

症 例 報 告

耳下腺に発生したリンパ上皮性嚢胞の一例

平 賀 三 嗣

鹿児島市立病院 口腔外科

〔受付：1987年5月8日〕

抄録：リンパ上皮性嚢胞は側頸部に好発し、耳下腺に発生することはまれである。今回、耳下腺に発生した本症の一例を経験したので報告する。

患者は59歳の男性で、左耳下腺部の無痛性の腫脹を主訴として来院した。局所所見では左耳下腺部に50×40mmの境界明瞭な腫瘍を認めた。硬さは弾性硬で圧痛はなく、顔面神経麻痺症状も認められなかった。耳下腺造影では腺部前方に陰影欠損を認めた。超音波検査ではcystic patternを呈していた。

処置および経過：耳下腺嚢胞の診断のもとに腫瘍摘出術を行った。腫瘍は周囲との癒着がなく、一塊として摘出した。摘出物は線維性被膜に被われた単房性の嚢胞で淡黄色の内容液が見られた。病理組織学的には重層扁平上皮で被われ、上皮下層にリンパ濾胞が認められた。病理組織診断：リンパ上皮性嚢胞。術後経過は良好で、再発の傾向は認められない。

Key words : lymphoepithelial cyst, parotid gland.

緒 言

頭頸部領域には多種多様の原発性あるいは続発性の腫瘍が発生する。リンパ上皮性嚢胞は先天性疾患として、発生学的にも興味のある疾患であり、側頸部に好発し耳下腺に発生することはまれであるとされている。病理組織学的には嚢胞内面は重層扁平上皮あるいは立方上皮よりなり、上皮下にリンパ性組織が存在することが特徴的所見とされている。今回、左側耳下腺に発生したリンパ上皮性嚢胞の1例を経験したので報告する。

症 例

患者：59歳 男性

初診：昭和59年1月30日

主訴：左側耳下腺部の無痛性腫脹

家族歴：特記すべき事項なし

既往歴：約20年前に肺結核に罹患し、現在は治癒している。

現病歴：昭和58年9月頃より左側耳下腺部の軽度の腫脹に気がついたが、無痛性のために放置していた。最近増大傾向にあるために某歯科医を受診し、消炎療法を受けたが症状が改善されないために当院口腔外科を紹介され来院した。

現症：体格・栄養ともに良好で特記すべき事項はない。局所所見としては顔貌は非対称性で、左側耳介部に約50×40mmの境明瞭な腫瘍を認め、硬さは弾性硬であった。圧痛はなく、表面皮膚との癒着もなく、また顔面神経麻痺の

A case of lymphoepithelial cyst within the parotid gland.

Mitsugi HIRAGA.

(Division of Oral and Maxillofacial Surgery, Kagoshima Municipal Hospital, Kagoshima 892)

鹿児島市加治屋町20-17 (〒892)

Dent. J. Iwate Med. Univ. 12 : 201-205, 1987



Fig.1 Facial appearance with swelling of the left parotid gland.

症状も認められなかった，口腔内には菌性感染症を疑わせる所見はなく，唾液の流出障害も認められなかった (Fig.1)。

臨床検査所見：血液一般検査，血清生化学検査，尿検査には異常所見は認められなかった。

X線所見：左側耳下腺造影所見では腺部前方部に円形の陰影欠損が認められ，腺葉の圧排像がみられた (Fig.2)。

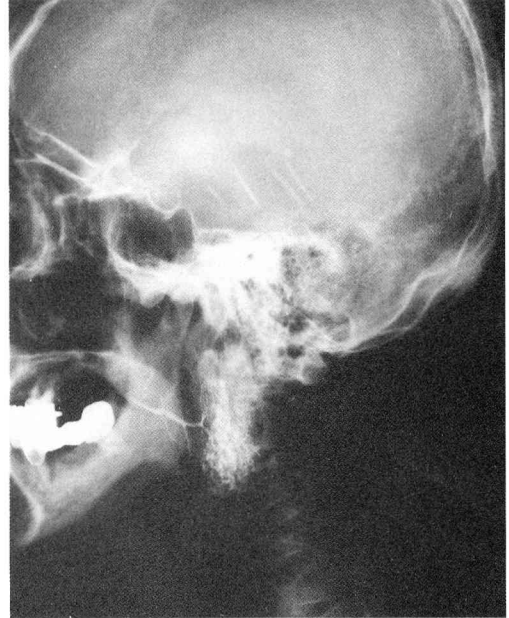


Fig.2 Sialogram of left parotid gland showing lack of aciner and small intraglandular duct filling of posterior portion of parotid gland.

