

症例報告 頸部膿瘍を反復した耳下腺鰓原性嚢胞の1例

1) 昭和大学頭頸部腫瘍センター

2) 昭和大学歯学部口腔外科学講座口腔腫瘍外科学部門

3) 昭和大学医学部耳鼻咽喉科学講座

榎橋 幸民*^{1,2,3)} 藤居 直和³⁾ 勝田 秀行^{1,2,3)}

池田賢一郎^{1,2,3)} 江川 峻哉^{1,2,3)} 齋藤 芳郎^{1,2)}

倉澤 侑也^{1,2)} 鴨志田慎之助^{1,2)} 北嶋 達也^{1,3)}

嶋根 俊和^{1,2,3)}

抄録：鰓原性嚢胞は胎生期の鰓溝性組織の遺残から発生し、比較的稀な疾患である。今回われわれは反復性の頸部膿瘍に対して耳下腺管造影により耳下腺管から交通する嚢胞性疾患が判明し、病理組織学的所見から嚢胞壁に線毛円柱上皮を認め鰓原性嚢胞と診断した症例を経験したので文献的考察を加え報告する。症例は13歳の男児で幼少期より左耳下部腫脹を繰り返していた。X年に近医より内服治療にて改善しないため当科を紹介され受診した。頸部造影CT検査にて左耳下部に膿瘍形成を認め、保存的治療にて改善したが約1年間で5回の膿瘍形成を繰り返した。原因検索目的で耳下腺管造影を施行したところ耳下腺管と交通する嚢胞性病変を認めた。小児の頸部膿瘍の原因として頸部リンパ節からの炎症が多いが、反復する耳下部の膿瘍には鰓原性嚢胞が鑑別として挙げられる。瘻管がはっきりと認められない場合は本症例のように耳下腺管造影と造影後のCT検査が有用であると考えられた。

キーワード：鰓原性嚢胞, 耳下腺嚢胞, 耳下腺腫瘍, 耳下腺管造影

鰓原性嚢胞は胎生期の鰓溝性組織の遺残から発生し、比較的稀な疾患である。今回われわれは反復性の頸部膿瘍に対して耳下腺管造影を行うことで耳下腺管から交通する嚢胞性病変が判明し、病理組織学的所見から嚢胞壁に線毛円柱上皮を認め鰓原性嚢胞と診断した症例を経験したので報告する。

症例提示

症例：13歳、男児。

主訴：左耳下部腫脹、疼痛。

既往歴：特記すべき事項なし。

現病歴：幼少時より感冒時に左耳下部腫脹が出現し、近医にて抗生剤の投与を受け改善していた。2011年5月より左耳下部腫脹が出現したため近医耳鼻咽喉科受診し、抗菌薬の内服治療を受けるも改善がみられないため当科を紹介され受診した。

初診時所見：左耳下部に著明な腫脹と発赤を認めた。口腔・咽頭内に異常所見はなく、耳下腺管開口

部から膿汁の排泄も認められなかった。その他の耳鼻咽喉科学的診察にて異常所見を認めなかった。

血液生化学検査所見：WBC：92.0×100 μl, CRP：1.78 mg/dl と軽度の炎症反応上昇を認めたが、アミラーゼの上昇は認められなかった。

頸部造影CT所見：左耳下腺下極付近に境界明瞭で周囲に造影効果がある低吸収域を認めた。周囲にリンパ節腫脹を認め、耳下腺内に石灰化像や明らかな耳下腺管の拡張像は認められなかった（図1）。

頸部超音波検査所見：左耳下腺下極付近に低エコー域を認め、周囲に著明なリンパ節腫脹を認めた。

経過：頸部リンパ節炎からの頸部膿瘍を疑い同日から入院加療を開始した。CTR_X 2g/日の点滴静注を開始し、超音波ガイド下に膿瘍の穿刺排膿を施行した。その後症状は速やかに改善し第8病日で退院となった。膿瘍からの細菌検査は陰性であった。2011年12月より再度左耳下部の腫脹が出現し、超音波検査を行ったところ膿瘍形成を認めたため再度

