耳下腺内リンパ上皮性嚢胞の1例

佐藤 泰 則・埜口五十雄・安藤 俊 史・高橋 雅 幸
葉 山 滋・黒川 英 人・薄 木 省 三・神田 秀 治
井 出 文 雄・金 子 徹

A case report of lymphoepithelial cyst within the parotid gland

Yasunori SATO・Isao NOGUCHI・Toshifumi ANDO・Masayuki TAKAHASHI
Shigeru HAYAMA・Hideto KUROKAWA・Shozo USUKI・Hideharu KANDA
Fumio IDE・Tooru KANEKO

Abstract: Lymphoepithelial cyst (branchial cyst) often occurs in the lateral cervical region but rarely seen within the parotid gland. In Japan, as far as we could find in the literature, there have been only 15 cases of lymphoepithelial cyst within the parotid gland. In this report, we discuss a case of lymphoepithelial cyst within the parotid gland which we experienced clinically.

The subject is a 57-year-old male who appeared at our hospital with the chief complaint of swelling of the left parotid gland. A 32×43 mm tumor was palpable in the left parotid gland region. Resection of the tumor was performed under general anesthesia, and it turned out to be a single vesicle cyst having lymphoid tissues with some germinal centers in the wall. It was diagnosed histopathologically as lymphoepithelial cyst. At present, a year and 7 months postoperatively, the patient is remarkably well.

Key words: lymphoepithelial cyst, branchial cyst, parotid gland

緒 言 症 例

耳下腺にはさまざまな腫瘍や腫瘍類似疾患が好発することは周知のごとくであるが、嚢胞性疾患は比較的まれといわれている。臨床的には腫瘍との鑑別が困難な場合が少なくないようである。リンパ上皮性嚢胞は本来側頸部に好発し、耳下腺内に発生するのはきわめてまれとされている。本邦における耳下腺内に発生したリンパ上皮性嚢胞の報告例は、われわれが渉猟した限り15例を数えるにすぎなかった。

今回、われわれは耳下腺内に発生したリンパ上皮性嚢胞の1例を経験したので、若干の考察を加えて報告する。

患 者： 57歳 男性。
初 診：昭和59年8月 日。
主 訴：左側耳下腺部の腫脹。
既往歴：17歳時に肋膜炎に罹患し、57歳時には心室性頻脈と診断されている。

家族歴：特筆する事項はない。

現病歴：初診より約1か月前の昭和59年7月頃に、左側耳下腺部に腫脹があるのに気づいた。特に疼痛などはなかったが、徐々に増大するような気がして心配のため、某総合病院内科を受診したところ、当科を紹介され来院した。腫脹に気づいて以来、食事に関連して左側耳下腺部の腫脹が大きくなったり、また疼痛が起るようなことはなかった。

現 症：体格および栄養状態は良好であった。顔貌は左右非対称性で、左側耳下腺部に相当して腫脹があり(写真1)、皮下に32×42mm大の卵円形の腫瘤を触れた。腫瘤の境界は明瞭で周囲組織との癒着はなく可動性

防衛医科大学校歯科口腔外科

(主任：埜口五十雄教授)

Department of Oral and Maxillofacial Surgery,
National Defense Medical College (Chief: Prof.
Isao Noguchi)

受付日：昭和61年5月26日

写真 1 初診時側貌

写真 3 超音波エコー像

写真 2 耳下腺造影像

写真 4 CT 像

- a 単純 CT
- b 造影 CT

であり、硬度は弾性硬であった。圧痛はなく被覆皮膚には異常を認めなかった。

X線所見：唾液腺造影撮影では、前後方向撮影像で腺内主管および浅葉内の分枝導管は外側へ圧排されていた(写真2)。腺実質部には漏洩像などの異常像は認められなかった。

超音波所見：境界辺縁は明瞭かつ整で内部エコーは均一低であり、底面エコーは強で後部エコーに虚像が認められる嚢胞像であった(写真3)。

CT 所見：単純 CT (plain CT) では左側咬筋後方に辺縁明瞭で円滑な均一低吸収塊が認められ、造影 CT

写真 5 手術中写真

写真 7 病理組織像 (H-E 染色, ×20)

