

## Polycystic Disease に合併した上皮小体嚢胞の一例

川崎医科大学 内分泌外科

近藤 潤次, 原田 種一, 岡村 泰彦  
芝田 努, 川野 亮, 大浜 寿博  
中山 博輝, 園尾 博司, 妹尾 亘明

(昭和59年12月25日受付)

### A Parathyroid Cyst with Polycystic Disease: Report of a Case with Etiologic References

Junji Kondo, Tanekazu Harada  
Yasuhiko Okamura, Tsutomu Shibata  
Ryo Kawano, Toshihiro Oohama  
Hiroki Nakayama, Hiroshi Sonoo  
and Tsuneaki Senoo

Division of Endocrine Surgery, Department of  
Surgery, Kawasaki Medical School

(Accepted on December 25, 1984)

**Polycystic disease** に合併した上皮小体嚢胞の一例を経験した。症例は63歳, 女性, 前頸部の腫瘍を知人に指摘されるまでは, 前頸部の痛み, 圧迫感などの腫瘍による局所症状は認めなかった。腫瘍は, 超音波検査と穿刺吸引液中の検査で, 術前に **parathyroid cyst** と診断された。術前の腹部超音波検査で, 多嚢胞腎, 多嚢胞肝, いわゆる **polycystic disease** の合併が認められた。一般検査所見では, 軽度の肝機能, 腎機能障害を示したほかは, 血清ミネラル, 甲状腺機能検査を含む, 血清生化学検査は正常範囲内であった。この症例を報告し, **parathyroid cyst** の原因的考察と, **polycystic disease** との関係を中心に考察を加えた。

A case of parathyroid cyst associated with polycystic disease was reported. A 63-year-old housewife was referred to our clinic with a complaint of a mass in the left anterior neck. Echography showed a cystic pattern and needle aspiration revealed waterlike clear fluid with a high concentration of PTH. Therefore, a diagnosis of parathyroid cyst was made. Excision of the cyst was performed with general endotracheal anesthesia. The tumor was located in the left lower part of the thyroid gland. The wall of the cyst was extremely thin. During a preoperative examination, the polycystic disease of kidney and liver was accidentally discovered by echogram. Polycystic disease is generally considered to be the result of congenital developmental defects, and non functional parathyroid cysts are also considered to result from a similar type of defective embryological development. Although the exact nature and the potential relationship of these

cystic disease are unsettled, it should be emphasised that the parathyroid cyst may be related to polycystic disease.

Key Words ① Parathyroid cyst ② Polycystic disease ③ Congenital developmental defect

### はじめに

上皮小体嚢胞 (parathyroid cyst) は比較的まれな疾患と言われていたが、超音波検査、穿刺吸引細胞診などの診断法の進歩とともに、報告例が増加している。今回著者らは、いわゆる polycystic disease に合併した上皮小体嚢胞を経験したので、若干の文献的考察を加えて報告する。

### 症 例

症 例: 63歳, 女性。

主 訴: 前頸部腫瘍。

既往歴: 昭和22年, 左卵巣嚢腫摘出術を受けた。昭和51年, 高血圧による意識消失発作をみた。昭和53年, 子宮脱の手術を受けた。

現病歴: 昭和59年9月, 知人に前頸部の腫瘍を指摘され近医を受診し, 甲状腺嚢腫の疑いに

Table 1. Preoperative clinical state of the patient.

Laboratory values	Hematocrit (ml/dl) 39.2	
Red cell count ( $10^4/\mu\text{l}$ ) 445	Albumin (gm/dl) 4.3	
White cell count ( $10^3/\mu\text{l}$ ) 5.0	Bilirubin (T) (mg/dl) 0.5	
Total protein (gm/dl) 7.7	Alkaline phosphatase (I. U./l) 62	
$\gamma$ GTP (I. U./l) 16	S-GPT (I. U./l) 36	
Lactic dehydrogenase (I. U./l) 104	BUN (mg/dl) 18	
S-GOT (I. U./l) 40	S-Amylase (I. U./l) 234	
Uric acid (mg/dl) 7.8		
Serum Na (mEq/l) 137	K (mEq/l) 3.5	
Cl (mEq/l) 104	Ca (mEq/l) 4.5	
P (mEq/l) 1.7		
ICG test 13.4% (less than 10%)		
PSP test 15min-43%-58ml, 90min-57.9%-64ml		
Creatinine clearance 52.0ml/min		
	Blood	Fluid of the cyst
T3 resin sponge uptake (%)	27.5	44.5
T4 RIA ( $\mu\text{g}/\text{dl}$ )	9.4	less than 1.5
T3 RIA (ng/dl)	118	43
Free T4 (ng/dl)	1.82	less than 0.19
C-PTH (ng/ml)	less than 0.6	3727
Plasma renin activity		
while the patient rested (ng/ml/h) 1.23 (0.5~2.0)		
Physical findings		
Blood pressure: supine 170/120		
Pulse: 76/min regular rhythm		
Weight: 70kg		
Height: 152cm		

