織との癒着もなく、一塊として摘出でき、また上皮索状物も認めなかった。術後経過は良好で、術後14日目に退院した。

摘出物所見：嚢胞は大きさ 6.3×4.4×3.6 cm、重量 72 g の卵円形を呈し、表面は平滑、黄白色、弾性軟であった（写真2）。嚢胞は単胞性であり、壁は肥厚部と菲薄部とからなる不均一なものであった（写真3）。内容液は黄褐色の膿性粘稠液で、コレステリン結晶は認めら

写真4 病理組織所見 肥厚部弱拡大
(H-E 染色, ×20)

写真5 病理組織所見 肥厚部強拡大
(H-E 染色, ×100)

れなかった。

病理組織学的所見：嚢胞壁内面は上皮脚をもたない重層扁平上皮よりなり、その下層にはリンパ球を主とする軽度の細胞浸潤を伴った線維性結合組織がみられた。嚢胞壁の肥厚部ではリンパ性組織が発達し、胚中心を有するリンパ濾胞も認められた(写真4, 5)。

病理組織学的診断：鰓嚢胞。

考 察

上方を下顎骨下縁、下方を鎖骨で境される頸部は皮膚、筋、骨、軟骨、血管、神経、唾液腺、リンパ節など多様な臓器からなる生命維持には欠くことのできない生体の一部である。

この領域では従来より多種類の原発性ないし続発性疾患の発生することが知られており、日常臨床では頸部腫瘍といった型でよく遭遇する。しかし頸部に発生するこれらの腫瘍形成性疾患における鰓嚢胞の発生率は低く、Marshall ら (1957)²⁾ は 374 例中 11 例 (5.0%)、根本ら (1968)³⁾ は 85 例中 1 例 (1.2%)、藤本ら (1971)⁴⁾ は 792 例中 13 例 (1.6%)、植草ら (1971)⁵⁾ は 284 例中 21 例 (7.4%)、福田ら (1977)⁶⁾ は 760 例中 8 例 (1.1%)、伊藤 (1979)⁷⁾ は 348 例中 11 例 (2.9%) と報告している。しかもいずれの調査報告も頸部疾患に直接携わる外科、耳鼻科からのもので、口腔外科領域からの報告例をみるに、渉猟しえた範囲でもきわめて少なく、頸部の隣接領域である顎口腔領域を担当するわれわれにとってはまれ

な疾患といえよう。

本嚢胞の成因については古くから、胎生期における鰓性器官の遺残、發育異常によると考えられているが、鰓性器官の構造とその消長が複雑であるため、本嚢胞の発生にも諸説がある⁸⁾。すなわち Ascherson (1832)⁹⁾ の外胚葉由来とする鰓溝説、Hammer (1905)¹⁰⁾ の内胚葉由来とする鰓嚢説、Wenglowski (1912)¹¹⁾ の胸腺咽頭管説、さらには Lorenz (1913)¹²⁾ の鰓溝性、鰓嚢性、胸腺性のいずれの可能性もあるとする折衷説がある。一方、これら鰓原説に対して、Bhasker (1966)¹³⁾ は口底、舌に発生した本嚢胞 24 例を報告し、腺上皮迷入説を主張している。したがって、このように病因論が 2 分されているために、本嚢胞の名称は、(1) branchial cyst, (2) branchial cleft cyst, (3) branchiogenic cyst,あるいは(4) lymphoepithelial cyst, (5) benign cystic lymphonode など種々の名称で呼ばれている。しかし現在では発生部位が一定でないこと、耳下腺と密接な関係のみられる症例が少ないこと、組織学的に嚢胞上皮の形態ならびにリンパ組織の量に違いがあることなどより、本嚢胞の一部にはリンパ節迷入によるものもあるが、大部分は鰓性器官に由来するとする Little ら (1967)¹⁴⁾、Rickles ら (1967)¹⁵⁾ の説が一般的である。

また嚢胞および瘻孔の位置と発生由来との関係についても諸説があるが、武宮 (1971)¹⁶⁾ によれば、第 1 鰓裂に由来するものは外耳道軟骨部に内孔を有し、顔面神経本幹と交叉する方向に耳下腺を貫いて走り、下顎角部付近の皮膚に開孔するか、その途中に嚢胞をつくる。第 2 鰓裂由来のものは胸鎖関節付近に外孔を有し、広頸筋を貫いて、胸鎖乳突筋前縁に沿って上行し、舌骨大角付近で内外頸動脈間を通過して、頸2腹筋の下に出てから後内方に曲がり、舌咽神経と舌神経の間を通り、茎突舌骨筋、茎突咽頭筋と交叉して口蓋扁桃上皮で内孔となるか、嚢胞を主に下顎角後方につくる。臨床的にはこの型のものが圧倒的に多い。第 3 鰓裂由来のものは胸鎖乳突筋付近に外孔を有し、内頸静脈の内側で迷走神経の外側

