臨 床 報 告

先天性頸部正中瘻の一例に就て

日本医科大学耳鼻咽喉科教室 (指導 大藤教授)

日本医科大学解剖学教室 (主任 横尾教授)

原 子 順

Jun Harako

先天性頸部正中瘻は W, His (1891) の研究により胎生期甲状舌管の残胎であることが明らかにされて以来数多くの研究がなされて来た。私は最近この症例に接したが、瘻管は舌骨体を貫通し舌盲孔に至る完全型でしかも舌骨の前後に於て多数に分岐していた。本邦の報告例の中でも完全型は少く、又かくの如く多数に分岐する例も珍しいので此処に報告し、併せて文献の考察を試み御批判を仰ぐ次第である。

症 例：29 歳 男 初診 昭和 29 年 5 月 10 日

現病歴：子供の頃より少量の漿液性分泌物があり、時には外口部周囲が湿疹状となる他特別の異状は認めなかった。

現症：頸部正中に於て甲状軟骨の少し上部に小孔あり、分泌物少量認める。其の他耳鼻には特別の異状は認めなかった。

診断：前記瘻孔より 40% モルヨドール約 1.5 cc

第 3 図

を注入すると口内に流入した。よつて左右位、前後位の X 線写真をとると、瘻管は舌骨を貫通し咽頭に入るのを認め、完全正中瘻なることを知つた。

手術所見：手術前に瘻孔よりピオクタニン 1.0 cc 注入し、他方口内よりこれの出づる部を見ると、舌根部と会厭軟骨部との丁度中間部に於てピオクタニンを認めた。

正中縦切開を加えピオクタニンの色を見て剔出してゆくと、図 3 の如く①の部は瘻孔が 1 本であるが、②の部に於ては 4 本程に分岐し、③の舌骨体にゆくと 1 本となり、舌骨中央稍上部に於て舌骨を斜に貫通し、④の部に至ると 5~6 本に分岐し、⑤の口内に於ては 3 本程に分岐している。

舌骨部の手術は先づ舌骨体を中央に於て切断して瘻孔ごと上部を切除した。

経過：手術の翌日は会厭軟骨は浮腫状、粘膜下出血様に強く腫脹し、舌骨部も同様に腫脹していた。又舌底部は粘膜下出血を認め、腫脹していたが、次第に軽減し手術後 11 日目で全治退院した。

組織標本：標本は図 3 の ①—②、④—⑤、の部に於てとり、ホルマリン固定、パラフィン及ツェロイデン包埋、ヘマトキシリン、エオジン染色で作製した。

①—② の部の横断所見では瘻孔管腔の大なるが 4 つ、それより小さいのが 3 個程ある。

大きな瘻孔の中でもその一つはやゝ成熟した扁平上皮で被われ、数個に分岐している。

この扁平上皮層は数層からなる厚いもので扁平上皮の基底膜部に於ては淋巴球の集密な浸潤がある。管腔には僅かな赤血球、剝離上皮が認められる。扁平上皮細胞は、やゝ成熟した部では核分裂が少数認められる。

瘻管の大部分の細胞は核の濃染せる基底細胞に相当する成熟度を示し、2—3 層乃至 5~6 層より成る。

或る管腔内には内容を入れてはいないが、ある部分に於ては瘻管の一部に於て高度に拡張し内に赤血球、少数の白血球、剝離上皮を充滿し、壁の上皮は 1~2 層の扁平細胞より成るものもある。周囲には厚層の白血球、プラズマ細胞の浸潤あり、纖維性細胞及新生毛細血管等を著明に認め、肉芽形成を伴う部もある。又或るものは壁の一部は扁平化した一層の上皮に掩われ、他部は 5~6 層から成る高円柱上皮で掩われる部がある。これ等瘻管の周囲には未分化な、管腔は処々高度に拡張した漿液腺を認める。なおこの部の舌骨寄りの標本からは甲状腺嚢胞状の横断面が認められ、この細胞の核は丸く横断ではかなり扁平になり、コロイド状の物質をふくんでいる。この像は甲状腺組織に最も近い。

