Warthin 腫瘍の1例

万羽晴一・常葉信雄・広瀬達男
梶川幸良・谷田部雄二

A case report of Warthin's tumor.

Seiichi MANBA・Nobuo TOKIWA・Tatsuo HIROSE
Sachiyoshi KAJIKAWA・Yuuji YATABE

はじめに

Warthin 腫瘍 (Papillary cystadenoma lymphomatosum) は、唾液腺に好発し、特有の組織構造を示す比較的にまれな、良性上皮性腫瘍とされている。本邦における報告例は、われわれの知り得た範囲内では、72例を数えるのみであるが、今回われわれも典型的な Warthin 腫瘍の1例を経験したので報告する。

症 例

患 者：[REDACTED] 51歳，男性，国鉄職員

初 診：昭和47年7月[REDACTED]日

主 訴：右下顎角部の腫張

家族歴：特記すべきことはない。

既往歴：昭和17年戦地にてマラリアに罹患し、以来年に4～5回高熱症状（40℃以上）を繰り返したが、最近1年間は発症していない。

昭和31年3月より32年10月まで、肺結核にて入院加療を受けた。他には特記すべき事項はない。

現病歴：17～18年前、右耳介下部に小指頭大の腫瘍が有るのに気付いたが、無痛性であったため、特に治療を受けずに放置しておいた。

その後、腫瘍は徐々に増大し5～6年前には鶏卵大となり、さらに風邪をひいた時に、右耳の難聴を感じるようになったため、某病院耳鼻科を受診し耳下腺炎の診断のもとに、右耳下腺部腫瘍の切除手術を受けた。しかし、術後再び右耳介下部に無痛性に腫瘍を触れるようになり、遂には鶏卵大にまで増大したため、某開業医より当科受診を勧められ来院した。

現 症：体格、栄養中等度。血液および尿検査所見に

も異常はなく、局所以外には特記すべき所見を認めない。

局所所見として、右耳介下部、下顎枝後縁部に境界明瞭な半球状鶏卵大の腫張を認め、腫瘍は実質性弾性軟で周囲組織との癒着も認められず可動性であった。なお、当部皮膚には腫瘍中央に某医での切開創痕を認める他には、発赤もなく自発痛、圧痛も共になかった（写真1，2）。右顎下リンパ節に小豆大の腫張を2個触知したが、圧痛はなくその他部位のリンパ節も触知されなかった。なお、顎運動および頸部運動時の障害は認められなかった。口腔内には特記すべき所見はない。なお右耳下腺の造影X線撮影を行ったところ、造影剤ウログラフインは0.7ccを注入し得たのみで、導管より下方部は造影されなかった。以上より、右耳下腺部の良性腫瘍の診断のもとに、昭和47年8月[REDACTED]日、全身麻酔下に腫瘍摘出手術を施行した。

写真1 正面

新潟大学歯学部第1口腔外科学教室（主任：常葉信雄教授）
1st Department of Oral Surgery, Niigata University,
School of Dentistry. (Chief: Prof. Nobuo Tokiwa)
受付日：昭和50年8月19日

写真 2 右側面

写真 3 摘出物剖面

手術所見：腫瘍中央部の切開創痕を囲んで径約3.5cmの紡錘形に切開線を加えて剝出術を行ったが、腫瘍は薄い被膜に包まれ、周囲から容易に剝離せられ、耳下線下方に位置して、これと一部線維性に結合していたが容易に全摘出し得た。術後経過は良好で8月■日退院し、2年後の現在も再発は認められない。

摘出物所見：摘出腫瘍は、 $4.8 \times 4.8 \times 3$ cmの大きさで全体に薄い被膜におおわれ、表面は赤褐色を呈し比較的滑沢で、凹凸のある分葉構造を呈しており弾力性硬度であった。剖面は全面にわたって大小不同のCyst様空洞が散在し、中に暗黄色の液の貯留が認められた(写真3)。

病理組織学的所見：薄い結合織性被膜に包まれた腫瘍組織は、上皮性組織とリンパ組織から成り、結合織性の基質は非常に少ない。2層の上皮細胞が大小の管腔を囲んで排列しており、内層は纖毛のない高円柱状細胞、外層は立方状ないし多角形または円形の細胞である。内層

写真 4 H. E. 染色 $\times 10$ 写真 5 H. E. 染色 $\times 200$

の細胞の核は濃染し、囊胞腔にかたよって配列しており、基底層の核はむしろ胞状を呈しており、いずれも核膜、核小体とも明瞭である。管状および囊胞状腔内にはエオジン淡染の粘液性物質がみられる。上皮下には、リンパ球の密な間質がみられ、リンパ組織中央には胚中心の形成も認められる(写真4, 5)。以上のごとく典型的なWarthin 腫瘍の像であった。

