

Papillary cystadenoma lymphomatosum (Warthin 腫瘍) の 1 例

西条中央病院外科 (院長：生野 正博士)

丹 信 敏

京都大学医学部外科教室第 2 講座 (指導：木村忠司教授)

林 惣 三 郎

〔原稿受付 昭和38年 7 月12日〕

A CASE OF PAPILLARY CYSTADENOMA LYMPHOMATOSUM (WARTHIN'S TUMOR)

by

NOBUTOSHI TAN

From the Surgical Division, Saijo Central Hospital
(Director : Dr. TADASHI IKUNO)

SOZABURO HAYASHI

From the 2nd Surgical Division, Kyoto University Medical School
(Director Prof. Dr. CHUJI KIMURA)

Papillary cystadenoma, first described by ALBRECHT and ARZT in 1910, is highly distinctive microscopically, but the clinical diagnosis is often not so easy in the differentiation from other diseases of the parotid gland or lymph nodes.

In this paper a case of the tumor is reported, which was difficult to differentiate from other tumors because of its relatively rapid growth. The details of this case are briefly summerized as follows.

Case A man of 69 years old had had a relatively rapid enlarging mass below the left ear for 4 years. This tumor was an encapsulated mass sized $10 \times 7 \times 5$ cm. with an almost smooth surface but partially rich in vessels, and it was separated from the parotid gland situated quite superficially in the submandibular area.

On section, it was wholly solid and microscopically it had the characteristic structure of a papillary cystadenoma lymphomatosum. The post-operative course has been favourable and no recurrence has observed.

結 言

Warthin's tumor は1910年 Albrecht & Arzt¹⁾ により Papilläre Cystadenome の名の下に初めて記載されて以来、種々の名称で呼ばれている比較的稀な唾液腺腫瘍である。極めて特異な組織像を有し病理学上多数の文献がみられるが、臨床家には未だ充分知られていない様である。本症に関し、欧米では Plaut (1942)²⁾ 64例, Thompson & Bryant (1950)³⁾ 160例, Chaudhry & Gorlin (1958)⁴⁾ 357例等の集計がある。我国に於て

