上頸部に見られた側頸嚢胞の1例

上野 泰之・中島 嘉助・伊田 正道
辻 龍雄・福田てる代・篠崎 文彦

Case report of the lateral cervical cyst originating on the upper cervical region

Yasuyuki UENO・Kasuke NAKASHIMA・Masamichi IDA
Tatsuo TSUJI・Teruyo FUKUDA・Fumihiko SHINOZAKI

Abstract: Lateral cervical cyst is a rare disease occurring in the head and neck region. The highest percentages of cases occur in the 20~40 year age bracket.

Although, over the years, many theories have been put forward for discussion, no agreement has been reached as to the origin of this disease.

Clinically this disease is usually called "Branchial cyst" or "Lympho-epithelial cyst". This time, we dare to call it "Lateral cervical cyst" from the view of anatomical point.

This disease generally exhibits a benign nature, but in rare cases it degenerates into a malignant tumour.

Recently, we experienced a case of a comparatively large lateral cervical cyst from the angle of mandible to the lateral cervical region. The cyst was extirpated completely under N.L.A. modified general anesthesia.

About one and a half years after the operation no recurrence or malignant degeneration has appeared.

Key words: lateral cervical cyst, branchial or lympho-epithelial cyst, benign disease

緒 言 症 例

先天性側頸嚢胞は頭頸部領域に発生する比較的まれな疾患で、その発生機転については、嚢胞壁の胎生学的、病理組織学的検索あるいは嚢胞内容物の生化学的分析などより多くの説が報告されているが、いまだ確定していません非常に興味深い疾患である。

今回、われわれは成人男子の側頸部に発生した比較的大きな先天性側頸嚢胞の1例を経験したので、若干の考察を加え報告する。

患 者： 26歳 男性。

初 診：昭和60年10月 日。

主 訴：左側頸部の腫瘍形成。

現病歴：昭和60年3月頃より、左側頸部のび慢性腫脹に気づいたが、他症状はないため放置。9月頃より著明な増大傾向が見られたため、10月 日、近医（外科）を受診し、試験穿刺の結果、同部より黄緑色の内容液 75 ml が吸引された。腫脹はいったん減退したが翌日には再度増大したため、歯性感染の疑いにて近医（歯科）を、ついで当科の紹介となった。

既往歴および家族歴：特記事項は認められなかった。

生活歴：喫煙20本/日、飲酒ビール2～3本/日。

現 症

全身所見：身長 173 cm、体重 61 kg、栄養状態は良好で、全体的には異常所見は認められなかった。

山口大学医学部歯科口腔外科学講座

（主任：篠崎文彦教授）

Department of Oral and Maxillo-facial Surgery,
Medical School of Yamaguchi University (Chief:
Prof. Fumihiko Shinozaki)

受付日：昭和62年3月6日

写真 1 初診時顔貌ならびに左側頸部腫瘍

写真 3 手術創ならびに摘出物

写真 4 摘出物 (黄赤色, 75×52×52 mm 大の嚢胞)

写真 2 頸部 CT 像

口腔外所見：左上頸部を中心とした約 85×80 mm の境界明瞭な弾性軟の腫瘍が認められた。腫瘍は波動を有するとともに左胸鎖乳突筋を圧排し、被覆皮膚は全体的に軽度の発赤を帯びていた。所属リンパ節は腫瘍のために触知不能であった。また腫瘍による頸部の運動障害は認められなかった。

口腔内所見：開口度は 52 mm で、顎運動障害、発音障害、その他の異常所見は認められなかった。

CT 所見：頸部 CT 像で嚢胞様物は、舌骨の軽度の右方偏位と喉頭の後方偏位を伴い、左胸鎖乳突筋の前内方に位置し、前後径は約 60 mm, 内外径は約 50 mm で、周囲組織との境界は明瞭なほぼ均一な厚径の皮膜を有し、内容も均質な CT 透過像を示す液様物質であることから、本症は嚢胞性疾患であると考えられた。

手術所見：昭和60年10月■日、NLA 変法全身麻酔下に腫瘍摘出術を施行した。すなわち顎下、頸部のT字切開線を設け、広頸筋を含む皮膚弁を形成し、下在組織を露出した。腫瘍は顎下腺、胸鎖乳突筋前縁に接し、下方は一部、同筋肉に被覆された様相を呈していたが、筋層とは疎性結合組織によって境界され、鈍的にこれを剝離し摘出した。摘出後は出血その他の異常所見も認められず、定位縫合にて手術を終了した。

摘出物所見：腫瘍は明らかに嚢胞で、弾性軟から軟の硬度と波動を触れ、表面は光沢を帯びた黄赤色を呈していた。穿刺により嚢胞内から乳黄白色のやや粘稠な液を約 100 ml 採集したが、特にコレステリン結晶などの含有は見られなかった。嚢胞壁は種々の厚径を有し、内面は全体的に淡赤色で、凹凸不整な皺壁様を呈していたが、各皺壁表面は半透過性小顆粒状物の集積が著明であった。