*責任著者

入院加療となり CTRX 2 g/日の点滴静注にて第5病日に退院した。膿瘍形成時に施行した頸部MRI検査では、耳下腺下極に前回膿瘍形成した部位と一致してT2強調画像で高信号の病変を認めた(図2a, b)。2012年3月にも膿瘍を形成したため、顆粒球減少症などの免疫学的異常も考慮し、免疫グロブリンや補体などの血液検査を行ったが明らかな異常所見は認められなかった。また腫脹消失時に行った頸部超音波検査では耳下腺や頸部に明らかな異常所見は認められなかった。血液検査でアミラーゼの上昇は認められなかったが、画像所見より耳下腺内の膿瘍も

否定できなかったため、耳下腺管の形態異常などを疑い耳下腺管造影を施行した。耳下腺管造影では耳下腺管末梢に耳下腺下極方向へと連続する拡張像と嚢胞性病変を認め(図3)、直後に施行した頸部単純CT検査では耳下腺下極に強く造影される嚢胞性病変を認めた(図4a, b)。2012年6月にも膿瘍形成を生じ入院加療となったため、若年者ではあったが手術治療を提示し同意を得たため2012年8月に病変部位の摘出術を施行した。

手術所見：全身麻酔導入後に左耳下腺管開口部からピオクタニン液を注入し手術治療を開始した。耳