写真 6 摘出物

(contrast enhancement CT) では壁のみが増強し、内部は増強を示さなかった (写真4)。

臨床諸検査所見：血液尿検査には異常を認めなかった。

術前臨床診断：以上の所見を総合した結果、左側耳下腺部嚢胞とした。

処置および経過：昭和59年10月■に入院の上、全身麻酔下で腫瘍の摘出術を行った。左側耳介部前より同耳介下部にかけてS字状に約6cmの皮膚切開を加え、次いで広頸筋の切開を行い剝離すると、腫瘍は耳下腺浅葉下部に現れた (写真5)。腫瘍を耳下腺より鈍的に剝離したところ、一部耳下腺組織と癒着している部分があったが、おおむね剝離は容易で腫瘍を一塊として摘出した。摘出術創は通法により一次縫合を行い手術を終了した。現在まで術後1年7か月に及ぶが、異常は認められない。

摘出物所見：摘出物は比較的薄い被膜で包まれ、腫瘍そのものの表面の色調は総じて暗赤色を帯びていた (写真6)。断面を入ると単房性の嚢胞で、内部には淡黄色の漿液性の内容物を有していた。

病理組織所見：嚢胞壁は繊維性組織からなり、上皮は脱落していたが、壁内には胚中心を含むリンパ組織が認

められ (写真7)、病理組織学的にはリンパ上皮性嚢胞と診断された。

考 察

耳下腺内に発生するリンパ上皮性嚢胞はきわめてまれとされており、Bhaskar ら¹⁾によれば468例のリンパ上皮性嚢胞のうち、耳下腺内に発生したものは5例 (1.7%)であったと報告されている。Eneroth²⁾によれば、802例の耳下腺腫瘍および腫瘍様疾患のうちで本嚢胞は5例 (0.6%)であったと述べており、本邦では金子ら³⁾によれば耳下腺良性腫瘍340例のうち1例 (0.3%)であり同様にきわめて少ない。われわれが本邦における耳下腺内リンパ上皮性嚢胞の報告例を渉猟した限りでは、わずか15例⁴⁻¹⁷⁾ (表1)であった。

リンパ上皮性嚢胞の発生年齢は、20~30歳代に多いと報告しているもの^{1,18)}や、10歳代より60歳代まではほぼ同率に発生すると述べているもの¹⁹⁻²²⁾もあり、一定しない。一方本邦の耳下腺15例については、最年少が27歳⁷⁾であり最年長は77歳¹⁷⁾で、平均は55.7歳であった。年代別にみると、50歳代が6例と最も多く、次いで60歳代の4例であり、50歳以上が15例のうち12例を占めていた。本邦の耳下腺内リンパ上皮性嚢胞は比較的高齢者層に多く認められ、われわれの症例も57歳で本邦耳下腺例の好発年齢層にあった。

性別では男性に多いとする報告^{1,7,9,17)}が多いが、逆に女性に多いとする報告²³⁾や、性差はないとする報告²⁰⁾もある。本邦の耳下腺内15例についてみるなら、女性が11例と多いが、われわれの症例は男性であった。

一般に耳下腺部嚢胞は耳下腺良性腫瘍と診断されやすいといわれている^{7,17,24-26)}ように、渉猟した15例に関しても、記載の明らかな11例のうち8例までが術前には腫瘍と診断されていた。臨床的には無痛性腫瘍として認められたり、また耳下腺組織内に存在するので波動を触れにくく、硬度も弾性硬ないしは硬と触れることがほとんどであるためといわれている⁸⁾。近年、超音波検査やCT

