大きな嚢胞様病態を呈した Warthin 腫瘍の 1 例

厚澤賢洋・重松久夫・宮本日出
鈴木正二・草間 薫*・坂下英明

A case of Warthin's tumor with formation of a large cyst

ATSUZAWA Masahiro · SHIGEMATSU Hisao · MIYAMOTO Hizuru
SUZUKI Seiji · KUSAMA Kaoru * · SAKASHITA Hideaki

Abstract: We describe a rare case of Warthin's tumor with formation of a large cyst. This case was classified as Seifert's metaplastic type (Type IV) histopathologically. A brief discussion is included. A 61-year-old woman was referred to our hospital because of a swelling on the left side of the neck on August 26, 2003. She had noticed the mass for 2 years, and a fine-needle aspiration biopsy was performed at another hospital on August 12, 2003. However, a definitive histopathological diagnosis was not obtained, and her dentist referred her to our hospital. Physical examination revealed a painless, elastic hard, mobile mass measuring 40mm in diameter, in the inferior pole of the parotid gland, anterior to the sternocleidomastoid muscle. There was no evidence of associated lymphadenopathy. No uptake of $^{99m}\text{TcO}_4^-$ was detected in the lesion. MRI revealed a mass with medium T1 signal intensity and low T2 signal intensity in the left side of the neck, involving the superficial lobe of the parotid gland. Clinically, a benign parotid gland tumor was diagnosed, and a superficial parotidectomy was performed under general anesthesia on October 14, 2003. The excised tumor was diagnosed as Warthin's tumor with formation of a large cyst. The postoperative course was uneventful.

Key words: Warthin's tumor (Warthin 腫瘍), salivary gland tumor (唾液腺腫瘍), cystic lesion (嚢胞様病変)

緒 言

Warthin 腫瘍はそのほとんどが耳下腺に発生する良性腫瘍であり、耳下腺腫瘍の 4～14% を占める^{1, 2)}。病理組織学的には二層性好酸性の上皮成分の乳頭状増殖と間質リンパ集簇が特徴的であり、小嚢胞状の腺腔構造を呈するが、ときとして、この嚢胞状腺腔構造が発達して肉眼的嚢胞を形成する^{1～4)}。Seifert ら⁵⁾ は Warthin 腫瘍を上皮成分と間質成分との比率から、Type I (stroma poor type), Type

II (typical type), Type III (stroma rich type) および Type IV (metaplastic type) の 4 型に亜分類している。このなかで Type IV については全 Warthin 腫瘍の 6～7.5% にすぎず、まれとされる^{3, 5)}。今回われわれは、術前の画像診断上、非定型像を呈した Warthin 腫瘍 (Type IV) の 1 例を経験したのでその概要を報告する。

症 例

患 者：61 歳，女性。

初 診：2003 年 8 月 []。

主 訴：左側頸部の腫れ。

現病歴：2001 年頃から左右両側頸部の腫瘤に気づくも放置していた。1 年後，右側の腫瘤は消失したが，左側は残存した。その後，左側は何度か腫脹と疼痛を繰り返していたため，2003 年 7 月 []，某総合病院外科を受診した。8 月 []，側頸部嚢胞の診断にて，穿刺吸引を受けた。その結果の細胞診では，血球と好中球，肥満細胞のみとのことで確定診断には至らなかった。8 月 []，近歯科を介して，左側頸部腫瘤の精査を目的に当科を紹

明海大学歯学部病態診断治療学講座口腔顎顔面外科学分野第 2

(主任：坂下英明教授)

* 明海大学歯学部病態診断治療学講座病理学分野

(主任：草間 薫教授)

2nd Division of Oral & Maxillofacial Surgery, Department of Diagnostic & Therapeutic Sciences, Meikai University, School of Dentistry, Saitama, Japan (Chief: Prof. SAKASHITA Hideaki)

* Division of Pathology, Department of Diagnostic and Therapeutic Sciences, Meikai University, School of Dentistry, Saitama, Japan (Chief: Prof. KUSAMA Kaoru)

