軟口蓋 Monomorphic Adenoma (Trabecular Type) の一例

田中 信三・市川 利恵・八木 伸也・斎藤 春雄*
園部 宏**

Monomorphic Adenoma(Trabecular Type) of the Soft Palate

Shinzo Tanaka, Rie Ichikawa, Nobuya Yagi,
Haruo Saito and Hiroshi Sonobe
(Kochi Medical School)

A rare case of monomorphic adenoma of the soft palate is reported. The clinical appearance and histopathological findings of the biopsied specimens were highly suspicious of adenoid cystic carcinoma prior to surgery. A thorough study of the radically resected specimen, however, revealed monomorphic adenoma of the soft palate. The large operative defect of the soft palate was repaired by a lateral tongue flap with satisfactory results: speech and swallowing were almost normal.

As there are great difficulties in differentiating clinically and histologically between adenoid cystic carcinoma and monomorphic adenoma, the authors recommend wide resection of this benign tumor in consideration of the poor prognosis for adenoid cystic carcinoma.

Key words: soft palate, monomorphic adenoma, tongue flap

はじめに

Trabecular type の monomorphic adenoma は, adenolymphoma, oxyphilic adenoma, other types と分類される monomorphic adenoma のうち other types に属する (WHOの分類²⁾). この other types の monomorphic adenoma が小唾液腺に発生する頻度は小さく, 時に adenoid cystic carcinoma との鑑別が問題となる. 我々は, 組織学的にも臨床的にも adenoid cystic carcinoma

と判別できず, 根治的摘出術後に初めて良性腫瘍の診断を得た軟口蓋 monomorphic adenoma (trabecular type) の一例を経験した. この症例の治療経過を, 文献的考察とともに報告する.

症 例

患 者: 62歳, 男性

主 訴: 口蓋の腫瘍

既往歴, 家族歴: 特記すべき事項なし

現病歴: 初診の4ヶ月前(昭和59年3月)内

*高知医科大学耳鼻咽喉科学教室(主任: 斎藤春雄教授)

**高知医科大学中央検査部(主任: 佐々木匡秀教授)

科医に軟口蓋の腫瘤を指摘され耳鼻咽喉科受診をすすめられたが、痛みがないため放置していた。その後腫瘤に増大傾向を認めたため精査を目的として昭和59年7月高知医科大学耳鼻咽喉科を受診した。

初診時、軟口蓋中央部に圧痛のない表面平滑な2×2cmの腫瘍を認めた。生検により嚢胞様の病変が認められたため、2ヶ月後摘出術を目的として耳鼻咽喉科に入院した。入院時、腫瘍の中央に潰瘍が認められ(図1)、顎下部リンパ節の腫大もあったので、再度生検を行ない病理組織学的検査を施行した。比較的小型な腫瘍細胞が胞巣状、索状に増殖し、類円型の核に中等度の異型性が見られたため、adenoid cystic carcinoma が強く疑われた(図2)。

図1 術前の口腔内所見。軟口蓋中央に腫瘍があり中央部に潰瘍が認められる(矢印)。

図2 術前の生検の組織像。比較的小型の腫瘍細胞が胞巣状、索状に増殖し、細胞上も構造上も異型性は中等度である(H&E染色, ×200)。

昭和59年9月25日、adenoid cystic carcinoma の診断のもとに軟口蓋の一部を含め比較的広範囲に腫瘍摘出を行ない、顎下部リンパ節も摘出した。腫瘍は周囲との境界の明らかな黄白色の被膜を有し、血性流動物よりなる液状の部分と、充実性腫瘍組織の部分より構成されていた(図3)。病理組織像では、中型で立方ないしは多角の腫瘍細胞が梁状で増殖し、線維性被膜を越えて周囲へ浸潤する所見はなかった(図4)。核異型は軽度で、核分裂像は乏しく、monomorphic adenoma (trabecular type) と診断された。顎下部リンパ節への転移は認められなかった。