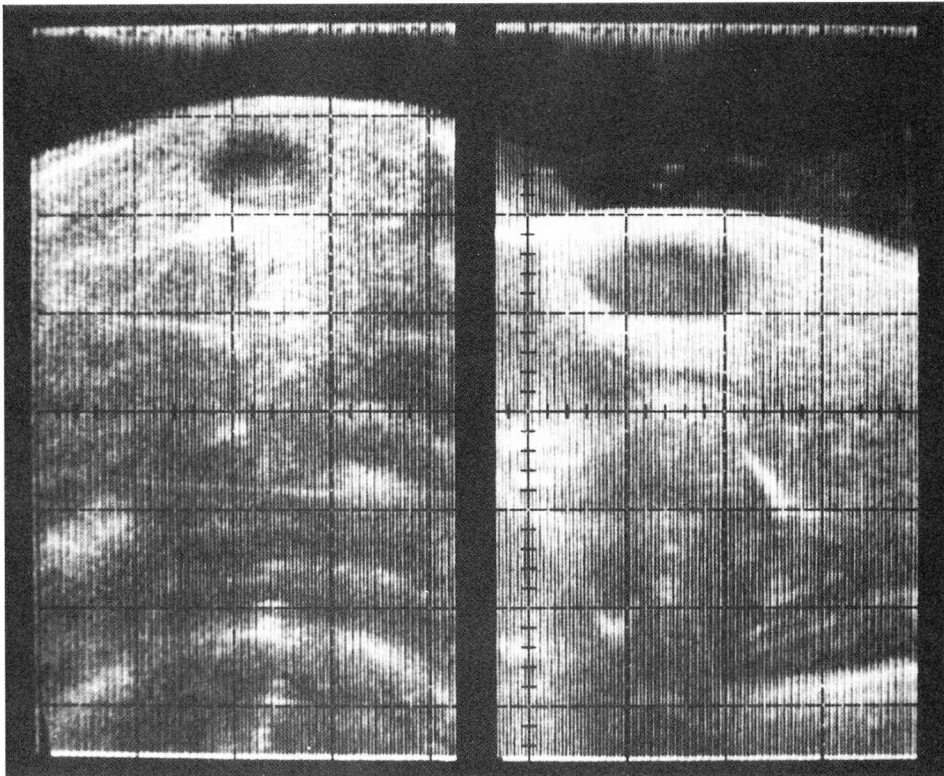


Fig.3 Ultrasonic examination showing a cystic pattern.

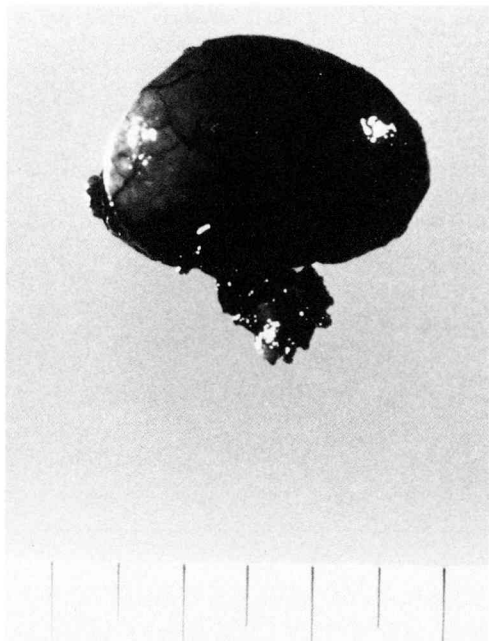


Fig.4 Encapsulated surface of gross specimen measuring 4×2×2cm.

超音波所見：皮膚表面に近い部分に40×30mmの境界辺縁の明瞭な像が認められ、cystic patternを呈していた (Fig.3)。

臨床診断：以上の所見から左側耳下腺嚢胞と診断した。

処置および経過：昭和59年2月6日入院，2月15日に全身麻酔下にて腫瘍の摘出手術を行った。左側耳介前部より耳介下部にかけて，約8cmのS字状の皮膚切開を加え，次いで広頸筋を切開し，剝離すると腫瘍は浅葉下部に認められた。腫瘍と周囲との癒着はなく，比較的容易に剝離することができ，一塊として摘出した。術創にはドレーンを一本留置し，一次縫合を行い手術を終了した。術後感染や顔面神経麻痺等の合併症はなく，経過良好であった。術後3年に及ぶが，再発の兆候は認められない。

