耳下腺に発生した Küttner 氏病の 1 例

山本 英一・折田 洋造*

A Case of Küttner's Disease in the Parotid Gland

Hidekazu Yamamoto

(Kawasaki Hospital, Kawasaki Medical School)

Yozo Orita

(Kawasaki Medical School)

We report a case of Küttner's disease occurring in the parotid gland of a 71-year-old female who complained of a painless tumor, CT and ultrasonography led to the diagnosis of benign parotid gland tumor. Histopathological findings, however, suggested chronic sclerosing sialadenitis. The etiology and treatment of Küttner's disease are discussed.

Key words: chronic sialadenitis, Küttner's disease, chronic sclerosing sialadenitis, parotid gland

はじめに

Küttner 氏病は唾液腺に生じる慢性硬化性の炎症で、その臨床症状から腫瘍との鑑別が困難であり、病理組織学的検索により初めて診断がつく場合が多い。顎下腺に生じることで知られているが、耳下腺発症はまれである。今回、良性耳下腺腫瘍を疑い摘出したところ、慢性硬化性唾液腺炎 (Küttner 氏病) と診断された症例を経験したので、若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

症例: 71歳, 女性, 家政婦(医院勤務)。

主訴: 右耳下部腫瘍。

既往歴: 51歳, 虫垂切除。

家族歴: 特記すべきことなし。

現病歴: 脳動脈硬化症にて Nicardipine を内

服している以外は健康な生活を送っていた。約 1 カ月前, 洗顔時に右耳下部に腫瘍を触知, 大きくならないので放置していたが硬いため不安になり, 勤務先の医師に相談し当科を紹介される。

初診時所見: 右耳下部に 4×3×2 cm の弾性硬の腫瘍が存在(図1)し, 表面は平滑で癒着なく動きは良好であった。圧痛, 顔面神経麻痺も認めなかった。口腔内は乾燥気味で Stenon 管の開口部は判別しにくく, 耳下腺圧迫でも唾液の流出は認められなかった。また, 顎下腺の腫脹はなく, 単純X線でも唾石は確認されなかった。

検査所見: 一般血液検査で白血球増多(10300/ul), 血沈の亢進(29/53 mm)を認める以外, 血液生化学検査, 尿検査一般には異常はなかった。

また、免疫学的な諸検査は施行していない。

超音波所見：耳下腺との境界は明瞭，内部エコーは一部嚢胞状，底面エコーは増強し，後方エコーも存在(図2)．以上より良性耳下腺腫瘍と診断した．

CT 所見：右耳下腺浅葉に内部が均一で造影効果のある腫瘍が存在(図3)．外頸動脈とは離れているが顔面神経との関係は不明．良性腫瘍と判断した．

治療経過：全身麻酔下に手術を施行．定型的耳下腺浅葉切除術に準じ，耳前部から下顎角下

2 cm に及ぶ逆S字状切開を入れ，顔面神経本幹を確認後，全分枝を露出した．この操作にて腫瘍は浅葉と共に翻転されたため，電気メスを用いて耳下腺組織を少し腫瘍に付着させるようにしながら摘出した．残存した浅葉を元へ戻し Frey 症候群の予防に努めた．顔面神経麻痺や唾液瘻などの合併症は認めず，経過良好にて術後12日目に退院した．

病理組織： $3.0 \times 2.5 \times 2.1$ cm の一部突出のある硬い腫瘍で剖面は灰白色であった．病理組織的には耳下腺の既存構築は破壊され，所々に腺管が認められるものの腺房は萎縮し，間質結合組織が増生，胚中心の拡大を伴うリンパ濾胞の形成が著明で，慢性硬化性唾液腺炎と診断(図4)された．

図 1

図 3

図 2

図 4

考 察

Küttner 氏病は1896年に Küttner¹⁾ が腫瘤を形成する唾液腺の非特異的炎症性疾患を報告して以来, Küttner's tumor または chronic sclerosing sialadenitis と呼ばれてきたが, 現在, WHO 分類では chronic sialadenitis として包括されている。

臨床症状としては弾性硬の腫瘤を形成することが特徴で, 症例によっては疼痛を伴い周囲と癒着するため悪性腫瘍と判断されることもある。

病理組織学的には高度の間質結合組織の増生, 腺房の萎縮・消失, 著明な小円形細胞の浸潤, リンパ濾胞の形成を特徴とする唾液腺の慢性硬化性炎症である。

Seifert ら²⁾ は, 20年間2600例の唾液腺疾患の統計をまとめ, chronic sialadenitis として449例を報告し, 大部分が顎下腺由来であり耳下腺発生の記載はない。本邦では, 1985年の岩嶋³⁾ の顎下腺 Küttner 氏病の報告以来, 報告症例が年々増加しているが, 顎下腺発生がほとんどで, 耳下腺発生は本例以外には1985年の永田⁴⁾ と1988年の土田ら⁵⁾ の報告しかみられない。

