耳下腺部に発生した軟骨腫の一症例

しまの けいじ やました としお ほんだ けいじ
島野 圭司・山下 敏夫・本田 啓二
なかやま たかゆき くすもと たけお ほんじょう いわお
中山 堯之・楠本 健夫・本庄 巖

I はじめに

耳下腺は病理組織学的に多彩な腫瘍が発生する部位である。我々は耳下腺深葉部を占拠した巨大な軟骨腫の1症例を経験し、文献的検索によりこれが極めて稀な症例である事を確認したが、一方その発生原因に関しては、これが耳下腺から由来したものか、或は耳下腺周辺の組織より由来した軟骨腫が耳下腺部を占居したものかの判定に苦しんだ。しかし我々は各種の臨床的所見から、本腫瘍が乳突部より由来する軟骨腫であろうと判定した。以下に症例を報告し、本腫瘍の発生機転についての考察を述べる。

II 症 例

患者： 32才女子

主訴： 左耳下腺部の無痛性腫瘍及び

左顔面神経不全麻痺

既往歴： 特記すべきことなし

現病歴： 約13年前より左不完全顔面神経麻痺のみを認めていたが、4年前より同側の耳下腺部の無痛性腫瘍に気付き、3年前に他院にてこの腫瘍の切除術を受けたと言う。ところがその後も顔面麻痺は軽快しないのみならず、腫瘍が増大する傾向を認めた為、当科を受診した。

a. 局所所見

顔面： 左側は鼻唇溝浅く、口角下り、上下口唇弛緩して口を完全に閉じる事は出来ない。同左側前頭部の皺壁形成不完全。

耳下腺部： 左耳下腺部（正確には耳垂の直下）に位置するほぼ小クルミ大の腫瘍を認めた（図1）。この腫瘍は表面平滑、弾性軟で可動性を有している。すなわち耳下腺部の腫瘍をもった左側顔面神経末梢性不全麻痺を示していた（顔神検査成績の詳細は別項）。

その他： 左側の耳介、外耳道及び鼓膜所見

に異常を認めなかった。

図1 術前局所所見

Chondroma in the Parotis Region.

Keiji Shimano, Toshio Yamashita, Keiji Honda, Takayuki Nakayama, Takeo Kusumoto and Iwao Honjo.

関西医科大学耳鼻咽喉科学教室（主任：熊沢忠躬教授）

図2 患側耳レ線 (Schüller 氏法)
乳様突起に骨欠損像を認める

図3 左乳突部矢状面断層レ線 (皮膚面より
3cm 深部) 矢印の部に広範な骨欠損像
を認める

b. 耳レ線所見

Schüller 法 (図2) で患側の乳様突起尖端の前上方で外耳道の後下部にかなり大きな骨欠損を疑わせる所見が認められたのでこれを確認するため乳突部矢状面断層レ線撮影を行ってみると図3に見られる様に、皮膚面より深部、2.5cm から 4cm の範囲において明確な骨欠損像を認めた。数回の耳下腺造影レ線撮影を試みたが造影剤は Stenon 氏管入口部のみに停滞し

図4 耳下腺造影レ線像 造影剤は Stenon 氏管入口部に停滞している

(図4), Stenon 氏管の造影は不可能に終わった。これは後の手術所見から推測するに、前回の手術で耳下腺浅葉が Stenon 氏管と共に摘出されていた事によるものと思われる。

c. 術前顔面神経検査成績 (表1)

神経幹部に本腫瘍が位置していた為、神経興奮性検査の左右差比較は正確には行い得られなかったが、口輪筋及び眼輪筋の刺激ではかなり著明な左右差が認められた。興味あることは口

表1 術前の顔面神経検査成績

(i) 顔面神経興奮性試験

刺激部位	健 側 (右)		患 側 (左)	
刺激時間	1.0msec	0.1msec	1.0msec	0.1msec
顔 神 幹	10V	35V	腫瘍の為精査不能	
口 輪 筋	10V	35V	20V	60V
眼 輪 筋	10V	35V	12V	40V

(ii) 電気味覚検査

健側 0dB
患側 0dB > 左右差なし

(iii) 流涙検査

正 常

輪筋刺激時の眼輪筋収縮及びその逆の現象が認められたことで、この顔神麻痺が陳旧性のものである事がうかがわれた。又味覚検査、流涙検査は正常でありこの麻痺がいわゆる側頭骨外顔面神経麻痺である事が判った。

d. 手術

全麻下に耳下腺部腫瘍の全摘出術を施行した。型の如く Y 字切開で耳下腺部を露出した所、耳下腺浅葉はほとんど認められず、前回の手術でこれが摘出されている事が判った。顔面神経はその直下内側に位置する腫瘍によって外側下方に過度に伸展されており、一部で腫瘍の被膜との癒着がみられ、又数ヶ所で神経の萎縮を思わせる所見があった(図 5)。顔面神経を直内下部の腫瘍より剥離するとカプセルに被われたのう腫様の腫瘍が認められた(図 6)。周囲組織との剥離は比較的容易であったが、顔面神経の一部及び乳様突起尖端内側壁との癒着が著明であった。又この腫瘍の最深部は茎状突起と接していたが、この部との癒着は認められなかった。腫瘍はほぼ完全に摘出し得たが前述の乳様