術後、巨大な軟口蓋穿孔により構音機能と嚥下機能に著しい障害を来した。外来で経過観察を行ない腫瘍の再発のないことを確認し、術後6ヶ月目に口蓋穿孔閉鎖術を施行した。左側3分の1の舌弁で穿孔部を閉鎖して鼻腔側を咽頭弁で裏打ちし、1ヶ月後に舌弁を切り離した(図5)。その後2ヶ月経過した時点で、ごく軽度の開鼻声はあるが嚥下機能の障害はない。

考 按

唾液腺の良性腫瘍のうち、pleomorphic adenoma は腫瘍性筋上皮細胞の粘液腫様変化と硝子化あるいは軟骨への化生を特徴とする

図3 腫瘍の摘出標本。腫瘍は黄白色で周囲との境界の明らかな被膜(矢印)を有し、血液流動物よりなる液状の部分と充実性腫瘍組織の部分より構成される。

図4 腫瘍の組織像. 左; 腫瘍が線維性被膜(矢印)を越えて浸潤する所見はない(H E染色, $\times 100$). 右; 中等度以下の核異型性を示し比較的よくそろった腫瘍細胞が梁状に増殖している(H E染色, $\times 400$).

図5 口蓋穿孔閉鎖術後の口腔内所見.

が, 1967年 Kleinsasser と Klein はそれら間葉成分への化生がない上皮細胞の良性腫瘍を報告し, Basalzelladenome と名付けた¹⁾. 1972年 Thackray と Sobin はWHOの唾液腺腫瘍の分類基準を提示したが, その中で唾液腺腺腫は pleomorphic adenoma と monomorphous adenoma に大別され, 更に monomorphous adenoma はエオシン好性の上皮細胞を特徴とする adenolymphoma (Warthin

腫瘍) や oxiphilic adenoma と other types に分類された²⁾. 従って, いわゆる Basalzelladenome や本症例の如く腫瘍性筋上皮細胞に間葉成分への化生のみられない唾液腺腺腫はWHO分類に従えば other types の monomorphous adenoma に属する. しかし, monomorphous adenoma を pleomorphic adenoma の中で間葉成分への化生がないものとみる考え方もあり, monomorphous adenoma の統計的報告では adenolymphoma や oxiphilic adenoma を除外したものが多³⁾⁴⁾⁵⁾⁸⁾. 本考案でも, adenolymphoma と oxiphilic adenoma を除外し, basaloid, canalicular, tubular や本症例の如く trabecular type に細分される間葉成分への化生がみられない monomorphous adenoma について述べることにする.

唾液腺腫瘍のうち小唾液腺の monomorphous adenoma は稀である. Kleinsasser と Klein¹⁾ によれば, 小唾液腺の monomorphous adenoma は全唾液腺腫瘍500例中わずか1例の頻度であった. また, 小唾液腺の mono-

morphic adenoma のうちでも口蓋に発生する割合は小さい. 小唾液腺の monomorphic adenoma を報告した Nelson と Jacoway³⁾によると, 29例中 1 例のみが口蓋に発生していた. Mader と Nelson⁴⁾は過去の文献より小唾液腺の monomorphic adenoma を検索し, 49例中 5 例が口蓋に発生し, そのうち 4 例は硬口蓋に発生していたと述べている. Mintz ら⁵⁾も過去の英文の報告を調べ, 102 例の小唾液腺の monomorphic adenoma のうち口蓋に発生していたのは 7 例のみで, 大部分は口唇に発生していたと述べている. 従って, 軟口蓋に発生した本症例は極めて稀な例であり, 本邦では我々が耳鼻咽喉科領域を主体に調べた範囲では初めての報告となる.

