舌下腺に発生した腺様嚢胞癌の一例

和久田幸之助・岡坂 利章・兵 行和
松永 喬

Adenoid Cystic Carcinoma of the Sublingual Gland

Kounosuke Wakuda, Toshiaki Okasaka, Yukikazu Hyo
and Takashi Matsunaga

(Nara Medical College)

Biopsy of a sublingual tumor in a 70-year-old female showed adenoid cystic carcinoma. The tumor was resected, and she is alive 10 months after treatment without any evidence of recurrence. Primary malignant tumor of the sublingual gland is extremely rare, with only 67 cases reported in the literature from 1930 to 1984. The histological types, treatment and prognosis of malignant tumors of the sublingual gland are discussed.

Key words: sublingual tumor, adenoid cystic carcinoma, case report

はじめに

大唾液腺に発生する腫瘍の大部分は耳下腺にみられ、顎下腺に発生する例は少ない。さらに舌下腺由来と考えられる腫瘍はきわめて稀でありそのほとんどが悪性腫瘍であるといわれている¹⁾。

今回、我々は左口腔底の腫脹を主訴として来院した70才女性の舌下腺由来腺様嚢胞癌の一例を経験したので若干の文献的考察をくわえて報告する。

症 例

患者：70才女性。

初診：昭和60年12月23日。

主訴：左口腔底腫脹。

現病歴：約2年前、舌尖のしびれが出現し、某院内科を受診したが異常なしと言われたため

症状は持続していたが放置していた。昭和60年10月頃より、左口腔底の腫脹に気づいたため、昭和60年12月20日、某院耳鼻科を受診し、唾石の疑いのため当科を紹介され受診した。

局所所見：口腔底の腫瘍は2×3 cm、弾性硬、表面は正常口腔粘膜で被われ、表層の粘膜および腫瘍底部組織との癒着は認められず可動性良好であり、左舌下小丘よりの唾液の排出は認められた（図1）。なお、頸部リンパ節は触知しなかった。

レントゲン所見：単純撮影、パノラマX線写真では唾石などを思わせる陰影はなく、唾液腺造影では顎下腺開口部より5 mmでワルトン氏管は閉塞していた。胸部X線は正常。

臨床検査成績：血液、尿、心電図等の検査で異常は認められなかった。

図1 術前の口腔底所見

図2 摘出標本
(指示部はワルトン氏管断端)

臨床診断：口腔底腫瘍。

手術所見：昭和61年1月21日，全身麻酔下に腫瘍摘出術を行なった。左口腔底の腫瘍直上の粘膜に切開をくわえ，腫瘍と周囲組織を鈍的に剝離した。腫瘍は口腔底粘膜と顎舌骨筋の間に存在し，内側は舌筋に接しており周囲組織との癒着はなく，腫瘍は被膜に被われ境界鮮明であった。腫瘍の前および後端に一部索状の部分が

図3 病理組織所見
定型的な篩状構造を示している。

表1 WHO分類⁷⁾

I. Epithelial tumor
A. Adenomas
1. Pleomorphic adenomas
2. Monomorphic adenomas
a. Adenolymphoma
b. Oxyphilic adenoma
c. Other types
B. Mucoepidermoid tumor
C. Acinic cell tumor
D. Carcinomas
1. Adenoid cystic carcinoma
2. Adenocarcinoma
3. Epidermoid carcinoma
4. Undifferentiated carcinoma
5. Carcinoma in pleomorphic adenoma (malignant mixed tumor)
II. Non-Epithelial tumors
III. Unclassified tumors
IV. Allied conditions
A. Benign Lymphoepithelial Lesion
B. Sialosis
C. Oncocytosis

ありワルトン氏管と連絡していて剝離不能であったためワルトン氏管を約2cm切断し, 創部に開口するように口腔底粘膜に縫合して腫瘍を摘出した。創部周囲には正常舌下腺は認められず, 腫瘍の解剖学的位置関係より舌下腺由来のものと考えた。摘出した腫瘍は表面平滑, 断面は乳白色均一の充実性の腫瘍であった(図2)。術後経過は良好で10ヶ月を経過した現在も再発の徴候は認められない。

病理組織学的所見: 全切片では腫瘍は被膜に囲まれていた。全組織内には正常の舌下腺組織は認められず腫瘍組織におきかわっており, 腫瘍は間質に明瞭に境いされ, 各腫瘍蜂巣は充