図 6 術中所見 平滑な被膜に覆われた腫瘍の最深部が茎状突起に接していた

図 5 術中所見 耳下腺腫瘍に癒着し蛇行した顔面神経を認める

図 7 摘出腫瘍の内容の一部

突起尖端内側壁は癒着が著明であり、かつ死角にある為、完全な摘出が出来たとは言い難い。手指による乳突内側面の触診では、茎乳突孔内後方附近の凹凸が著明であった。摘出した腫瘍の表面はほぼ平滑な被膜に覆われており、その内容は黄色、漿液性の液体と、多葉性の極めて軟かい暗赤色、実質性の組織とで充満されていた(図 7)。

e. 病理組織学的所見

この実質性腫瘍組織の病理組織学的所見は全体に軟骨様組織よりなり、種々の大きさや形状の軟骨様細胞が見られ(図8, 9). 軟骨腫と容易に診断された. なお耳下腺上皮成分は、検索した限りでは全く見られなかった.

f. 術後3週目の所見

耳下腺部腫脹は完全に消退したが(図10), 左顔面神経麻痺は術前に比し著明となっている. この時点での顔面神経検査成績(図11)では, 患側の完全麻痺であったが, 術中に顔面神経は明視下にあり, 特に著しく損傷した様な事実がないことから, これは腫瘍と顔面神経との癒着の剥離の際の軽い表在的な副損傷によるものと推測される. その証拠としてその後, 顔面神経麻痺に対する保存的治療を強力に行った所顔面神

経興奮性検査にて, 2カ月後には全く左右差を認めなくなった.

図10 術後所見

図8 組織所見(弱拡大)

×40

図9 組織所見(強拡大)

×200

図11 術後(3週間目)の顔面神経検査成績

- (i) 顔面神経興奮性試験
患側 1.0msec, 0.1msec, いずれも scale out
- (ii) 電気味覚検査: 正常
- (iii) 流涙検査: 正常
- (iv) 筋電図検査

III 考 按

耳下腺良性腫瘍のうち、耳下腺由来の腫瘍と非耳下腺由来のそれとの比は、Lathrop⁶⁾ の唾液腺良性腫瘍の病理組織学的分類によると、ほぼ11対1とされている。そして耳下腺由来の腫瘍のうち混合腫が過半数を占める点は、いずれの報告でも一致している。一方非耳下腺由来の腫瘍としては、この腫が最も多い事は Eneroth²⁾, Seiferth ら¹⁰⁾, Lathrop⁶⁾ の各報告で、一致して認められているところである。次いで脂肪腫、血管腫、神経線維腫が稀にみられるとされている。

さて我々が経験したこの耳下腺部の腫瘍は前述の様に被膜を有しており、かつその内部に漿液を有していた点より単なるこの腫とも考えられるが、その内容の大半は実質性組織から成り、そのいずれの部分からも病理組織学的に軟骨腫所見が証明された点から、漿液は腫瘍組織の壊死融解によるものに過ぎず、この腫でなくて軟骨腫とすべきである。我々の文献渉猟の範囲では未だその報告を見出し得ない耳下腺部の軟骨腫であるとするのが妥当であろう。

しからは、この軟骨腫が耳下腺部のいずれの組織から発生したかが問題であるが、可能性の1つとしては、耳下腺組織、或はその支持組織よりの発生であり、第2は、耳下腺組織以外から発生して、たまたまその腫瘍が耳下腺部に出現した場合である。

さて第1の耳下腺由来の軟骨腫とする考えも、支持組織（非上皮性）由来の場合と腺組織由来の場合とが考えられる。Eneroth²⁾, Seiferth¹⁰⁾, Lathrop⁶⁾ 等による多数の耳下腺腫瘍に関する統計的報告でも、耳下腺非上皮性腫瘍はいずれも元来耳下腺内に存在する組織、例えば血管、神経、脂肪などを母地として発育するものであり、本腫瘍の場合の如く、もともと耳下腺には存在しない軟骨からの腫瘍発生は、成書に書いてあるが、実際には可能性が極めて少いと考えられる。

