喉頭腺様嚢胞癌(声門下癌)症例

*田辺 正博, **松本 正朗
***張田 裕

Adenoid Cystic Carcinoma of the Subglottic Region

Masahiro Tanabe, M.D.

Department of Otolaryngology, Shiga Medical Center, Moriama

Masao Matsumoto, M.D.

Department of Pathology, Shiga Medical Center, Moriama

Yutaka Harita, M.D.

Division of Plastic Surgery, Kyoto University School of Medicine, Kyoto

Adenoid cystic carcinoma of the larynx is very rare and only eight cases have been reported in the Japanese literature. None of those reported cases occurred in the subglottic region. In this paper, a case of adenoid cystic carcinoma originating in the subglottic area of the larynx is reported.

A 66-year-old woman developed shortness of breath and respiratory distress. Endoscopy revealed no mass in the larynx and the upper trachea. Sixteen months later, she underwent a neck exploration with excision of the submucosal tissue of the subglottic area. Pathology report was compatible with adenoid cystic carcinoma. The patient underwent a total laryngectomy. She has been well for the last fifteen months with no evidence of recurrence or metastases.

Key words : adenoid cystic carcinoma, larynx, subglottic carcinoma

はじめに

腺様嚢胞癌 (adenoid cystic carcinoma) は小唾液腺の悪性腫瘍としては、最も頻度の高いもののひとつであるが、喉頭に発生することは、きわめて稀である。本邦では、文献的に渉猟しえた範囲では、これまでに8例の報告例をみるに過ぎない。発生部位別には、声門上部が6例と部位不明が2例で、声門下部に発生した報告例はない。最近、われわれは声門下部に原発した症例を経験したので報告する。

症 例

症例：66歳 女性

昭和58年10月、呼吸困難をきたし、気管支炎の診断のもとに、某病院内科に入院した。入院後も頻回に呼吸困難をきたすため、昭和59年4月に気管切開を受けた。胸部所見は改善し、気管切開孔の閉鎖が試みられたが、気切孔より上方の気道の狭窄のため、閉鎖できなかった。程度は不明であるが両側の声帯運動は認められ、気管切開孔上方に肉芽による狭窄を指摘され、この狭窄の処置を目的に、最初の呼吸困難発現15ヵ月後の昭和60年1月、われわれの外来に紹介された。初診時、気管切開孔を閉鎖すると呼吸困難をきたすが、発声は可能で、中等度の嗄声であった。嚥下困難はなく、胸部を含め、全

*滋賀県立成人病センター耳鼻咽喉科

**滋賀県立成人病センター検査部病理

***京都大学医学部附属病院形成外科

身的には異常所見を認めなかった。

局所所見：気管切開孔直上部の気管前壁に膨隆がみられた（図1，矢印）。間接喉頭鏡検査，喉頭ファイバースコープで，両声帯は傍正中位，不動で，腫瘍や明らかな炎症所見は認めなかった。気管切開孔よりのファイバースコープでも気管切開孔直上部の膨隆以外に，声門下に腫瘍は認めなかったが，声門下腔は全体的にやや狭い印象を受けた。

声帯の運動障害の原因は不明で，両側声帯麻痺，輪状披裂関節の関節炎による固着，腫瘍の浸潤による運動障害などを考えた。頸部リンパ節腫脹，甲状腺の腫脹は認めなかった。

経過および治療

気管狭窄部の拡大：初診1週間後に，狭窄部の肉芽を切除し，シリコン製Tチューブを挿入した。切除組織の病理診断は炎症性肉芽であり，悪性所見はなかった。術後もTチューブの側管を閉鎖すると呼吸困難をきたし，喉頭狭窄に対する処置を要すると考えた。頸部の腫瘍シンチグラムに異常所見は認めず，喉頭高压レントゲン検査（図2）では，声門下腔が狭く，ファイバースコープの所見と一致した。腫瘍の浸潤は

疑われたが，喉頭内腔粘膜には腫瘍を思わせる所見はなく，頸部外切開による生検も必要と考えた。

声門開大手術：初診1ヵ月後に生検を兼ねて，頸部外切開による声門開大手術（Woodman法）を試みた。頸部横切開で右輪状披裂関節の露出を試みたが，関節周囲は，やや硬い組織で覆われ，右声帯下面粘膜下にも同様の組織がみられた。これらの部より試験切片を採取した後，声門の開大をはかったが，関節の固着が強く，十分な開大は得られなかった。試験切片の組織像を図3に示す。特徴的な cribriform pattern を示し，腺様嚢胞癌の診断を得た。