は、昭和10年松島⁵⁾ の1例以来約20例の報告をみるに過ぎない(表1)。

我々は最近、本症としては比較的急速な発育を示した1例を経験したので報告する。

症 例

患者：浅○開○，69才，男，昭和38年2月9日初診。

主訴：左耳介下の無痛性腫瘍

家族歴、既往歴：共に特記する事はない。

現病歴：約4年前、左耳介下に無痛性腫瘍を生じ漸

表1 本邦における Warthin's Tumor 及び Oncocytoma 報告例

報 告 者	年次	年令	性	症状経過 の 期 間	大 き さ	発 生 部 位	備 考
1. 松島 ⁵⁾	昭10.	52	♂	2 年	5.5×4cm	耳 下 部	(米川 ¹³⁾ による)
2. 遠山 ⁶⁾	昭18.						
3. 木村他 2名 ⁷⁾	昭27.						
4. 田中・陳 ⁸⁾	昭28.	55	♂	15 年	(右)8×5×3 (左)小2個	耳 下 腺 部	両側性, Muco-epider- moid型腫瘍を合併, 全 治
5. 並木他 2名 ⁹⁾	昭29.	61	♂	1 年	鶏卵大	左耳下腺部	全治
6. 大橋・河崎 ¹⁰⁾	昭30.	63	♂	1 年	6.5×4.5×4	右耳下腺部	
7. 芝他 3名 ¹¹⁾ 及び今村他 2名 ¹²⁾	昭30.	59	♂	4 年	5×4.5×2.8	右 顎 下 部	
8. 米川 ¹³⁾	昭31.	76	♀	14 年	超鶏卵大	右耳下腺部	全治
9. 川島他 2名 ¹⁴⁾ 及び星・ 陳 ¹⁵⁾	昭31.	54	♀	5 年	5×4	右 耳 朶 下	混合感染, 有痛性, 全治
10. 河原他 2名 ¹⁶⁾ 及び河原 他 ¹⁷⁾ の第1例	昭31.	63	♂	7 年	拇指頭大	左耳下腺部	Oncocytoma, 全治 (高橋 ²⁷⁾ による)
11. 斉藤他 3名 ¹⁸⁾	昭32.	9	♂	4 ヵ 月	4×3.8	口 腔 底 (舌下腺?)	
12. 鈴木他 4名 ¹⁹⁾	昭32.						
13. 松井他 3名 ²⁰⁾ の第1例	昭33.	53	♂	20 日	3.6×2.2×2	左 耳 下 部	全治
14. 同 上 第2例		63	♀	3 年	3.5×2.7×2.3	左 耳 下 部	Oncocytoma, 全治
15. 富田他 3名 ²¹⁾ 及び森他 2名 ²²⁾	昭33.	65	♂	(右)5年 (左)3年	3個 2個	下 顎 角 部	両側性, 多発性, 全治
16. 河原他 4名 ¹⁷⁾ の第2例	昭34.	47	♂	1 ヵ 月	小指頭大2個	左耳下腺部	全治
17. 筑紫他 2名 ²³⁾	昭35.	76	♀	4 年	6×6×4	左耳下腺部	軽度自発痛, 全治
18. 斉藤 ²⁴⁾	昭35.	65	♂	45 年	3.1×2.2×2.6	左下顎隅角下方	全治
19. 竹間・山口 ²⁵⁾	昭35.	61	♂	7 ヵ 月	鶏卵大	左 顎 下 部	全治
20. 徳岡他 2名 ²⁶⁾	昭36.	48	♂				皮膚と癒着, 圧痛軽度 全治 Oncocytoma?
21. 高橋 ²⁷⁾	昭36.	61	♂	数10年	拇指頭大	左耳下腺部	
22. 安野他 4名 ²⁸⁾	昭37.	22	♀			右 耳 下 部	
23. 高橋他 2名 ²⁹⁾	昭38.	75	♂	5 ヵ 月	鳩卵大	左 耳 下 部	全治
24. 著 者	昭38.	69	♂	4 年	10×7×5	左 顎 下 三角	

次増大して大人手拳大に達した。

現症：全身所見に著変を認めず，局所所見では——左顎下三角から頸動脈三角を占める大人手拳大の腫瘍があり，上縁は耳介上端，下縁は上甲状切痕の高さにある。境界明瞭，卵形を呈し，表面はほぼ平滑で硬度は弾性軟，皮膚との癒着は認めず，上端部を除いて可動性がある。上端部は深部で軽く固定されている。他にリンパ節腫大を触れず，顔面神経麻痺を認めない。

検査所見：血液赤血球数 401×10^4 ，白血球数8700，血色素量92%，赤沈1時間値32mm，2時間値59mm，平均値37.5mmで中等度の亢進を認める。

臨床診断：左耳下腺腫瘍

手術所見：腫瘍は闊頸筋と浅頸筋膜の間にあつて被膜を有し，数個所で拡張した血管が腫瘍内に侵入して

おり，主として鈍的に一部鋭的剝離によつて比較的容易に剔出出来た。腫瘍と耳下腺との直接の関連性は認めなかつた。

剔出標本の肉眼的所見：10×7×5cm，110g，卵形を呈し被膜に覆われ，表面はほぼ平滑であるが一部軽度の凹凸がある。被膜下にやや豊富な血管の走行を認める。被膜と密着した1個の大きなリンパ節がある。剖面は全く実質性で肉様赤褐色を呈する(図1)。

組織学的所見：腺構造をもつ特異な上皮性細胞群及びリンパ濾胞をもつリンパ性間質から成る(図2,3)。上皮細胞はエオジン好性の顆粒により赤染した胞体とやや濃染した核を有し，これらの細胞群が2層あるいは多層に配列して管腔を形成している。内層は円柱細胞で核の配列も規則正しいが，外層はより小さな不規

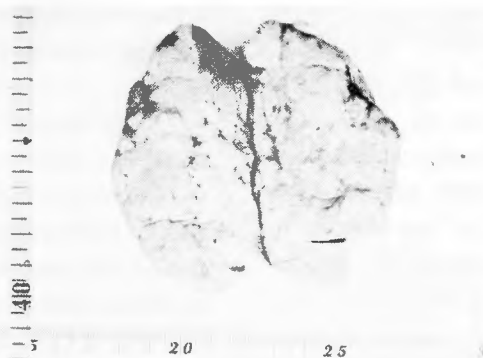


図1. 剔出標本(割面)