実性の細胞よりなり, 細胞間には大小の嚢胞が認められ定型的な篩状構造を示し, 腺様嚢胞癌と診断した(図3)。

考 察

舌下腺に発生する腫瘍の報告はきわめて少なく全唾液腺腫瘍の0.2~4.7%^{2)~6)}と報告されており, Rankow¹⁾ はその80%は悪性腫瘍であると報告している。

唾液腺腫瘍の組織分類としてはWHOの分類⁷⁾が広く用いられており, そのB, C, Dが悪性腫瘍とされている(表1)。

舌下腺に発生した悪性腫瘍は1930年 Brunschwig の報告⁸⁾以来, 我々が文献的に渉猟し

表3 病理組織分類頻度

腺様嚢胞癌	24例*	35.3%
粘表皮腫瘍	15	22.1
多型腺腫由来の癌	11	16.2
腺癌	7	10.3
腺房細胞腫瘍	5	7.4
類表皮癌	1	1.4
未分化癌	1	1.4
その他の癌	4	5.9

68例 100%

*自験例を含む

表4 男女別頻度

男	性	14例 (5例)
女	性	20例 (5例)
() は腺様嚢胞癌症例		

表5 治療法

手術単独	18例 (7例)
放射線単独	1
手術+放射線	5 (1)
手術+放射線+化学療法	2 (1)

() は腺様嚢胞癌症例

図4 年齢別頻度

表2 舌 下 腺 惡 性 腫 瘍 症 例

著 者	年度	症例数	年齢	性別	左右	病	理	治 療	予 後
1) Bruschwig ⁸⁾	1930	1	60	女	右	Malignant mixed Tumor		放 射 線	7年死
2) Eschweiler ⁹⁾	1931	1	24	男	左	Malignant mixed Tumor		手 術	(-)
3) Ahlbom ¹⁰⁾	1935	1	-	-	-	Malignant mixed Tumor		手術, 放射線	9年生
4) Crocquefer ¹¹⁾	1937	1	-	-	-	Malignant mixed Tumor		手術, 放射線	(-)
5) Smith, M.K. ¹²⁾	1939	1	31	女	右	Malignant mixed Tumor		手術, 放射線	17年死
6) Frazell ¹³⁾	1954	4	35-68	2男2女	-	Adenoid cystic carcinoma Miscellaneous Tumor " " Unclassified malignant Tumor		(-) (-) (-) (-)	(-) (-) (-) (-)
7) Schimade ¹⁴⁾	1955	5	-	-	-	Adenoid cystic carcinoma " " " " Adenocarcinoma		(-) (-) (-) (-) (-)	(-) (-) (-) (-) (-)
8) Vellios, et al ¹⁵⁾	1955	1	-	-	-	Undifferentiated carcinoma		(-)	(-)
9) Grage, et al ¹⁶⁾	1962	1	-	-	-	Adenoid cystic carcinoma		(-)	(-)
10) Bandini, et al ¹⁶⁾	1962	1	-	-	-	" "		(-)	(-)
11) Gore, et al ²⁾	1964	3	-	-	-	Mucoepidermoid carcinoma " " " "		(-) (-) (-)	(-) (-) (-)
12) Luccioli, et al ¹⁷⁾	1965	1	49	女	-	" "		手 術	3年死
13) Lassus ¹⁸⁾	1965	1	50	-	-	Cylindroma		手 術	1年生
14) Violante, et al ¹⁹⁾	1965	1	63	女	右	Adenocylindroma		手 術	1年 6ヶ月生
15) Smith, et al ²⁰⁾	1966	1	-	-	-	Adenoid cystic carcinoma		手 術	8年生
16) Rosefeld, et al ²¹⁾	1966	4	-	-	-	Adenocarcinoma Mucoepidermoid carcinoma Malignant mixed tumor Unclassified carcinoma		(-) (-) (-) (-)	(-) (-) (-) (-)
17) Suzuki, et al ²²⁾	1968	1	45	男	右	Acinic cell carcinoma		手 術	2年生
18) Rankow, et al ⁶⁾	1969	15	49 73 41 55	男 男 男 女	右 左 左 左	Mucoepidermoid carcinoma Adenoid cystic carcinoma Adenoid cystic carcinoma Mucoepidermoid carcinoma		手術, 放射線 手術 手術 手術	17年生 36ヶ月死 13年生 12年生