て同年10月8日当科に紹介され、超音波検査で cystic pattern がみられた。嚢胞の試験穿刺を行ったところ、無色透明な水溶液約10mlを採取し、上皮小体嚢胞が疑われたので、穿刺液の C-PTH を測定したところ、3727 ng/ml と異常高値を示したので、上皮小体嚢胞と診断、10月22日、腫瘍が再び増大したので手術目的で11月5日入院となった。

家族歴: 同胞中に polycystic disease を疑わせる既往はなく、姉妹の一人に対して超音波検査を行ったが、肝、腎に嚢胞はみられなかった。

入院時所見: 体格、栄養は中等度、黄疸、貧血は認めない。心肺に理学的に異常なし。腹部はやや膨隆しているが皮下脂肪のため、肝、脾、両側腎とも触れがたい。発汗異常なども認められない。前頸部腫瘍は、長径が左の胸鎖乳突筋内側縁中部、右の胸鎖関節より1cm上方にいたる楕円型で、硬さは軟、周囲組織との境界は明らかでなく、嚥下に伴って上下に動く。波動は明らかでなく、圧迫痛もない。

一般検査所見: PSP値、クレアチニンクリアランスがやや低下、血液生化学検査では、GPT 36 IU/l, GOT 40 IU/l, ICG 13.4% (10%以下) と軽度の上昇、BUN 18 ng/dl, UrA 7.8 mg/dl と正常上限を示したほかは、血清ミネラル、 $T_3$ RIA,  $T_4$ RIA 値および PTH 値も含めて正常域内であった。軽度の肝機能、腎機能障害が考えられた (Table 1)。

画像診断: 超音波検査, CT, 肝シンチグラム, 甲状腺シンチグラム, DIP を施行し、肝、腎に

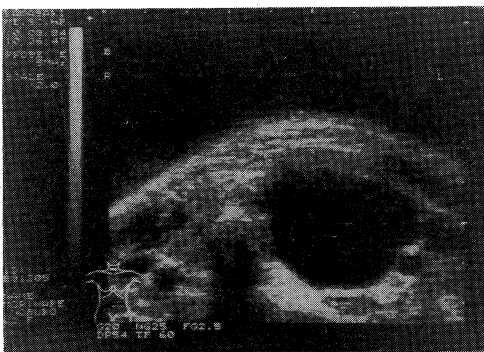


Fig. 1. Echography reveals a large cyst in anterior neck.

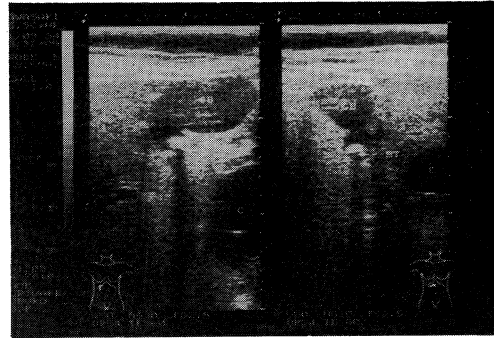


Fig. 2. Echography of the liver shows that the lesions are cystic, (C) and a stone in the gallbladder.