表 1 本邦における耳下腺内リンパ上皮性嚢胞の報告例

	報告者	報告年	年齢	性別	左右別	臨床診断	治療方法	病理組織所見
1	浅野ら ⁴⁾	1972	38	♂	左	良性腫瘍	摘出	扁平上皮 リンパ組織
2	山下ら ⁵⁾	1973	56	♂	右	混合腫瘍	摘出	扁平上皮, 円柱上皮 リンパ組織, リンパ濾胞
3	村上ら ⁶⁾	1976	42	♀	左	良性腫瘍	摘出 浅葉切除	上皮は扁平化してほとんど脱落, リンパ濾胞
4	藤林ら ⁷⁾	1980	27	♀	右	良性腫瘍	摘出	立方上皮 リンパ組織, リンパ濾胞
5	星野ら ⁸⁾	1980	60	♀	右	不明	摘出 耳下腺部分切除	扁平上皮 リンパ組織, リンパ濾胞
6	和多田ら ⁹⁾	1984	55	♀	左右	嚢胞	摘出 耳下腺部分切除	扁平上皮 リンパ組織, リンパ濾胞
7	川上ら ¹⁰⁾	1984	62	♀	不明	不明	不明	不明
8	竹生田ら ¹¹⁾	1984	63	♀	右	混合腫瘍	摘出 耳下腺部分切除	纖毛円柱上皮, 扁平上皮 リンパ組織, 胚中心
9	後藤ら ¹²⁾	1984	58	♀	右	良性腫瘍	摘出	扁平上皮 リンパ組織, リンパ濾胞
10	外木ら ¹³⁾	1985	52	♂	右	嚢胞	摘出	扁平上皮 リンパ組織, 胚中心
11	藤井ら ¹⁴⁾	1985	66	♀	右	不明	摘出 浅葉切除	上皮不明 リンパ組織
12	渡辺ら ¹⁵⁾	1985	53	♀	右	嚢胞	摘出	扁平上皮, 立方上皮 リンパ組織
13	横尾ら ¹⁶⁾	1985	73	♀	右	不明	治療行わず	纖毛多列円柱上皮 リンパ組織
14	横尾ら ¹⁶⁾	1985	52	♂	左	良性腫瘍	摘出 耳下腺部分切除	扁平上皮, 立方上皮 リンパ組織
15	大野ら ¹⁷⁾	1986	77	♀	右	良性腫瘍	摘出	扁平上皮 リンパ組織, 胚中心
16	自験例	1986	57	♂	左	嚢胞	摘出	上皮脱落 リンパ組織, 胚中心

検査が耳下腺疾患でも繁用され有用性が評価されている²⁷⁻³¹⁾が、両検査所見によっても良性腫瘍と診断される場合があることが報告^{4,11,17)}されており、嚢胞としての診断が難しいことがうかがわれる。しかしながら、われわれの症例においても腫瘤の硬度は弾性硬でかつ波動を触れなかったが、術前嚢胞との診断を得ることができたのは、超音波所見と CT 所見によるところが大きかった。造影 CT 所見では、嚢胞の場合には嚢胞壁が増強されるとの報告^{28,29,31-33)}があるように、われわれの症例においても同所見が認められ超音波検査とともに、造影 CT 検査は有効な診断手段であったと考えられた。

治療法を15例のうち記載の明らかな14例についてみると、治療が行われなかった1例を除く13例はいずれも嚢胞の摘出がなされているが、その際に周囲耳下腺の一部をつけて摘出したものが多いのは、術前耳下腺腫瘍と診断されたことによるとと思われる。われわれの症例においては、術前に嚢胞と診断をし得たので、当初より嚢胞摘出術として手術操作を行った。

病理組織学的には、通常本嚢胞の内面は重層上皮に覆われており、上皮の多くは扁平上皮で、ときに立方上皮、あるいは円柱上皮のこともあり、まれには纖毛がみられることもある。そして本嚢胞の病理組織学的特徴と

して上皮下にリンパ組織が認められることがあげられる¹⁸⁾。本邦の耳下腺内15例においても上皮は扁平上皮、立方上皮、円柱上皮、絨毛円柱上皮などからなり、全例の上皮下にリンパ組織を有していた。われわれの症例においても嚢胞壁内には胚中心を含むリンパ組織が認められたが、上皮は一部扁平上皮化していると思われる部分を除き剝離脱落していた。上皮の脱落については、Hoffmanら³⁴⁾や村上ら⁶⁾の症例と同様に、炎症が関与したものではないかと考えている。

