上顎洞にみられた腺房細胞腫症例

藤原 啓次・田端 敏秀

Acinic Cell Tumor of Maxillary Sinus

Keiji Fujihara and Toshihide Tabata

(Wakayama Medical College)

An 80-year-old woman with a tumor of the soft palate visited our clinic. She had scratched the tumor often with her finger nail. Two years later, her right cheek became swollen, and the soft palate tumor increased in size.

X-ray films and CT scans revealed that the tumor was located in the maxillary sinus and palate. The contour was well defined. The maxillary tumor occupied the anterior portion of the right maxillary sinus, with bony destruction.

The tumor was successfully removed under general anesthesia. Histological examination confirmed that the tumor consisted mainly of serous-type cells containing numerous basophilic granules in the cytoplasm, which were PAS-positive with diastase resistance and negative for mucicarmine staining. Ultrastructurally, the tumor cells generally consisted of large cells with abundant electron-dense granules. It was concluded that this tumor was an acinic cell tumor.

Tumor recurrence was noted two years after surgical removal. A second operation was not performed, because the tumor was slow-growing and because of her age.

Key words: acinic cell tumor, tumor of maxillary sinus, TEM

はじめに

腺房細胞腫瘍 (acinic cell tumor) は、耳下腺や顎下腺の漿液細胞に類似した比較的異形の少ない円形または多角円形細胞からなる腫瘍で、耳下腺に好発する¹⁾。本腫瘍には悪性に経過した症例も報告され、腺房細胞癌 (acinic cell carcinoma) の名が広く使用されていた。しかし、大部分は良性に経過する²⁾ことから、WHO の分類では腺房細胞腫の名称を採用している。本腫瘍の発生率は唾液腺腫瘍の1~3%と低く、大部分は耳下腺より発生し、小唾液腺由来のものは非常に稀れである。

今回、われわれは上顎洞ならびに軟口蓋に発

生した症例を経験したので、若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

患者：80歳，女性。

初診：昭和61年2月10日。

既往歴：50歳より慢性副鼻腔炎にて近医耳鼻科にて鼻処置を受けていた。52歳に乳癌にて根治術を受けていた。

現病歴：昭和58年頃より軟口蓋の腫瘍に気付き、手指にて2~3回切除を繰り返していた。昭和60年8月頃より右鼻翼部の膨隆に気付き、同年10月、日高病院を受診し、軟口蓋腫瘍と右上歯肉部の膨隆及び、頭部CTにて右上顎洞か

ら硬口蓋にかけて骨破壊を伴う腫瘍陰影を指摘される。軟口蓋腫瘍より生検を行い、組織診断は多形性腺腫と判明し当科紹介となる。

現症：右頬部から右鼻翼部にかけて膨隆が認められたが、圧痛はなかった（図1）。又、軟口蓋の右側部に 2.5×2.5 cm 大の腫瘍が認められた（図2 a）。同腫瘍は表面は乳頭状で弾性軟であった。右歯肉部にも表面整で弾性軟の腫瘍が認められた（図2 b）。

CT 所見：上顎洞の前壁と内側壁に骨破壊を

伴い（図3 a）歯肉部まで及ぶ腫瘍陰影が認められた（図3 b）。

Ga シンチ：異常集積像は認められなかった。
臨床検査所見：特に異常所見はなかった。

手術および経過：昭和61年3月18日全身麻酔下に腫瘍の摘出術を行った。軟口蓋腫瘍は周囲の結合織を含めて容易に摘出された。上顎洞は前壁、内側壁、梨状孔縁まで骨破壊が認められたが、腫瘍は線維性被膜で覆われ周囲組織とは隔てられており、周囲の結合織を含めて摘出した。尚、両腫瘍間に直接の連絡は認めなかった。