図2. 組織像, HE. ×35

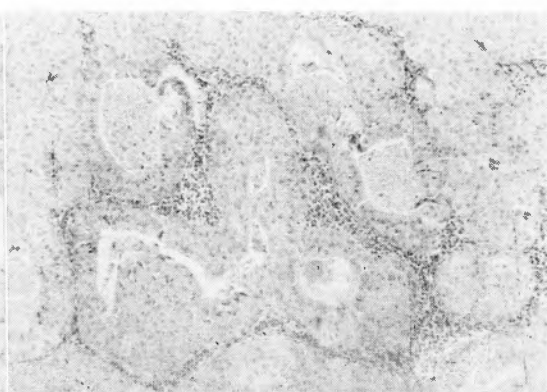


図3. HE. ×50

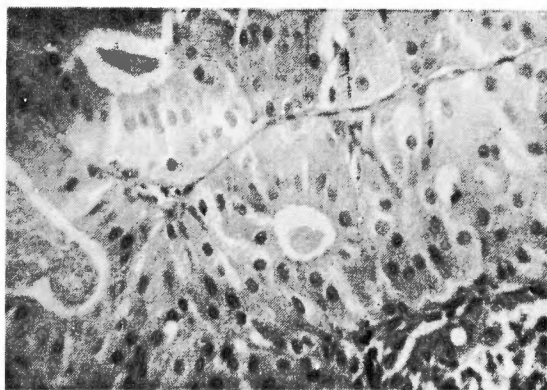


図4. HE. ×400

則な配列を示す細胞群から成る(図4)。管腔は所々で拡大して嚢胞状となり、エオジン好性の mucoid 様内容物を有する。部分的には嚢胞内に上皮細胞が乳頭状に増殖した像がみられる。なお腫瘍に接して存在した小リンパ腺に病的所見を認めない。

以上の所見から、本症例は典型的な papillary cystadenoma lymphomatosum (Warthin's tumor) であると考えられる。

術後経過：手術創は一次的に治癒し再発は認められない。

考 按

本症の報告は1910年 Abrecht & Arzt¹⁾ が特異な組織像をもつ耳下腺部の腫瘍を経験して、papilläre Zystadenome in Lymphdrüsen と記載したのを初めとする。彼等は本腫瘍の上皮が唾液腺の上皮に極めて類似している点に注目した。その後 Carmichael et al. (1925)³⁰⁾ は Adenolymphoma, Warthin (1929)³¹⁾ は papillary cystadenoma lymphomatosum と命名して以来、主としてこれらの名称が用いられ、又一名 Warthin's tumor とも呼ばれている(表2)。

Nicholson (1923)³²⁾ は本症の2例を報告する以前から、Neisse³³⁾ が小児の耳下部リンパ節内にしばしば異所性の唾液腺導管組織が混在することを観察していることに気づき、又彼自身も成人に於て同様の例を経験したことから、本腫瘍はリンパ節内の異所性唾液腺組織から発生した腺腫であると考えた。その後、Thompson & Bryant³⁴⁾ は胎生学的に耳下部リンパ節内には他の部位に比して耳下腺導管組織の迷入が起り易いことを明らかにして、本腫瘍が耳下腺部に最も多く発生する事実を裏付けた。一方 Skorpil³⁴⁾、Lloyd³⁵⁾、Thompson & Bryant³⁾ 及び Willis³⁶⁾ 等の例に示される如く、耳下腺内あるいは他の唾液腺自身から発生したと思われる症例も存在し、唾液腺自身の導管上皮が腫瘍性増殖をなす場合もあると考えられる。

この間、Glass³⁷⁾、Ssobolew³⁸⁾、Feldmann³⁹⁾、Askanazy⁴⁰⁾等は本症が嚥元性に発生するものと考え、又 Kraissl

表2 本症の名称に関する主な経過

1. Papilläres Cystadenom in Lymphdrüsen (ALBRECHT & ARZT, 1910.)
2. Branchiogenes papilläres Cystadenolymphom (GLASS, 1911.)
3. Branchioma (SSOBOWLEW, 1912.)
4. Adenoma branchiogenes (FELDMANN, 1916.)
5. Cystic papillary adenoma (NICHOLSON, 1923.)
6. Adenolymphoma (CARMICHAEL et al., 1925.)
7. Cystadenolymphoma parotidis (STÖHR & RISAK, 1926.)
8. Adenoma branchiogenes cylindrocellulare cysticum (ASKANAZY et al., 1926.)
9. Papillary cystadenoma lymphomatosum (WARTHIN, 1929.)
10. Adenolymphoma (Onkocytoma) (JAFFÉ, 1932.)
11. Cysto-adenoma (Orbital inclusion cyst) (STOUT & KRAISSL, 1933.)
12. Warthin's tumor (MARTIN & EHRLICH, 1944.)