発症機序として, 唾石や炎症などによる導管の閉塞により生じるとする説と自己免疫的な機序によるとする説との二つがある。Seifert ら²⁾ は顎下腺の chronic sialadenitis の41%に, Isacsson ら⁶⁾ は82%に唾石の存在を報告し, 実験的にも, Schröder ら⁷⁾ はウサギの Stenon 管の閉塞により, Bhaskar ら⁸⁾ はマウスの Wharton 管を結紮することにより, それぞれ chronic sialadenitis と同様の組織学的変化を生じさせている。当科でも, 唾石とともに摘出した顎下腺の病理組織学的検索にて Küttner 氏病ほど激しくはないが, chronic sialadenitis の像を認めることが多い。唾液の性状や主管の解剖学的特徴の差から唾石は顎下腺に多く発生する。よって唾石による閉塞ならば Küttner 氏病が耳下腺にまれで顎下腺に多いことは説明できる。一方, 小円形細胞の浸潤やリンパ濾胞の形成, 間質の結合組織の増生といった病理組織像²⁾⁹⁾ より,

また, IgG や γ -globulin の増加した症例の報告⁴⁾¹⁰⁾ などから, 局所や全身の自己免疫の関与も指摘されている。事実, White¹¹⁾ は, 動物実験で自己免疫性耳下腺炎を作り得ることを報告している。本症例には免疫学的な諸検査は施行していないので, 原因は決めがたいが, 白血球増多や血沈亢進から推測される炎症の存在, Stenon 管の開口部が判別しにくく, 耳下腺圧迫でも唾液の流出が認められなかったことより, 閉塞説の方が説明しやすい。

抗生剤や消炎剤投与などの保存的治療で消失した報告¹²⁾ もあるが, この場合治療期間はかなり長期間にわたっている。耳下腺の Warthin 腫瘍のように両側発生の報告¹²⁾ もあり, 顎下腺腫瘍で両側発生ならば Küttner 氏病の可能性が高く, 経過をみることもできるかも知れないが, 通常は一側性であり, 各種の画像検査および吸引細胞診により確定診断が得られず, 腫瘍が否定できない場合は, 外科的治療が選択され最終診断が下されるのが現状である。

おわりに

71歳女性の右耳下部腫瘤を摘出したところ, 病理組織的に慢性硬化性唾液腺炎 (Küttner 氏病) と診断されたので報告し, 若干の考察を加えた。

文 献

- 1) Küttner H : Über entzündliche tumoren der submaxillar-speicheldrüse. Bruns' Beiter Klin Chir 15 : 815~828, 1896.
- 2) Seifert G and Donath K : Classification of the pathohistology of the salivary glands ; review of 2600 cases in the salivary gland resister. Beitr Path 159 : 1~32, 1976.
- 3) 岩嶋寸三 : 異物迷入による顎下腺並びに舌下腺の炎症性腫瘍の1症例. 日本外科学会誌 8 : 133~135, 1907.
- 4) 永田博史 : 耳下腺にみられた chronic sialadenitis (いわゆる Küttner 腫瘍) の1症例. 耳喉 57 : 49~53, 1985.
- 5) 土田博夫, 北嶋和智 : 耳下腺に発生した Küttner 氏病の1症例. 耳鼻臨床 81 : 393~398, 1988.

- 6) Isacson G and Lundquist P : Salivary calculi as an aetiological factor in chronic sialadenitis of the submandibular gland. Clin Otolaryngol 7 : 231~236, 1982.
 - 7) Schröder M, Chilla R and Arglebe C : Occlusion of Stenon's duct by prolamine ; a possible treatment of chronic parotitis? ORL 44 : 1~5, 1982.
 - 8) Bhaskar S, Bolden T and Weinmann J : Experimental obstructive adenitis in the mouse. J Dent Res 35 : 853~862, 1956.
 - 9) Räsänen O, Jokinen K and Dammert K : Sclerosing inflammation of the submandibular salivary gland (Küttner tumor). Acta Otolaryngol 74 : 297~301, 1972.
 - 10) 石川 哮, 永田雅英 : Küttner 腫瘍. 耳鼻臨床 79 : 351~353, 1986.
 - 11) White S : Experimental autoallergic parotitis. J Oral Pathol Med 2 : 341~343, 1973.
 - 12) 上田隆志, 鶴田至宏, 松本雅央・他 : いわゆる Küttner 腫瘍の 2 症例. 耳鼻臨床補 37 : 196~201, 1990.
- (別刷請求先 : 山本英一
〒700 岡山市中山下2-1-80
川崎医科大学附属川崎病院耳鼻咽喉科)