考 察

Warthin 腫瘍は成書によれば^{1)~3)}、特有な組織像を有する耳下腺領域に好発する腫瘍とされており、文献的には1895年のHildebrandによるCongenital cyst of the neck としての報告例が最初であると言われ¹⁴⁾、以後同様な症例の報告が時折なされてきたが、1910年Albrecht & Arzt は、Papilläre Cystadenome in Lymphdrüsenの名称で、また1929年にはWarthin が、2例の自験例に詳細な組織学的検討を加えて、Papillary cystadenoma lymphomatosum として報告^{1)~3)}してから今日まで、Warthin 腫瘍の名称で知れている。本腫瘍には同義語が多く、adenolymphoma, cystic papillary adenoma, oncocyctoma, orbital inclusion adenoma, orbital inclusion cyst, papillary cystadenolymphoma, papillary

cystadenoma, 等がある⁴⁾。以下、本症の発生原因、頻度、発生部位、性別、年齢、症状経過、治療、予後について文献的に考察し要約した。

1) 発生原因：諸説があるが、現在最も有力なものは、Thompson & Bryant¹⁵⁾ (1950) の耳下腺組織のリンパ組織内迷入に伴う腫瘍増殖説である。すなわち、Thompson ら¹⁵⁾ は唾液腺について胎生学的に検索した結果、その胎生初期において耳下腺は、顎下腺・舌下腺に比してリンパ組織の発現が早い反面、腺実質の充実化と被膜の形成がはるかに遅い傾向にあると言う。このことから耳下腺の内外において、リンパ組織中に耳下腺組織が迷入する可能性は非常に高いとし、また実際、胎児の耳下腺内外のリンパ節内に唾液腺組織を確認して、この仮説の裏付けをしている。

2) 頻度：本邦における報告は、昭和10年の松島らが最初とされ¹⁸⁾、その後現在までわれわれの調査した範囲では、本症例を含めて73例であった^{3)19)~29)}。本腫瘍はそのほとんどが耳下腺に発生しているが、耳下腺腫瘍に占める割合は外国ではおおむね5~7% (Martin & Ehrlich, 1944; 359例中22例; Foote & Frazell, 1954; 766例中50例; Eneroth, 1964; 802例中41例) のようである。他にも¹⁵⁾ 3% (Bardwill, 1967; 153例中5例) あるいは19% (Lambert, 1971; 83例中16例) との報告もある。なお、本腫瘍は現在まで外国では2,000例以上が報告³⁾ されているという。

3) 発現部位：本腫瘍はそのほとんどが片側の耳下腺特に下顎角部に隣接する耳下腺下極に発生すると報告³⁾ されている。従来顎下腺に発生したとして報告されてきたなかにも、顎下腺と耳下腺の位置的近接からきた誤認として疑がう記載もある¹⁾³⁾⁹⁾。しかしなお顎下腺その他小唾液腺、あるいは涙腺などに発生したという報告もあるが¹⁾³⁾⁹⁾、やはり非常にまれである。本邦において丸田ら²⁷⁾が48例について検索したところ耳下腺部31例、耳下腺ないし下顎角部5例、顎下部4例で、その他8例については部位不明であったという。われわれの調査した73例については部位記載の明らかなもの61例のうち耳下腺部25例、耳下腺ないし下顎角部20例、顎下部3例、顎部12例、口蓋部1例であった。なお、両側性に発生した例は、欧米では7~8%と言われている⁸⁾⁹⁾。このような両側性発生は、唾液腺腫瘍中本腫瘍にのみ認められる特色である。また、同側における多発性症例の報告もあり、本邦でも富田ら¹⁹⁾ (1958) の症例は、右に3個左に2個の結節より成っていたと言う。これらは、本腫瘍の多中心性発生を示しており¹⁾⁸⁾、術後再発の場合の大きな原因となり得るとも言われている¹⁾。本腫瘍の大きさは、小指頭大から鶏卵大までのものが多く、他には一般に自覚症状に乏しい。

4) 性別：圧倒的に男性に多く発生しており^{1)~12)}、Foote & Frazell⁴⁾ (1954) によれば、男性：女性の比は

7:1であると言う。Plaut¹⁴⁾ (1942)、Chaudhry & Gorlin¹⁶⁾ (1958)、Kleinsasser et al¹⁷⁾ (1966) らの報告ではいずれも5:1であり、本邦例62例においては男性48例、女性14例であった。

5) 年齢：中年以降に好発しており、Geiler¹⁴⁾ (1958) によれば、年齢は2.5歳~92歳にわたり平均60歳であったと言う。また、Chaudhry & Gorlin¹⁶⁾¹⁷⁾ (1958) によれば、41歳~70歳が82%を占め平均年齢は56歳であったと言う。本邦例では、最年少6歳、最年長82歳で、40歳以上が93.4%を占めていた。