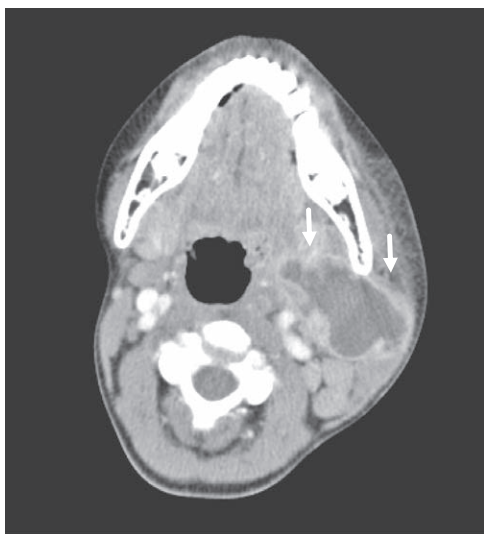


図1 頸部造影CT所見
左耳下腺下極付近に辺縁の造影効果を伴う内部低吸収域の病変を認めた(↓)。

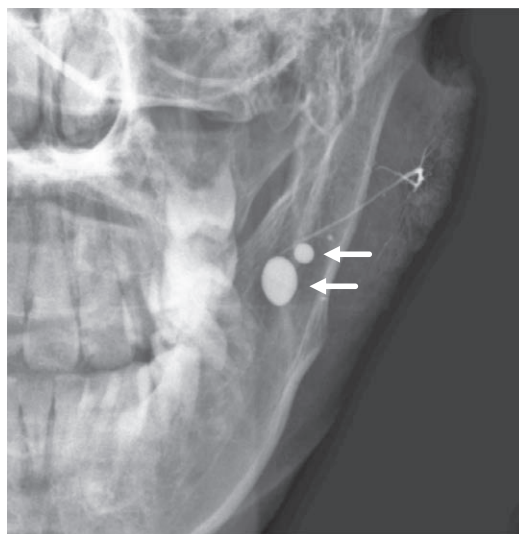


図3 耳下腺管造影所見
耳下腺末梢に嚢胞状に造影剤の貯留を認めた(←)。

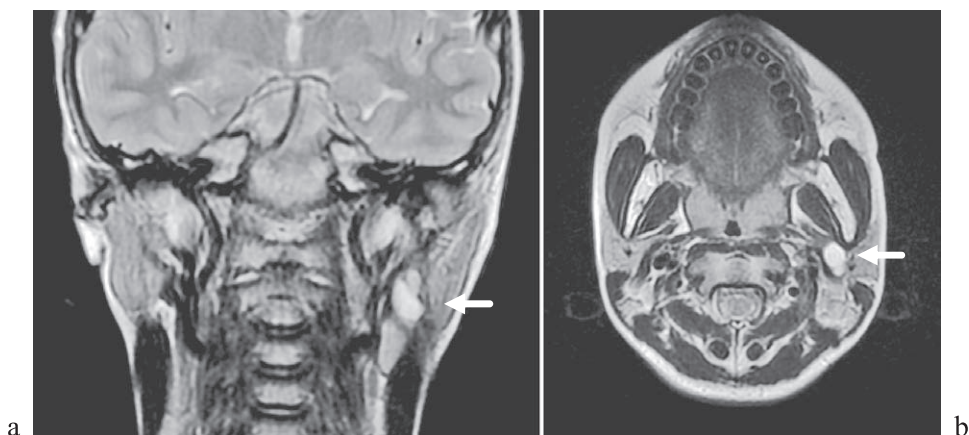


図2 頸部MRI T2強調画像
a：前額断 b：水平断
耳下腺下極付近にT2強調画像で高信号の嚢胞性変化を疑わせる病変を認めた(←)。

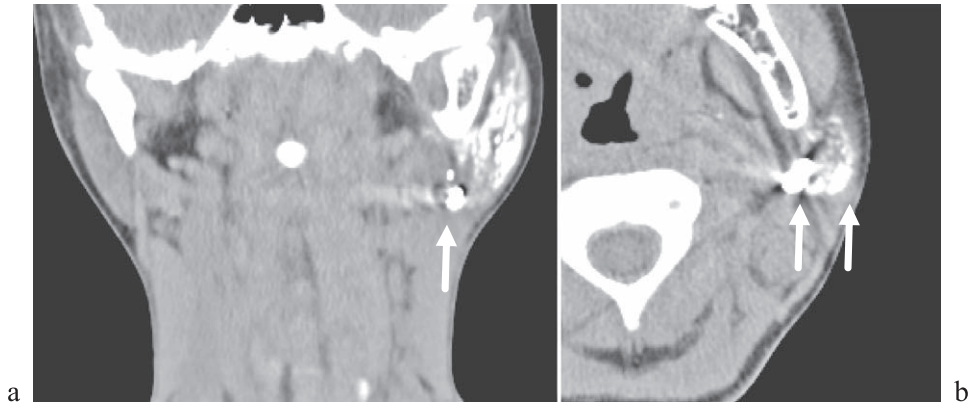


図 4 耳下腺管造影後の頸部単純 CT 所見

a: 前額断 b: 水平断

耳下腺全体の造影効果と下極付近に強い造影効果を伴った病変として描出された (↑).

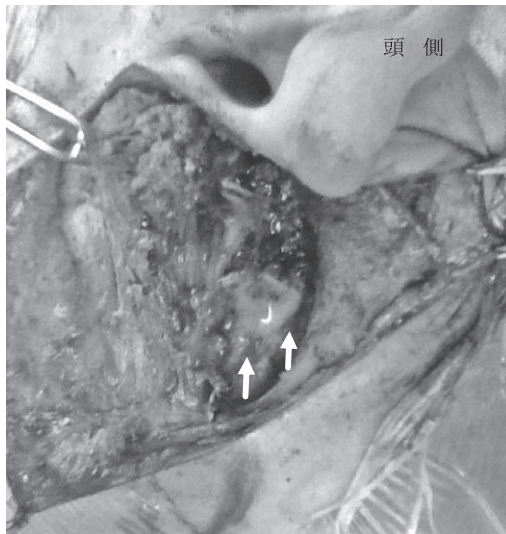


図 5 手術所見

耳下腺下極に嚢胞性病変を認め、内部よりピオクタニンの流出を認めた (↑).