④—⑥の間では筋肉層の中に瘻孔の横断面が 5 個ほどは縦に並び、これは周囲にやゝ厚い結合織を伴う。上皮は未熟な基底細胞に一致せる 1~2 層乃至 2~3 層の上皮より成り、成熟した扁平上皮は認められない。瘻孔上皮のある部は層の骰子状の上皮で掩われている。瘻孔周囲には高度の白血球、淋巴球の浸潤が認められる。粘液腺の分泌の増加を示し排泄管は高度に拡張している。

文献並びに考按

先天性正中瘻は 1789 Hunczowski が始めて 2 例を報告してより、Dzondi (1829), Aschersohn (1832), Luschka (1848), Christopher (1862), 等が臨床例を報告したが、1880 W. His の研究により胎生期甲状舌管の残胎により発生することが明らかとされた。其の後、Kostanecki 及 Milecki (1890), Wenglow-ski (1908) 等は解剖学的、胎生学的見地より詳細なる研究を行いこの説を証明している。

欧米に於ては本疾患に関する報告は稍々多く、He-usinger (1864) は 46 例、Cusset (1877) は 60 例、Fischer (1880) は 100 例、Kostanecki と Mielecki (1890) は 126 例、Christopher (1924) は 400 例を集めて報告している。我国に於ても多数の報告例があるが、執行は甲状舌管の発生に就ての詳細な研究を行い、従来の Schlange 法の改良手術を発表している。

統計的觀察に就ては、小清水は 48 例、境は其後発表された 23 例に就いて報告している。之等の文献を総括すると、

男女性別：小清水は男子 70.8%，女子 27.8%，境は男子 69% で女子の約 2 倍を占めいづれも男子に

多いことを証明している。

	男	女
小 清 水	70.8%	27.8%
境	69%	31%
その後の発表例	57.1%	42.9%

著者は其の後発表された 14 例に就て見たが、男子 8 例、女子 6 例で男子が 2 例多いのみであつた。

年令別：小清水・境の統計を表示すれば

	10歳以下	20歳以下	30歳以下	不 明
小 清 水	14.5%	43.7%	31.6%	2%
境	10.6%	31.9%	27.6%	17.0%

著者の見た 14 例に就ては 10 歳以下 4 例、30 歳以下 7 例、30 歳以上 2 例、60 歳以上 1 例、を認めた。即ち一般に青年期に多く老年期に少いことが示されている。

舌骨体との関係：甲状舌管と舌骨との位置の關係に就ては種々の議論がある、最初 His は甲状舌管は舌骨の後面を通過するものと主張したが、其後 Streck-eisen, 執行等は、舌骨は甲状舌管のまさに萎縮せんとする胎生 5 週の最初その後方より発生し来るものなるを知り、4 週半ばにして若し甲状舌管の消失せざる時は甲状舌管は舌骨の前面を通過するものとして His に反対した。其の後多数の研究家により、甲状舌管は舌骨体の前方を通過するもの最も多くして他を凌駕し、舌骨体後面を通過する例が之についている。小清水は舌骨前面を通過するもの 36%、舌骨後面に到るもの 33.3%、舌骨下面に附着して盲管に終るもの、30.6%、と称し、執行も其の 99% は舌骨前面を通過し後面を通過するは稀有であるとしている。しかし本例の如く舌骨を貫通し舌盲孔に至る例は極めて稀で五例を数うるのみである。

瘻管の分岐：張によれば Wenglow-ski は先天性正中頸瘻の多くは多房多岐にして、その管腔増加を起すことに就ては、管腔となる以前に内容充滿により拡張せられたる嚢腫が多数の突起状の枝を隣接せる組織内に送り、一朝内容排出せられ内圧減じたる時は、嚢腫は周囲より圧せられて皺襞状となり、この不規則なる小皺襞間腔は上皮細胞の増殖及内容の充滿により、次第に大なる管腔となつて多数を現すのであらうと述べている。しかし胎生期甲状舌管下部は多数に分岐して、その先端より甲状腺組織を形成し、甲状腺中葉を