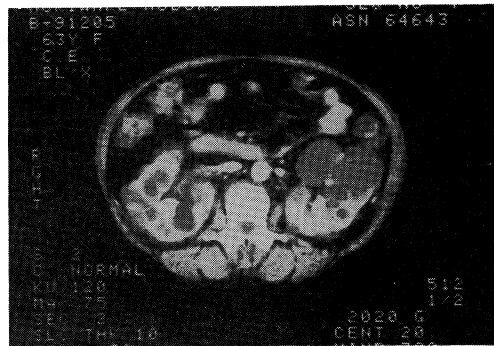


Fig. 3. CT of the kidney shows polycystic lesion.

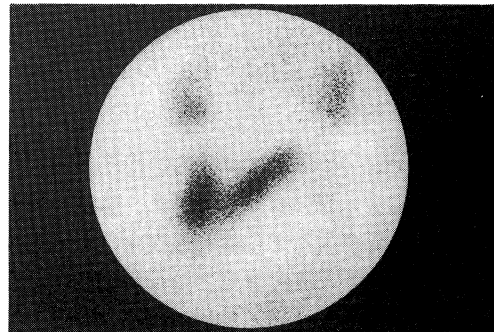


Fig. 4. A thyroid scan reveals lateral and upper displacement of the left thyroid lobe. ("V" sign)

多発性嚢胞を指摘できた (Figs. 1~4)。脾、肺には嚢胞は認めず、右の卵巣についても確認することはできなかった。

手術時所見: 左鎖骨より一横指頭側に約15cm 弓状切開を加え、左の胸骨舌骨筋を中間

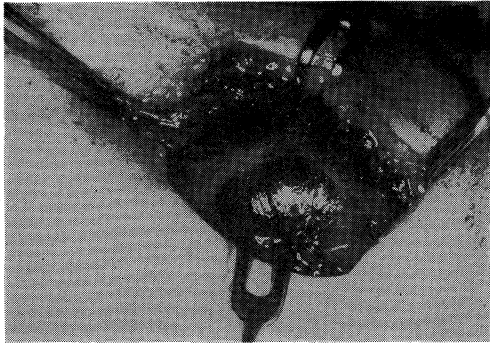


Fig. 5. Parathyroid cyst is located in the inferior pole of the left thyroid lobe.

で切離すると胸骨甲状筋を通して、嚢胞を容易に確認できた。嚢胞は甲状腺スキャン通り、甲状腺を左下方より圧迫していた (Fig. 5)。被膜は非常に薄く、内容液は前回穿刺時の液と異なり、濃いチョコレート色で粘液様であった。前回穿刺部に液の漏出によると思われる炎症性の癒着があり、摘出にやや困難を感じた。

病理組織学的所見：嚢胞壁内面を一層から数層に並ぶ扁平状から立方状上皮が被っていた。立方状細胞は微細顆粒状好酸性の少量の細胞形質をもつ上皮小体の暗主細胞であった。上皮直下の線維性間質の中には、透明主細胞と暗主細胞からなる正常上皮小体組織の小群が島状にみられた。

## 考 察

Polycystic disease に関する報告は多く、文献的には、肝、腎の嚢胞のほか、脾臓、肺、骨、卵巣、副睾丸などの嚢胞性変化の合併報告があり、<sup>1)~3)</sup> また脳動脈瘤との合併の報告も多くみられる。<sup>4), 5)</sup> しかし上皮小体嚢胞の合併を記載した報告はみられない。

多嚢胞腎に多嚢胞肝、脾嚢胞の合併する割合は、それぞれ、5~30%、4%という報告があり、<sup>1)</sup> また逆に、多嚢胞肝に腎嚢胞の合併する割合は38%~58%と報告がある。<sup>6)</sup>

