嚢胞を思わせた Warthin 腫瘍の 1 例

石川 好美・林 誠一・藤田 浄秀

Warthin's tumor suggesting cystic lesion: Report of a case

Yoshimi ISHIKAWA・Seiichi HAYASHI・Kiyohide FUJITA

緒 言

Warthin 腫瘍は病理組織学的に特徴のある構造を示す上皮性の良性腫瘍であり、唾液腺腫瘍のなかでも比較的まれな疾患であり耳下腺に好発する。

今回著者らは、術前に嚢胞を疑わせ、摘出物の病理検査にて Warthin 腫瘍との診断を得た大きな嚢胞を形成した Warthin 腫瘍の 1 例を経験したので報告する。

症 例

患 者： 53 歳 男性。

初 診：昭和56年10月。

主 訴：左顎角部腫瘍。

既往歴：15歳時胸膜炎にて6か月入院加療。そのほか特記事項なし。

家族歴：特記事項なし。

現病歴：昭和56年4月頃、左顎角部の小腫瘍に気付いたが、疼痛などないため放置していた。その後、症状に変化なく経過したが、9月頃より増大傾向にあるため近医（整形外科）受診し、穿刺を受け透明でやや粘稠な液体を吸引したため、嚢胞性疾患が疑われたため当科紹介され来院した。

現 症：体格、栄養状態ともに良好で、そのほか全身状態に特記事項を認めない。

口腔外所見：左顎角部から顎下部にかけて45×37mmの半球状で、弾性比較的軟の腫瘍を認め、表面は平滑で境界は明瞭だが深部に癒着性で非可動性であった。表面皮膚は正常で同部に熱感、圧痛はない。顔面神経麻痺も認めてない（写真1）。

口腔内所見：左耳下腺乳頭に病的変化はないが、軽度の口腔内乾燥感を自覚していた。唾液分泌量測定では、

写真 1 初診時顔貌所見

無刺激15分：0 ml、有刺激15分：1 ml という結果であった。

諸検査所見：血液、尿、心電図、呼吸機能検査などに異常を認めなかった。

エックス線所見：顔面単純エックス線像に病的変化は認められなかったが、左耳下腺唾影像では耳下腺下極に軽度の圧排像と思われる所見を認めた（写真2）。

超音波断層所見：辺縁エコーは一部不明瞭な部分があるが、底部エコーは消失していない。内部エコーはとくに認められない。

以上より良性腫瘍と考えられる。

臨床診断：左耳下腺腫瘍または嚢胞の疑い。

処置および経過：昭和56年12月全身麻酔下に腫瘍摘出術を施行した。切開線は耳前部より下顎枝後縁を通り顎角部にいたるS字状切開を用いた。皮下組織を鈍的に剝離すると、広頸筋、胸鎖乳突筋、耳下腺下極に囲まれた部位に赤褐色、弾性軟で一部波動を触知する嚢胞様の腫瘍を認めた。腫瘍は完全に被包されており周囲組織より容易に剝離できたが、一部耳下腺浅葉に移行してお

横浜市立大学医学部口腔外科学教室

（主任：藤田浄秀教授）

Department of Surgery, School of Medicine, Yokohama City University (Chief: Prof. Kiyohide Fujita)

受付日：昭和58年5月9日

写真 2 耳下腺唾影像：耳下腺下極に軽度の圧排像を認める。

写真 3 術中所見

写真 4 摘出物外観

り境界不明瞭のため、耳下腺を一部含めて腫瘤を一塊として摘出した（写真 3, 4）。

術後、顔面神経麻痺などの障害は認められなかったが、血清アミラーゼが高値を示した。術前 235 単位で術後 2,801 単位と上昇したが、術後 6 日で正常範囲内に回復した。

摘出物所見：摘出物は $35 \times 17 \times 27$ mm で、赤褐色、弾性軟を示し腫瘤の中央より耳下腺側は充実性で断面は白色を呈していた。中央より下半側は嚢胞状を呈し、褐色の内容液が被膜を通して認められ、断面はコロイド状の内容液が薄い線維性の被膜で被包されていた（写真 5）。内容液を除去すると白色顆粒状の乳頭状突起が多数認められた（写真 6）。

病理組織学的所見：腫瘤は薄い線維性被膜に包まれ、耳下腺組織との境界は明瞭である（写真 7）。腫瘤の実質部は管腔内に乳頭状増殖を示す上皮組織とリンパ性細胞の増殖とからなり、上皮組織は管腔側の濃縮円形核を