第 1 図 左側位レントゲン像

第 2 図 前後位レントゲン像

第 4 図 ①-③ の部の瘻管

第 5 図 ①-③ の部に於る瘻管の横断面
上, 下に粘液腺が見える。

作るのであるから、始めから多数に分岐する傾向を有するのでないかとも考えられる。

本邦に於ては分岐例は非常に少く、執行、末広、原田の三例を見るのみで、後者2例はいづれも嬰兒に於てであるが、本例の如く成人にして舌骨前後に多数分岐する例はない。

分泌物：瘻孔を形成せるものは多く外部よりの感染により、粘稠にして、乳白色膿様となり、多数の多核白血球、上皮細胞、其の他を有する。他方穿刺液体は多く無色透明、粘稠にして僅かに上皮細胞、コレステリン、ムチン、磷酸等を証明される。

病理組織学的所見：多数の報告例の中でも瘻管壁は種々多様で、一定の所見は認められない。例えば、重層扁平円柱上皮、絨毛上皮、骰子状細胞、又之等の移行上皮や、之等の混合等様々で、中には甲状腺組織を認めた例もある。又西部は気管支系統組織を発見している。山脇、執行は「甲状舌管の本来の上皮は絨毛円柱上皮にして、之が種々の刺激により次第に扁平上皮に移行変形せるなり」と説明し、赤松は「斯くの如く種々の細胞層の存する所以は、甲状舌管は盲孔より入りて、重層扁平上皮を以て始り、次第に絨毛上皮にて覆われたる細管に分岐し、遂に甲状腺細胞に移行するを以てなり」と説明している。又佐藤は山脇、執行の説に反対して、「化生扁平上皮細胞は其の原形質内にグリコーゲン顆粒を有するものなるも、正中頸瘻管壁上皮細胞は之を有せざるを以て、之等の扁平上皮は円柱上皮細胞より化生せるに非ずして、独立的に生じたるものなり」と述べ諸説一定しない。

私の例に於ては主として未熟なる層の扁平上皮又は骰子状の上皮から成つて居り、大体諸家と同様の結果であるが、瘻管の舌骨前面よりの標本からは、未熟なる甲状腺組織を認めた。又グリコーゲン染色の結果は

瘻管上皮細胞はグリコーゲン顆粒を有せず、佐藤の説を支持するように思われる。

臨床症状：苦痛を訴うるものは殆どなく僅かに湿疹様発赤を起し痒痒感を訴うる程度で本例に於ても同様である。しかし鈴木は女性に於て頸部を絞扼せらるゝ如き不快感、呼吸困難ありて、妊娠時増悪し、女性性生殖腺と何等かの関係があるのではないかという症例を報告している。

結 論

29 歳 8 先天性頸部正中瘻の診断のもとに手術を行い、瘻管は舌骨体を貫通し舌盲孔に通じ、完全型にして、しかも舌骨の前後に於て多数に分岐せることを知り、なお組織標本からは未熟な甲状腺組織を認めた。

多数の報告の中でも完全正中瘻は稀にして、なおかくの如く多数に分岐する例も少いので報告し、併せて其の文献的考察を試みた。

稿を終るに臨み、御指導を戴いた大藤教授、並びに終始御校閲戴いた横尾教授に深甚なる謝意を表します。

文 献

- 1) 小清水邦夫：グレンツゲビート，(昭3) 3,363
- 2) 山脇章：日耳鼻咽会報，41，(6) 776 (昭10)
- 3) 中村博郷：海軍医会誌，26，(8) 643 (昭12)
- 4) 末広進：日整形会誌，13 (6) 577 (昭13)
- 5) 岡田利介：耳鼻咽喉科，12 (4) 321 (昭14)
- 6) 執行孝胤：日耳鼻咽会報，27 (6) 613 (大正11)
- 7) 佐藤猛：耳鼻咽喉科，5 (11) 980 (昭18)
- 8) 秦誠：耳鼻咽喉科臨床，37，493 (昭17)
- 9) 張温流：耳鼻咽喉科，16 (3) 160 (昭18)
- 10) 境太郎：日臨床外科医会誌，6 回(10) 561 (昭18)
- 11) 原田真夫：日整形会誌，21 (3) 47 (昭22)
- 12) 執行孝胤：耳鼻咽喉科臨床，42 (昭24)
- 13) 西部鮮之助：十全雑誌，49 (6) 1020 (昭19)