摘出物の肉眼的所見：軟口蓋腫瘍（2.5×2.5×1.5 cm, 図4 a）と上顎洞腫瘍（4×3×3 cm, 図4 b）は線維性被膜に包まれ、断面は灰白色でやや赤みがかっており、ところどころ出血巣も認められた。

図1 右鼻翼部に膨隆を認める。

a : 上顎部

b : 鼻翼部

図3 初診時のCT像

a : 軟口蓋腫瘍

b : 歯肉部の腫瘍

図2

a : 軟口蓋腫瘍

b : 上顎洞腫瘍

図4 摘出組織

病理学的所見：腫瘍実質は漿液性腺房細胞に類似した単調な増殖を示す腫瘍細胞からなる。間質成分は乏しく、その間質はほとんど毛細血管に占められていた。腫瘍細胞はその毛細血管により小胞巢あるいは索状様に分けられていた。両腫瘍は骨破壊像を示している線維組織によって境され、かつ周囲との境界も比較的明瞭であった。軟口蓋腫瘍では血管へ浸潤する所見も認められた。腫瘍細胞は大型の多面形あるいは円形で、円形の小型の核は基底側に偏在するが、異型性を示すものは認めなかった（図5 a, b）。細胞質は好塩基性の分泌顆粒を有していた。細胞質の顆粒はPAS陽性物質でアミラーゼに消化されず（図6 a）、粘液染色では陰性を示した（図6 b）。

病理組織学的診断：腺房細胞腫。

電子顕微鏡所見：腫瘍細胞は比較的大きな細

胞で、類円形ないし不正形の偏在した核を有し、種々の電子密度を示す分泌顆粒を有していた。細胞の辺縁部には発達した粗面小胞体やゴルジ装置が認められた（図7）。

考 案

腺房細胞腫の多くは疼痛はなく、成長が遅く、被包されており、良性唾液腺腫瘍とよく似た臨床所見を呈する¹⁾³⁾⁴⁾。組織学的にも、良性の像を呈するものが、ほとんどである⁴⁾が、その中にも悪性の報告があり¹⁾、Abrams⁵⁾は18%の症例に周囲組織への浸潤像をみ、肉眼的に被膜を認めた23例中、顕微鏡的に実際に被包されている像を認めたのは5例にすぎなかったと述べ、腫瘍の被膜の有無が予後に関係するといわれている⁴⁾⁵⁾。以上のように本腫瘍は悪性の潜在能を有する低悪性度癌と理解されている¹⁾。

好発部位は耳下腺であり、小唾液腺には稀で

図 5

a：軟口蓋腫瘍の組織像（×100）
b：上顎洞腫瘍の組織像（×100）

図 7 軟口蓋腫瘍の電顕像（×2500）

図 6

a：軟口蓋腫瘍のPAS染色像（×200）
b：軟口蓋腫瘍の粘液染色像（×200）

表 1 小唾液腺由来の腺房細胞腫瘍
—報告例—

部 位	症例数	(%)
口 蓋	16	(51.6)
頬 粘 膜	4	(12.9)
臼 後 部	3	(9.7)
舌	2	(6.5)
歯 肉	2	(6.5)
下 口 唇	1	(3.2)
鼻副鼻腔	2	(6.5)
上 咽 頭	1	(3.2)
計	31	

ある。著者らが検索しえた小唾液腺由来の腺房細胞腫は31例で、口蓋16、頬部4、臼後部3、舌2、上歯肉2、下口唇1、鼻副鼻腔2、上咽頭1であった(表1)。頭頸部領域では口腔内粘膜はもちろんであるが、咽頭や気道粘膜にも小唾液腺に類似した構造が存在し⁶⁾⁷⁾、これらはすべて付属器腺と呼ばれる腺構造である。多数の小唾液腺腫瘍を検討した報告をみると、頭頸部管腔のすべての部位にわたって各種の唾液腺型腫瘍が分布していることがわかる⁶⁾。鼻副鼻腔に発生した症例は非常に少なく、Spiro は鼻腔に⁸⁾、David は上顎洞に原発した腺房細胞腫を発表している⁹⁾。本症例の場合、軟口蓋と上顎洞の腫瘍の間には直接の連絡は認められず、軟口蓋腫瘍に血管への浸潤像が認められたこと、上顎洞腫瘍が遅れて認められたことから上顎洞腫瘍は軟口蓋腫瘍が転移したものと考えた。好発年齢は40～60歳代で、男女差はなかった¹⁾³⁾。