肝の嚢胞性変化の発生機序については、Virchow らの炎症説をはじめ、Mcschowitz の迷

入組織の嚢胞状発育、Siegmund や Hipper の真性腫瘍説などがある。<sup>6)</sup> また腎嚢胞では、小児と成人の polycystic kidney では区別して考えられ、<sup>1), 2), 7)~9)</sup> Campbell は糸球体原器と後腎との結合不全説を、Osathanondh や Potter は微小解離説などを上げている。<sup>1), 2)</sup> さらに上皮小体嚢胞については、最近では非機能性のものと、機能性のものに分けて考えられており、<sup>10)</sup> 非機能性上皮小体嚢胞の発生機序は、(1) 上皮小体微小嚢胞が分泌物を貯えたり、癒合して大きくなる、(2) 上皮小体ホルモンの貯留嚢胞、(3) 腺腫の嚢胞性変化によるもの、(4) 頸部の胎生期遺残物 (第3, 4 頰嚢) からの発生などが考えられているが、<sup>10)~13)</sup> (4) の胎生期遺残説が大勢を占めている。Gilmour らは、ヒト胎児性上皮小体にある kürsteiner 管が遺残して嚢胞化し、また、kürsteiner 管は下上皮小体に多くみられるということを発表している。<sup>10)</sup> 著者らも、最近3例の上皮小体嚢胞を経験しているが、いずれも左下上皮小体にみられた。他施設での報告も左側下部が圧倒的に多く、これらも胎生期遺残説を指示するよう思われた。

このように発生機序については、多くの説があるが、どれも胎生期からの変化や、遺伝的な背景の原因としての可能性が大きい。<sup>2), 5), 8)</sup>

本症例における上皮小体嚢胞は polycystic disease としての一環をなすものか否か明らかでない。しかし、内分泌器である脾、卵巣の嚢胞性疾患と肝、腎の嚢胞性疾患の合併の報告があるのと同様に、内分泌器である上皮小体の嚢胞との合併も十分可能性のあるものと思われる。よって今後、上皮小体嚢胞と診断された症例に対しては、全身的な嚢胞性疾患の検索を行う必要があると考えられる。

## おわりに

Polycystic disease に合併した上皮小体嚢胞の一症例を報告するとともに、両者の関係について若干の考察をのべた。

## 参 考 文 献

- 1) Campbell, M. F.: Campbell's urology. ed. by Campbell, M. F. and Harrison, J. H., 3rd ed. Philadelphia, Saunders. 1970, pp. 1437—1443
- 2) Bernstein, J. and Gardner, K. D.: Campbell's urology. ed. by Harrison, J. H., Gittes, A. D., Staey, T. A. and Walsh, P. C., 4th ed. Philadelphia, Saunders. 1978, pp. 1399—1416
- 3) 葛西洋一, 柿田 章, 高橋 毅, 上林正昭, 中西昌美: Polycystic Disease に合併した総胆管内嚢胞の一例. 腹部画像診断 4: 30—32, 1984
- 4) 熊谷頼佳, 橋爪敬三: 多発性嚢胞腎及び多発性嚢胞肝を合併した脳動脈瘤の1例. CT 研究 3: 624—626, 1981
- 5) Bigelow, N. H.: The association of polycystic kidneys with intracranial aneurysms and other related disorders. Am. J. med. Science 225: 485—494, 1953
- 6) 石井裕正, 斉藤晴比古, 重田洋介, 茅野真男, 水野嘉夫, 土屋雅春: 腎嚢胞を伴う多発性肝嚢胞症の2例とその統計的考察. 総合臨床 25: 1559—1567, 1976
- 7) Gardner, K. D.: Cecil the textbook of medicine. ed. by Wyngaarder, J. B. and Smith, L. H., Jr., 16th ed. Philadelphia, Saunders. 1982, pp. 588—593
- 8) Lieberman, E., Salinas-Madrigal, L., Gwinn, J. H., Brennan, L. P., Fine, R. N. and Landing, B. H.: Infantile polycystic disease of the kidneys and liver: Clinical, pathological and radiological correlation and comparison with congenital hepatic fibrosis. Medicine 50: 277—318, 1971
- 9) Grayhack, J. T.: The biological basis of modern surgical practice. In Davis-Christopher-textbook of surgery, ed. by Sabiston, D. C., Jr., 12nd ed. Philadelphia, Saunders. 1981, p. 1738
- 10) 石田常博, 細野 治, 井上一英, 阿部展祐輝, 飯野佑一, 川井忠和, 泉 雄勝: 非機能性上皮小体嚢腫の4治験例. 症例報告と文献的集計例の検討. ホルモンと臨床 31: 861—867, 1983
- 11) Rosenberg, J., Orlando, R. III, Ludwig, M. and Pyrttek, L. J.: Parathyroid cysts. Am. J. Surg. 143: 473—480, 1982
- 12) Troster, M., Chiu, H. and McLarty, T. D.: Parathyroid cysts: Report of a case with ultrastructural observations. Surgery 83: 238—241, 1978