本嚢胞の名称については、鰓嚢胞、鰓原性嚢胞、先天性類嚢胞、リンパ上皮性嚢胞など種々あるが、これは発生由来に関して統一見解がまだ得られていないことによる。鰓嚢胞という名称は鰓弓原器由来を前提としたものであり³⁵⁾、従来一般にはこの説が支持されてきた。胸管³⁶⁾や胸腺咽頭管³⁷⁾から発生するとするものや、Bhaskarら¹⁾のリンパ節内に迷入した耳下腺上皮が嚢胞性変化をしたとする説もある。本邦の耳下腺内本嚢胞では横尾ら¹⁶⁾が病理組織学的に、Bhaskarら¹⁾の説を示唆する所見を得ている。近年口腔内のリンパ上皮性嚢胞については、口腔扁桃組織が関与するとするものや³⁸⁻⁴¹⁾、口腔扁桃組織あるいは唾液腺導管上皮が嚢胞化すると述べているもの⁴²⁾もある。このように、現今では発生由来の観点からすれば、鰓嚢胞という名称はすべての症例に通用する一般名称としては適当とはいえず、組織学的特徴を表現したリンパ上皮性嚢胞と呼ぶのが妥当と考え、われわれもリンパ上皮性嚢胞の名称を使用した。

結 語

57歳男性の左側耳下腺内に発生したリンパ上皮性嚢胞のまれな1例を経験したので、本邦報告例を検索し、若干の文献的考察を加えて報告した。

稿を終えるにあたり、病理組織学的所見についてご教示いただいた元本学中央検査部病理 向井清助教授(現国立がんセンター病理部第2組織病理研究室長)に謝意を表します。

本論文の要旨の一部は、第30回日本唾液腺シンポジウム(昭和60年12月14日、東京)において発表した。

引用文献

- 1) Bhaskar, S.N. and Bernier, J.L.: Histogenesis of branchial cysts; A report of 468 cases. *Am J Path* 35: 407-423 1959.
- 2) Eneroth, C.M.: Histological and clinical aspects of parotid tumors. *Acta Otolaryng* 191 (suppl): 51-54 1964.
- 3) 金子敏郎, 石川 喺, 他: 口腔および唾液腺良性腫瘍. *耳喉* 49: 849-855 1977.

- 4) 浅野 尚, 北村 武: 耳下腺腫瘍周辺の諸問題. *耳喉* 44: 931-943 1972.
- 5) 山下佐英, 伊藤隆利, 他: 耳下腺部に発生した Branchial cyst の1例. *口科誌* 22: 608-614 1973.
- 6) 村上 泰, 猪 忠彦, 他: 耳下腺腫瘍70症例の治療経験. *耳喉* 48: 589-602 1976.
- 7) 藤林孝司, 勝村浅樹, 他: 耳下腺内のリンパ上皮性嚢胞(いわゆる鰓嚢胞)の1例および文献的考察. *日口外誌* 26: 141-148 1980.
- 8) 星野知之, 白石輝雄, 他: 耳下腺部嚢胞3例. *耳喉* 53: 603-608 1980.
- 9) 和多田 等, 長谷川 等, 他: 両側耳下腺内鰓性嚢胞の1症例(抄). *日耳鼻* 87: 739 1984.
- 10) 川上登史, 小池總之, 他: 耳下腺嚢腫の4症例(抄). *日耳鼻* 87: 82 1984.
- 11) 竹生田勝次, 西嶋 渡, 他: 耳下腺内に生じた鰓原性嚢胞の1症例. *耳喉* 56: 1019-1022 1984.
- 12) 後藤 学, 岸本 卓, 他: 耳下腺部に発生したいわゆる鰓嚢胞の1例(抄). *日口外誌* 30: 2168-2169 1984.
- 13) 外木守雄, 高木多加志, 他: 鰓嚢胞の2例(抄). *日口外誌* 31: 140 1985.
- 14) 藤井みゆき, 猪狩武詔, 他: 耳下腺嚢腫の2例(抄). *日耳鼻* 88: 690-691 1985.
- 15) 渡辺正敏, 藤村長久, 他: 耳下腺内に発生したリンパ上皮性嚢胞の1例(抄). *口科誌* 34: 767-768 1985.
- 16) 横尾恵美子, 天笠光雄, 他: 耳下腺内に発生したリンパ上皮性嚢胞の1例. *日口外誌* 31: 1157-1162 1985.
- 17) 大野晶一郎, 池村邦男, 他: 耳下腺内に発生したリンパ上皮性嚢胞の1例. *口科誌* 35: 406-411 1986.
- 18) 石川梧朗監修: 口腔病理学Ⅱ. 改訂版, 永末書店, 京都, 1982, 403-405頁.
- 19) Karlan, M.S., Michel, S.L., et al.: Branchiogenic cysts. *Am J Surg* 110: 615-619 1965.
- 20) Rickles, N.H. and Little, J.N.: The histogenesis of the branchial cyst. *Am J Path* 50: 765-777 1967.
- 21) Stewart, S., Levy, R., et al.: Lymphoepithelial (branchial) cyst of the parotid gland. *J Oral Surg* 32: 100-106 1974.
- 22) Bachner, A. and Hancer, L.S.: Lymphoepithelial cysts of the oral cavity: A clinicopathologic study of thirty-eight cases. *Oral Surg* 50: 441-445 1980.
- 23) 安藤龍男, 大熊孝徳, 他: 前後8回の切開排膿をくりかえした側頸嚢胞の1例. *口外誌* 12: 150-154 1966.
- 24) Sisson, G.A. and Summer, G.W.: Branchiogenic cysts within the parotid gland; report of a case. *Arch Otolaryng* 96: 165-167 1972.