受付日：2006 年 1 月 13 日

採択日：2006 年 9 月 22 日

写真1 初診時頸部写真

写真2 超音波写真

境界明瞭，内部は嚢胞様で，比較的均質な低エコー像を呈していた。

介され来院した。

既往歴・家族歴：特記事項なし。

現 症：全身状態は良好で，身長 158cm，体重 43kg と，やや痩身であった。局所的には左側頸部で胸鎖乳突筋前縁部に直径約 4 cm 大の弾性軟，可動性で波動の触れる無痛性腫瘍を認めた（写真 1）。表面皮膚に異常はなく，また，局所リンパ節に腫大は認めなかった。

画像診断：超音波検査では境界明瞭，大きさは 43 × 36mm，内部は比較的均質な低エコー像を呈していた。その一部に隔壁様の構造物を認め，後方エコーはやや増強していた（写真 2）。MRI では，左側病変は胸鎖乳突筋前縁部で，耳下腺下極部に接するように認められた。境界は明瞭

写真3 MRI 写真

T1 強調像で中等度の信号 (A) を，T2 強調像で低信号 (B) を呈していた。

であり，直径 42mm，内部は多結節状で，T1 強調像で中等度の信号を，T2 強調像で低信号を呈していた（写真 3A, B）。右側については画像診断上，特記すべき病変は認めなかった。

核医学検査： $^{99m}\text{TcO}_4^-$ 唾液腺シンチグラムで左側耳下腺への集積が健側より低下していたが，酸による刺激後の排泄は左右とも正常であった。また， ^{67}Ga シンチグラムでは明らかな異常集積は認めなかった（写真 4A, B）。

臨床診断：嚢胞様病態を呈する良性耳下腺腫瘍。

処置および経過：耳下腺浅葉多形性腺腫の可能性を完全には否定し得なかったこと，また，Warthin 腫瘍を前提とする場合でも，多発性発生の可能性を配慮すべきと考え，2003 年 10 月 ■■■ 全身麻酔下で，耳下腺浅葉切除術を施行した。すなわち，耳垂前方部より下顎角部に S 字状切開を加え，広頸筋下に腫瘍の被膜を確認した。胸鎖乳突筋前縁部より腫瘍の被膜を剥離し，顎二腹筋後膜，ポインター，顔面神経本幹の順に確認し，耳下腺下極部を含めて腫瘍を切除した。術後，顔面神経麻痺などの合併症はなく，1 年 9 か月を経過した現在，再発は認めていない。

写真4 核医学診断

患側の $^{99m}\text{TcO}_4^-$ の集積は健側より低下していた (A).
 ^{67}Ga の異常集積は認められなかった (B).

摘出標本所見：摘出標本の肉眼所見は、褐色で薄い被膜に包まれた多房性の嚢胞様病態を呈していた (写真5A, B).

病理組織所見：線維性被膜の内腔を裏層する形で高円柱状および立方細胞から成る2層性の上皮成分の乳頭状増殖を認めた (写真6A, B). また、一部は隔壁を形成したり導管様を呈しており、間質にはリンパ性組織を認めた。内腔には好酸性を示す無構造の内容物が浸出細胞などと混在して認められた。

病理組織学的診断：Warthin 腫瘍。

考 察

一般に耳下腺の良性腫瘍は腫瘤形成以外に症状が乏しいことから、超音波検査、MRI、核医学検査など、さまざまな検討がなされてきた。そうしたなかで、Warthin 腫瘍は、①50歳以上の男性に多い、②軟かい波動を呈する耳下腺下極部の腫瘍である、③多発性、両側性にみられることも少なくない、などの臨床的特徴を有するため、耳下腺腫瘍のなかでは、比較的鑑別診断が容易とされている³⁾。しかし、さまざまな疾患と鑑別を要する症例も報告されており、鑑別すべき疾患として、リンパ上皮性嚢胞、唾液腺嚢胞性疾患、腫瘍の嚢胞変性、粘表皮癌、悪性リンパ腫などさまざまな疾患があげられている^{1, 3, 4, 6~9)}。特に Seifert の亜分類⁵⁾ Type IV (metaplastic type) は、大きな嚢胞様病