6) 症状経過：本腫瘍の症状経過は長く、欧米の報告⁴⁾⁸⁾⁹⁾では平均3年であると言われている。われわれの調査した本邦症例では、56例中1カ月未満3例、1カ月~1年13例、1年~5年19例、5年~10年11例、10年~30年9例、30年以上1例であった。

7) 治療：大部分は外科的全剔出手術の適応となっている。

8) 予後：本腫瘍は一般に良性とされ、完全な剔出後の再発はまれであると言われているが、Frazell⁴⁾ (1954)、Beahrs et al¹⁷⁾ (1960) らによれば、剔出後の再発率は9~12%であろうと言う。再発原因としては、不完全な剔出、手術時における腫瘍成分の脱落などが考えられている。極めてまれには、悪性化の報告もあり、本邦においても田中¹⁷⁾ (1953)、酒井²⁰⁾ (1962) が、悪性化症例を報告している。

む す び

51才男性に発生した典型的な Warthin 腫瘍を経験したので報告し、併せて文献的考察を加えた。

稿を終るに当り、病理所見について御教示頂いた、本学病理学教室石木哲夫教授に深く感謝致します。

文 献

- 1) Evans, R. W., Cruickshank, A. H. : Epithelial tumors of the salivary glands. W. B. Saunders Co., Philadelphia, 1970, p. 37.
- 2) Lucas, R. B. : Pathology of tumors of the oral tissues. Churchill Livingstone, London, 1972, p. 286.
- 3) 石川梧朗, 秋吉正豊 : 口腔病理学Ⅱ. 永末書店, 京都, 1969, 1064頁.
- 4) Foote, F. W., Frazell, E. L. : Tumors of the major salivary glands, Atlas of tumor pathology, section 4. Fascicle 11. Armed Forces Institute of Pathology, Washington, D. C., 1954, p. 8, p. 129.
- 5) Batsakis, J. G. : Tumors of the head and neck. Clinical and pathological considerations. The Williams & Wilkins Co., Baltimore, 1974, p. 6, p. 23.
- 6) Doerr, W., Uehlinger, E. : Spezielle pathologische Anatomie I. Springer-Verlag, Zürich,

- 1966, p. 246.
- 7) Anderson, W. A. D. : Pathology II. ed 5, The C. V. Mosby Co, Saint Louis, 1966, p. 829.
- 8) Gorlin, R. J., Goldman, H. M. : Thoma's Oral Pathology II. ed 6, The C. V. Mosby Co, Saint Louis, 1970, p. 1009.
- 9) Shafer, W. G., Hine, M. K., Levy, B. M. : A textbook of oral pathology. ed 3, Saunders Co, Philadelphia, 1974, p. 217.
- 10) Farmer, E. D., Lawton, F. E. : Stone's oral and dental diseases. E. & S. Livingstone Ltd, Edinburgh & London, 1966, p. 1015.
- 11) Thoma, K. H. : Oral Surgery II. ed 5, C. V. Mosby Co, Saint Louis, 1969, p. 728.
- 12) Kruger, G. O. : Textbook of oral surgery. ed 3, C. V. Mosby Co, 1968, p. 546.
- 13) 牛島 宥 : 唾液腺腫瘍. 第1版, 文光堂 東京, 1974 293頁.
- 14) 8) より引用.
- 15) 5) より引用.
- 16) 9) より引用.
- 17) 1) より引用.
- 18) 19) より引用.
- 19) 富田喜内, 森勝好, 他 : 両側性乳頭性嚢腺リンパ腫 (Warthin 腫瘍) の1例. 口病誌 25 : 223 1958.
- 20) 酒井俊一, 他 : 下顎智歯部に発生した粘表皮癌化を示す Warthin 腫瘍症例. 日耳鼻会報 65 : 236 1962.
- 21) 河村良光 : 日耳鼻会報65:236 1962. 20) より引用
- 22) 沢田信敏 : 日耳鼻会報65:236 1962. 20) より引用
- 23) 坪倉篤雄, 他 : 顎下腺及び耳下腺に発生した Warthin 腫瘍. 広島大医誌 13 : 109 1965.
- 24) 川路清高, 他 : Warthin 腫瘍の1例. 鹿児島大医誌 22 : 249 1970.
- 25) 岩崎望彦, 他 : 2例の Warthin 腫瘍の発生母地と間質のリンパ機組織の変化について. 化学療研彙 23 : 52 1970.
- 26) 板東俊介, 他 : Papillary cystadenoma lymphomatosum の2例. 日外会誌 73 : 114 1974.
- 27) 丸田潤, 他 : 唾液腺腫瘍について. 特に Papillary Cystadenoma Lymphomatosum (Warthin's tumor) の2例. 医療 25 : 459 1971.
- 28) 柴野信夫, 他 : Warthin 腫瘍の1例. 北外誌 16 : 92 1971.
- 29) 佐藤伊吉, 他 : Warthin's tumor の1例. 日口外誌 18 : 655 1972.