特異な像を呈した耳下腺良性多形腺腫の2例

谷垣内由之・吉田 博一
島田 均・馬場廣太郎

Benign Pleomorphic Adenoma of Parotid Gland with Unusual Course and Histological Findings ; Report of Two Cases

Yoshiyuki Tanigaito, Hirokazu Yoshida,
Hitoshi Shimada and Kotaro Baba
(Dokkyo University School of Medicine)

Two female patients aged 37 and 46-years visited our out-patient clinic complaining of a tumor of the right parotid gland. A few weeks after the first visit, the tumors had become smaller. X-ray CT examinations of each patient showed a ring-shaped mass enhanced by the contrast medium in the lateral lobe of the parotid gland. The clinical course and the results of examinations led to a diagnosis of lymphadenitis or inflammatory cystic lesion. Both tumors were surgically extirpated, and histological examination showed benign pleomorphic adenoma with a wide area of central necrosis. The cause of the central necrosis is unknown. This type of benign pleomorphic adenoma is very rare but calls our attention to its possibility and the importance of accurate diagnosis and appropriate therapy.

Key words: benign pleomorphic adenoma, uncommon presenting history,
histological finding

はじめに

耳下腺良性多形腺腫は、緩慢に増殖する腫瘍として知られている。その増大速度は遅く、直径が2倍になる平均が5年と言われている¹⁾。当科においても、気付いてから手術まで30年という例がある。しかしながら、増大は絶えず進行し、通常縮小することはないと考えられる。本腫瘍は周囲に薄い結合組織の被膜を持ち、組織学的には多彩な像を呈する。内部には、時に嚢胞を含むが、出血、壊死は認めないとされる²⁾³⁾。

我々は今日まで、経過中腫瘍の縮小傾向を認め、切除腫瘍の中心部に広範な壊死を認めた2例の耳下腺良性多形腺腫を経験した。診断治療上注意が必要と思われるので報告する。

症 例

症例1. 37歳、女性。

主訴：右耳下部腫瘍。

既往歴：8年前と3年前に帝王切開にて出産、同時に糖尿病を指摘された。

家族歴：特記すべきことなし。

現病歴：平成3年1月、右耳下部腫脹に気付

いた。軽度の圧痛を伴い徐々に大きくなってきたが、放置していた。3月、鼻閉のため近医耳鼻咽喉科を受診、鼻茸、鼻アレルギーと診断された。同時に右耳下腺部腫瘤を指摘され、精査治療目的で当科を紹介され来院した。

初診時所見：右耳下部に 30×25 mm、表面平滑で硬い腫瘤を触れた(図1)。圧痛があり、可動性はやや不良であった。顔面神経麻痺、頸部リンパ節腫脹は認めなかった。両側鼻腔に鼻茸を認めたが、他に耳、咽喉頭、口腔に著変はなかった。

検査所見および経過：血液一般検査では異常は認めなかった。ALP 10.3 KAU と軽度上昇

していたが、他に肝機能・電解質異常はなかった。血糖値 407 mg/dl と高値を示し、尿糖も 2 g/dl であった。胸部X線検査は正常であった。EB ウイルス抗体価 VCAIgG (FA) 320 と高値を示したため、上咽頭耳管隆起上のやや不整な部の生検を行ったが、リンパ組織の過形成のみであった。

図1 症例1

右耳下部腫脹を認める。

図2 症例1 X線CT検査

右耳下腺浅葉内にリング状に造影される腫瘤陰影を認める(↑)。

図3 症例1 超音波エコー検査

27×20 mm 大の腫瘤は、境界が明瞭で、内部エコーをほとんど認めず、後方エコーの増強があり良性パターンを示す。

図4 症例1 耳下腺造影

炎症性変化、漏洩や導管の断裂等の悪性所見を認めない。

副鼻腔X線検査では、両側副鼻腔炎の陰影を認めた。耳下腺部X線CT検査では、右耳下腺浅葉内に、中心部の density が低く、造影剤で周囲がリング状に造影される腫瘍陰影を認めた。境界は明瞭だが軽度凹凸不整を示した(図2)。超音波エコー検査では良性パターンであった(図3)。 ^{67}Ga シンチグラムでは、異常集積はなかった。耳下腺造影検査では、悪性所見はなく浅葉の腫瘍と思われた(図4)。

患者はCT検査時腫瘍が増大し、その後縮小

してきたと訴えた。初診から約1カ月で大きさは $20 \times 20 \text{ mm}$ に縮小した。

糖尿病はインスリンでコントロールし、リンパ節病変あるいは嚢胞性変化を示す良性腫瘍を疑い手術を行った。手術は通常の耳下腺腫瘍と同様に行った。顔面神経を出し、浅葉の腫瘍を周囲耳下腺組織とともに、一塊に切除した。剖面では、腫瘍は充実性で、中心部は黄色に変化していた。周囲は被膜で被われていた(図5)。創を一次的に閉じ、手術を終了した。術後顔面神経麻痺など合併症はなかった。