& Stout⁴¹⁾は Schulte の orbital salivary gland に発生起源を求めたが、いずれも根拠に乏しいものとされている。

一方同じ唾液腺の上皮性良性腫瘍として、所謂 Onkocytoma (Jaffé⁴²⁾) があり、我国に於ては斉藤、松井、安野等の報告がある(表1)。Pyknoctoma (Harris⁴³⁾)、Hürthle cell tumor (McFarland⁴⁴⁾)、Oxyphilic granular cell adenoma (Meza-Chavez⁴⁵⁾) 等とも呼ばれ、典型的な Warthin's tumor とは組織学的に多少異なつた像を呈するが、類似している点が多く、実際その名称が混同して使用され或は同一の疾患として扱われている報告もある。Oxyphilic granular cell adenoma が本症とは別個の疾患であるか或は本症の1異型にすぎないかは今後の症例の追加、検討に待たねはならないが、少なくとも臨床的には同一の疾患と考えても不都合はない様である。

本症の臨床的特徴は、1) 発生頻度、Willis³⁶⁾ によれば本腫瘍は全唾液腺腫瘍の10%以下を占める比較的稀な腫瘍である(表3)。本症の報告例が少ないのは、本症が稀な疾患である事にもよるが、本症の診断が臨床的には困難であり見逃がされる場合が多い事にもよると思われる。2) 年齢(表4)。混合腫瘍と比較し

表3 唾液腺腫瘍900例の集計
(Foote & Franzell)

1. Mixed tumor	68%
Benign type	62%
Malignant type	2%
2. Mucoepidermoid tumor	11%
3. Squamous-cell carcinoma	3%
4. Adenocarcinoma	9%
5. Warthin's tumor	6%
6. The others	3%

表4 本症の年齢別発生数 (Plaut)

Years	No. of Cases
1 ~ 10	2
11 ~ 20	2
21 ~ 30	1
31 ~ 40	5
41 ~ 50	13
51 ~ 60	20
61 ~ 70	13
71 ~ 80	4
81 ~ 90	0
91 ~ 100	1
Youngest—21½ years. Oldest—92 years.	
Average 52 years.	

て高令者に多い。Plaut²⁾及び Thompson & Bryant³⁾等の統計によれば50才代に最も多く全体の30%前後を占め、60才代及び40才代がこれに次いでいる。40才以下は極めて稀である。3) 性別。これも混合腫瘍と対照的で、男性に圧倒的に多く Plaut²⁾によれば男性50、女性12である。4) 発生部位。大多数は耳下部に発生し通常極めて表在性に、多くは耳下腺から離れて存在するが時には耳下腺内に存在する。Thompson & Bryant³⁾によれば180例中耳下部、175例、顎下部及び顎下腺5例である。これらのうち10例は両側性であつた。5) 発育及び経過。大部分は緩徐な発育を示し長期間放置してあるものは極めて小さいままに止り、Carmichael et al.³⁰⁾の第4例では30年間放置してその大きさは直径2cmに過ぎなかつた。しかし時に比較的速い発育を示す例もあり、自験例では4年間で長径10cmに達している。6) 予後。稀な例外はあるが、一般に被膜に覆われ完全剔出が容易である。良性であり、再発は通常みられない。悪性例はStöhr & Risak⁴⁶⁾、Sobolow³⁸⁾及び Ruebner & Bramhall⁴⁷⁾等の報告があるが極めて稀である。Ruebner & Bramhall は確実な本症の悪性例は彼等の1例のみで他の報告例は悪性の事実が不明確であるか或は本症と Papillary carcinoma の合併例であると述べている。

以上の如く、比較的高令者の耳下部に緩慢な発育を示す腫瘍を認めた場合、一応本症の疑をおくべきである。しかし乍ら臨床的に耳下腺混合腫瘍、その他の耳下腺又はリンパ節腫瘍と鑑別することは困難な場合が多い。摘出標本は肉眼的には腫大リンパ節と誤られ易く、囊腫を形成して mucoid 様の内容物が存在する場合には、しばしば牛乳様又は濁濁液状を呈し乾酪様物質や膿に類似している。この様な所見は、Willis が指摘した如く、リンパ腺結核と誤られる恐れがある。したがって本症の確定診断はその組織像によらなければならない。

