慢性硬化性顎下腺炎（いわゆる Küttner's Tumor）の2例

小沢 重雄・高久 暹・佐野 次夫・豊田 寿久
大河原 勉・野田由紀子

Two cases of chronic sclerosing submandibular
sialadenitis (so-called Küttner tumor)

Shigeo OZAWA・Susumu TAKAKU・Tsguo SANO
Toshihisa TOYODA・Tsutomu OKAWARA・Yukiko NODA

Abstract: Recently we experienced two patients diagnosed chronic sclerosing submandibular sialadenitis. They are males 73 and 47 years of age, each with the chief complaint of swelling of the right submandibular region, and the major symptom of tenacious tumoral changes of the submandibular salivary gland.

On ultrasonic examination, an image of the solid lesion with a relatively clear outline was obtained in each case. In particular, the internal echography resulted in heterogeneous low echo.

Sialogram disclosed irregular dilatation of the major and the peripheral ducts, as well as leakage of contrast medium into the glandular parenchyma. Especially in Case No. 2, the contrast agent filling the duct was of a lower density, suggesting possible foreign matter presence. Sialoadenectomy was performed in these cases, and chronic sclerosing submandibular sialadenitis was diagnosed by histopathology. In case No. 2, a foreign matter of phytoid fibers was found in the main duct of the submandibular gland.

Key words: chronic sclerosing sialadenitis (慢性硬化性唾液腺炎), Küttner's tumor (キューッナー腫瘍), submandibular gland (顎下腺)

若干の考察を加えて報告する。

緒 言

慢性硬化性唾液腺炎（いわゆる Küttner 腫瘍）は、遭遇する機会の比較的にまれな唾液腺炎である。それは主に顎下腺をおかすが、硬い腫瘤化をきたすため、病像は良性腫瘍を思わせる。本症の成因については、未だ定説はないが、そのなかで、口腔内からの二次感染や唾石の関与などが指摘されている。

最近、われわれは病理学的に慢性硬化性顎下腺炎と診断された2症例を経験したが、その1例は顎下腺管内に異物を伴うものであった。今回、2症例の病像について

症 例

症例1

患 者：73歳 男性。

初 診：昭和56年1月■。

主 訴：右側顎下部の腫瘍。

既往歴：30歳時、肺結核に罹患し治療をうけたが、現在は治癒している。

家族歴：特記すべき事項はない。

現病歴：約1か月前に、右側顎下部に無痛性の硬い腫瘤のあることに気付いた。痛みがないため放置していたが、腫瘤がいつまでも存在するために、悪性腫瘍ではないかと心配になり、昭和56年1月■当科を受診した。

現 症：

全身所見：体格は中等度で、栄養状態は良好であった。顔色、眼瞼結膜および眼球結膜などに貧血様ならび

埼玉医科大学口腔外科学教室

(主任：高久 暹教授)

Department of Oral Surgery, Saitama Medical School (Chief: Prof. Susumu Takaku)

受付日：平成2年1月23日

写真 1 症例 1: 顔 貌

写真 2 症例 1: 超音波像

に黄疸様の変化は認められなかった。血圧は収縮期 128 mmHg, 拡張期 88 mmHg であった。脈拍は整で、数は 74/min であった。呼吸は胸腹式で、数は 18/min であった。

局所所見；口腔外所見：顔貌は左右非対称で、右側顎下部にび慢性腫脹が認められた（写真 1）。被覆皮膚に異常はなかったが、触診すると、顎下腺は胡桃大の腫瘍と化し、硬度も硬靱であった。表面の性状は比較的平滑で、周囲組織に対して境界も明瞭かつ可動性であった。なお、圧痛はなかった。

所属リンパ節については、右側顎下リンパ節を 1 個、小指頭大に触れ、弾性硬で可動性であり、とくに異常はなかった。

口腔内所見：右側舌下小丘部における顎下腺管開口部からの唾液流出は、ほとんど認められなかった。なお、

写真 3 症例 1: 顎下腺造影像
(38%リビオドールウルトラフィード)
↑: 狭窄部位

写真 4 症例 1: 摘出物

左側舌下小丘部ならびに左右耳下腺乳頭部からはそれぞれ唾液の流出は良好であった。

超音波所見；顎下腺に相当して、輪郭が浅部で明瞭、深部で一部やや不明瞭な分葉状の充実像が得られた。内部エコーは不均一な低エコー像を示し、慢性顎下腺炎と推定された（写真 2）。