図5 症例1 切除組織と剖面

耳下腺組織内の腫瘍(→)は、出血、壊死を認める。

図7 症例1 病理組織像(HE染色 ×100)

右側上方に腫瘍被膜をみる。壊死に陥っていない部は被膜内側直下に認められる。管腔形成と周囲の筋上皮系腫瘍細胞の増殖および粘液腫状の間質を認め多形腺腫と診断された。

図6 症例1 病理組織像(HE染色 ×40)

左側に腫瘍被膜を認める。右側は腫瘍中心部で、出血、壊死を認める。

図8 症例1 病理組織像(HE染色 ×40)

右側に腫瘍、左側に周囲耳下腺組織、中央部に腫瘍被膜を認める。被膜近くには、リンパ球の浸潤および高度に萎縮した耳下腺小葉組織を認める。

病理組織学的には, 中心部が広範に壊死に陥ってはいるものの, 周辺には典型的な多形腺腫の像を認め, 同診断がなされた. 腫瘍は全周比較的厚い被膜に被われていたが, 娘腫瘍(腫瘍細胞が集団で被膜外に突出した部)¹⁾を認め, 被膜周囲には, リンパ球の浸潤と高度に萎縮した耳下腺小葉組織を認めた(図6, 7, 8).

症例2. 46歳, 女性.

主訴: 右耳下部腫脹.

既往歴: 子宮脱.

家族歴: 特記すべきことなし.

現病歴: 昭和59年12月, 60年2月, 62年7月に右耳下腺部腫脹, 疼痛が出現し抗生剤投与で軽快した. 63年8月20日再び耳下腺部痛, 腫脹が生じたため来院した. 以前, 生理の時ビリビリした痛みが同部に生じたことがあった. 今回も8月19日から生理であった.

初診時所見: 右耳下部に 40×43 mm 大の腫瘍を認めた. 硬く, 皮膚に軽度の発赤を認めた. 他に異常は認めなかった.

検査所見および経過: 血液一般検査, 肝機能, 電解質に異常はなく, 血中アミラーゼ 147 Dye U/dl と正常であった. 血沈は 26 mm/ 1 時間

で, CRP 2.3 と高値を示した. ガムテストは 13 ml で唾液分泌障害はなかった.

9月5日のX線 CT 検査では, 境界明瞭, 凹凸やや不整な腫瘍陰影が右耳下腺浅葉内に認められた. 腫瘍の周囲は造影剤でリング状に造影され, 中心部は low density で後方に一部スポット状に造影される部を認めた(図9). ^{99m}Tc シンチグラムでは陰影欠損を示し(図10), ⁶⁷Ga シンチグラムでは腫瘍部の異常集積は明らかで

図9 症例2 X線 CT 検査

右耳下腺内にリング状に造影される腫瘍を認める(↓). 内部にはスポット状に造影される部を含む.

図10 症例2 ^{99m}Tc シンチグラム
右耳下腺に腫瘍による欠損を認める.

図11 症例2 病理組織像(HE 染色 ×100)

右側下方に腫瘍被膜, 左側上方に腫瘍中心部の壊死をみる. 腫瘍細胞は被膜内側直下であり, 粘液腫状の間質の中に筋上皮系と考えられる腫瘍細胞の増殖を認める.

はなかった。超音波エコー検査では、良性パターンであった。9月13日に腫瘍は15×15 mm大に縮小した。

嚢胞性疾患を疑い、手術を行った。腫瘍は、胸鎖乳突筋直前の下部耳下腺にあり、顔面神経を出すことなく周囲耳下腺組織を付け切除された。

病理組織学的には、症例1と同様中心部に壊死を伴う良性多形腺腫であった(図11)。腫瘍は薄い被膜に被われていたが、娘腫瘍をあちこちに出す型のものであった。

術後顔面神経麻痺は認めず、軽快退院した。

考 察

耳下腺には種々の腫瘍性病変が生じる。多くは腫瘍で、中でも良性多形腺腫の頻度が高い。多形腺腫は経過が長いのが特徴で、急激な増大傾向は悪性化の示標の一つである。しかし逆に、経過中縮小傾向をみることはないと言われて¹⁾。嚢胞性変化を示す腺リンパ腫や、同様の变化を示す稀な型の多形腺腫⁴⁾では、縮小傾向を示す可能性があるが、経過中増大・縮小傾向を示す場合、一般的には耳下腺内に多数含まれる腺内リンパ節の炎症性変化⁵⁾や血管腫などの血管病変¹⁾、あるいは嚢胞性疾患⁴⁾⁶⁾などが疑われる。