えた症例は自験例を含め68例であった(表2)。

病理組織像を WHO の分類にしたがって検討してみると, 腺様嚢胞癌が最も多く24例(35.3%), ついで粘表皮腫瘍15例(22.1%), 以下悪性混合腫瘍, 腺癌の順になっていた(表3)。腺様嚢胞癌が多い理由として, その正常腺構造に粘液腺が多いことが一因と考えられる³⁶⁾。

男女別頻度では男性14例, 女性20例で, 腺様嚢胞癌についてみると男性5例, 女性5例であり, 男女別頻度には差を認めなかった(表4)。

年齢別分布では舌下腺悪性腫瘍は40才代, 50才代に多く認められ, 腺様嚢胞癌症例では40才代, 50才代, 60才代に同頻度に認められた(図4)。

治療法では手術単独治療が最も多く行われており, 腺様嚢胞癌症例について文献的に治療法の記載があった9例では, 手術療法と放射線療法を併用した1例, 手術・放射線・化学療法を併用した1例を除き, 他の7例すべて手術単独治療を行っており, 我々も十分な正常組織を含めた根治的切除が最もよい治療法であると考えている(表5)。

予後について記載された文献22例について考察してみると観察期間に長短はあるが死亡例は5例であり, 1965年以降の報告では2例のみであった。1例は腺癌の症例, 他の1例は腺様嚢胞癌症例であるが, この症例は切除後再発し, この時の治療を拒否しており, また死因も心疾患という他因子であった。腺様嚢胞癌症例について考えてみるとその予後は適切な治療を行う事により十分に救命しえる疾患であると思われる。しかし, その発育は緩徐であり長期にわたって担癌生存することがあり, 5年生存率が33%であっても15年後には80%が死亡したとの報告⁶⁾もあり, 長期にわたる観察期間が必要であることを強調したい。

ま と め

左口腔底の腫脹を主訴として来院した70才女性の症例に対し, その腫瘍の解剖学的位置関係

および組織所見より舌下腺由来の腺様嚢胞癌と診断した。治療は腫瘍の全摘手術を行い, 術後10ヶ月を経過した現在も再発の徴候は認めていない。

舌下腺に発生する悪性腫瘍は稀であり, 我々が文献的に考察しえた症例は自験例を含めて68例あり, その文献的考察もあわせて報告した。

なお本論文の要旨は第10回日本頭頸部腫瘍学会(於仙台)において発表した。

文 献

- 1) Rankow RM and Mignogna F : Cancer of the sublingual salivary gland. *Am J Surg* 118 : 790~795, 1969.
- 2) Grage TB and Lober PH : Malignant tumors of the major salivary glands. *Surgery* 52 : 284~294, 1962.
- 3) Gore DO, Annamunthodo H and Harland A : Tumors of the salivary gland origin. *Surg Gynecol Obstet* 119 : 1290~1296, 1964.
- 4) Castro EB, Huvos AG, Srrong EW, et al : Tumors of the major salivary glands in children. *Cancer* 29 : 312~317, 1972.
- 5) Foote FW and Frazell EL : Tumors of the major salivary glands. *Cancer* 6 : 1065~1133, 1953.
- 6) 鷺津邦雄 : 唾液腺腫瘍。頭頸部腫瘍図譜(中原和郎, 竹田千里編)。231~233頁, 中山書店, 東京, 1975.
- 7) Thackray AC : Histological typing of salivary gland tumors. WHO, Geneva, 1972.
- 8) Brunschwig A : A mixed tumor of the tongue and sublingual gland. *Surg Gynecol Obstet* 50 : 407~415, 1930.
- 9) Eschweiler H : Fall einer Zystisch Veränderten, Malignen Mischgeschwulst der Sublingualdrüse. *Z Laryngo Rhinol Otol* 22 : 36~39, 1931.
- 10) Ahlbom HE : Mucous and salivary gland tumors. *Acta Radiol Suppl* 23 : 137, 1935.
- 11) Crocquefer M : Tumeuer mixte dela glande

