

PARATHYROID CYSTS

上皮小体嚢胞

JAMES W. WOOD, M.D.^{1*}

KENNETH G. JOHNSON, M.D.¹

MANUEL J. A. HINDS, M.D.^{2**}

Approved 承認 20 May 1965

ABCC Department of Medicine¹ and USAF Hospital, Tachikawa, Japan²

ABCC臨床部¹ および米空軍立川基地病院²

*Surgeon, U.S. Public Health Service, Division of Radiological Health,
Research Branch, assigned to ABCC

米国公衆衛生局放射線保健部研究部門所属医師でABCCへ派遣

**Captain, USAF (MC), USAF Hospital, Tachikawa, Japan

米空軍立川基地病院所属米空軍(医療隊)大尉

INTRODUCTION

A mass in the neck often poses a perplexing diagnostic problem. Most nodules in the anterior and lower portion of the neck are thyroid gland outgrowths or are lymph nodes enlarged by infectious or malignant diseases. Parathyroid cysts, also found in this area, are seldom considered in the preoperative diagnosis of anterior cervical nodules.

Such a lesion is described here with a review of the literature and certain characteristics are indicated which may aid in diagnosis and management.

Although microscopic cysts are frequent in the normal parathyroid,^{1,2} relatively few clinically significant lesions have been reported. Goris in 1905 reported the first case.³ He removed a trilobulated cyst adjacent to the left lobe of the thyroid gland in a 22-year-old man. By 1945, only three more parathyroid cysts had been reported.⁴⁻⁶ Including the present case, 30 patients have been reported to date in whom a mass was palpable in the neck, and surgical exploration revealed a parathyroid cyst.^{1,3-5,7-22} In

緒言

頸部腫瘍は往々にして診断上の問題を提起する。前頸下部の小結節は、そのほとんどが甲状腺からの派生物であるかまたは伝染性ないし悪性疾患による肥大リンパ腺である。上皮小体嚢胞も同じくこの部位に現われるが、前頸小結節の手術前診断では従来ほとんど考慮の対象とされなかった。

本報告はこのような病変について述べ、関係文献を検討し、その診断および処置の一助となる特性を示す。

正常な上皮小体に顕微鏡的に認められる嚢胞の発現度は高いが、^{1,2} 臨床的に意義をもつ病変の報告例は比較的少ない。1905年に Goris が最初の症例を報告した。³ かれは22歳の男子の甲状腺左葉に隣接した三室嚢胞を摘出した。1945年までに、そのほかにはわずか3例が報告されているにすぎない。⁴⁻⁶ その後現在まで、頸部腫瘍に触れ、外科的検査の結果上皮小体嚢胞が認められた症例は、本例を含めて30件が報告されている。^{1,3-5,7-22} さらに報告さ

A paper based on this report appeared in: Archives of Surgery 92:785-90, 1966

本報告に基づく論文は次の雑誌に発表した

another eight patients the cysts were not palpable or were recovered only at autopsy.^{1,6,9,14,16,22-24} Only cysts in which the diagnosis was substantiated by the presence of parathyroid tissue in the cyst wall are considered here (Table 1).

The 38 patients were aged from 16 to 79 years, more than half being in the fourth and fifth decades. There were 26 females and 12 males; 33 were Caucasian, 2 Negro, and 3 Japanese. The most common site, 30 cases, was inferior and posterior to the thyroid gland, 19 on the left side, and 11 on the right, with 3 extending into the mediastinum. In three patients the cysts were confined to the mediastinum. In two patients the cysts were partially embedded in the thyroid gland. In only three instances were the lesions thought to originate from above the thyroid gland.

The most common symptoms caused by parathyroid cysts relate to their physical mass. Eight patients had tracheal deviation and five developed some degree of respiratory obstruction. The recurrent laryngeal nerve was impaired in four patients, but no direct involvement of this nerve has been noted at surgery. One patient complained of dysphagia and three others of pain in the region of the cyst.

The circumstances of the discovery and the duration of the mass in the neck are frequently not reported, but certain common features are quite interesting. The majority of these patients presented complaining of a lump in the neck and relatively few cysts were first discovered by the doctor. Only four cysts were known to be present more than 2 years. For most, the duration was 6 to 12 months, but in eight patients it was less than 6 months. Alternating increases and decreases in the size of the lesions were observed in four cases.

Three patients had definite hyperparathyroidism which was relieved after the removal of the cysts, but one of these patients had a parathyroid adenoma on the opposite side of the neck. Another two patients had fairly strong indications of increased parathyroid activity, which returned to normal after the excision of the cysts. An additional two patients, not included in the present series because of failure to find parathyroid tissue

れた8例は嚢胞を触れなかったか、あるいは剖検によって始めてそれが認められたものである。^{1,6,9,14,16,22-24} 本調査では、嚢胞壁内に上皮小体組織が存在することによって診断が確立された嚢胞のみを対象とした(表1)。

38人の患者の年齢は16歳から79歳までで、大半は30代40代であった。その内訳は女子26人、男子12人で、また、白人33人、黒人2人、日本人3人である。最多発現部位は30例における甲状腺の下方後部で、左側19例、右側11例、うち3例は縦隔まで達していた。また3例では嚢胞は縦隔部に限定されていた。2例においては嚢胞は、一部甲状腺内に埋没していた。病変が甲状腺上方から出たと思われるものは3例にすぎなかった。

上皮小体嚢胞に起因するごく一般的な症状は、その物理的質量に関係がある。8例に気管偏位と5例にある程度の呼吸障害が認められた。反回神経の損傷が4例にみられたが、外科手術でこの神経が直接冒されていると認められたものは皆無であった。嚥下困難を訴えた患者が1人、嚢胞部の疼痛を訴えた者が3人あった。