組織学的所見：嚢胞は錯角化を伴った重層扁平上皮と線維性結合組織により構成され、ごく一部で上皮の欠落、菲薄化による結合組織の露出が認められた。特に嚢胞壁全周に渉る上皮直下での多数のリンパ球集簇が特異的で、一部ではリンパ濾胞様の部も認められたが、これらの病

写真 5 摘出物断面 (内膜面の凹凸不整な皺壁様構造)

写真 6 病理組織像 (錯角化を伴った重層扁平上皮の陥凹部ならびに、粘膜下固有層のリンパ球の集簇およびリンパ濾胞様所見)

写真 7 病理組織像 (上皮下リンパ濾胞様部の拡大図)

態は上皮層の陥凹屈曲した部分でその傾向が強く、壁厚径の相違によるリンパ球集簇の様相に關しての変化はなかった。なお、皮膚付属器官、唾液腺、甲状腺組織などは認められなかった。

考 察

■ 本症は胎生期の鰓裂に由来する側頸部、顎下部、顎角部および口腔領域に発生する先天性嚢胞性疾患で、その発生機序が明瞭でないため一般的には側頸嚢胞と呼ばれることが多いのである。

本症の発生機序に関してはいまだ Barns¹⁾ などのようにリンパ節内の唾液腺組織に由来するという理論を中心とした論議が続けられているが、胎生期の鰓裂に由来をもとめる鰓原説と胎生期リンパ節内に迷入増殖した耳下腺上皮の嚢胞化説、すなわち腺上皮迷入説に大別される。鰓原説に關しては頸洞形成時の第二鰓弓癒着不全を原因とする鰓溝説²⁾、頸洞遺残説³⁾、第二鰓嚢の發育不全を原因とする鰓嚢説⁴⁾、第三鰓嚢に由来する胸腺咽頭管説⁴⁾、および以上のすべてが原因となるとする説⁵⁾が挙げられている。したがって、これら鰓原説者はその原因から本症を鰓嚢胞 (Branchial cyst)、鰓原嚢胞、鰓裂嚢胞などの呼称を用いている。

一方、Bhasker と Bernier⁶⁾ は本症 468 例の検索より鰓原組織は通常、胎生 26 日までは見られるが、32～45 日の間には消失するという事実、頸部リンパ節は胎生 2 か月後より發育を開始し胎生 3 か月までは、リンパ節としてではなく単なるリンパ芽細胞の集合体であるという理論的根拠より胎生期の鰓裂組織と頸部リンパ節の發育、消長時間のずれを中心命題として鰓原説を否定し、組織学的特徴などから本症がリンパ上皮性嚢胞の特徴を有すると共に、その呼称を用いるべきことを主張している。また、摘出嚢胞の形態的特徴は球形または紡錘型を呈し、その大きさについては筆者などの渉猟し得た範囲では本症例の 75×52×52 mm のものがほぼ他報告例^{2-4, 7-14)}と同等かわずかに大きいものであった。その組織学的特徴は重層扁平上皮、呼吸上皮すなわち多列纖毛上皮、円柱上皮などに裏装された嚢胞壁と粘膜下固有層内のリンパ球集簇を特徴としており、その比率は扁平上皮、90%、呼吸上皮、8%、両者が 2% で、時にはリンパ洞、胚中心様組織が見られることもあるといわれている。ただし、呼吸器系感染症、皮脂腺感染症などを原因とする急性発作をくり返したような症例では一部上皮欠損像を呈すると共に、肉芽ないし線維性結合組織の露出する症例も報告されている^{1, 9)}。本症例も感染の既往によると考えられる同様の所見が認められた。

また、Bailey¹⁰⁾ は本嚢胞を解剖学的発生位置より臨床的に 4 型に分類している。すなわち I 型は筋膜直下で胸鎖乳突筋の前縁に発現する型、II 型は筋膜直下で大血管の方向に拡大すると同時に、内頸静脈に癒着する型、III 型は咽頭側壁、すなわち内側に拡大し、内外頸動脈間に発現する型で、時には第一頸椎の側方から頭蓋底に進展する型、IV 型は頸動脈、咽頭壁間に発現し、咽頭壁に接

する型となっている。自験例は前述のごとく嚢胞下部は一部胸鎖乳突筋に被蓋されていたが、大部分は内外頸静脈間に胸鎖乳突筋前縁に接触し、血管系との癒着は認められなかったことより、Bailey の I 型に属するものと考えた。