- sublinguale. Rev Stomatol 39:896~898, 1937.
- 12) Smith MK: Mixed tumor of the sublingual gland. Ann Surg 109:551~554, 1939.
 - 13) Frazell EL: Clinical aspects of tumors of the major salivary glands. Cancer 7:637~659, 1954.
 - 14) 島田義弘: 所謂唾液腺型混合腫瘍の組織発生に就いて. 日病会誌 44:243~257, 1955.
 - 15) Vellios F and Davidson D: The natural history of tumors peculiar to the salivary glands. Am J Clin Pathol 25:147~157, 1955.
 - 16) Bandini A and La Macchia E: Cylindroma of the sublingual gland. Reforma Med 76:889, 1962.
 - 17) Luccioli GM, Clement H and Palmer JD: Review article an analysis of 50 carcinoma of the salivary glands. Can J Surg 8:389~399, 1965.
 - 18) Lassus C: Sur un cas de Cylindrome de la Glande Sublinguale. Rev Stomatol Palis 66:217~218, 1965.
 - 19) Violante E: Adeno-cilindroma della Ghian-dola Salivare Sottolinguale. Gior Ital Chir 21:87~96, 1965.
 - 20) Smith LC, Lane N and Rankow RM: Cylindroma (adenoid cystic carcinoma). Am J Strg 110:519~526, 1965.
 - 21) Rossenfeld L, Sessions DG, Meswain B, et al: Malignant tumors of salivary gland origin. Ann Surg 163:726~735, 1966.
 - 22) Suzuki H and Henderson R: Acinic cell carcinoma of the sublingual gland. Arch Otolaryngol 87:146~149, 1968.
 - 23) 古市暢夫, 中島正臣, 及川征一, 他: 舌下腺性混合腫瘍の1例. 耳喉 44:551~555, 1972.
 - 24) 伊東隆利, 水山武彦, 新森 彬, 他: 左側舌下腺に発生した腺様嚢胞癌の1例. 日口外誌 20:315, 1974.
 - 25) Glanzmann C, Aberle HG, Burgener F, et al: Rolle der strahlentherapie bei der Behandlung von Speichel-drusenkarzinomen (Ergebnisse von 80 Patienten). Strahlentherapie (Germany, West), 152:395~403, 1976.
 - 26) Main JHP, Orr JA, McGurk FM, et al: Salivary gland tumors-review of 634 cases. J Oral Pathol 5:88~102, 1976.
 - 27) Spiro RH, Huvos AG and Strong EW: Malignant mixed tumor of salivary origin. Cancer 39:388~396, 1977.
 - 28) Shidnia H, Horngack NB, Hamaker R, et al: Carcinoma of major salivary glands. Cancer 45:693~697, 1980.
 - 29) 西嶋克己, 小林清司, 松村和良, 他: 舌下腺部に発生した粘表皮腫の1症例. 口科誌 30:264~269, 1981.
 - 30) 野崎秋一, 三吉康郎, 坂倉康夫, 他: 大唾液腺腫瘍の臨床統計的観察. 耳鼻臨床 74:1044~1053, 1981.
 - 31) Van Den Akker HP, Busemann-Sokole E and Becker AE: Acinic cell carcinoma of the sublingual gland. Int J Oral Surg 10:363~366, 1981.
 - 32) Takeuchi N, Hirose F, Yamamoto H, et al: Salivary gland tumors in atomic bomb survivors, Hiroshima, Japan. II. Pathologic study and supplementary epidemiologic observation. Cancer 52:377~385, 1983.
 - 33) 藤原康次, 池村邦男: 舌下腺に発生した腺様嚢胞癌の1例. 日口外誌 30:838~841, 1984.
 - 34) 瀧川富雄, 松本光彦, 工藤敏幸, 他: 舌下腺に生じたと思われる腺様嚢胞癌の1例. 日大歯学 58:206~210, 1984.
 - 35) Nishijima W, Tokita N, Takooda S, et al: Adenocarcinoma of the sublingual gland. Laryngoscope 94:96~101, 1984.
 - 36) 宮下久夫: 唾液腺—発生・解剖・生理. 臨床耳鼻咽喉科学 I (沢木修二, 設楽哲也, 野村恭也編). 273~306頁, 中外医学社, 東京, 1976.

(原稿採択: 昭和62年1月9日
別刷請求先: 和久田幸之助
〒634 奈良県橿原市四條町 840
奈良県立医科大学耳鼻咽喉科学教室)