摘出物所見：摘出物は4×2×2cmの大きさで，薄い線維性被膜で被われた単胞性の嚢胞で，淡黄色の内容液が認められた (Fig.4)。

病理組織所見および診断：嚢胞壁は重層扁平上皮よりなり，上皮下層にはびまん性にリンパ組織がみられ，リンパ濾胞を形成していた。以

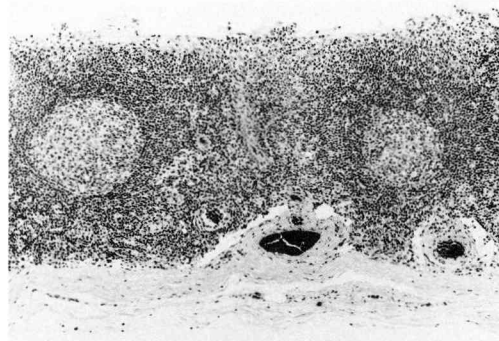


Fig.5 Microscopic section of cyst showing squamous epithelial lining with lymphocytic aggregation containing lymphoid follicle formation.

上の所見からリンパ上皮性嚢胞と診断された (Fig.5)。

考 察

リンパ上皮性嚢胞は側頸部が好発部位とされており，耳下腺に発生することはまれである。Bhasker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 (1.1%)であったと報告しており，Richardson²⁾は耳下腺腫瘍708例中16例 (2.3%)，本邦では金子ら³⁾は耳下腺腫瘍340例のうち1例 (0.3%)であったと述べ，いずれも発生頻度はきわめて少ない。

耳下腺内に発生する嚢胞の臨床的特徴としては，通常耳下腺部の限局性の無痛性腫脹として経過するために，嚢胞がある程度増大するか，あるいは二次感染をきたして，炎症症状を呈し機能障害を伴って初めて来院する場合が多い。また嚢胞が耳下腺組織内に存在することから，波動を触知しにくく，硬度も弾性硬から硬であり，耳下腺腫瘍と診断されることが多いといわれている⁴⁻⁶⁾。

耳下腺部の腫瘍の診断に際し，イメージング診断として従来より使用されている唾液腺造影に加えて，超音波検査，CT検査，核医学検査などが利用されるようになり，腫瘍の内部構造，病変の存在部位，形態，周囲組織との境界などを把握することが可能となり，術前の治療方針も適確に計画することができるようになってき

Table 1 Our experienced cases of lymphoepithelial cysts during the past three years.

| No. of cases | age | sex | primary sites | size of cysts (cm) | cyst walls | lymphoid tissue |
|--------------|-----|-----|----------------------|--------------------|---------------------|-----------------|
| 1 | 59 | M | left parotice gland | 4×2×2 | squamous epithelium | ++ |
| 2 | 60 | F | right lateral cervix | 4.5×4×2 | squamous epithelium | + |
| 3 | 40 | F | right lateral cervix | 4×3×2 | squamous epithelium | + |
| 4 | 35 | M | right lateral cervix | 5×3×2 | cuboidal epithelium | + |
| 5 | 22 | M | left lateral cervix | 5×3×3 | squamous epithelium | ++ |

た。本症例も初診時の臨床所見から耳下腺腫瘍と診断されたが、超音波検査により腫瘍内部に cystic pattern が観察され、耳下腺嚢胞と診断された。頭頸部領域の腫瘍の診断にこれらの検査法を併用して行うことにより、診断能はさらに向上するものと思われる。本嚢胞と鑑別を要する疾患としては、warthin 腫瘍、好酸球肉芽腫および結核性リンパ節炎などが考えられる。

本嚢胞の治療法としては、嚢胞摘出術あるいは嚢胞を含めた耳下腺部分切除術が行われているが、通常嚢胞摘出術が選択されている。手術に際し、顔面神経の本幹および分枝を確認しながら剥離を行い、顔面神経の損傷をきたさないよう十分な注意が必要である。

本嚢胞の病理組織学的所見としては、嚢胞壁は重層扁平上皮あるいは立方上皮よりなり、上皮下層にはリンパ濾胞の形成を伴ったリンパ組織が認められるのが特徴である。本症例も上皮下のリンパ組織がよく発達し、胚中心も散見された。

本嚢胞の発生機序に関しては、いまだ統一見解がえられていない。これまでに種々の病因論が提唱されており、鰓溝・鰓嚢の残存により嚢胞が形成される鰓性器官由来説^{7, 8)}、リンパ節内に迷入した腺上皮細胞の増殖によって発生する腺上皮迷入説¹⁾、腺窩を有するリンパ組織の