単純 X 線所見；舌下部ならびに顎下部には異常は認めなかった。

唾液腺造影所見；38%リビオドールウルトラフィードによって、顎下腺造影法を施行した。顎下腺管は腺内移行部で狭窄していたが、腺内主管ならびに末梢導管は不規則に拡張し、腺内の一部では漏洩像も認められた。以上の画像所見から慢性顎下腺炎と診断した（写真 3）。

臨床検査成績；i) 血液検査成績：とくに異常はなかった。ii) 臨床化学検査成績：S-GPT が 57 mU/ml と軽度の上昇が認められた、iii) 尿検査成績：潜血（＋）を認めたが、泌尿器学的に尿路感染によるものであった。

写真 5 症例 1: 摘出物割面

写真 6 症例 1: 病理組織像

臨床診断: 右側慢性顎下腺炎

処置および経過: 慢性顎下腺炎と診断したが, 患者の腫瘍に対する心理的不安が強く, 手術を希望したため摘出術を行うことにした。昭和56年3月, 全身麻酔のもと顎下腺摘出術を施行した。まず, 下顎下縁より約2cm 下方の右側顎下部に, オトガイ中央と乳様突起を結ぶ弧状の皮膚弛緩線に沿って, 約5cm の皮切を施した。皮下組織を開き, 広頸筋を切断して顎筋膜を露出し, 鈍的に進み顎下腺に達した。顎下腺に分布する動静脈の腺分枝をそれぞれ切断結紮し, 顎下腺を周囲組織より剝離した。剝離は比較的容易であった。なお, 舌神経は顎下神経節の部分で切離して, 顎下腺から分離した。顎下腺管は可及的に口底の近いところで切断したのち, 顎下腺を一塊として摘出した。術後経過は良好で12日目に退院した。現在(昭和63年1月)まで約7年間の経過であるが異常は認めない。

摘出物所見: 摘出物(顎下腺)の大きさは $34 \times 25 \times 31$ mm のやや不整形で, 薄い被膜に包まれた帯赤色の腫瘍であった(写真4)。硬度は硬く, 割面を入れたところ, 分葉状構造が認められ, 灰白色を呈した充実性組織

写真 7 症例 2: 顔 貌

よりなっていた(写真5)。

病理組織所見: 小葉間結合組織ならびに腺周囲は硝子化を伴う線維組織が著明で, 腺房は萎縮消失し, リンパ性細胞浸潤を伴った線維組織で置換されていた。ところにより反応中心を有するリンパ濾胞も認められた。導管のなかには拡張しているものもあり, 上皮に粘液細胞が著明であった(写真6)。病理組織学的には慢性硬化性顎下腺炎と診断された。

症例 2

患 者: 47歳 男性。

初 診: 昭和60年4月。

主 訴: 右側顎下部の腫瘍。

既往歴: 2年前に喘息と診断されたことがあるが, とくに治療は受けていない。

家族歴: 特記すべき事項はない。

現病歴: 約1年前に, 右側顎下部に無痛性の腫瘍があることに気付いたが, 痛みがないため放置していた。しかし, 1か月前から腫瘍がしだいに増大してきたため, 近くの外科病院を受診した。同病院で顎下腺炎と診断され治療を受けたが, 症状の改善がみられないため, 昭和60年4月当科を受診した。

現 症:

全身所見: 体格は中等度で, 栄養状態は良好であった。顔色, 眼瞼結膜および眼球結膜などに貧血様ならびに黄疸様の变化は認められなかった。血圧は収縮期136 mmHg, 拡張期86 mmHg であった。脈拍は整で, 数は72/min であった。呼吸は胸腹式で, 数は17/min であった。

局所所見: 口腔外所見: 顔貌は左右非対称で, 右側顎下部に局限した腫瘍が認められた(写真7)。被覆皮膚

写真 8 症例 2: 超音波像

写真 10 症例 2: 摘出物

写真 9 症例 2: 顎下腺造影像
(76%ウログラフィン)