を上行し、舌下神経を越えて内方に曲がり、咽頭の梨状陥凹に内孔となるとしている。

Bailey (1922)¹⁷⁾ は臨床的に、頸部水平断による頸部臓器との位置関係から本嚢胞を次の4型に分けている。

I型：胸鎖乳突筋の前縁で、筋膜のすぐ下にあり、表在性のもの。

II型：最も一般的で、内頸静脈に種々の形で癒着しているもの。

III型：咽頭側壁に向かって内側に拡がり、内外頸動脈の間にあり、ときに第1頸椎、頭蓋底にまで侵入しているもの。

IV型：咽頭壁の近くで、頸動脈の内側にあるもの。

今回、われわれが経験した症例は臨床的にはBaileyのII型に属し、解剖学的位置より推察して、第2嚢裂由来のものと思われる。

本嚢胞の臨床症状は、下顎角下方で、胸鎖乳突筋前縁部付近に好発する突発性、無痛性の発熱を伴わない腫脹であり、一般的にはある程度増大するか、2次感染を来たして初めて発見される場合が多い。しかしときには発熱、疼痛、咽頭痛、肩こり、嚥下痛、呼吸困難、喉頭圧迫などの先駆または随伴症状のみられることもあるといわれ、診断に支障をきたす場合も少なくない¹⁸⁾。Sedgwickら(1952)¹⁹⁾、Gelfmanら(1969)²⁰⁾は嚢胞発現の誘因として上気道感染や外傷をあげているが、本症例においても腫脹出現に先行して原因不明の発熱がみられた。

発症年齢について、Conway (1955)²¹⁾、Bhaskerら(1959)²²⁾は一般に20~30歳代の間に好発するとしているが、まれに新生児に認められた症例²³⁾や84歳の高齢者に発現した症例²⁴⁾も報告されていることから、本嚢胞発生と年齢差はとくにないと考えるのが妥当であろう。

性差、左右差については各報告者によりまちまちで、一定の傾向をみることはできない^{15,18,22,25,27)}。

摘出物の大きさは過去、径3~5cm大のものが多く報告されているが、本症例では6cm以上もある比較的大なるものであった。

嚢胞内容物の性状は混濁した乳白色を呈するものが多く、なかにはコレステリン結晶を含む場合もある。また感染した場合には膿性、血性状態になるといわれている²⁴⁻²⁶⁾。

病理組織所見については、一般に嚢胞壁内面は外胚葉由来の重層扁平上皮、内胚葉由来の纖毛円柱上皮、あるいは両者の混合した上皮層よりなり、外面は線維性結合織より構成されている。そして嚢胞壁の多くはその上皮層基底膜直下にリンパ組織が存在し、Bhaskerら(1958)²⁸⁾は96.6%、Ricklesら(1967)¹⁵⁾は90.6%にリンパ組織を認めている。本症例の場合も結合織内に軽度の炎症細胞浸潤に加え、リンパ濾胞、胚中心などのリンパ組織が確認された。

嚢嚢胞との鑑別を必要とする疾患は、まず悪性腫瘍の

頸部リンパ節転移が最も多く、その他、甲状舌管嚢胞、類(表)皮嚢胞、結核性リンパ節炎、甲状腺腫、リンパ節腫瘍、頸動脈体腫瘍、脂肪腫、化膿性リンパ節炎、粘液貯留嚢胞、唾石症、耳下腺下部腫瘍、嚢胞性リンパ管腫、血管腫、粉瘤、線維腫などがあげられている。本嚢胞はその発生部位、臨床症状、臨床経過、穿刺による内容物の性状や嚢胞造影、唾液腺造影などにより比較的容易に鑑別できるという見解もあるが²⁹⁻³²⁾、先に述べたように頸部に腫脹をきたす疾患のうち嚢嚢胞はまれであることから、意外と見落されがちであり、摘出物の病理組織学的検索の結果、初めて嚢嚢胞と診断された報告もあり³³⁻³⁵⁾、本症例においても前医で、それぞれ流行性耳下腺炎、顎下腺嚢胞と診断されていた。

治療については、ときに切開、掻爬、穿刺吸引、硬化剤の注入など姑息的治療の行われる場合があるが、再発や2次感染の危険性が高く、一般的には全摘出が最良とされている³⁰⁾。しかし手術の際、頸動脈、内頸静脈、舌下神経、副神経などの血管神経系の損傷にも注意しなければならず、完全な摘出に成功するには十分な視野と慎重な剝離が必要である。本症例の場合、臨床経過ならびに摘出物所見などより、前医における穿刺吸引の結果、2次感染を惹起し、急速に増大したものと考えられる。したがって的確な治療を行う面からも術前の慎重な鑑別診断が望まれることはいうまでもない。