写真 5 摘出物断面（10%ホルマリン固定後）

写真 6 摘出物断面：内容液を除去すると嚢胞壁より乳頭状突起を多数認める。

写真 7 病理組織学的所見：耳下腺組織と腫瘍との間に薄い線維性被膜を認める。(H-E 染色)

写真 9 病理組織学的所見
写真 8 の強拡大 (H-E 染色)

写真 8 病理組織学的所見：管腔側上皮組織は2層構造を呈し，典型的な Warthin 腫瘍の組織像を呈している。(H-E 染色)

写真 10 病理組織学的所見
間質は密なリンパ性細胞からなり，散在性に胚中心を認める。(H-E 染色)

もつ高円柱細胞と基底側の立方形ないし多角形の細胞との2層構造を示している(写真8, 9)。間質は密なリンパ性細胞で満たされており，上皮基底膜に接している。散在性に胚中心の形成が認められる(写真10)。腫瘤の約半分は嚢胞状で，周囲は薄い結合組織で被われている。内容液は好酸性のコロイド状物質で満たされており，間質部と同様のリンパ性細胞が多数含まれていた。

考 察

本症は特徴のある組織構造を示す良性腫瘍で，1895年

に Hildenbrand²⁾ により Congenital epithelial cyst の名称で報告されたが，1910年に Albrecht & Arzt³⁾ が Papillary cystadenoma として報告した。その後1929年に Warthin⁴⁾ が本症の2例を組織学的に検討し乳頭状嚢腺リンパ腫(Papillary cystadenoma lymphomatosum)と命名し，さらに1944年に Martin & Ehrlich⁴⁾ が Warthin's tumor の名称で発表以来，今日ではこの名称が広く一般に使われている。

組織発生については北村⁵⁾によると次のような諸説をあげている。①リンパ組織中唾液腺組織の異所的増殖。②耳管原基説。③鰓性異所発生。④Orbital inclus-

ion 説。⑤異所の胸腺細胞。⑥リンパ節内被細胞の異所的増殖。⑦唾液腺管拡張説。⑧Oncocyte 説。⑨退化現象説などがある。このほか自己免疫疾患説についても論じられているが、一般に上皮成分に関しては唾液腺導管由来とする見解に一致している。長井ら⁶⁾によると、上皮を構成する細胞には2種類あるとしており、第1型はOncocyte と粘液産生細胞(Goblet cell)を含むもので、第2型はOncocyte の性格が強いものとしている。粘液産生細胞は粘液を産生したのち、死滅し上皮より脱離してしまう。つまり上皮に粘液産生細胞をもつものは、本症の初期像と考えられ、その後経時的にOncocyte 的性状に移行していくものと考えられる。

この考えによれば、本症例、北村ら⁵⁾の第1症例、長井ら⁶⁾の第4症例はいずれも病悩期間が1年以内と短いため、粘液の貯留により大きな嚢胞が形成されることが考えられる。しかし本症は一般に無症状に経過することが多いため、放置されることにより病悩期間が長くなり徐々に粘液産生細胞数が減少し、粘液も吸収されてしまうため、実質性の腫瘍を示す症例が圧倒的に多いと考えられる。

本症の発生頻度について Foote & Frazell⁷⁾ は、877例の大唾液腺腫瘍中の50例(約6%)に認めたとしている。本邦では島田⁸⁾によると172例中4例(約2.4%)と、比較的少ない傾向がうかがわれる。当教室では斉藤ら⁹⁾の報告例を含めて3例を経験している。

発生年齢、性差、左右差について欧米では Chaudhry & Gorlin¹⁰⁾ が集計しており、本邦では泉ら¹¹⁾ の報告がある。発生年齢は欧米では25~92歳であり平均55.6歳で、本邦では6~82歳にみられ平均58.7歳とほぼ同様である。性差に関しては欧米では男性対女性の比は5:1で本邦では3.3:1で両者とも有意に男性に好発としている。左右差については両者とも有意に差を認めず、両側性の発生例を数%あるとしている。本症例は53歳の男性で片側性に発生したものであった。

本症の発育は一般に緩慢で無痛性の腫脹を主訴とすることが多く、形は卵円形または球形を呈する。同部の圧痛や顔面神経麻痺は認めず、表面皮膚に病的変化はない。波動は通常実質性または非肉眼的な嚢胞(Microcyst)を有するものが多いため触知し得ないが、本症例のような大きな嚢胞を形成した場合は触知することがある。われわれが今回調べた範囲では、実質部が少なく大きな嚢胞を形成していた症例は、北村ら⁵⁾の第1症例、長井ら⁶⁾の第4症例および本症例の3例でありまれと考えられる。