本症例の経過中間点となる点は, 最後まで adenoid cystic carcinoma との鑑別ができず, その疑いのもとに手術を行なったために巨大な口蓋穿孔をつくったことである. adenoid cystic carcinoma の治療の主体は広範囲な根治的摘出術であり, それでも10年以上の生存率は高くない⁶⁾⁷⁾. 一方, monomorphic adenoma には腫瘍のみの摘出術(核出術)が行なわれ, 再発例の報告はない³⁾⁴⁾⁵⁾. このように adenoid cystic carcinoma と monomorphic adenoma とは治療, 予後に大きな違いがあるが, 両者の組織学的な鑑別は容易でなく, 本症例でも術前生検で adenoid cystic carcinoma と判別できなかった. Levin ら⁸⁾は, adenoid cystic carcinoma と monomorphic adenoma の組織学的鑑別点は周囲への浸潤度と核の異型度であるとしているが, 生検された一部切片のみで両者を区別することは時に極めて困難であることも同時に指摘している. Mader と Nelson⁴⁾は組織学的所見より臨床所見を重視し, 年齢が60~80才で部位が上口唇付近に生じた腫瘍は, たとえ組織学的に adenoid cystic carcinoma と診断されても monomorphic adenoma を疑うべきであると主張している. 一方, Isacsson と Shear⁹⁾, Main ら¹⁰⁾は,

口蓋に発生する monomorphic adenoma の頻度は adenoid carcinoma の頻度よりかなり低いことを指摘している. 従って, 本症例の如く軟口蓋の monomorphic adenoma で adenoid cystic carcinoma との鑑別が難しい例には, 予後を考慮し悪性とみなして根治的摘出術を行ない, その後に口蓋形成術を施行することが安全で適切な方法であると思われた. 本症例では摘出した術後標本で初めて monomorphic adenoma と判明したが, 幸い, 6ヶ月の経過観察後, 手術により生じた巨大な口蓋穿孔を舌弁と咽頭弁で修復し, 構音, 嚥下障害をほぼ正常まで回復し得た.

おわりに

唾液腺の良性腫瘍で軟口蓋に発生した monomorphic adenoma (trabecular type) の一例を報告した. 術前の臨床所見と生検により adenoid cystic carcinoma が疑われたが, 根治的摘出術後の標本で trabecular type の monomorphic adenoma と判明した. 手術により生じた巨大な口蓋穿孔は舌弁と咽頭弁で修復し, 構音, 嚥下機能をほぼ正常まで回復し得た. adenoid cystic carcinoma との鑑別が組織学的にも難しい monomorphic adenoma に対しては, 予後を考えて, 根治的摘出術を施行するのがよいと考按した.

参考文献

- 1) Kleinsasser O and Klein HJ: Basalzelladenome der Speicheldrüsen. Arch Klin Exp Ohr Nas Kehlkopfheik 189: 302~316, 1967.
- 2) Thackray AC and Sobin LH: Histological typing of salivary gland tumours. International histological classification of tumours. No.7 World Health Organization, Geneva, 1972.
- 3) Nelson IF and Jacoway JR: Monomorphic adenoma (canalicular type). Cancer 31: 1511~1513, 1973.
- 4) Mader CL and Nelson IF: Monomorphic adenoma of the minor salivary glands. JADA

- 102 : 657~659, 1981.
- 5) Mintz GA, Abrams AM, Melrose RJ, et al : Monomorphic adenoma of the major and minor salivary glands. *Oral Surg* 53 : 375~386, 1982.
- 6) Matsuba HM, Thawley SE, Simpson JR, et al : Adenoid cystic carcinoma of major and minor salivary gland origin. *Laryngoscope* 94 : 1316~1318, 1984.
- 7) Spiro R, Huvos AG and Strong EW : Adenoid cystic carcinoma : Factors influencing survival. *Am J Surg* 138 : 579~583, 1979.
- 8) Levine J, Krutchkoff DJ and Eisenberg E : Monomorphic adenoma of minor salivary glands : a reappraisal and report of nine new cases. *J Oral Surg* 39 : 101~107, 1981.
- 9) Isacsson G and Shear M : Intraoral salivary gland tumors : a retrospective study of 201 cases. *J Oral Pathol* 12 : 57~62, 1983.
- 10) Main JHP, Orr JA, McGurk FM, et al : Salivary gland tumors : review of 643 cases. *J Oral Pathol* 5 : 88~102, 1976.

原稿到着：昭和60年6月14日

別刷請求先：田中信三

〒553 大阪市福島区福島2丁目1-7

関西電力病院耳鼻咽喉科