鑑別診断並びに治療上注意すべき疾患の一つに Godwin⁴⁸⁾の Benign lymphoepithelial disease がある。本症は耳下腺の chronic Inflammation, Lymphoepithelioma, lymphocytic tumor, Mikulicz's disease 等と呼ばれた疾患で、組織発生上 Warthin's tumor と似ているが、臨床的には異つたと経過をとり腫瘍が瀰漫性、多中心性で再発率も高い為耳下腺と共に広く剔出し、更に放射線療法を必要とする点に注意すべきである¹⁵⁾

結 語

左耳介下に発生した比較的大きな Warthin's tumor の1例(69才、男)を報告し、本腫瘍の発生源並びに臨床像に関し文献的に考察した。

文 献

- 1) Albrecht, H. & Arzt, L. : Beiträge zur Frage der Gewebsverirrung. Papilläre Cystadenome in Lymphdrüsen. Frankfurt. Z. Path., **4**, 47, 1910.
- 2) Plaut, J. A. : Adenolymphoma of the parotid gland. Ann. Surg., **116**, 43, 1942.
- 3) Thompson, A. S. & Bryant, H. C. : Histogenesis of papillary cystadenoma lymphomatosum (Warthin's tumor) of the parotid salivary gland. Am. J. Path., **26**, 807, 1950.
- 4) Chaudhry, A. P., and Gorlin, R. J. : Papillary cystadenoma lymphomatosum (adenolymphoma). Am. J. Surg., **95**, 923, 1958.
- 5) 松島一雄 : Papilläres Zystoddeno-lymphom. **36**, 79, 昭10.
- 6) 遠山 : Mitteilungen uber allg. Path. u. path. Anat., **10**, 287, 昭18. (13) より引用)
- 7) 木村哲二他3名 : 唾液腺原発上皮性腫瘍の組織像に就て。東京医事新誌, **69**, 637, 昭27.
- 8) 田中 昇, 陳 維 嘉 : Muco-epidermoid 型腫瘍を合併せる耳下腺の両側性 Papillary cystadenoma lymphomatosum. 癌, **44**, 229, 昭28.
- 9) 並木秀男他2名 : 所謂 „Adenolymphoma” の1例. 癌, **45**, 259, 昭29.
- 10) 大橋成一, 河崎明彦 : 頸部に見られる所謂 Warthin 氏腫瘍の1例. 癌, **46**, 217, 昭30.
- 11) 芝 茂他3名 : 唾液腺に発生した Papillary cystadenoma lymphomatosum の1例. 日外会誌., **55**, 1302, 昭30.
- 12) 今村恒他2名 : 唾液腺に発生した Papillary cystadenoma lymphomatosum の1例, 奈良医学雑誌, **5**, 138, 昭29.
- 13) 米川 温 : 耳下腺部に発生せるリンパ性乳頭性囊状腺腫の1例. 外科, **18**, 133, 昭31.
- 14) 川島健吉他2名 : 混合感染を伴つた Papillary cystadenoma lymphomatosum (Warthin's tumor) の1例. お茶の水医学雑誌, **4**, 918, 昭31.
- 15) 星 和夫, 陳 振 榮 : 混合感染を伴つた Papillary cystadenoma lymphomatosum (Warthin's tumor) の1例, 臨床外科, **12**, 417, 昭32.
- 16) 河原 勉他2名 : 稀有なる耳下腺腫瘍(Papillary cystadenoma lymphomatosum) の1例. 日外会誌., **57**, 1628, 昭31.
- 17) 河原 勉他4名 : 耳下腺 Warthin 腫瘍の2治験例. 大阪大学医学雑誌, **11**, 623, 昭34.
- 18) 斎藤純夫他3名 : 口腔底に発生した Oncocytoma の1例. 臨床外科, **12**, 277, 昭32.