喉頭全摘出術：両側声帯が不動であることより，対側にも同様の腫瘍浸潤があると考え昭和60年3月，喉頭全摘出術を行なった。術中，腫瘍の浸潤範囲を肉眼的に決定することは困難で，断端の術中迅速病理組織検査を行ないながら切除範囲を決定した。術中迅速病理組織検査で頸部リンパ節転移は認めなかった。摘出喉頭を図4に示す。喉頭内腔粘膜に腫瘍を思わせる所見はない。右声門下の組織欠損部は検査標本を採取した部である。

病理組織：組織像を図5に示す。粘膜下に腫

図1 気管切開孔上方の気管狭窄

図2 声門下腔の形態

図3 試験切片の組織像

瘍細胞の浸潤がみられる。図6に輪状軟骨内腔側の腫瘍細胞の浸潤を示す。強拡大像を図7に示す。篩板状に配列する cribriform type である。

腫瘍の進展範囲：腫瘍の進展範囲を検討するために摘出喉頭を図8に示すごとく切り、プレパラートを作成した。これらプレパラート上での腫瘍細胞の浸潤範囲から、腫瘍の進展範囲を再構築した。図9に腫瘍の浸潤範囲を斜線で示す。声門下原発の腺様嚢胞癌と診断した。

術後1年3カ月を経た現在、再発、転移の徴候はみられない。

考 按

腺様嚢胞癌は頭頸部では唾液腺に多くみられる。Conley ら¹⁾の集計によると小唾液腺に58%、大唾液腺に42%と、小唾液腺にやや多く、耳下腺悪性腫瘍の14%、顎下腺悪性腫瘍の31%、小唾液腺悪性腫瘍の38%を腺様嚢胞癌が占める。Olofsson ら²⁾は耳下腺腫瘍の5%以下、顎下腺腫瘍の10~15%が腺様嚢胞癌としている。喉頭の腺様嚢胞癌は非常に稀で Donovan ら³⁾の文献的集計によれば9,882例の喉頭癌中、腺様嚢胞癌は21例で、0.25%以下である。腺様嚢胞癌の1983年までの文献上の報告例は75例以下といわれる (Donovan ら³⁾)。正確な集計は困難で、その理由として本腫瘍が、これまでに多くの異なった名称で報告されていることと、Olofsson

図4 摘出喉頭

ら²⁾が指摘しているごとく、同一症例が、別の文献に重複して報告されている場合が多いことが挙げられる。いずれにしても喉頭の腺様嚢胞癌の報告例は少なく、本邦では、これまでにわずか8例が文献上、報告されているにすぎない。

本腫瘍の喉頭での原発部位に関して Donovan ら³⁾は詳細に報告された69例のうち部位の記載された58例の集計に彼らの声門下癌3例を加え報告している(表1)。この分布は喉頭癌の大部分を占める扁平上皮癌とは趣を異にす

図5 粘膜下の腫瘍細胞

図6 輪状軟骨内腔側の腫瘍細胞

図7 篩板状に配列する腫瘍細胞

るが、喉頭の粘漿液腺の分布と合致する。これまでの本邦報告例はわずかに8例にすぎず、分布を分析するには症例数が少な過ぎるが、表2⁴⁾⁻¹⁰⁾に示すごとく、声門上癌が6例、transglotticが1例、部位の記載のないものが1例である。声門下原発例としてはわれわれの症例が第1例目である。Transglotticとした小池ら⁷⁾の報告例は後の集計(福島ら⁹⁾、石津ら¹⁰⁾)によ

り声門部癌に分類されているが、原報告には原発部位の記載はない。付図の浸潤範囲を示した写真から判断すると声門下原発の可能性が大といえる。いずれにしても本邦報告例ではDonovanら³⁾の集計と逆に、声門上癌が多く、声門下癌が少ないが理由は不明である。扁平上皮癌でも本邦の症例では、声門上癌に比し声門下癌が少ないことと同様の要因が関与している

図8 鏡検標本の切り出し

のであろうか。

喉頭腺様嚢胞癌は喉頭の扁平上皮癌と異なり、男女差はみられず、Olofsson ら²⁾の集計によれば、男女比は4:3で、本邦報告例では自験例を含め、男5例、女4例である。診断時の年齢は29歳～75歳で、50歳代、60歳代に最も多い。

症状は原発部位により異なる。声門上癌では、嚥下困難、疼痛、嗄声がみられ、声門癌では嗄声、声門下癌では呼吸困難、時に嗄声がみられる。腫瘍自体の進展速度が遅いことから、症状は徐々に発現することが多い。声門下癌では、症状の初発より診断までの期間は6カ月から5年にも及ぶことが多い(Donovan ら³⁾)。われわれの症例でも、初発症状発現から診断までに約1年4カ月を要している。