- 25) Weitzner, S.: Lymphoepithelial (branchial) cyst of parotid gland. *Oral Surg* 35: 85-88 1973.
- 26) 竹生田勝次, 西島 渡, 他: 耳下腺嚢胞の3症例(抄). *日耳鼻* 86: 806 1983.
- 27) 山下敏夫, 友田幸一, 他: 耳下腺部腫瘍の総合診断. *耳鼻臨床* 71: 951-965 1978.
- 28) 山下敏夫, 友田幸一, 他: 耳下腺部腫瘍のCT診断(適応と限界). *日耳鼻* 83: 1627-1634 1980.
- 29) 松山文彦, 谷口郷美, 他: 耳下腺部及び周辺腫瘍のCT診断. *耳鼻臨床* 75(増2): 677-685 1982.
- 30) 金子敏郎, 加藤高行, 他: 唾液腺疾患. *耳喉* 54: 848-854 1982.
- 31) 松永仁毅, 西村忠郎, 他: 耳下腺腫瘍のCT診断. *耳鼻臨床* 76(増2): 1149-1159 1983.
- 32) 高橋雅幸, 須川直機, 他: CT スキャンと超音波検査を行なった唾液腺病変の6例(抄). 第8回脳神経CT研究会抄録集: 229 1985.
- 33) 安藤俊史, 高橋雅幸, 他: CT スキャンと超音波検査を行なった唾液腺病変の7例(抄). *日口外誌* 31: 2023 1985.
- 34) Hoffman, E.: Branchial cysts within the parotid gland. *Ann Surg* 152: 290-295 1960.
- 35) Little, J.W. and Rickles, N.H.: The histogenesis of the branchial cyst. *Am J Path* 50: 533-547 1967.
- 36) Wenglowski, R.: Über die Halsfisteln und Zysten. *Arch Chir* 100: 151-208 1912.
- 37) Meyer, H.W.: True branchiogenic cyst and fistula of the neck. *Arch Surg* 35: 766-771 1937.
- 38) Kapp, M.H.: Pathology of oral tonsils. *Oral Surg* 29: 295-304 1970.
- 39) Bachner, A. and Hansen, L.S.: Lymphoepithelial cysts of the oral cavity. *Oral Surg* 50: 441-449 1980.
- 40) Howie, A.J. and Crocker, J.: The lining of branchial cysts studies by electron microscopy and enzyme histochemistry. *J Pathol* 135: 189-197 1981.
- 41) 岡田憲彦, 山本 肇: 頭頸部リンパ上皮性嚢胞の病理学的検討(抄). *歯基礎誌* 25(suppl): 222 1983.
- 42) Toto, P.D., Wortel, J.P., et al.: Lymphoepithelial cysts and associated immunoglobulins. *Oral Surg* 54: 59-65 1982.