つぎに嚢胞内容液についてであるが、一般的に感染の既往のない場合を除いて、透過性または不透過性、粘液性ないし漿液性のことが多くその組成に関しては特に Amilase 活性が高いことに意見は一致しているが¹²⁻¹⁴⁾、血清値に比較した総蛋白量、電解質量に関しては各報告者によって意見は異なる。また内容液の組成と本嚢胞の発生機序に関連するものとして、特に松本¹²⁾はアミノ酸の膜構造内への吸収と利用にあずかると考えられている膜局在 γ -GTP が Carcinoembryonic な性格を有することから鰓原性組織遺残の存在、または腺上皮封入体の可能性のあることを類推し、その質量が血清値のものに比較して高値であったことを報告している。なお樽沼⁴⁾は唾液腺および腺で形成される Amilase が高活性を示し、組織化学的には Amilase 分泌細胞の存在は確認し得なかったものの発生機序に関する腺組織の関与を類推している。

本症例では来院時までに感染の既往があり、内容液は不透明やや粘稠な乳黄白色膿汁様所見を呈していたため正確な検査結果を期待し得ず、その内容に関する記載が不能であった。本嚢胞の治療法は嚢胞の完全摘出が第一義とされるが、時に嚢胞の大きさ、発現場所、感染の既往などにより他組織との癒着、深部侵入のために嚢胞外組織すなわち外耳道、咽頭部、咽頭側壁粘膜、耳下腺浅葉、顎下腺などの剝離、摘出を余儀なくされる場合があるため、部位に応じた機能障害の発現する可能性を否定し得ない¹⁾。本嚢胞の予後に関しては通常、摘出後の再発例はほとんど認められないが、安藤¹⁴⁾は 8 回にわたる切開摘出手術を要した症例を報告している。

また本疾患は頻度的には非常にまれではあるが、時に嚢胞壁の変性によると考えられる悪性化、すなわち扁平上皮癌、時には粘表皮癌、絨毛上皮癌化することが報告されている^{1,15-17)}。頻度的には扁平上皮癌が多いとされるが、これらが原発性、すなわち鰓原組織由来のものか他臓器由来の頸部リンパ節転移性癌であるかは、その鑑別が非常に困難である。

したがって、癌化、再発などに対する十分なる注意も含めて長期の経過観察が必要であろうと考えられる。本症例では術後 1 年 4 か月を経過しているが、再発その他の異常所見は認めていない。

結 論

今回、26 歳、男性の左側頸部に発現した比較的大きないわゆる側頸嚢胞の 1 例を経験し、文献的考察を併せ行った。解剖学的な発現部位より Bailey の I 型に属し、線維性結合組織内にリンパおよびリンパ洞様組織の集集を特徴とする重層扁平上皮より構成されていた。しかしながら、その発生機序に関しては不明であった。

引 用 文 献

- 1) Barns, L.: Surgical Pathology of the Head and Neck. Marcel Dekker Inc, New York, 1985, p 1285-1292.
- 2) 板垣光信, 手島貞一, 他: 側頸嚢胞の 1 例. 口科誌 24: 93-100 1975.
- 3) 今井頼子, 早津良和, 他: いわゆる鰓原嚢胞の 2 例. 日口外誌 22: 585-588 1976.
- 4) 樽沼修二, 関 智浩, 他: 側頸部鰓嚢胞の 1 例. 日口外誌 31: 2462-2466 1985.
- 5) Frazer, J.E.: The disappearance of the pre-cervical sinus. J Anat 61: 132-143 1962.
- 6) Bhasker, S.N. and Bernier J.L.: Histogenesis of branchial cysts; A report of 468 cases. Am J Path 35: 407-423 1962.
- 7) 守谷友一, 菊地正明, 他: 口底部に発生した鰓原性嚢胞の 1 例. 日口外誌 24: 331-366 1978.
- 8) 杉山忠正, 福田広志, 他: 鰓原嚢胞の 4 例. 日口外誌 22: 563-570 1976.
- 9) Ackerman, O.: Ackerman's surgical pathology. Mosby Company, St Louis, 1981, p 330-333.
- 10) Bailey, H.: The clinical aspects of branchial cysts. Brit J Surg 10: 565-572 1922.
- 11) 朝倉昭人, 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: 141-148 1980.
- 12) 松本 憲, 森下正明, 他: 内容液が高いアミラーゼおよび γ -GTP 活性を示した頸部鰓原嚢胞の 2 例. 日口外誌 27: 873-877 1981.
- 13) 山下佐英, 伊東隆利, 他: 耳下腺に発生した Branchial cyst の 1 例. 口科誌 26: 608-614 1973.
- 14) 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嚢胞の 1 例. 日口外誌 12: 150-156 1966.
- 15) 海野徳二, 奥田 稔, 他: 側頸部腫瘍症例—鰓原性癌と思われる 1 例. 耳喉 46: 425-429 1975.
- 16) 小野敬一郎, 柳沢繁孝, 他: 鰓原性癌の 1 例. 日口外誌 32: 1323-1327 1986.
- 17) 遠山良成, 松本光彦, 他: 左側上頸部に生じた扁平上皮癌の 1 例. 日口外誌 33: 184-189 1987.