- 19) 鈴木快輔他4名：昭和医学雑誌，47，59，昭32。(27)より引用)
- 20) 松井敬介他3名：稀有な耳下腺腫瘍2例，Warthin 腫瘍および Onkocytoma，本子医学雑誌，9，935，昭33。
- 21) 富田喜内他3名：両側性乳頭性囊腺腫 (Warthin 腫瘍) の1例，口腔病学会雑誌，25，223，昭33。
- 22) 森 勝好他2名：両側性 Warthin 腫瘍の1例，日本口腔科学会雑誌，7，448，昭33。
- 23) 筑紫清太郎他2名：Warthin Tumor の1例，外科，22，484，昭35。
- 24) 斉藤義一：淋巴性乳頭性囊腺腫 (Warthin tumor)，臨床外科，15，893，昭35。
- 25) 竹間幸子，山口和夫：顎下部に発生した Papillary cystadenolymphoma (Warthin Tumor) の1例，治療，42，1268，昭35。
- 26) 徳岡昭二他2名：耳下腺に於ける淋巴腫様乳頭囊腺腫 (Warthin 腫瘍) の1例，広島医学，9，1257，昭36。
- 27) 高橋 学：左耳下腺部の拇指頭大腫瘍，臨床病理，9，36，昭36。
- 28) 安野友博他4名：最近の珍しい腫瘍例，耳鼻咽喉科臨床，55，226，昭37。
- 29) 高橋希一他2名：耳下腺腫瘍について，臨床外科，18，491，昭38。
- 30) Carmichael, R., Davie, T. B. & Stewart, M. J. : Adenolymphoma of the salivary glands. J. Path. Bact., 40, 601, 1925.
- 31) Warthin, A. S. : Papillary cystadenoma lymphomatosum. Am. J. Cancer, 13, 117, 1929.
- 32) Nicholson, G. W. : Studies on tumour formation. Guy's Hosp-Rep., 73, 37, 1923.
- 33) Neisse, R. : Über den Einschluss von Parotisläppchen in Lymphknoten. Anat. Hefte, Wiesb., 10, Pt. 1, 289, 1898.
- 34) Skorpil, F. : Zur Histologie und Histogenese des Papillaren Cystadenolymphomas der Parotisdrüse. Frankfurt. Z. Path., 54, 181, 1940.
- 35) Lloyd, O. C. : Salivary adenoma and adenolymphoma. J. Path. Bact. 58, 699, 1946.
- 36) Willis, R. A. : Salivary adenolymphomas. Pathology of Tumours, Butterworth, London, 345, 1960.
- 37) Glass, E. : Über ein branchiogenes Papilläres Cyst-adenolymphom der Regio Parotidea. Frankfurt. Z. Path. 9, 335, 1911.
- 38) Ssobolew, L. W. : Zur Kaustik der Branchiome. Frankfurt. Z. Path., 11, 462, 1912.
- 39) Feldmann, I. : Adenoma branchiogenes. Centralbl. allg. Path. u. path. Anat. 27, 25, 1916.
- 40) Askanazy, Henke, F. & Lubarsch, O. Handbuch Spez. Path. Anat. u. Hist. Julius Springer, Berlin, 1, Pt. 1, 249, 1926.
- 41) Kraissl, C. J. & Stout, A. P. "Orbital inclusion" cysts and cysto-adenomas of the Parotid salivary glands. Arch. Surg., 26, 485, 1933.
- 42) Jaffé, R. H. : Adenolymphoma (Onkocytoma) of the parotid gland. Am. J. Cancer, 16, 1415, 1932.
- 43) Harris, P. N. : Adenoma of the salivary glands. Am. J. Cancer, 27, 690, 1936.
- 44) McFarland, J. : Adenoma of the Salivary glands, with a report of a possible case. Am. J. M. Sc., 174, 362, 1927.
- 45) Meza-Chávez, L. : Oxyphilic granular cell adenoma of the parotid gland (oncocytoma). Report of five cases and study of oxyphilic granular cells (oncocytes) in normal parotid glands. Am. J. Path., 25, 523, 1949.
- 46) Stöhr, F. & Risak, E. : Zur Klinik und Anatomie der Parotis-geschwülste. Arch. Klin. Chir. 146, 609, 1926.
- 47) Ruebner, B. & Bramhall, J. L. : Malignant Papillary cystadenoma lymphomatosum. Arch. Path., 69, 110, 1960.
- 48) Godwin, J. T. : Benign Lymphoepithelial Lesion of the parotid gland. Cancer, 5, 1089, 1952.