頸部腫瘍の発見の状況およびその存続期間についてはあまり報告がないが、ある種の共通の特徴が認められることはかなり興味深いものがある。大部分の患者は頸部の腫瘍を訴えているが、医師が嚢胞を発見した例は比較的少ない。わずかに4個の嚢胞について2年以上存続したことが判明しているにとどまる。ほとんどの症例ではその存続期間は6-12か月であるが、8例では6か月以下であった。4例に病変の増大と縮小が交互に起こっている。

3人の患者には明白な上皮小体機能亢進症があり、嚢胞摘出後これは軽快したが、うち1人には頸の反対側に上皮小体腺腫が認められた。他の2人にはかなり強い上皮小体活動増強の徴候があったが、嚢胞切除後正常に復した。さらに別の2人においては、嚢胞壁に上皮小体組織がみいだせなかったもので、本調査の対象とはしなかった。

TABLE 1 PARATHYROID CYSTS

表1 上皮小体嚢胞

Author 報告者	Year 年	Sex 性	Age 年齢	Side 側	Position 位置	Size (cm) 大きさ
Palpable and Removed during Life 生存中触知し摘出された上皮小体嚢胞						
Goris ³	1905	M	男 22	L 左	I 下部	3 closely applied cyst 密着する3個の嚢胞
Anzilotti ⁴	1909	M	男 25	R 右	I 下部	"Egg" 鶏卵大
Nylander ⁵	1929	M	男 16	R 右	Just below angle of mandible 顎角直下	"Goose egg" 鵝鳥卵大
McKnight ⁷	1946	M	男 17	L 左	I 下部	"Golf ball" ゴルフボール大
Welti ⁸	1946	F	女 53	L 左	I 下部	-
Black and Watts ¹	1949	F	女 32	L 左	I 下部	4
McGoon and Cooley ⁹	1951	F	女 49	R 右	I 下部	5x4
	1951	F	女 43	L 左	I 下部	4x3
Green et al ¹⁰	1952	F	女 38	R 右	I 下部	9x5x4
Maxwell et al ¹¹	1952	F	女 39	L 左	I 下部	7x3
		F	女 29	R 右	I 下部	1.2x1x0.9
Crile and Perryman ¹²	1953	F	女 34	L 左	I 下部	2.5
		M	男 56	L 左	I 下部	7
		F	女 69	R 右	I 下部	6x3
		F	女 32	L 左	I 下部	4x3
		F	女 79	L 左	I 下部	6x1.5x1
Keynes and Truscott ¹³	1956	F	女 40	L 左	I 下部	5x4
Fisher and Gruhn ¹⁴	1957	F	女 32	L 左	I 下部	2.5x2x1
Perdue and Martin ¹⁵	1959	F	女 44	L 左	I 下部	3x2x2
Shields and Staley ¹⁶	1961	M	男 62	L 左	Partially embedded in thyroid 一部甲状腺に埋没	3x2.5
Jonassen ¹⁷	1961	F	女 44	R 右	I 下部	3
Kamegaya and Mori ¹⁸	1962	F	女 60	L 左	I 下部	2.5x1.5x1.5
		F	女 31	L 左	I 下部	8x0.8x0.8
Rosenbaum and Morad ¹⁹	1963	F	女 27	R 右	Partially embedded in thyroid 一部甲状腺に埋没	4x2
McGinty and Lischer ²⁰	1963	M	男 38	R 右	I 下部	4x3
		M	男 36	L 左	I 下部	2x2
		F	女 49	R 右	I 下部	3x3
Lohrenz and Neubecker ²¹	1964	F	女 33	R 右	I 下部	3.5x3.5
Gordon and Harcourt-Webster ²²	1965	F	女 50	L 左	I 下部	3.5
This report 本報告	1965	F	女 42	L 左	I 下部	2
Not Palpable and/or not Removed during Life 他の上皮小体嚢胞 生存中触知ないし摘出されなかったもの						
DeQuervain ⁶	1925	F	女 55	L 左	Superior mediastinum 縦隔膜上部	-
Black and Watts ¹	1949	F	女 30	R 右	S 上部	1
McGoon and Cooley ⁹	1951	M	男 66	R 右	Superior mediastinum 縦隔膜上部	4x2
Fisher and Gruhn ¹⁴	1957	M	男 60	L 左	I 下部	4
Malkin and Chapman ²³	1961	F	女 77	L 左	S 上部	7x5
Shields and Staley ¹⁶	1961	F	女 57	R 右	I 下部	2.5x2x1
Mizutani et al ²⁴	1962	M	男 35		Superior mediastinum R 右	0.8x0.7x0.5
水谷					縦隔膜上部 L 左	0.5x0.5x0.4
Gordon and Harcourt-Webster ²²	1965	F	女 60	R 右	I 下部	2

I - Inferior parathyroid area (below the thyroid gland) 下部上皮小体 (甲状腺下)

S - Superior parathyroid area 上部上皮小体

in the cyst wall, had definite hyperparathyroidism which was corrected by removal of the cysts.^{25,26}

The preoperative diagnosis was usually thyroid adenoma or carcinoma, occasionally thyroid cyst. In only one case was the correct diagnosis suspected preoperatively. Crile¹² suggested this diagnosis because of the character of fluid aspirated from the cyst. Knowledge of the position and appearance of parathyroid cysts has aided the surgeon to make the correct diagnosis during surgery. Crile was able to do this in four of the five cases he reported. These cysts are usually found posterior and inferior to the thyroid lobes and can be separated easily by blunt dissection. This position adjacent to the trachea and the recurrent laryngeal nerve accounts for some of the symptoms.