写真 11 症例 2: 摘出物断面

に異常はなかったが、触診すると、小鶏卵大の腫瘤を触れ、硬度は硬軟で、表面は平滑であった。周囲組織に対して境界は明瞭かつ可動性であった。なお、圧痛はなかった。

所属リンパ節については、右側顎下リンパ節を1個、小指頭大に触れ、弾性硬で可動性であり、とくに異常はなかった。

口腔内所見：舌下小丘ならびに舌下ヒダを含む口底部に著変を認めなかったが、右側舌下小丘部の顎下腺管開口部からの唾液流出は、左側にくらべ不良であった。

超音波所見：顎下腺に一致して、輪郭が明瞭な楕円形の充実像が得られた。内部エコーは不均一で、疎な低エコー像を示した(写真8)。超音波像からは慢性顎下腺炎が疑われた。

単純X線所見：舌下部ならびに顎下部に異常を認めなかった。

唾液腺造影所見：76%ウログラフィンによって顎下腺造影法を施行した。顎下腺管には著変はなかったが、腺内主管および末梢導管は不規則に拡張し、腺実質部への

造影剤の漏洩も認められた。とくに導管を充盈する造影剤陰影の淡化がみられ、異物の存在が疑われた。以上の画像所見から慢性顎下腺炎と診断した(写真9)。

臨床検査成績：i) 血液検査成績：とくに異常はなかった。ii) 臨床化学検査成績：S-GOTが44 mU/ml、LDHが284 mU/mlと軽度の上昇が認められた。iii) 尿検査成績：とくに異常はなかった。

臨床診断：右側慢性顎下腺炎

処置および経過：慢性顎下腺炎の診断のもと、抗生物質ならびに消炎剤の併用による保存療法を行ったが、腫瘤は不変で症状の改善は得られず、患者の強い希望もあって、昭和60年5月、全身麻酔のもと顎下腺摘出術を施行した。手術術式は症例1の場合とはほぼ同様であった。顎下腺は顎筋膜下にあり、顎下腺を周囲組織より剝離し一塊として摘出した。術後経過は良好で、15日目に

写真 12：症例 2：病理組織像

写真 13 症例 2：病理組織像
↑：植物線維様の異物

退院した。現在（昭和63年1月）まで約2年9か月の経過であるが、異常は認められていない。

摘出物所見：摘出物（顎下腺）の大きさは39×22×30 mmの類楕円形の腫瘍で、帯赤色を呈し、薄い被膜でつつまれていた（写真10）。硬度は弾性硬で、断面を入れたところ分葉状構造が認められ、灰白色および帯赤色を呈した充実性組織からなっていた（写真11）。

病理組織所見：導管周囲、小葉間結合組織ならびに腺

表 1 本邦における Küttner 腫瘍年齢ならびに性別

年 齢	症例数	男性	女性
0— 9	0	0	0
10—19	3	3	0
20—29	2	2	0
30—39	6	3	3
40—49	5	4	1
50—59	5	4	1
60—69	4	2	2
70—79	5	3	2
80—	1	1	0
	31	22	9

周囲は硝子化を伴う線維組織からなり、ところどころにリンパ性細胞の浸潤を認めた。腺房は萎縮消失し、腺組織はリンパ性細胞浸潤を伴った線維組織で置換されていた。ところにより反応中心のあきらかなリンパ濾胞が認められた。また、導管は中等度に拡張し、上皮の扁平化がみられた（写真12）。腺内主管内には、植物線維様の異物が認められ、それに接した導管壁は剝離または欠如し、管壁上皮細胞の部分的脱落、糜爛、潰瘍なども著明で、周囲に膿瘍形成もみられた（写真13）。以上の所見から、病理組織学的には慢性硬化性顎下腺炎と診断された。

考 察

慢性硬化性唾液腺炎は Küttner 腫瘍¹⁾といわれているもので、唾液腺の無痛性腫瘍化を主症状とする。その病像は真性腫瘍と類似するが、WHO 分類では慢性唾液腺炎に包括され、本邦では慢性唾液腺炎の特殊型として位置づけられている²⁻⁴⁾。