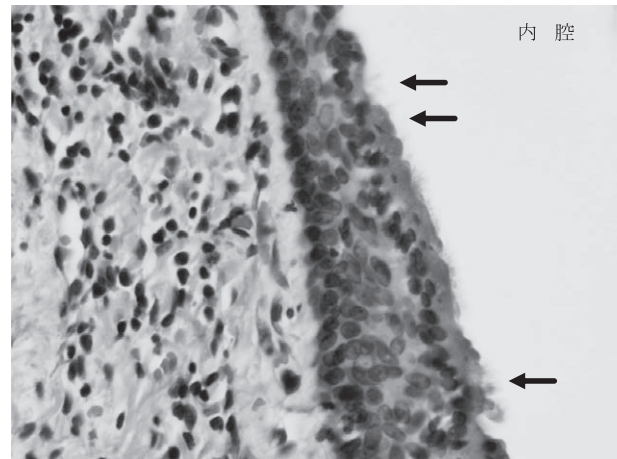


図 6 病理組織学的所見

嚢胞壁内に線毛円柱上皮を認めた (←).

考 察

下腺腫瘍摘出術に準じて S 字状切開にて皮弁を挙上した。耳下腺周囲は炎症により癒痕形成が著明であった。顔面神経本幹を同定し、周囲耳下腺組織から剥離した。顔面神経を末梢側へトレースし下顎縁枝下方の癒痕組織内に嚢胞性病変を確認した。内部からピオクタニンと膿汁の流出を認めた (図 5)。嚢胞は耳介軟骨と接していたが明らかな交通は認められなかった。顔面神経を温存し、耳下腺下極と嚢胞性病変を癒痕組織とともに一塊にして摘出した。

病理組織学的所見：嚢胞壁内に線毛円柱上皮を認めたため、耳下腺鰓原性嚢胞と診断した (図 6)。

小児の頸部膿瘍はリンパ行性経路でリンパ節内において膿瘍形成し、発症することが多いといわれている。小児期においては咽頭扁桃や口蓋扁桃などのリンパ組織が発達しているため^{3, 4} 歳以下の小児に頸部膿瘍が起りやすい¹⁾。病因は扁桃炎や歯根部の感染、唾液腺炎などが主である。治療法は穿刺排膿や原因菌が特定されるまでは広域スペクトルをもつ抗菌薬と CLDM を併用する。手術治療の適応は抗菌薬投与後 24 時間以内に改善のみられない症例や気道狭窄症状を伴う症例、ガス産生を伴う症例、筋壊死がみられる症例などが挙げられる²⁾。本症例

においては初診時に頸部リンパ節炎からの頸部膿瘍を疑い、穿刺排膿後に CTRX の点滴静注を施行し改善している。しかしその後も頸部膿瘍を反復したため、免疫学的な異常も疑い精査を施行したが明らかな異常所見は認められなかった。また頸部リンパ節炎を引き起こすような先行感染はなく、耳下腺下極の同様の部位に膿瘍形成を繰り返し生じることから耳下腺管の形態異常を疑い耳下腺管造影を施行した。その結果耳下腺管から頸部へ連続する瘻孔と嚢胞性病変を認めた。耳下腺の嚢胞疾患の鑑別としてはワルチン腫瘍、膿瘍、結核、貯留嚢胞、皮様嚢胞、腮原性嚢胞などが挙げられる。その中でも耳下腺腮原性嚢胞は Hildebrandt³⁾が報告して以来約 100 例の報告があるのみで、比較的稀な疾患である。腮原性嚢胞は瘻を伴わない頸嚢胞と瘻を伴う頸瘻に分けられ、頸瘻はさらに内瘻と外瘻に分けられる。両者を伴うものを完全瘻孔、一方のみのものを不完全瘻孔という。また第一腮裂由来では瘻であることが多く、第二腮裂由来では嚢胞が多いとされている^{1,2)}。腮原性嚢胞が耳下腺周囲部腫瘍において占める割合として Richardsan ら⁴⁾は 708 例中 16 例 (2.3%)、金子ら⁵⁾は耳下腺良性腫瘍中 1 例 (0.3%)、林ら⁶⁾も耳下腺良性腫瘍 115 例中 4 例 (3.5%) と報告している。当科では本症例を含め過去 9 年間に施行した耳下腺腫瘍 178 例中 2 例 (1.1%) であり、諸家の報告と同等であった。