All cysts have been simple except for the trilobulated cyst removed by Goris³ in 1905, and a large multilobulated parathyroid cyst removed by Kamegaya¹⁸ from the neck of a 31-year-old Japanese woman, who had had a parathyroid adenoma excised from the same site 3 years previously. The size has ranged from 0.5 to 9 cm in greatest diameter, averaging about 4 cm. All cysts have been tense with a thin, translucent or transparent wall and contained a watery fluid, usually opalescent or milky. In two cases the fluid was blood-tinged and in one it was brown.

The wall of the cyst is commonly composed of a thin layer of fibrous tissue, sometimes quite cellular, covered by a single layer of flattened, cuboidal or columnar epithelium, usually closely resembling normal parathyroid cells. Occasionally this epithelial lining is absent. The presence of nests of typical parathyroid cells, localized in one or two portions of the cyst wall or, sometimes, scattered diffusely throughout the entire wall is considered by most authors an essential criteria for the diagnosis. Wasserhelle and chief cells are usually present, but one or the other way may be dominant.

CASE REPORT

A 42-year-old white female experienced moderate pain in the region of the left lobe of the thyroid gland in July 1963. One week

が、明白に上皮小体機能亢進症が認められ、これは嚢胞の摘出によって正常化した。^{25,26}

手術前診断は普通甲状腺腫または甲状腺癌とされ、ときに甲状腺嚢胞とされている。手術前にその疑いで正しく診断されたものはわずか1例にすぎない。Crile¹²は嚢胞から得た穿刺液の特性によってこの診断を下した。上皮小体嚢胞の位置と外観についての知識があれば、外科手術にあたって、外科医が正しい診断ができる。Crileはかれが報告した5例のうち4例についてこれを行なうことができた。嚢胞は通常甲状腺葉の後方下部に認められ、鈍離断法により容易に剝離される。いくつかの症状は、この位置が気管および反回神経に近いことから説明できる。

1905年に Goris³ によって摘出された三室嚢胞、および31歳の日本人女子患者の頸部から Kamegaya¹⁸ によって摘出された大きな多房性上皮小体嚢胞—この患者はその3年前に同じ個所の上皮小体腺腫の切除を受けている—以外は、すべて単純嚢胞である。大きさは径0.5 cmから最大径9 cmの範囲にわたり、平均約4 cmである。嚢胞はすべて強靱で、薄い半透明または透明の壁があり、乳白色または乳状の水様液を含んでいる。この液が血色を帯びたものが2例、褐色のものが1例あった。

嚢胞壁は一般に線維組織の薄層から成り、ときとして、きわめて細胞充実性であって、普通正常な上皮小体細胞によく似ている扁平になった立方または円柱上皮細胞の単層によっておおわれている。この内壁をおおう上皮層はときに欠如している場合がある。典型的上皮小体細胞巢が嚢胞壁の1, 2か所に点在するか、ときとして壁全体に瀰漫性に散在することがあるが、ほとんどの研究者はこれを重要な診断基準と考えている。透明細胞と主細胞が通常並存するが、そのうちどちらか一方が優勢を示すことがある。

症例報告

42歳の白人女子。1963年7月甲状腺左葉部に中等度の疼痛を覚え、1週間後、その個所の「頸部腫瘍」に気づく。

later, she noted a "lump in the neck" at the same site. Physical examination was unremarkable except for a 1-cm nontender nodule, which moved on swallowing, in the region of the left lobe of the thyroid gland. Two weeks later, when examined again by the original examiner and a surgical consultant, the nodule had disappeared.

She was examined twice during the following 6 months and no mass was present. In December 1963, she noted its reappearance. There was nothing to suggest thyroid or parathyroid dysfunction and all laboratory tests, including protein bound iodine, resin uptake of I^{131} triiodothyronine, serum calcium and phosphorus, blood count and urinalysis, were normal. She was aware of the nodule when swallowing but experienced no dysphagia and no pain after the initial episode. She was taking no drugs or vitamins and her diet was not unusually high in calcium.

With the presumptive diagnosis of a thyroid nodule, suppression therapy with desiccated thyroid was attempted. The dose was increased to the limit of tolerance, but the nodule continued to enlarge. The drug was discontinued and surgery performed in May 1964. At operation the thyroid gland appeared normal. Posterior and inferior, easily separated by blunt dissection, was a solitary simple cyst 2 cm in diameter with a thin translucent wall containing watery clear fluid (Figure 1). Two small fragments of brownish tissue were embedded at one pole. One piece measured nearly 3 mm in diameter, as large as many normal parathyroid glands.

Microscopic study demonstrated that the brownish tissue was normal parathyroid with a predominance of chief cells. The cyst wall was composed of compressed, rather hyaline, connective tissue, lined by a single layer of cuboidal epithelium. In places where the cyst wall was folded, oblique sections gave a multilayered appearance (Figure 2). Scattered throughout the wall of the cyst and often laced between strands of dense collagen were additional small islands of typical parathyroid tissue (Figures 2, 3). A few microcysts were found within this parathyroid tissue. The lining cells of both the microcysts and the large cyst resembled the adjacent parathyroid cells (Figure 4).