本症の発生については、比較的まれ⁵⁻⁷⁾、またはそれほどまれではない^{8,9)}、との説がある。われわれが、昭和39年1月から昭和61年12月までの23年間に、本邦で報告された慢性硬化性唾液腺炎を渉猟したところ、31例にすぎなかった。したがって、多い疾患とはいえない。

発症年齢は、主に青壮年に多いことは諸家の報告に共通するところであるが、渉猟症例31例についても、表1に示すごとく、30歳以上の各年齢層に多くみられ、ほぼ同数の傾向であった。性別については、男性に多いとする者^{2,3,6)}、男女差はないとする者¹⁰⁾がいるが、渉猟症例31例では、男性が過半数を占めた。われわれの2例は、いずれも好発年齢のなかに入り、しかも頻度の高い男性であった。

発生部位については、主に顎下腺に生じ、耳下腺あるいは舌下腺にはまれである²⁾といわれる。31例について

みるならば、耳下腺や舌下腺に発生したものは、それぞれ1例^{11,12)}にすぎず、大部分が顎下腺であった^{7-9,13-35)}。顎下腺に発生した本疾患の左右差については、左側10例、右側10例と同数で、左右差は認められなかったが、両側に発生した例が10例あり、注目に値する。われわれの2例はともに側性で、右側顎下腺に発生したものであった。

成因については、従来から口腔内からの慢性感染説^{8,31)}、唾石や異物による唾液の流出障害説^{14,17-19,21,22,24,29)}、自己免疫機序説^{31,34,36,37)}、口腔内炎症波及説^{38,39)}、中毒説、外傷説、病巣感染説、真菌類感染説などの諸説^{5,6,8,13)}がある。そのなかで、口腔内からの慢性感染説、唾石や異物による唾液流出障害説、自己免疫機序説などが重視されており、とくに唾石症との関連を指摘する報告は多い。Seifert³⁷⁾は349症例中143例(41%)に、Isacson⁴⁰⁾は108症例中91例(84%)にそれぞれ唾石を認めている。また本邦でも平川⁶⁾が明治23年から昭和26年までの内外の報告を渉猟し、55症例中26例(47%)に唾石の存在を認めている。われわれが昭和39年1月から同61年12月までの症例を検討したところでは、唾石の存在したものが13例(42%)にも及び、唾石が本疾患の成立に少なからず関与していることがうかがわれた。唾石以外の異物について、Rauch⁴¹⁾は歯ブラシの毛、爪楊子、羽、草の葉などの異物が唾液腺管内に入り、炎症を惹起すると述べている。渉猟31症例では魚骨様物質の1例²⁵⁾をみるにすぎず、唾石以外の異物が関与する場合は、きわめてまれであった。口腔内からの慢性感染については、導管の形態異常、唾液の停滞、またはその濃縮などが顎下腺に炎症を起こしやすい²⁾といわれる。われわれの2例の成立については断言し難いが、症例1については73歳という高齢者であったことから、顎下腺の加齢性変化を内因的要因とし、二次的に感染を引き起こした口腔内からの慢性感染説に相当するものと思われた。また症例2については、主管内に存在した植物性物質(唾石以外の異物)が、発症に関連したのではないかと推定した。

超音波検査法は、顎口腔領域でも日常の臨床に広く応用されているが、本炎症についての報告はきわめて少ない^{26,42)}。それによると、不均一な低エコー像を示し、周囲との境界は明瞭である⁴²⁾。われわれの場合も、おおむね同様の所見が得られた。

単純X線像は、唾石症との鑑別上必要で、まず行うべきものと考えられる。渉猟31症例をみても、X線学的に検討した26例中6例^{8,14,19,22,24)}(約23%)に唾石様陰影が認められている。

唾液腺造影法の必要性は論ずるまでもないが、とくに本症の病像が腫瘍に類似することからもその鑑別上の意義は大きい^{43,44)}。慢性硬化性唾液腺炎の唾影像は、管系の不規則な拡張^{12,16,20,21,34,43)}、断絶像^{34,43)}ならびに腺部