第一腮裂由来の瘻孔は一般的に耳前部や耳後部に生じ耳下腺内を走行し外耳道に交通しやすく、内容物は粥状で扁平上皮であることが多い。第二腮裂由来のものは耳下腺浅葉の下極に多いとされ、嚢胞内は扁平上皮や円柱上皮などで覆われ、内容物は漿液から粘性とさまざまである。本症例の鑑別として唾石などによる耳下腺管閉塞に伴う貯留嚢胞、反復性耳下腺炎、線維索性唾液管炎、急性化膿性唾液管炎などの炎症による嚢胞形成、外傷による耳下腺管断裂後の唾液瘻などが挙げられる。貯留嚢胞は耳下腺管造影で末梢まで描出されており否定的であり、反復性耳下腺炎は耳下腺造影でウィナーソーソーゼ様の分節拡張を示すことが一般的であることから本症例とは合致しない。外傷に関しても明らかな機転は認められなかった。本症例においては第一腮裂由来か第二腮裂由来かは確定できないが、耳介軟骨に接し瘻管が耳下腺内を走行していたことや後天的に

耳下腺管と嚢胞が交通する誘因がないことなどから、不完全な内瘻が耳下腺管と交通した第一腮裂由来の嚢胞と考えられる。

腮原性嚢胞に対する画像検査として CT 検査と MRI 検査が有用とされている。MRI 検査は嚢胞や瘻管などの軟部組織を描出するのに優れており^{7,8)}、CT 検査では瘻管造影直後の CT 検査が有用であるとの報告がある^{9,10)}。瘻管がはっきりとしている症例に対して瘻管造影検査を施行している報告はあるが、本症例のように耳下腺管造影を施行している症例は渉猟しえた範囲では昔又ら¹¹⁾が 1 例報告しているのみであった。今回われわれが診断に難渋した点として、頸部造影 CT 検査や MRI 検査で瘻管の確認ができなかった点、腫脹消失時の頸部超音波検査で膿瘍形成部位に明らかな所見がなく、膿瘍の原因が特定できなかった点にある。本症例のように耳下腺管と嚢胞が交通した例は他の耳下腺腮原性嚢胞にもあると考えられる。明らかな瘻管がなく耳下部付近に反復する膿瘍形成を認める症例では耳下腺管造影と直後の頸部単純 CT 検査にて嚢胞と瘻管の位置関係が判断でき有用であると考えられる。

まとめ

頸部膿瘍を反復した耳下腺腮原性嚢胞の 1 例を経験した。耳下腺管と嚢胞が交通した例は他の耳下腺腮原性嚢胞でも生じえると考えられ、耳下腺付近に反復する膿瘍形成を認めた場合は耳下腺管造影と直後の頸部単純 CT 検査が重要である。

利益相反

本論文において利益相反は御座いません。

文 献

- 1) 渡辺哲生, 平野 隆, 鈴木正志. 小児深頸部膿瘍症例の検討. 日耳鼻感染症研会誌. 2007;25:79-83.
- 2) 市村恵一. 深頸部感染症の臨床. 耳鼻臨床. 2004;97:573-582.
- 3) Hildebrandt O. Ueber angeborene epitheliale Cysten und Fisteln des Halses. *Arch Klin Chir.* 1895;49:167-206.
- 4) Richardson GS, Clairmont AA, Erickson ER. Cystic lesions of the parotid gland. *Plast Reconstr Surg.* 1978;61:364-370.
- 5) 金子敏郎, 石川 哮, 内藤準哉, ほか. 口腔および唾液腺良性腫瘍. 耳鼻咽喉. 1977;49:849-855.