腺窩の閉塞によって生ずる腺窩閉塞説⁹⁾などがある。横尾ら¹⁰⁾は耳下腺内本嚢胞を病理組織学に観察し、耳下腺内のリンパ組織あるいはリンパ節に耳下腺上皮の一部が封入され嚢胞化した可能性を示唆する所見がえられたと報告している。または口腔内のリンパ上皮性嚢胞については、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¹¹⁾もある。最近本嚢胞の内容液を免疫生化学的に分析し、アミラーゼ、 γ -GTP の高い活性に注目し、唾液腺上皮の関与を指摘する報告も散見することができる^{12, 13)}。組織学的検索とともに内容液の分析は本嚢胞の発生由来を考える上で重要な情報を提供するものと思われる。

リンパ上皮性嚢胞は頸部、口底部、耳下腺部と発生部位が異なり、組織学的にも多彩な形態が報告されている。当科における過去3年間のリンパ上皮性嚢胞は5例で、頸部が4例、耳下腺部が1例であった (Table 1)。個々の症例を病理組織学的に観察すると、上皮の形態およびリンパ組織の発達の程度に若干の差異が認められることから、発生由来の観点からすれば、すべての症例を説明することは困難な場合がある。今回経験した症例では発生機序を解明する手がかりとなるような所見はえられなかったが、今後さらに詳細な研究が必要であると考えられる。

結 論

59歳の男性の左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、若干の文献的考察を加えて報告した。

Abstract : Lymphoepithelial cyst often occurs in the lateral cervical region but is rarely seen within the parotid gland. This paper reports one case of lymphoepithelial cyst within the parotid gland. The subject is a 59-year-old male who appeared at our hospital complaining of a painless swelling of the left parotid gland. A 50×40mm palpable tumor was found 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 tissue with some follicles. It was diagnosed histopathologically as a lymphoepithelial cyst. There has been no recurrence of the tumor three years after operation.

文 献

- 1) Bhasker, S. N. and Bernier, J. L. : Histogenesis of branchial cyst. *Am. J. Pathol.* 35 : 407-423, 1959.
- 2) Richardson, G. S. Clairmont, A. A. et al. : Cystic lesion of the parotid gland. *Plast. Reconstr. Surg.* 61 : 364-370, 1978.
- 3) 金子敏郎, 石川 哮, 内藤準哉, 吉岡俊幸, 鈴木晴彦, 加藤高行, 北村 武 : 口腔および唾液腺良性腫瘍, 耳喉, 49 : 849-855, 1977.
- 4) 山下佐英, 伊藤隆利, 堂原義美, 吉元睦男, 川平清秀 : 耳下腺部に発生した Branchial cyst の1例, 口科誌, 22 : 608-614, 1973.
- 5) Sisson, G. A. and Summers, G. W. : Branchiogenic cyst within the parotid gland, Report of a case. *Arch. Otolaryngol.* 96 : 165-167, 1972.
- 6) 藤林孝司, 勝村浅樹, 草間幹夫, 小野富昭, 伊藤秀夫 : 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.
- 7) Rickles, N. H. Little, J. W. : The histogenesis of the branchial cyst 11. A study of the lining epithelium. *Am. J. Pathol.* 50 : 765-777, 1967.
- 8) 板垣光信, 手島貞一, 前田栄一 : 側頸部嚢胞の1例, 口科誌, 24 : 93-100, 1975.
- 9) 藤原康次, 河野泰孝, 池村邦男 : 口腔底に発生したリンパ上皮性嚢胞の2例, 口科誌, 32 : 613-617, 1983.
- 10) 横尾美恵子, 天笠光雄, 田中信幸, 藤井英治, 中野健介, 坂本泰宏, 塩田重利, 岡田憲彦 : 耳下腺に発生したリンパ上皮性嚢胞の1例, 日口外誌, 31 : 1157-1162, 1985.
- 11) Toto, P. D. Wortel, J. P. et al. : Lymphoepithelial cyst and associated immunoglobulines. *Oral Surg.* 54 : 59-65, 1982.
- 12) 有馬良治, 山田公一, 芝 良祐 : 内溶液の amylase および 2, 3 の酵素が高い活性を示した良性頸部リンパ上皮性嚢胞——嚢胞内容 amylase の isozyme 分析および免疫生化学的分析——, 口科誌, 33 : 22-29, 1984.
- 13) 松本 憲, 森下正明, 松村智弘, 北野栄一郎, 渡辺林三 : 内容液が高いアミラーゼおよびγ-GTP 活性を示した側頸部鰓嚢胞の2例, 日口外誌, 27 : 873-877, 1981.