診察の結果、甲状腺左葉部に嚥下時に移動する1 cm大の無圧痛性小結節が認められたが、ほかに異常はなかった。

2週間後、外科医立ち会いのもとに同じ医師の診察を受けたが小結節は消失していた。

患者はその後6か月の間に2回診察を受けたが、腫瘍は認められなかった。1963年12月、その再発現に気づく。甲状腺機能障害または上皮小体機能障害を示唆するものではなく、蛋白結合沃素値、樹脂 I^{131} トリヨードチロニンの摂取率、血清カルシウム値および燐値の測定、血球数算定ならびに検尿を含む臨床諸検査の結果はすべて正常であった。患者は嚥下時に小結節を意識したが、初発時以来、嚥下困難も痛みも経験しなかった。薬剤またはビタミン類は服用しておらず、カルシウム摂取量も異常に高くはなかった。

・ 甲状腺小結節と推定して乾燥甲状腺剤による抑圧療法を試みた。投与量は許容限度まで増加されたが、小結節は肥大を続けた。投薬を中止し、1964年5月に外科手術を施行。手術時、甲状腺は正常にみえた。後方下部に直径2 cm、薄い半透明の壁のある水様透明液を入れた孤立単純嚢胞が認められ、鈍離断法により容易に剥離された(図1)。褐色の小組織片2個が1極に埋没されていた。1個は直径約3 mmで、多くの正常上皮小体と同じ大きさであった。

鏡検の結果、褐色組織は主細胞が優勢を示す正常上皮小体と認められた。嚢胞壁は圧縮されたむしろガラス様の結合組織から成り、立方上皮の単層によって内面がおおわれていた。嚢胞壁の皺襞形成部位で斜切面が多層的外観を呈していた(図2)。さらに嚢胞壁全面に散在性に、またはしばしば稠密な膠原質線維の間に織り混って、定型の上皮小体組織の小島が認められた(図2, 3)。この上皮小体組織内には数個の小嚢胞が発見された。小嚢腫および大嚢胞においては、ともにその内壁をおおう細胞は隣接の上皮小体細胞に類似していた(図4)。

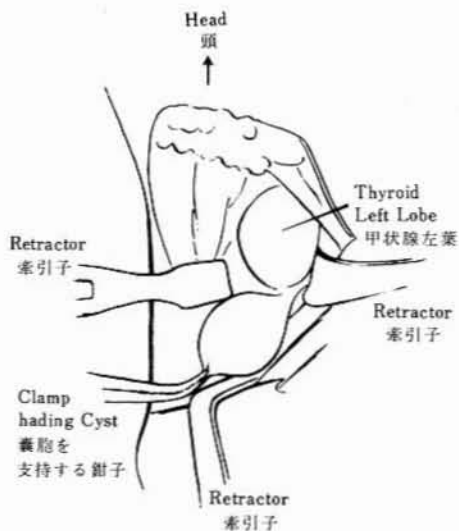


FIGURE 1 PHOTOGRAPH OF PARATHYROID CYST TAKEN AT SURGERY

図1 手術時に撮影した上皮小体嚢胞の写真

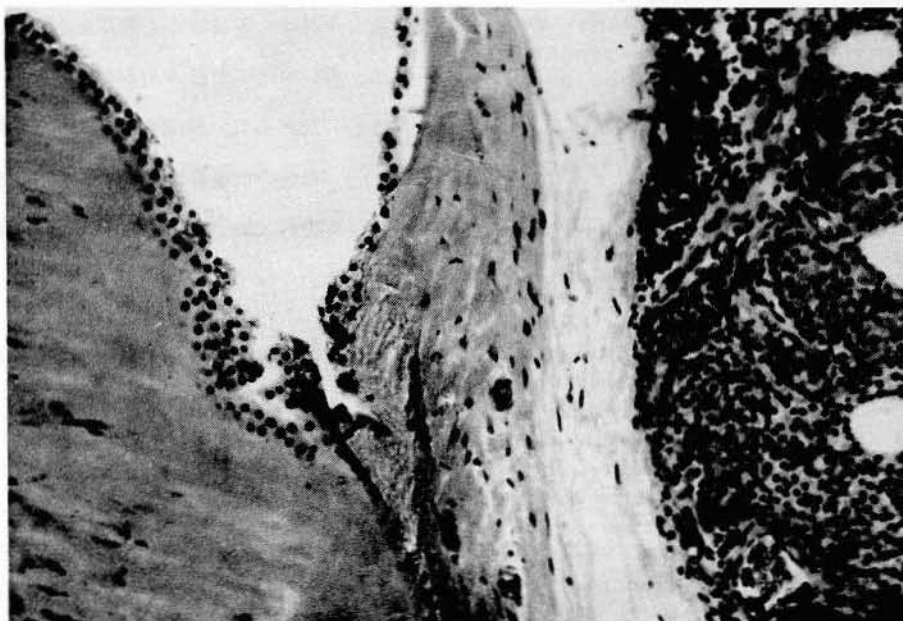


FIGURE 2 THE CYST WALL COMPOSED OF POORLY CELLULAR HYALINE CONNECTIVE TISSUE WITH A SINGLE LAYER OF CLEAR CUBOIDAL EPITHELIUM LINING THE LUMEN. SMALL ISLANDS OF NORMAL PARATHYROID TISSUE ARE BELOW. (100X Hematoxylin and Eosin)

図2 嚢胞壁は細胞性の乏しい硝子質結合組織から成り、その内面は清澄な立方上皮の単層でおおわれている。正常上皮小体組織の小島が下方にみえる。(100倍拡大、ヘマトキシリン・エオジン染色)