の陰影欠損像^{7,12,21,22,26,32,35)}からなるといわれ、慢性唾液腺炎の唾影像を呈する場合が多い。われわれの症例も、腺内主管ならびに導管に不規則な拡張像や漏洩像が認められ、慢性顎下腺炎の様相を呈した。導管内を充盈する造影剤陰影の淡化については、mucous plugによるという者⁴⁵⁾もあるが、われわれの場合(症例2)は、摘出物との対比によると植物性線維様物質によるものであった。

慢性硬化性唾液腺炎の病理組織像は、導管周囲、小葉間結合組織ならびに腺周囲の線維化とその硝子化、腺房の萎縮消失、導管の拡張、間質におけるリンパ球性細胞浸潤、反応中心を有するリンパ濾胞の存在からなる^{2,41)}。本症例でも同様の所見が得られたが、導管内に異物の存在した症例2では、導管壁に糜爛や潰瘍があり、周囲に膿瘍の形成も認められた。

慢性硬化性唾液腺炎は、手術的に摘出される場合が多い。薬物療法に奏効し難いこととともに、顎下腺の腫瘍化が患者に心理的不安を与えるからであろう。今回、われわれが顎下腺の摘出手術を施行したのも、それに基づくものであった。

結 語

われわれは、右側顎下腺に発生した慢性硬化性唾液腺炎の2症例を経験したので、若干の考察を加えて報告した。

引 用 文 献

- 1) H. Küttner: Ueber entzündliche Tumoren der Submaxillar-Speicheldrüse. Beitr Klin Chir 15: 815-828 1986.
- 2) 石川 梧朗, 秋吉正豊: 口腔病理学Ⅱ. 増補版, 永末書店, 京都, 1971, 891-893頁.
- 3) 石川 梧朗編: 口腔病理カラーアトラス, 第1版, 医歯薬出版, 東京, 1983, 128-129頁.
- 4) 福田 博: 唾液腺造影法の実践, 第1版, 富士書院, 北海道, 1986, 85-90頁.
- 5) 伊藤秀夫, 塩田重利, 他: 口腔病変診断アトラス, 第1版, 医歯薬出版, 東京, 1979, 504-505頁.
- 6) 平川正輝, 梶谷貫太: Küttner氏病に就て, 九州歯会誌 6: 40-48 1951.
- 7) 福田 博, 有末 真, 他: 両側顎下腺に生じた慢性硬化性炎(いわゆる Küttner Tumor)の1例, 日口科誌 25: 263-267 1976.
- 8) 伊藤 祐久, 貴島 徳昭: Küttner Tumorの3症例, 耳鼻 20: 39-43 1974.
- 9) 谷垣内由之, 奥田 稔, 他: Küttner 腫瘍の1例(抄), 日耳鼻 82: 596 1979.
- 10) 内田安信編集: 簡明臨床口腔科学, 第1版, 医歯薬出版, 東京, 1984, 126頁.