組織学的には本腫瘍は一般には間質に乏しく、しかもその間質のほとんどが血管よりなるとされている⁴⁾⁵⁾。Abrams⁵⁾らは全症例中2/3に多数の血管を認め、出血が特徴的であったと述べている。本症例においても腫瘍細胞が毛細血管により小胞巣あるいは索状様に分けられていた。これは本腫瘍に特徴的な所見と考えられる。腫瘍実質は漿液性腺房細胞に類似した単調な増殖を示す腫瘍細胞からなる。細胞の胞体は大きくその境界は比較的明瞭で、核分裂は少なく、小さな核が一端に位置し、核の配列により腺房構造を思わせる。特殊染色をした場合、腺房細胞腫瘍の細胞内顆粒は、Abramsら⁵⁾によれば、よく分化した腺房細胞腫瘍はPAS反応に強く陽性を示し、粘液染色はほとんど陰性、分化の程度の低い例ではPAS反応は弱く、粘液反応は強いといっている。本症例はPAS反応陽性で粘液反応陰性であり、よく分化した典型的な腺房細胞腫瘍であるといえる。

電顕的には、本腫瘍には分泌顆粒を有する漿液性腺房細胞類似の細胞と分泌顆粒を欠く介在部導管上皮様の細胞がみられるという^{10)~12)}。

本症例では漿液性腺房細胞に類似した細胞が主であった。

腺房細胞腫の予後についてAbramsら⁵⁾は、72例中局所再発が6例(8%)、所属リンパ節転移が4例(5.5%)、遠隔転移が2例(3%)、Spiroら⁸⁾は、64例中局所再発が23例(36%)、所属リンパ節転移が10例(16%)、遠隔転移が8例(12%)、Enerothら¹³⁾は、37例中局所再発が11例(30%)、所属リンパ節転移が4例(11%)、遠隔転移が5例(13%)に認められたと記載している。5年生存率について、Thoma¹⁴⁾は90%、Eneroth¹³⁾は89%であるが、20年生存率は56%にすぎないと発表している。そして、再発は一般に遅く、数年から十数年後に現れるものが多いとされている^{4)13)15)~17)}。治療についてであるが、以前は腫瘍摘出術で十分であるとされていた。しかし、再発、転移はまれではなく、放射線治療がほとんど効を奏しない⁴⁾¹⁷⁾こともあって腫瘤を摘出するだけでなく、広い範囲にわたる徹底的な外科的処置が必要とされている^{4)13)16)18)~21)}。さて、本症例のように術後の病理診断で悪性が確定した場合、追加処置が問題になる。村上ら²²⁾は腺房細胞腫などのように悪性度が低い腫瘍では、十分切除できたと思われる場合には、一応このままにして経過観察することにし、切除縁がかなり接近していた場合には、再手術を行うとしている。本症例では腫瘍摘出時に、腫瘍周囲の結合組織を含め大きく切除できたものとして、経過観察を行った。しかし、術後2年で右歯肉部に再発を認めた。現在年齢を考慮して再手術は行わず経過観察中である。

結 語

80歳女性の軟口蓋部と右上顎洞に発生した骨破壊を伴う腺房細胞腫瘍を経験した。組織学的所見から両部の腫瘍は高分化型の腺房細胞腫瘍と診断した。周囲組織を含めた切除術を行ったが、手術後2年で右歯肉部に再発を認めた。現在年齢を考慮して経過観察中である。