確定診断は生検によるが、声門下癌では、内視鏡による生検、または頸部外切開による生検を要する。被覆粘膜には腫瘍を疑わせる所見を

欠くこともある。われわれの経験した症例では、内視鏡検査で声門下粘膜には腫瘍を疑わせる所見はなく、外切開による生検で診断しえた。

治療として、これまでに喉頭部分切除、広範な喉頭全摘出、放射線治療などが行なわれてきた。本腫瘍は放射線感受性が低く、化学療法も現在までのところ、あまり有効ではない(犬山ら¹¹⁾)。現状では腫瘍の広範な摘出が最もよいと考えられ、われわれの症例でも喉頭全摘出を行なった。手術後の再発例に対しても腫瘍の摘出が行なわれているが³⁾、進行癌や遠隔転移例は手術の適応とはならず、放射線治療の意義もある。さらに、新しい化学療法剤の開発により、将来は化学療法の重要性も増すと考えられる。

喉頭腺様嚢胞癌症例の多くは、長期の経過観察が行なわれていないため、予後に関しては不明な点が多い。3～5年の経過観察では多くの例で、再発はみられないが、それ以上の期間、

図9 腫瘍の浸潤範囲

観察した例では再発が多い。本腫瘍の場合, 5年生存率は, あまり意味がない。10年以上, 経過観察された症例が2例あるが1例は再発を繰り返し, 16年後に死亡¹²⁾, 他の1例は2度の再発をきたしながら19年後にも生存している³⁾。腫瘍の進展は非常にゆっくりしているが, 再発が多く, 遠隔転移もみられ, 生命に関する予後はよいとはいえない。われわれの症例も, いまだ術後1年3カ月しか経過しておらず, 再発, 遠隔転移に対する観察は今後長期にわたり必要と考えている。

まとめ

腺様嚢胞癌が喉頭に発生することは, きわめて稀である。本邦では文献上, これまでに8例の喉頭腺様嚢胞癌症例の報告があるにすぎず, なかでも声門下癌の報告はみられない。声門下に発生した腺様嚢胞癌症例を報告した。

本論文の要旨は第37回日本気管食道科学会学術講演会(福岡市)において口演した。

引用文献

- 1) Conley, J. et al.: Adenoid cystic carcinoma in the head and neck (Cylindroma). Arch. Otolaryngol., 100: 81-90, 1974.
- 2) Olofsson, J. et al.: Adenoid cystic carcinoma

表1 喉頭腺様嚢胞癌の発生部位

声門上	15例
声門	3例
声門下	39例
transglottic	4例

(Donovanら³⁾による)

表2 喉頭腺様嚢胞癌報告例(本邦)

報告者	発生部位
1. 竹田 ⁴⁾	喉頭蓋
2. 豊田ら ⁵⁾	不明(記載なし)
3. 佐藤ら ⁶⁾	両披裂部
4. //	左仮声帯
5. 小池ら ⁷⁾	左声帯, 声門下
6. 星谷ら ⁸⁾	左披裂喉頭蓋ひだ
7. 福島ら ⁹⁾	喉頭蓋
8. 石津ら ¹⁰⁾	左仮声帯
9. 自験例	声門下

of the larynx. A report of four cases and a review of the literature. Cancer, 40: 1307-1313, 1977.

- 3) Donovan, D.T. et al.: Adenoid cystic carcinoma of the subglottic region. Ann. Otol. Rhinol. Laryngol., 92: 491-495, 1983.
- 4) 竹田千里編: 頭頸部腫瘍図譜, 中山書店, 東京, 1972.
- 5) 豊田弥八郎・他: 頭頸部 adenoid cystic carcinoma の臨床像, 耳喉, 47: 469-474, 1975.
- 6) 佐藤武男・他: 喉頭腺癌3例—喉頭に腺癌はなぜ少ないか—, 耳喉, 48: 279-284, 1976.
- 7) 小池聰之・他: 喉頭腺癌3例, 耳鼻臨床, 71: 1101-1107, 1978.
- 8) 星谷勤・他: 喉頭腺様嚢胞癌の1例, 耳鼻臨床, 71: 1189-1199, 1978.
- 9) 福島典之・他: 喉頭腺癌の2症例, 耳喉, 55: 39-43, 1983.
- 10) 石津吉彦・他: 喉頭に発生した adenoid cystic carcinoma の1例, 耳鼻臨床, 78: 1852-1855, 1985.
- 11) 犬山征夫・他: 頭頸部 adenoid cystic carcinoma に対する化学療法の検討, 耳喉, 53: 45-52, 1981.
- 12) Leroux-Robert, J. et al.: Tumeurs mixtes et cylindromes du larynx. Ann. Otolaryngol. (Paris), 82: 1-14, 1965.

別刷請求: 〒524 守山市守山町328-1
滋賀県立成人病センター耳鼻咽喉科
田辺 正博

(投稿受付 1986年6月28日)