- 11) 永田博史, 山口宗彦, 他: 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.
- 12) 鈴木正志, 志村弘之, 他: 顎下腺および舌下腺に認められた Küttner tumor の1例. 耳展 29: 93-96 1986.
- 13) 市米英雄: 両側性に発生した Küttner 氏病の1症例. 日本歯科評論 289: 95-97 1966.
- 14) 佐々木達夫, 片桐敏夫, 他: 顎下腺キョットナー氏病の一例 (抄). 歯科学報 65: 87-88 1966.
- 15) 林 一, 宝田 博, 他: 両側顎下腺にみられた所謂 Küttner 氏病の1例 (抄). 日口科誌 17: 642 1968.
- 16) 副島公生, 肘付 正: 右側下顎下部に発生した Küttner 氏病の1例. 日本歯科評論 320: 701-703 1969.
- 17) 古賀久保, 吉松光広, 他: Küttner 病 (Küttner 腫瘍) の1治験例 (抄). 九州歯科学会誌 23: 203 1969.
- 18) 山本昌明, 小川常二, 他: Küttner 氏腫瘍の一例 (抄). 日耳鼻 72: 288 1969.
- 19) 弓削庫大, 山城義昭, 他: Küttner 症候群について (抄). 日医大誌 36: 73-74 1969.
- 20) 乃村洋右, 小泉 博, 他: 両側性顎下腺にみられた Küttner's tumor の一症例. 京大口科紀要 16: 11-16 1976.
- 21) 河野信彦, 右田信行: キョットネル氏病の1例 (抄). 九州歯科学会誌 30: 187 1976.
- 22) 奥井 寛, 石川武憲, 他: 唾石に起因したいわゆる "Küttner Tumor" の電子顕微鏡的観察. 日口科誌 23: 553-563 1977.
- 23) 登坂 薫, 小林伸行, 他: キョットネル症例 (抄). 日耳鼻 81: 746 1978.
- 24) 上野雅久, 岡本 寛, 他: 小児に発現した Küttner 氏病の一例. 日口科誌 27: 103-107 1978.
- 25) 奥井 寛, 石川武憲, 他: 魚骨と考えられる異物迷入により顎下唾液腺に発生したいわゆる Küttner Tumor の一症例 (抄). 日口科誌 28: 374 1979.
- 26) 富山知隆, 海野徳二, 他: Küttner 腫瘍について (抄). 耳鼻臨床 74: 243 1981.
- 27) 辻 則明, 児玉安弘, 他: Küttner 氏病の1症例における検討 (抄). 交通医 35: 338-339 1981.
- 28) 植田洋一郎, 小沢重雄, 他: Küttner 氏病の1例 (抄). 日口外誌 28: 1390 1982.
- 29) 渡辺二三雄, 富久尾明徳, 他: Küttner 氏腫瘍の3例 (抄). 岐阜大医紀 30: 597 1982.
- 30) 芦田健太郎, 玉置弘光, 他: 両側 Küttner 腫瘍について (抄). 耳鼻臨床 76: 273 1983.
- 31) Toshio, Yoshihara., Takashi, Kanda., et al.: CHRONIC SIALADENITIS OF THE SUBMANDIBULAR GLAND (SO-CALLED KÜTTNER TUMOR). Auris Nasus Larynx 10: 117-123 1983.
- 32) 三森昭彦, 丸山泰治, 他: 慢性硬化性唾液腺炎 (Küttner 腫瘍) の1例 (抄). 日口外誌 30: 369 1984.
- 33) 吉田 哲, 柳 正子, 他: 両側性に発生した Küttner 氏病の1例 (抄). 日口外誌 30: 2081 1984.
- 34) 石川 哮, 永田雅英, 他: Küttner 腫瘍. 耳鼻臨床 79: 351-353 1985.
- 35) 永田雅英, 鮫島靖治, 他: Küttner's tumor の2例 (抄). 日耳鼻 89: 776 1986.
- 36) Räsänen, O., Jokinen, K., et al.: Sclerosing inflammation of the submandibular salivary gland (Küttner Tumor). Acta Otolaryng 74: 297-301 1972.
- 37) Seifert, G. and Donath, K.: Zur Pathogenese des Küttner-Tumors des Submandibularis. NHO 25: 81-92 1977.
- 38) 橋本甚策: 慢性単純炎症性顎下唾液腺腫瘍. 十全会誌 46: 1925 1941.
- 39) 泰 日愛: 唾石及び其に因する顎下腺炎症性腫瘍. 日外会誌 9: 58 1909.
- 40) Isacsson, G., Ahlner, B., et al.: Chronic sialadenitis of the submandibular gland. Arch Otolaryngol 232: 91-100 1981.
- 41) Gorlin, R.J. and Goldman, M.M.: Thoma's Oral Pathology 2, 6th Ed, Mosby Co, St Louis, 1970, p 969-972.
- 42) 畔田 貢: 頭頸部領域における超音波断層像の診断学的研究. 日口外誌 29: 2181-2200 1983.
- 43) 東 与光, 鹿野純一, 他: 唾液腺疾患の造影所見について. 臨床放射線 14: 700-708 1969.
- 44) 松田 登, 清水正嗣編集: 医学生のための口腔外科学の手引き. 第1版, 書林, 東京, 1984, 206-208頁.
- 45) 有末 真, 梅沢真悟, 他: 唾影像と組織所見の比較検討 (第1報) 慢性顎下腺炎 (唾石症) について (抄). 日口科誌 26: 649 1977.