引用文献

- 1) 清見原正騎, 石川武憲, 三次正春, 他 : 穿刺吸引細胞診の術前診断で判明した頬腺由来腺房細胞腫の1例. 日臨細胞誌 25 : 726~730, 1986.
- 2) 副島 渉, 田中 夫, 後藤昌昭, 他 : 耳下腺に発生した腺房細胞腫の1例. 日口外誌 30 : 498~503, 1984.
- 3) 石川梧朗 : 口腔病理学Ⅱ. 改訂版. 745~748頁, 永末書店, 京都, 1982.
- 4) 江崎民夫, 加藤裕生, 吉田正彦, 他 : 小唾液腺腺房細胞癌の1例. 癌の臨床 20 : 553~560, 1974.
- 5) Abrams AM, Cornryn J, Scofield HH, et al : Acinic cell adenocarcinoma of the major salivary glands. Cancer 18 : 1145~1162, 1965.
- 6) 小川 明, 竹田千里, 鷺津邦雄, 他 : 上咽頭腺房細胞癌の1例. 耳喉 48 : 993~998, 1976.
- 7) Ranger D, Thackray AC and Lucas RB : Mucous gland tumors. Brit J Cancer 10 : 1~16, 1956.
- 8) Spiro RH, Koss LG, Hajdn SI, et al : Tumors of minor salivary origin ; a clinicopathological study of 492 cases. Cancer 31 : 117~129, 1973.
- 9) Manace ED and Goldman JL : Acinic cell carcinoma of the paranasal sinuses. Laryngoscope 81 : 1074~1082, 1971.
- 10) 谷 慶明, 小池正夫, 小守 明, 他 : 頬粘膜に生じた腺房細胞腫の1例. 日口外誌 31 : 296~300, 1985.
- 11) Erlandson RA and Tandler B : Ultrastructure of acinic cell carcinoma of parotid gland. Arch Path 93 : 130~140, 1972.
- 12) Kay S and Schatzki PF : Ultrastructure of acinic cell carcinoma of the parotid salivary gland. Cancer 29 : 235~240, 1972.
- 13) Eneroth CM, Jacobson PA and Blanck C : Acinic cell carcinoma of the parotid gland. Cancer 19 : 1761~1772, 1966.
- 14) Thoma KH, Gorlin RJ and Goldman HM : Thomas Oral Pathology, 6th ed. pp 1024~1036, CV Mosby Co, St Louis, 1970.
- 15) Evance RW, Cruickshank AH and McDougall C : Epithelial tumors of the salivary glands. pp 98~119, WB Saunders Co, Philadelphia, London, Tronto, 1970.
- 16) 西尾克彦, 広瀬義明 : 唾液腺疾患の臨床的考察. 信州医誌 16 : 742~756, 1967.
- 17) Feyrter F : Uber das glykogenreiche retikulierte Adenom der Speicheldrüsen. Zeitschrift. Krebsforschung 65 : 446~454, 1963.
- 18) Fox NM, ReMine MH and Woolner LB : Acinic cell carcinoma of the major salivary glands. Am J Surg 106 : 860~867, 1963.
- 19) Grage TB and Lober PH : Malignant tumors of the major salivary glands. Surgery 52 : 284~294, 1962.
- 20) Grage TB, Lober PH and Arthlger SW : Acinic cell carcinoma of the parotid gland. Amer J Surg 102 : 765~768, 1961.
- 21) Rivlin RS : Acinic cell adenocarcinoma of the parotid gland. Am J Surg 100 : 639~642, 1960.
- 22) 村上 泰, 猪 忠彦, 堀内正敏, 他 : 耳下腺腫瘍70症例の治療経験. 耳喉 48 : 589~602, 1976.

(原稿受付 : 平成元年2月21日

原稿採択 : 平成元年6月20日

別刷請求先 : 藤原啓次

〒640 和歌山市七番丁27

和歌山県立医科大学耳鼻咽喉科学教室)