両側耳下腺に多発した Warthin 腫瘍の 1 例

片桐三恵・安藤智博・金子裕之

丸岡靖史・三宮慶邦・扇内秀樹

A case of multicentric Warthin's tumor in bilateral parotid glands

Mie KATAGIRI・Tomohiro ANDO・Hiroyuki KANEKO

Yasubumi MARUOKA・Yoshikuni SANGU・Hideki OGIUCHI

Abstract : Warthin's tumor is a comparatively rare benign epithelial tumor of the salivary glands, which most frequently arises in the parotid gland. In this article, we describe a case of multicentric Warthin's tumor involving the bilateral parotid glands. The patient was a 56-year-old man who presented at our department complaining of bilateral parotid swelling. Imaging studies showed two tumors in the left parotid gland one in the right parotid gland.

The clinical diagnosis was bilateral parotid Warthin's tumors, and the lesions were surgically resected. The left tumor measured $4.7 \times 3.5 \times 3.0$ cm and was multiple while the right tumor measured $4.8 \times 3.0 \times 3.0$ cm.

The histologic diagnosis was multicentric Warthin's tumor. There has been no recurrence as of 2 years and 11 months after the operation.

Key words : parotid gland (耳下腺), multicentric Warthin's tumor (多発性ワルチン腫瘍), bilateral (両側性)

結 言

Warthin 腫瘍は唾液腺腫瘍のなかでも比較的まれな良性腫瘍で、主として耳下腺、あるいはそれに近接して発生する発育緩慢な腫瘍であり、良性腫瘍の中で唯一の多発発生が認められている。

今回われわれは両側耳下腺に多発した Warthin 腫瘍の 1 例を経験したのでその概要を報告する。

症 例

患 者：56 歳 男性。

初 診：1991 年 4 月

主 訴：両側耳介後部の腫脹。

既往歴：17 歳時虫垂炎手術。

現病歴：3 年ほど前に、右側耳下腺部に大豆大の腫

瘍を自覚したが症状ないため放置した。約 1 年後に左側にも同様の腫瘍を触知するようになり、右側の腫瘍は増大傾向を認めたため近医を受診したが、良性腫瘍と診断され特別な処置はなく再び放置した。1991 年 1 月、両側の腫瘍に鍼を施行したところ、その直後より腫瘍が急速に増大したため、当科を受診した。

現 症

全身所見：体格栄養ともに良好で、全身状態に特記すべき異常所見はなかった。

局所所見：顔貌は左右非対称で、右側耳下腺部に 6.0×4.5 cm、左側耳下腺部に 3.0×2.5 cm の比較的境界明瞭な可動性、弾性軟、無痛性の腫瘍を認めた（写真 1）。

血液検査所見：白血球数 $9,500/\text{mm}^3$ と軽度の上昇を認めたほかは異常はなかった。

CT 所見：右側耳下腺に約 3.4 cm の軟組織の density を示す腫瘍を認め、左側耳下腺には約 1.3×1.0 cm、 1.3×1.2 cm の円形の腫瘍が 2 個認められた。3 個の腫瘍はいずれも内部不均一で周囲の境界は明瞭であった（写真 2）。

超音波所見：右側耳下腺に 1 個、左側耳下腺に 3 個

東京女子医科大学口腔外科学教室

(主任：扇内秀樹教授)

Department of Oral and Maxillofacial Surgery,

Tokyo Women's Medical College (Chief: Prof.

Hideki Ogiuchi)

受付日：平成 5 年 7 月 20 日

写真 1 初診時顔貌
A: 右側貌, B: 左側貌

写真 2 CT 像
右側耳下腺に約 3.4 cm の腫瘍
左側耳下腺に約 1.3×1.0 cm, 1.3×1.2 cm の腫瘍

写真 3 超音波断層
A: 右側, B: 左側
右側耳下腺に 1 個, 左側耳下腺に 3 個の腫瘍を認める。

の境界明瞭な低エコーを示す腫瘍が認められた (写真 3)。

^{99m}Tc 唾液腺シンチグラム所見: 右側耳下腺部に著しい取り込み, 左側耳下腺部に小さな結節状の 4 個の取り込みが認められた (写真 4)。

臨床診断: 両側耳下腺 Warthin 腫瘍の疑い。

処置および経過: 1991 年 7 月 [redacted] に GOI 全身麻酔下で腫瘍切除術を施行した。右側は広頸筋直下に腫瘍を認め耳下腺下極に接していたが癒着はなく剥離は容易であり, 左側の腫瘍は右側より深部に存在し耳下腺部との癒着が強かったため耳下腺組織を含めて一塊として摘出した。術後の経過は良好で顔面神経麻痺等の合併症はなく, 8 月 [redacted] 退院し, 術後 2 年 11 か月の現在まで再発は認められない。

切除物所見: 右側の切除物は大きさ約 4.8×3.0×3.0 cm の類円形で赤褐色を呈しており, 表面滑沢で, 薄い線維性被膜に包まれていた。左側の摘出物は大きさ約 4.7×3.5×3.0 cm 類円形, 赤褐色で周囲は切除した耳下腺浅葉の一部が認められた。