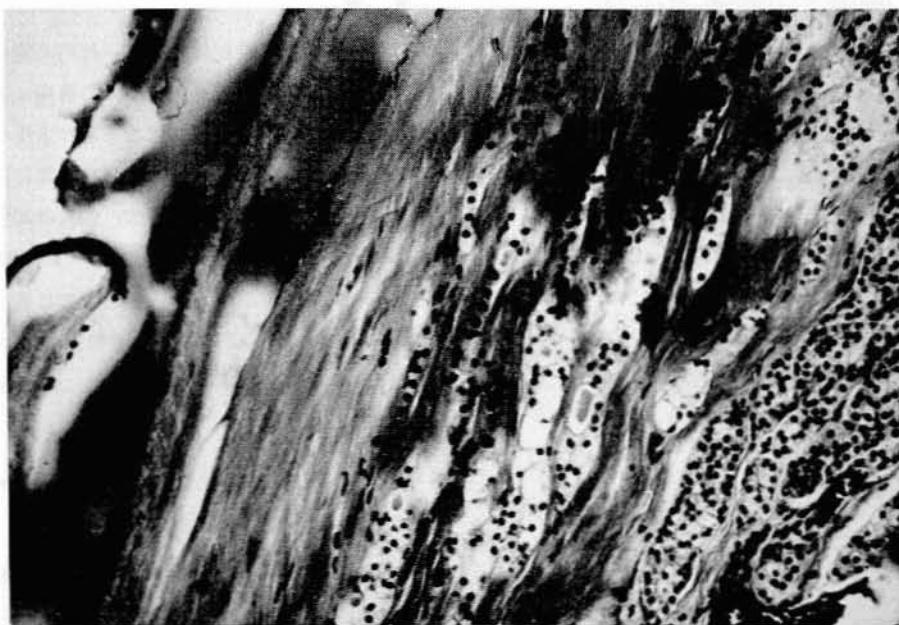


FIGURE 3 ISLANDS OF PARATHYROID TISSUE LACED BETWEEN HYALINE COLLAGEN BUNDLES OF THE CYST WALL. PROTEINACEOUS MATERIAL COATS THE FOLDED WALL OF THE CYST. NOTE THE SIMILARITY BETWEEN THE NORMAL PARATHYROID CELLS AND THE CYST LINING, ABOVE, AND IN FIGURE 2. (100X Hematoxylin and Eosin)

図3 上皮小体組織の小島が嚢胞の硝子質膠原質線維束の間に織り込まれている。本図および図2における正常上皮小体細胞と嚢胞内面の被膜との類似性に注目すること。本図では皺襞性嚢胞壁を蛋白質性物質でおおっている。(100倍拡大、ヘマトキシリン・エオジン染色)

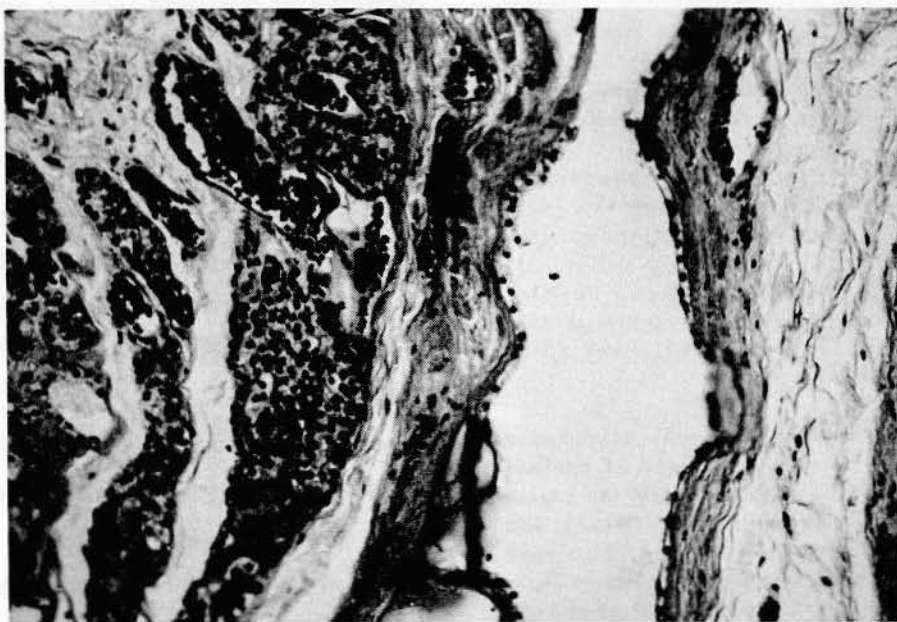


FIGURE 4 NOTE SIMILARITY OF THE EPITHELIAL CELLS LINING THE MICROCYST, BOTTOM RIGHT, AND THOSE LINING THE LARGE CYST ABOVE. (100X Hematoxylin and Eosin)

図4 右下方の小嚢腫の内壁をおおう上皮細胞と上方大嚢胞の内壁をおおう上皮細胞の類似性に注目すること。(100倍拡大、ヘマトキシリン・エオジン染色)

DISCUSSION

Small parathyroid cysts are fairly common, and replacement of the parathyroid gland by cysts in sheep, horse, cow, dog and man has been reported.⁷ There is great disparity between the rarity of clinically significant parathyroid cysts and the frequency of microcysts in autopsy series. Gilmour found microcysts in 20% of infants and 70% of adults.² In 428 autopsies, he found 11 parathyroid cysts which were grossly visible, all in the inferior position. Black and Watts examined the parathyroid glands in 100 consecutive autopsies.¹ By making multiple sections they demonstrated microcysts in 84.

A number of cases have been reported as parathyroid cysts even though typical parathyroid cells could not be demonstrated. That some of these may indeed be of parathyroid origin is suggested by their position, gross appearance, and the character of the lining cells. A few patients, whose only apparent lesion was such a cyst, had definite hyperparathyroidism. Failure to demonstrate a normal parathyroid in the region of the cyst supports the belief that the cyst may replace the gland.