- 6) 林 歩, 河田 了, 東野正明, ほか. 第一鰓裂嚢胞および瘻孔の4例. 耳鼻臨床. 2005;98:979-983.
- 7) 平野 隆, 野田加奈子, 鈴木正志. 耳下腺腫瘍と診断された第1鰓裂嚢胞および瘻孔症例の2例. 口咽喉科. 2009;22:183-189.
- 8) 岸本 曜, 池上 聰, 庄司和彦, ほか. 第一鰓溝性瘻孔例. 耳鼻臨床. 2004;97:825-828.
- 9) 平海晴一, 田淵圭作, 北尻真一郎. Type II 第一鰓裂瘻孔例. 豊岡病紀. 1999;(11):87-90.
- 10) 和田匡史, 関 聡, 富樫孝文, ほか. 第1鰓嚢性瘻孔を伴った第1・第2鰓弓症候群例. 耳鼻臨床. 2007;100:745-751.
- 11) 菅又 章, 松村 一, 茂原 健, ほか. 耳下腺管と交通した耳下腺前部鰓原性嚢胞の1症例. 形成外科. 1995;38:289-293.

A CASE OF BRANCHIOGENIC CYST WITHIN THE PAROTID GLAND CAUSED BY A RECURRENT NECK ABSCESS

Yukiomi KUSHIHASHI^{1,2,3)}, Naokazu FUJII³⁾, Hideyuki KATSUTA^{1,2,3)},
Kenichiro IKEDA^{1,2,3)}, Syunya EGAWA^{1,2,3)}, Yoshiro SAITO^{1,2)},
Yuya KURASAWA^{1,2)}, Shinnosuke KAMOSHIDA^{1,2)}, Tatsuya KITAJIMA^{1,3)}
and Toshikazu SHIMANE^{1,2,3)}

¹⁾ Head and Neck Oncology Center, Showa University

²⁾ Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Division of Oral Oncology, Showa University School of Dentistry

³⁾ Department of Otorhinolaryngology, Showa University School of Medicine

Abstract — A branchiogenic cyst is a relatively rare disease which arises in the branchial tissue remnant during fetal life. We performed a parotid duct imaging examination, and a recurrent neck abscess was then identified as a cystic disease which communicated with the parotid duct. Here, we report the experience of a case of branchiogenic cyst diagnosed by histopathological findings which revealed ciliated columnar epithelium in the cyst wall. A 13-year-old boy had been suffering from repetitive swelling of the left parotid region since childhood. In May 2011, the 13-year-old boy was treated with oral treatment in a nearby hospital, but his condition was not ameliorated. He was referred to our hospital, and abscess formation in the left parotid region was found on contrast-enhanced computed tomography (CT) scans of the neck. His condition improved with conservative management, but abscess formation occurred 5 times in about one year. We performed a parotid duct imaging examination for investigation, and a cystic lesion which communicated with the parotid duct was identified. Most neck abscesses in children are caused by inflammation of cervical lymph nodes. In the case of the differential diagnosis of recurrent abscesses in the parotid region, we must consider the possibility of branchiogenic cysts as one of the underlying diseases, but when the fistula tract is not clearly identified, a parotid duct imaging examination and CT scans following the parotid duct imaging examination, as in the present case, seem to be effective.

Key words: branchiogenic cyst, parotid gland cyst, parotid gland tumor, parotid duct sialography

[受付: 5月9日, 受理: 5月23日, 2017]