写真5 摘出標本の断面写真

摘出標本 (A), ならびにルーペ像 (B) から、病変は耳下腺下極に位置しており、下極部から発生したものと推察される。

写真6 病理組織像

二層性上皮成分の乳頭状増殖や間質のリンパ性組織など、典型的な Warthin 腫瘍の所見が認められた (HE 染色; A × 25, B × 100)。

態を呈すること、むしろ女性に多いことなど、通常の Warthin 腫瘍の病態とはやや異なっており、診断にはより注意を要する。自験例では、初診時の臨床所見からは側頸嚢胞をはじめとした嚢胞性疾患も疑われたが、エコー所見で内部に隔壁様構造物が認められたことから側頸嚢胞は否定的であった。一般に、唾液腺腫瘍についてはエコーや CT, MRI 等の画像診断で、境界明瞭、腫瘤内部不均一な構造を呈することが多いとされるが、鑑別にあたっての特徴的な所見は乏しい。著者らは自験例の臨床診断に際して、① MRI 所見が通常の嚢胞性疾患の特徴と異なっていたこと、②腫瘍性疾患を完全に否定できる所見がないこと、③耳下腺腫瘍の好発部位であること等を総合的に評価して、大きな嚢胞様病態を呈する良性耳下腺腫瘍と診断した。なお、自験例は 60 歳代の女性で、喫煙歴を有していた。Warthin 腫瘍の Type IV、すなわち metaplastic type については、喫煙との関係が報告されており、女性の喫煙率の上昇とあいまって女性における Warthin 腫瘍の発生率の上昇が示唆されてきていることは興味深

い³⁾。

自験例の臨床診断を難しくした要因の一つに唾液腺シンチグラムで hot lesion を示さなかったことがあげられる。^{99m}TcO₄⁻は Warthin 腫瘍の好酸性細胞に集積する¹⁰⁾ことから鑑別上有用であることはよく知られている。しかし、自験例のように、Type IV で特に大きな嚢胞様病態を呈する症例では、好酸性細胞の占める割合が乏しいため^{99m}TcO₄⁻の集積がみられないことがあり^{11~13)}、嚢胞様病態を呈する症例の場合には注意を要する。また、MRI 検査は耳下腺腫瘍の局在診断に欠かせないが、特に Warthin 腫瘍の場合には、多形性腺腫と比較して T2 強調像においてさまざまな強度を呈する点で特徴的である^{8, 9, 11, 14)}。これは、本腫瘍が病理組織学的に小嚢胞を形成する傾向があるためで、T2 強調画像で嚢胞部分は高信号を、リンパ間質はやや低信号を示す。したがって、大きな嚢胞様病態を呈する場合には、T2 強調画像で高信号、T1 強調画像で低信号を呈することになる⁶⁾。自験例の MRI 所見がこれと相反した像を呈した点については、前医において穿刺を受けた際、内出血をきたしていた可能性が推測される。血腫の MRI 所見については、急性期、亜急性期、慢性期で変化する¹⁵⁾。急性期から亜急性期において、赤血球の崩壊過程におけるヘモグロビンの酸化は、デオキシヘモグロビンの増加により血腫の T2 強調像における低信号化を、その後に続くメトヘモグロビン化は血腫の T1 強調像における高信号化をもたらす。したがって、自験例の T2 強調像での低信号像、T1 強調像での中等度の信号像については、血腫の亜急性期に相当すると考えられる。

治療法については、本腫瘍の多発性発生傾向を配慮して、腫瘍の摘出術は行わないとするものも少なくないが^{16~18)}、その一方で、耳下腺浅葉切除術後の顔面神経麻痺や Frey 症候群の発生の危険を少しでも減少させるために、術前から Warthin 腫瘍の診断が可能な場合には、単純摘出術を推奨する報告もみられる¹⁾。自験例では、嚢胞様病態を呈する耳下腺腫瘍との臨床診断のもと、顔面神経を本幹から明視下に温存し、耳下腺下極部とともに腫瘍を切除する耳下腺浅葉切除術を選択した。