なお本症例は術後2年6か月を経過したが、現在再発もなく、経過良好である。

結 語

われわれは、20歳の女性で右側下顎角部に発生した嚢嚢胞の1例を経験し、若干の文献的考察を加え、その概要を報告し、先人の症例に加えた。

本論文の要旨は第37回日本口腔外科学会総会で発表した。

引 用 文 献

- 1) 小松武夫、羽石芳子：頸部腫瘍——診断の進め方——。耳喉 55: 757-768 1983。
- 2) Marshall, S.H. and Uram, H.: Tumors of the neck and parotid areas. Postgrad Med 22: 330-342 1957。
- 3) 根本泰晶、柳田卓三、他：呼吸困難を伴った嚢嚢胞の1例(抄)。慈医誌 82: 1106 1968。
- 4) 藤本吉秀、阿部秀一、他：頸部悪性腫瘍の問題点。外科診療 13: 1036-1042 1971。
- 5) 植草 実、米山桂八、他：頸部腫瘍の臨床診断。外科診療 12: 1123-1129 1971。
- 6) 福田和馬、芳村 剛、他：頸部腫瘍の臨床病理学的検討。外科診療 19: 1608-1613 1977。

- 7) 伊藤健次郎：頸部腫瘤の臨床診断。外科MOOK 7: 1-14 1979.
- 8) 相見賢治：先天性側頸部瘻管および嚢腫に関する考察。日耳鼻 69: 1919-1933 1966.
- 9) 8)より引用.
- 10) 8)より引用.
- 11) Wenglowski, R.: Über die Halsfisteln und Zysten. Arch Klin Chir 98: 151-207 1912.
- 12) Lorenz, H.E.: Das Branchiogene Karcinoma. Brus Beiter Z Klin Chir 85: 599-632 1913.
- 13) Bhasker, S.N.: Lymphoepithelial cysts of the oral cavity. Report of twenty-four cases. Oral Surg 21: 120-128 1966.
- 14) Little, J.W. and Rickles, N.H.: The histogenesis of branchial cyst. Am J Path 50: 533-543 1967.
- 15) Rickles, N.H. and Little, J.W.: The histogenesis of branchial cyst II. A study of the lining epithelium. Am J Path 50: 765-777 1967.
- 16) 武宮三三：側頸嚢腫および瘻，頭頸部腫瘍，第1版（北村 武編），医学書院，東京，1971，344-347頁.
- 17) Bailey, H.: The clinical aspects of branchial cyst. Brit J Surg 10: 565-572 1922.
- 18) 大谷 晃，古内一郎，他：先天性側頸嚢腫の2症例ならびに文献的考察。耳喉 44: 49-56 1972.
- 19) Sedgwick, C.E. and Walsh, J.H.: Branchial cysts and fistulas. Am J Surg 83: 3-8 1952.
- 20) Gelfman, W.E., Bennet, C.R., et al.: Branchial cyst. Report of a case. Oral Surg 28: 26-31 1969.
- 21) Conway, H.: The surgical treatment of branchial cysts and fistulas. Surg Gynec Obstet 101: 621-628 1955.
- 22) Bhasker, S.N. and Bernier, J.L.: Histogenesis of branchial cysts, A report of 468 cases. Am J Path 35: 407-423 1959.
- 23) Sinniah, D. and Somasundaram, K.: Lateral cervical cyst. A case of respiratory distress in the newborn. Am J Dis Child 124: 582-583 1972.
- 24) 高橋廣臣，武本欣他，他：頭頸部先天性嚢腫の3例。耳喉 44: 389-400 1972.
- 25) 安藤龍男，大熊孝徳，他：前後8回の切開排膿をくりかえした側頸部嚢胞の1例。口外誌 12: 150-156 1966.
- 26) 土田雅通：Branchial Cyst の1例。日口外誌 15: 128-131 1969.
- 27) 早坂 晃，白松幸爾：先天性頸瘻と頸嚢胞。外科診療 13: 1043-1053 1971.
- 28) Bhasker, S.N. and Bernier, J.L.: Histogenesis of branchial cysts. J D Res 37: 21 1958.
- 29) 本庄晋平，平岡尚三：先天性側頸嚢腫及び瘻の概観及び2症例について。耳鼻と臨床 2: 156-160 1955.
- 30) 朝倉昭人，藤林孝司，他：側頸嚢胞の3例。口科誌 18: 126-133 1969.
- 31) 板垣光信，手島貞一，他：側頸嚢胞の1例。口科誌 24: 93-100 1975.
- 32) 杉山忠正，福田広志，他：鰓原嚢胞の4例。日口外誌 22: 121-128 1976.
- 33) 前田健一郎，井上悦邦，他：慢性顎下腺炎を伴った鰓嚢胞の2例。口科誌 29: 366-371 1980.
- 34) 松田 登，大久保滋郎，他：上顎骨肉癌の転移を思わせた鰓原嚢胞の症例。口科誌 27: 309-313 1978.
- 35) 長谷川 清，谷岡博昭，他：顎下部にみられたいわゆる“鰓嚢胞”の1例。阪大歯学誌 21: 260-263 1976.