次に耳下腺上皮性組織由来の腫瘍とする考えであるが、Redon⁸⁾ らによると耳下腺混合腫の再発例では、初回の手術損傷により腫瘍細胞が周囲組織に散布され、各々が独自に発育する場合がありますとされている。我々の症例では、3年前に耳下腺腫瘍の手術を受けた病歴を有しており、初回手術の後に耳下腺混合腫の軟骨成分のみが独自に発育をとげ、この様な軟骨腫を形成したと言う可能性も否定は出来ない。但し初回手術時の耳下腺腫瘍が耳下腺混合腫であったかどうかは確立できないのでこの考えは根拠がうすい。

そして最後にこの腫瘍は、耳下腺を発生母地とするものではなく、軟骨腫がたまたま耳下腺深葉部を占居したとする推定も可能である。我々は以下に述べる理由で、本腫瘍が耳下腺以外の組織由来の軟骨腫とするのが妥当と考えた。

一般に軟骨腫は生理的軟骨組織より発生するものが多いといわれる。本症例にみる腫瘍に近在する軟骨としては外耳道軟骨があるが、軟骨部外耳道に異常を認めなかったので、外耳道軟骨由来は考えられない。次に Anderson¹⁾ による骨表面又はその内部から発生する軟骨腫の説がある。これは長、短管骨が好発部位とされるか、骨盤、肋骨、胸骨、肩甲骨などからも発生し得るという。従って術中に確認された本腫瘍と連絡を有する乳様突起、或は茎乳突起の骨部から、この様な軟骨腫が発生する可能性は充分考えられる。

その理由の第1は、本症例の病歴で、耳下腺部の腫瘍に気付く約9年前より顔面神経不全麻痺を来しており、この様に腫瘍発現の前から顔神麻痺が発来する事は、耳下腺由来の良性腫瘍では極めて起り難い事である。この様な特異な病歴を説明し得るのは、むしろ最初茎乳突起附近に発生した軟骨腫が顔面神経を圧迫し、まず顔神麻痺を発来させ、次いでこの腫瘍が外部へ向って増大してはじめて耳下腺部の腫瘍として気付かれるに至ったものと言う推定であろう。

第2に術中の所見で、乳様突起内側面と本腫瘤との間で高度の癒着が認められ、この部分では腫瘤の完全な摘出が不可能であった点及び乳様突起内側骨面に骨欠損らしきものを触れた点は本腫瘤が乳様突起内側面から発生したものであろう事を疑わしめる。

第3にレ線の検査で乳突部にみられた著明な骨欠損像は軟骨腫に特徴的な骨の吸収像と考えられる。

これらの事は乳様突起の削開で明白になる性質のものであるが、手術時に患者の全身状態が不良で同時にこれを行えなかった事、及び、二度目の手術に対する患者の拒否などから乳突削開が行えなかった。しかし上述の第1から第3の理由から考え、我々はこの腫瘤が乳突部から発生した軟骨腫であり、先ず茎乳突孔部を占居して顔神経麻痺を惹起し、次いで、耳下腺深葉部に進展して耳下腺腫瘤の外観を呈するに至ったものと推定する。

熊沢忠躬教授の御校閲に深謝いたします。

尚本論文の要旨は、第171回大阪地方会に於て口演された。

参 考 文 献

- 1) Anderson, W.A.D.: "Pathology" Fifth Ed. C.V. Mosby company. 828-830, 1966.
- 2) Eneroth, C.: Histological and clinical aspect of parotid Tumours. Acta oto-laryng. Suppl. 191, 1964.
- 3) Foote, F.W. and Frazell, E.L.: Tumors of the major salivary glands. Cancer september, 1064-1132, 1953.
- 4) 北村 武, 他: 唾液腺造影法. 日耳鼻 59:12; 1989-1995, 1956.
- 5) 北村 武, 他: 耳下腺腫瘍の臨床. 耳鼻臨床 64:増;1286-1301, 1971.
- 6) Lathrop, F.D.: Benign tumors of the parotid gland; A25-year review, Laryngoscope 72:992-1006, 1962.
- 7) Rawson, A.J. and Howard, J.M.: Tumors of the salivary glands. Cancer may, 444-458, 1950.
- 8) Redon, Hi.: Le traitement de tumeurs de la parotide, Fortschr. Kiefer u. Gesichtschir, 3, 206, 1959.
- 9) Saksela, E.: The Malignancy of mixed Tumors of the Parotid gland. Acta oto-laryng. 70:62-70, 1970.
- 10) Seiferth, L.B., et al.: 他唾液腺腫瘍の病理と臨床. 耳鼻臨床 59:7; 627-637, 1966.

（原稿到着：昭和50年9月3日）
別刷請求先：島野 圭司
〒570 守口市文園町1
関西医科大学耳鼻咽喉科学教室