結 語

今回われわれは、大きな嚢胞様病態を呈した Warthin 腫瘍の 1 例を経験したので若干の考察を加えて、その概要を報告した。自験例は Warthin 腫瘍のなかでもまれな Seifert 分類 Type IV と考えられた。この型の Warthin 腫瘍については何故大きな嚢胞様病態を呈するのか、なぜ女性に好発するのかなど、不明な点も多く、今後とも症例を重ね検討する必要がある。

引用文献

- 1) Ellis, G.L. and Auclair, P.L.: Warthin's tumor (papillary cystadenoma lymphomatosum). Atlas of Tumor Pathology, Third Series, Fascicle 17, Tumor of The Salivary Glands, Washington DC: Armed Forces Institute of Pathology 1996, p69-79.
- 2) Neville, B.W., Damm, D.D., et al.: Warthin's tumor (papillary cystadenoma lymphomatosum), Oral & Maxillofacial Pathology. W.B. Saunders Co., 1995, p344-346.
- 3) Simpson, R.H.W. and Eveson, J.W.: Warthin tumor. World Health Organization Classification of Tumours. Pathology & Genetics. Head and Neck Tumours. 2005, p23-265.
- 4) 林 雄三, 立山義朗, 他: 嚢胞形成および化生性病変を伴った耳下腺 Warthin 腫瘍の 1 例. 診断病理 18: 238-240 2001.
- 5) Seifert, G., Miehke, A., et al.: Diseases of the salivary glands, Georg Thieme Verlag, 1986, p195-205.
- 6) 岩井 大, 池田耕士, 他: ワルチン腫瘍の MRI. 耳喉頭頸 66: 180-181 1994.
- 7) 向井理奈, 村岡道德, 他: 頸部に発生した Warthin 腫瘍の 1 例. 日形会誌 21: 487-490 2001.
- 8) 富山要一郎, 吉田淳一, 他: 悪性との鑑別が困難であつたワルチン腫瘍例. 耳鼻臨床 92: 1117-1123 1999.
- 9) 堀井 新, 吉田淳一, 他: 唾液腺腫瘍の核 DNA 量分析および MRI 画像. 日耳鼻 101: 289-296 1998.
- 10) 西山康之: 耳下腺リンパ腫のテクネシウム取り込み機序に関する研究. 日耳鼻 101: 615-619 1998.
- 11) 清末一路, 森 宣, 他: 耳下腺腫瘍の画像診断. 画像診断 20: 38-54 2000.
- 12) 五十嵐文雄, 土持 真: 唾液腺腫瘍の核医学診断—Warthin 腫瘍の唾液腺シンチグラフィー. 歯科放射線 43: 215-219 2003.
- 13) 朝日保幸, 林堂安貴, 他: 嚢胞様病態を呈した Warthin 腫瘍の一例. 広大歯誌 31: 215-219 1999.
- 14) 坂下英明, 宮田 勝, 他: 耳下腺腫瘍の診断. Hosp dent 12: 91-103 2000.
- 15) Osborn, A.G.: Intracranial hemorrhage. Diagnostic neuroradiology. Chapter7, CV Mosby-Year Book, St. Louis, 1994, p154-198.
- 16) 星野朝文, 待木健司: 両側耳下腺と一側顎下腺に多発した Warthin 腫瘍の 1 症例. 耳展 46: 45-50 2003.
- 17) 石原 修, 金子恭士, 他: 耳下腺 Warthin 腫瘍; その発生様式と術式について. 歯学 87: 85-90 1999.
- 18) 仲井雄一, 坂下英明, 他: 多中心性 Warthin 腫瘍の 1 例. 日口外誌 33: 2041-2047 1987.