Some authors have collected several cases in a short period, thus one might expect a similar experience at any large medical center. It would seem that the frequency of clinically significant parathyroid cysts may be far greater than published cases would indicate.

There has been considerable disagreement concerning the origin of these cysts. Many early writers favored their development from the third or fourth pharyngeal pouches. It was speculated that these might develop directly from the pharyngeal pouches or from vestigial remnants located adjacent to or within the parathyroid tissue.

Gilmour²⁷ supported this theory by drawing attention to the common occurrence of certain vesicular, gland-like structures in the region of the inferior parathyroids. Black and Watts¹ confirmed these findings, but were uncertain whether these represent embryologic remnants or cysts in nests of aberrant parathyroid cells. The case of a 9-year-old boy with a large thymic cyst containing an island of parathyroid tissue was recently reported by Behring and Bergman.²⁸ Considering

考 察

小型の上皮小体嚢胞はかなり一般的に認められ、羊、馬、牛、犬、人間における上皮小体の嚢胞による置換例が報告されている。⁷ 臨床的意義をもつ上皮小体嚢胞の希少性と剖検における小嚢腫発現頻度の間には大きな懸隔がある。Gilmour は幼児の20%、成人の70%に小嚢腫を認めた。² かれはその剖検例428件中に肉眼でみえる上皮小体嚢胞11個を認めたが、全部下部にあった。Black および Watts は連続100件の剖検例について上皮小体を調べ、¹ 切片を数多く作ることによって84例に小嚢胞を証明することができた。

定型的上皮小体細胞は証明できなかったが、上皮小体嚢胞と思われる病変が多数報告されている。その中には、実際に上皮小体に発したと思われるものもあることが、その発現部位、肉眼的特徴および内面をおおう細胞の特性によって示唆されている。唯一の明白な病変がこのような嚢胞であった少数の患者には、明白な上皮小体機能亢進症が認められた。嚢胞部位に正常上皮小体を証明できないことは、上皮小体が嚢胞によって置換されるという考え方を裏づけるものである。

ある研究者たちは短い期間にいくつかの症例を集めることに成功している。したがって、大病院でも同様の経験を期待することができよう。臨床的意義をもつ上皮小体嚢胞の発現頻度は、既発表の症例が示すところよりはるかに高いものと思われる。

これら嚢胞の起原についてはかなり異論が唱えられている。多くの初期研究者は第3または第4鰓嚢からの発生説を支持した直接鰓嚢から、または上皮小体組織内、または周辺の鰓嚢遺残物から発生するものであろうと考えられた。

Gilmour²⁷ は、下部上皮小体領域に、小胞性腺様構造が一般的に発現することを指摘してこの説を支持した。Black および Watts¹ はこの所見を確認したが、それが発生学的にみた残遺物であるか、異常上皮小体細胞巢の嚢胞であるかは明確にしえなかった。上皮小体組織の島を含む大きな胸腺嚢胞が認められた9歳の少年の例が、最近 Behring および Bergman²⁸ によって報告された。上皮

the common pharyngeal pouch origin of the parathyroids and thymus, it is apparent that embryological production of parathyroid cysts is at least theoretically possible.

It has been suggested that a cyst completely unrelated to the parathyroid gland might enlarge and secondarily incorporate that gland into its wall.⁹ It seems rather unlikely that this would occur in the loose distensible tissues of the neck. Moreover, in several patients, including the present case, parathyroid cells have been found laced between collagen fibers throughout the thickness of the cyst wall. This kind of layering of collagen fibers and parathyroid cells does not seem likely as a result of secondary incorporation of the gland.

A more acceptable theory is that these cysts actually arise within parathyroid tissue as a result of retention of secretion. The layering of collagen fibers and parathyroid cells in the cyst wall favors this. The lining cells of flattened columnar or cuboidal epithelium have a striking resemblance to parathyroid cells, especially those that line microcysts, and are completely different from the usual squamous epithelium of branchial cleft cysts. Glycogen, normally found in parathyroid cells, has been demonstrated in the lining cells of some cysts but not in the cells lining branchial cleft cysts. The occurrence of hyperparathyroidism in 15% of these patients and its cure by surgical excision of the cysts is strong evidence of parathyroid origin.

In three reported patients the authors believed they were dealing with cystic degeneration of a parathyroid adenoma. Of interest is a patient who had hyperparathyroidism and simultaneously an adenoma and a cyst were found on opposite sides of the neck.¹ Another reported the growth of a multiloculated cyst where a parathyroid adenoma had been removed previously.¹⁸

Selye and co-workers²⁹ produced parathyroid cysts in rats by administering vitamin D compounds, or parathyroid extract in conjunction with an excess of calcium. They believe these cysts result from blockade of two discharge mechanisms, one sensitive to vitamin D compounds and parathyroid hormone, the other

小体と胸腺の起原がともに鰓嚢にあるところから、上皮小体嚢胞の発生学的生成が、少なくとも理論的には可能であることは明白である。

上皮小体に全く無関係の嚢胞が肥大し、その嚢胞壁内に小体を2次的に包摂するのではないかと示唆するものがある。⁹ しかし、このようなことが頸部の疎性伸展性組織内に発現することはいえないうに思われる。さらに、本例を含む数人の患者においては、上皮小体細胞が嚢胞壁の厚み全体にわたって膠原線維の間に織り込まれているのが認められた。膠原線維と上皮小体細胞がこのような層を成しているのは、上皮小体の2次的包摂がもたらした結果であるとは思われない。