本症の確定診断は病理組織学的検索によって得られる。しかし耳下腺部の腫瘍については、術前に良性腫瘍であるか悪性腫瘍であるかの鑑別がとくに重要となる。一般に次のような検査が行われる。

(1) 唾液腺造影、(2) 超音波診断、(3) ^{99m}Tc シンチ

グラム、(4) CT

生検は腺体被膜および顔面神経を損傷する危険性があり、悪性腫瘍の場合はその刺激により腫瘍が活性化したり、転移を起こす可能性があるので通常用いられない。穿刺は嚢胞性疾患が疑われた場合施行され、とくに頸部に発生する鰓嚢胞や皮様嚢胞では内容液を吸引することができる。本症例のように粘液を吸引した場合、鰓嚢胞(側頸嚢胞)との鑑別が重要である。

鑑別診断を用いる疾患は、上記の嚢胞性疾患のほか、多形性腺腫、オンコサイトーマ、血管腫、脂肪腫、腺房細胞癌、扁平上皮癌、腺様嚢胞癌などがあげられる。近年、総合画像診断の進歩により鑑別が可能になってきた。本症の場合、超音波診断にて mixed type を呈し、^{99m}Tc シンチグラムにて集積を認めれば、本症と診断できる。本症例では穿刺にて内容液を吸引したため嚢胞性疾患を疑い、また超音波診断にて benign tumor と診断を受けたので、摘出手術を行った。^{99m}Tc シンチグラムを施行すれば嚢胞性疾患との鑑別が可能であったかもしれない。

治療は耳下腺の良性腫瘍に準じて全摘出を基本とする。村上ら¹²⁾によると Warthin 腫瘍は multicentric な疾患と考えられるので顔面神経と被膜を保護しながら、腫瘤を剝離し耳下腺を一部含めて切除しなければならないとしている。さらに、cell contamination を防ぐために、切除後の残存組織を十分水洗すべきであるとしている。本症例も上記の方法に従って切除した。

予後は一般に良好で再発はほとんどないとされているが、村上ら¹²⁾によると再発例のほとんどは Tumor resection によって処理されたもので、Superficial lobectomy を行えば再発をきたすことはないとしている。本症例も術後1年再発を認めていない。

結 語

53歳の男性の左顎角下部に発生した、嚢胞を疑わせた Warthin 腫瘍の1例を報告し、若干の考察を加えた。

引 用 文 献

- 1) Warthin, A.S.: Papillary cystadenoma lymphomatosum. A rare teratoid of the parotid region. J Cancer Res 13: 116 1929.
- 2) Hilclenbrant, O.: Uber Angborne Epitheliale Cysten und Fistula des Halses. Arch Klin chir 49: 167 1895.
- 3) Albrecht, H., Arzt, L.: Beiträge zur Frage der Gewebsverirrung. Papilläre Cystadenoma in Lymphodrüsen. Frankf Zschr Pathol 4: 47 1910.
- 4) Martin, H., Ehrlich, H.E.: Papillary cysta-

- denoma lymphomatosum (Warthin's tumor) of the parotid gland. Surg Gynec & Obst 79: 611 1944.
- 5) 北村 武, 他: Papillary cystadenoma lymphomatosum (Warthin's tumor) —その臨床及び成因について—. 耳喉 35: 189 1965.
- 6) 長井好子, 他: Papillary cystadenoma lymphomatosum (Warthin 腫) の臨床病理学的検討. 神奈川歯学 8: 47 1973.
- 7) Foote, F.W., et al.: Tumors of the major salivary glands. Cancer 6: 1063 1963.
- 8) 島田義弘: 11) より引用.
- 9) 斎藤 進, 他: 右側耳下腺部に発生した Warthin 腫瘍の 1 例. 日口外誌 27: 498 1981.
- 10) Chaudhry, A.P., Gorlin, R.J.: 11) より引用.
- 11) 泉 廣次, 他: 本邦における乳頭状囊腺リンパ腫の臨床病理学的検討. 日大口腔科学 2: 247 1976.
- 12) 村上 泰, 他: 耳下腺腫瘍70症例の治療経験. 耳喉 48: 589 1976.
-