腫瘍の断面は左右とも赤褐色または淡褐色で, 一部に茶褐色粘稠性の内容液を含む嚢胞状の部分が認められた。右側腫瘍の断面には米粒大の顆粒が認められ,

左側の摘出物の断面は多発性の腫瘍を呈していた。

腫瘍内嚢胞部内容液の生化学的検査: 嚢胞状の部分から内容液を採取し, 生化学的検査を行ったところ GOT, GPT, LDH, γ -GTP, アミラーゼ値が血清値に比べ高値を示した。また, 腫瘍マーカーである CEA, SCC 値も高い値であった (表)。

病理組織学的所見 (写真 5): 上皮組織とリンパ組織からなり上皮組織は 2 層からなっており, 乳頭状に増殖し管腔を形成していた。リンパ組織はリンパ性細胞の密な増殖があり胚中心を認めた。左右の摘出物はほぼ同じ所見で病理組織学的に特記すべき左右差はなかった。

病理組織学的診断: 腺リンパ腫 (Warthin 腫瘍)。

考 察

Warthin 腫瘍は Albarran による報告が最初とされており¹⁾, その後 1985 年 Hildebrand が “Congenital cyst of the neck” として報告し²⁾名称の統一がなされていなかったが, 1929 年 Warthin が 2 例の自験例を, 耳管軟骨部粘膜の迷芽による奇形腫として “Papillary cystadenoma lymphomatosum” と報告したことより³⁾, 1944 年 Marthin らの提唱により Warthin 腫瘍

写真 4 ^{99m}Tc 唾液腺シンチグラム像
A(写真上)：右側。右側耳下腺部に著しい取り込みを認める。
B(写真下)：左側。左側耳下腺部に小さな結節状の4個の取り込みを認める。

写真 5 病理組織像 (H-E 染色, ×40)

と命名され⁴⁾、現在は広く一般に用いられている。また、WHO では“Adenolymphoma”の名称で“Monomorphic adenoma”として分類されている⁵⁾。
本腫瘍の好発部位は耳下腺であり主に片側性に発生するが、本腫瘍の特異性として多発傾向があげられ、Warthin 腫瘍全体の約6%の割合で多発するといわれている⁶⁾。
Shugar らは Warthin 腫瘍の多発性発生の様式について、以下の4項目に分類している⁶⁾。
1. 両側性孤在性症例。
2. 一側孤在性、他側多発性症例。
3. 一側性多発性症例。
4. 両側性多発性症例。
この中でも1つの両側性孤在性症例がもっとも多く報告されているが^{7,8)}、本症例の一側孤在性他側多発性症例は、報告が少なくきわめてまれな症例である。
また、Warthin 腫瘍の嚢胞部分の内容液に関する報

表 腫瘍内容液と血清の検査成績

検査項目	検査成績
GOT (KU)	410 [11]
GPT (KU)	180 [20]
LDH (mKU)	1,930 [147]
γ-GTP	1,090 [12]
アミラーゼ (U/l)	11,280 [235]
腫瘍マーカー (ng/ml) CEA	326.0
SCC	277.0

[]：血清値

告はなく、今回われわれは、嚢胞内容液の生化学的検索を行ったところ、GOT GPT, LDH, γ-GTP, アミラーゼ、腫瘍マーカーである CEA, SCC 値が血清値に比べ著しく高い結果を得た。
これらは、本腫瘍を解明する一助となる可能性を秘めていると思われる。

結 語

57 歳、男性の耳下腺に右側孤在性、左側多発性に発生した Warthin 腫瘍を経験したのでその概要を報告した。

引 用 文 献

1) 川島健吉, 鈴木宗治: 現代外科学大系 27. 第1版, 中山書店, 東京: 401 1970.
2) Hidebrand, O.: Ueber angeborene epitheriale Zysten und Fisteln des Halses. Arch f klin Chir 49: 167-206 1895.
3) Warthin, A. S.: Papillary cystadeoma lymphomatousum. A rare teratoid of the parotid resion. J Canser Res 13: 116-125 1929.
4) Marthin, H. and Ehrlich, H. E.: Papillary cyctadenoma lymphomatousum (Warthin's tumor) of the parptid sarivary gland. Surg Gynec Obst 79: 611-623 1944.
5) Thackray, A. C. and Sobin, L. H.: Histological typing of salivary gland tumors. In International Histological Classification of Tumors. No 7 Geneva, WHO, 1972.
6) Shugar, J. M., Som, P. M., et al.: Warthin's tumor a multifocal disease. Ann Otol Rhinol Laryngol 91: 246-249 1982.
7) 前田寛治, 田辺 均, 他: 両側耳下腺部にみられた Warthin 腫瘍の一例. 口科誌 40: 489-498 1991.
8) 川口哲司, 塩田重利, 他: 両側耳下腺部にみられた Warthin 腫瘍の1例. 日口外誌 35: 221-230 1989.