より妥当な説は、これら嚢胞が分泌液貯留の結果として上皮小体組織内に実際に生ずるというものである。嚢胞内に膠原線維と上皮小体細胞による層ができるという事実がこの説を裏づけている。扁平化した円柱上皮または立方上皮の内壁細胞は、上皮小体細胞、特に小嚢腫の内壁をおおう細胞に酷似し、鰓裂嚢腫の普通の扁平上皮とは全く異なる。通常上皮小体細胞に認められるグリコーゲンは、嚢胞の内壁をおおう細胞に証明されることはあるが、鰓裂嚢腫の内壁細胞には認められない。これらの患者の15%に上皮小体の機能亢進が認められ、嚢胞の外科的切除によってそれが治癒していることは、上皮小体起原の有力な証拠である。

3人の患者の報告例においては、その著者たちは上皮小体腺腫の嚢胞状変性を取り扱ったとしていた。興味深いことには、上皮小体機能亢進症があり、頸の両側に腺腫と嚢胞1個が同時に相対して認められた患者が1人ある。¹ また別の報告では、以前上皮小体腺腫を切除した個所に多房性嚢胞が発生したという。¹⁸

Selye ら²⁹ はビタミンD剤または上皮小体エキスの投与とカルシウム過剰摂取を組み合わせることによって、ラットに上皮小体嚢胞を発生させることができた。かれらはこれら嚢胞は2つの排出機構—1つはビタミンD剤および上皮小体ホルモンに敏感なもの、他はカルシウムに敏

to calcium. They favor the idea that the cyst fluid is a vehicle, or solvent, in which hormonally active substances might be found.

Chimènes et al²⁶ in 1963 reported the removal of a cyst from the neck of a young woman with hyperparathyroidism. No typical parathyroid tissue was identified in the cyst, but its removal corrected the metabolic derangement. Bioassay of the clear fluid from this cyst revealed parathormone activity of about 500 USP parathyroid units per cc (Parathyroid extract contains 100 USP parathyroid units per cc). By electrophoresis, proteins and acidamides, as well as small amounts of lipids were identified. The protein pattern was similar to that of serum, but with slight elevation of globulin. The hormonal activity was associated with the protein fraction.

While it seems likely that most parathyroid cysts develop because of the retention of secretion, several questions remain unanswered. Considering the great frequency of microcysts, why do more of them not attain a large size? What is the stimulus for cyst development and why the predilection for the inferior glands? Can retention of normal secretions result in hyperparathyroidism or must the hormone be abnormal? What is the rate of turnover, i.e., hormone production vs. hormone discharge, in such cysts?

SUMMARY

The case of a 42-year-old female with a parathyroid cyst is reported. Review of the literature reveals 38 patients in whom the diagnosis of a parathyroid cyst was supported by the presence of parathyroid tissue within the cyst wall. Of these patients, 70% were women and half of them were less than 40 years old. More than 90% of the cysts are found in the region of the inferior parathyroid glands. The lesion may be associated with symptoms of pain, hoarseness, respiratory obstruction or, in 15% of the cases, with hyperparathyroidism. The cysts commonly increase rapidly in size, but may show periods of remission. It is proposed that these lesions occur more frequently than reports would indicate. It is also believed that the production of clinically significant parathyroid cysts is the result of retention of secretions.

感なものの一の閉塞によって生ずると考える。かれらは囊胞液はホルモン活性物質の運搬者または溶媒であるという考え方をとる。

Chimènes ら²⁶ は1963年、若い女性の上皮小体機能亢進症患者の頸から囊胞1個を摘出したことを報告した。囊胞には典型的な上皮小体組織は確認されなかったが、その摘出によって代謝障害はなくなった。この囊胞からえた透明液の生物学的検査では、1cc当たり約500 USP 上皮小体単位の上皮小体ホルモン活動が認められた(上皮小体エキ스는1cc当たり100 USP 上皮小体単位を含む)。電気泳動法によって蛋白、酸アミドおよび少量の脂質が検出された。蛋白像は血清のそれに似ていたが、グロブリンがやや増加していた。ホルモン活動には、蛋白分層との関連性が認められた。

ほとんどの上皮小体囊胞は分泌液貯留に起因するようであるが、次のような若干の疑問点が残る。すなわち、小囊胞の発現頻度が高いのに、なぜもっと多く大きくならないのか。囊胞発生は何の刺激によるのか、そして下部上皮小体に好発するのはなぜか。正常分泌液の貯留は上皮小体機能の亢進をもたらすものか、またはホルモンが異常でなければならないのか。この種の囊胞におけるホルモン生成とホルモン排出の交替度はどれくらいかなどである。

要 約

42歳の女子の上皮小体囊胞例を報告した。文献的には、囊胞内の上皮小体組織の存在が診断の裏づけとなった38件の上皮小体囊胞例をえた。上記患者のうち70%は女子でその半数は40歳以下であった。囊胞の90%強が下部上皮小体領域に認められた。病変は疼痛、嚥声、呼吸障害または症例の15%に認められた上皮小体機能亢進症などの症状を伴うことがある。囊胞は普通急速に大きくなるが、軽快期を示すこともある。これら病変は報告に示されるより発生頻度が高いものと考えられる。さらに臨床的意義をもつ上皮小体囊胞の生成は、分泌液貯留の結果であると考えられる。

REFERENCES

参考文献

1. BLACK BM, WATTS CF: Cysts of parathyroid origin; Report of two cases and study of incidence and pathogenesis of cysts in parathyroid glands. *Surgery* 25:941, 1949
(上皮小体に発生する嚢胞: 2 症例に関する報告と上皮小体嚢胞の発生率および病因の研究)
2. GILMOUR JR: The normal histology of the parathyroid glands. *J Path Bact* 48:187, 1939
(上皮小体の正常組織)
3. GORIS D: Extirpation de trois lobules parathyroïdiens kystiques. *J de Chir et Ann Soc Belge de Chir* 5:394, 1905
(三室上皮小体嚢胞の摘出)
4. ANZILOTTI G: Contributo alla patogenesi delle cisti parabranchiali del collo; Ciste del dustus parathyroideus. *Clin Chir* 17:610, 1909
5. NYLANDER PEA: Über Parathyreoideale Halszysten. *Acta Chir Scand* 64:539, 1929
(頭部上皮小体嚢胞について)
6. DEQUERVAIN F: Chirurgische Demonstrationen (Epithel-Körperchen-Cyste). *Schweiz med Wchnschr* 55:1168, 1925
(外科示説〔上皮小体嚢胞〕)
7. MCKNIGHT RB: Parathyroid cyst. *South Surgeon* 12:179, 1946
(上皮小体嚢胞)
8. WELTI H: A Propos des Kystes Parathyroïdiens. *Mem Acad de Chir* 72:33, 1946
(上皮小体嚢胞について)
9. MCGOON DC, COLLEY DA: Parathyroid cyst: An unusual cervical tumor; Report of three cases. *Surgery* 30:725, 1951
(上皮小体嚢胞: まれな頸部腫瘍, 3 症例の報告)
10. GREENE EI, GREENE JM, BUSCH RC: Unusual manifestations after removal of parathyroid cyst. *JAMA* 150:853, 1952
(上皮小体嚢胞摘出後の異常現象)
11. MAXWELL DB, HORN RC, Jr, RHOADS JE: Cysts of the parathyroid; Report of three cases clinically simulating nodular goiter. *Arch Surg* 64:208, 1952
(上皮小体嚢胞, 臨床的に結節性甲状腺腫に類似する 3 症例に関する報告)
12. CRILE G, Jr, PERRYMAN RG: Parathyroid cysts; report of five cases. *Surgery* 34:151, 1953
(上皮小体嚢胞, 5 症例に関する報告)
13. KEYNES WM, TRUSCOTT BM: Large solitary cysts of the parathyroid gland. *Brit J Surg* 44:23, 1956
(上皮小体の単独大嚢胞)
14. FISHER ER, GRUHN J: Parathyroid cysts. *Cancer* 10:57, 1957
(上皮小体嚢胞)
15. PERDUE GD, MARTIN JD, Jr.: Parathyroid cysts; Report of a case. *Amer Surg* 25:698, 1959
(上皮小体嚢胞, 1 症例に関する報告)
16. SHIELDS TW, STALEY CJ: Functioning parathyroid cysts. *Arch Surg* 82:937, 1961
(機能を有する上皮小体嚢胞)

17. JONASSEN OT: Parathyroid cysts of clinical significance. Arch Surg 83:758, 1961
(臨床的意義をもつ上皮小体嚢胞)
18. KAMEGAYA K, MORI K: Parathyroid cyst and multicystic parathyroid adenoma. Acta Path Jap 12:99, 1962
(上皮小体嚢胞と多嚢胞性上皮小体腺腫)
19. ROSENBAUM GR, MORAD A: A review of parathyroid cyst (with case report). West Virginia Med J 59:300, 1963
(上皮小体嚢胞の検討と症例報告)
20. MCGINTY CP, LISCHER CE: The surgical significance of parathyroid cysts. Surg Gynecol Obstet 117:703, 1963
(上皮小体嚢胞の外科的意義)
21. LOHRENTZ FN, NEUBECKER RD: Parathyroid cyst presenting as an enlarging cervical nodule. Wisconsin Med J 63:123, 1964
(頸部結節の肥大として現われた上皮小体嚢胞)
22. GORDON A, HARCOURT-WEBSTER JN: Parathyroid cysts: A report of two cases. J Path Bact 89:374, 1965
(上皮小体嚢胞: 2症例に関する報告)
23. MALKIN M, CHAPMAN I: Parathyroid cyst: A problem in differential diagnosis. Oral Surg 14:8, 1961
(上皮小体嚢胞: 鑑別診断における問題)
24. 水谷修太郎, 園田孝夫, ほか: 副甲状腺機能亢進症を併える副甲状腺嚢腫の1例. 泌尿器科紀要 8: 299, 1962年
(MIZUTANI S, SONODA T, et al: Macroscopic parathyroid cysts with primary hyperparathyroidism: Report of a case. Hinyokika Kiyo-Acta Urol)
25. ARNAUD CD, WALKER JA, EWER RW: Primary hyperparathyroidism associated with a cystic lesion in the neck: Probable parathyroid cyst. J Clin Endocr 21:833, 1961
(頸部の嚢胞性病変に随伴した原発性甲状腺機能亢進症: 上皮小体嚢胞の疑い)
26. CHIMÈNES H, MOREAUX J, et al: Adénoma parathyroïdien à symptomatologie rénale pure chez une femme enceinte. Ann Endocr (Paris) 24:642, 1963
(1妊婦における明白な腎症状を伴う上皮小体腺腫)
27. GILMOUR JR: The embryology of the parathyroid glands, the thymus and certain associated rudiments. J Path Bact 45:507, 1937
(上皮小体, 胸腺, およびある種随伴性原基痕跡の発生学的研究)
28. BEHRING CH, BERGMAN F: Thymic cyst of the neck. Acta Path Microbiol Scand 59:45, 1963
(頸部の胸腺嚢腫)
29. SELYE H, ORTEGA MR, TUCHWEBER B: Experimental production of parathyroid cysts. Amer J Path 45:251, 1964
(上皮小体嚢胞の実験的誘発)