今回の症例のように圧痛や自発痛、皮膚の発赤などを伴っている例では、悪性腫瘍との鑑別も必要となるが、悪性腫瘍では縮小傾向がないと考えてよいので、除外は容易である。しかし、炎症性変化との鑑別は困難で、リンパ節病変・嚢胞性疾患いずれとも誤診される可能性がある。X線CT検査、MRI、超音波エコー検査などを総合的に行えば、嚢胞性病変は鑑別できるように思われるが、X線CT検査で内部が均一にlow densityを示したり、超音波エコー検査で内部エコーがほとんどなく、境界が明瞭で、後方エコーの増強があり、cysticパターンと思われる場合などは、単一の検査のみで判断すると嚢胞と診断されることもあり、注意しなければならない。

耳下腺腫瘍の検査には種々あり、総合的診断が言われて久しい⁷⁾。しかしそのすべてを全例に行うべきかどうかについては、時間とコストの点で問題がある。それぞれの症例に応じて検査項目を選ぶべきであろう。

現病歴や、視・触診で悪性、良性の大よその見当のつくことが多い。当科では超音波エコー、X線CT検査を第一選択としている。悪性が疑われる場合、確定診断のため入院後fine needle aspiration cytologyを行っている。耳下腺造影検査は手術前日にでも可能で、行う意義はある。これらに対しRI検査は、検査待ち時間、コストなど患者負担の大きい割に得られる情報量が少なく、全例に行う必要のあるものではない。MRIは場合によっては、X線CT検査ではっきりしない腫瘍を明瞭にすることができ有用であるが、良性、悪性の情報については満足できるものではない⁸⁾。検査の主目的は、良、悪の鑑別である。深葉、浅葉の部位診断は、どちらに腫瘍があっても、手術治療上全く異なる術式を行うのではない点において意味があると思えない。画像診断の第2の目的は、良性の場合の内部方向への進展の有無の確認、悪性の場合の切除範囲の決定にある。

症例1は、初診時、現病歴や局所所見から耳下腺悪性腫瘍が疑われた。しかし超音波エコーや、X線CT検査では悪性所見なく、手術までの経過で縮小傾向を認め、血液学的には炎症所見を認めないものの腺内リンパ節炎が疑われた。また初診時悪性が疑われたため予定された⁶⁷Gaシンチグラムでは、異常集積を認めず、嚢胞性変化をもつ良性腫瘍も考えられた。

症例2は、長い期間における増大縮小の反復と、X線CTおよび超音波エコー検査の結果から嚢胞性疾患が疑われた。RIシンチグラムは、受診時の局所所見から耳下腺内病変かどうかの確認と、悪性病変の可能性も考え予定されたが、確定診断に到る情報は得られず、その後の著明な縮小傾向から、術前診断として嚢胞と誤診された。

検査機器の関係で施行されなかったが, 本 2 例ともに MRI が施行されていれば, 嚢胞は除外診断されていたと思われる。

炎症と良性腫瘍を鑑別する意味での ^{67}Ga シンチグラムをみると, 本 2 例のような, 長径 30 mm を越える大きさで, リンパ節炎などであれば, 陽性を示すことが多いと思われる。本 2 例ともに異常集積像を認めず, これが炎症と腫瘍の鑑別点であったのかも知れない。

手術までの経過中悪性腫瘍が否定されたため fine needle aspiration cytology が行われず, 多形腺腫の診断を困難にしたと思われる。しかし結果的にみると, たとえ fine needle aspiration cytology が施行されていたとしても, 診断に十分な細胞の得られるのは被膜直下のみであり, 確定診断に到るのは困難であったろうとも思われた。

いずれにしろ悪性疾患は否定され, 2 例ともに深部への進展のない良性疾患と診断された。当科では, 耳下腺内病変で手術を行う場合, たとえリンパ節炎などの疾患が考えられても核出術は行わない方針のため, 本 2 例ともに周囲組織をつけ切除された。

次に増大縮小の経過と組織所見についてみると, 症例 1 は, CT 検査時急激に増大し, その後縮小傾向を示した。静脈性造影剤による何らかの影響があったのかも知れないが, 他に CT 検査で同所見を示した例がなく明らかではない。組織学的には被膜周囲にリンパ球の浸潤や周辺小葉の著明な萎縮変化を認めたが, これらの所見も時に認められるもので, 本例に特異なものではなく, 造影剤による反応とは考えられない。本例では糖尿病の合併があり, これによる血管性病変が何らかの要因となったのかも知れない。

症例 2 では, 生理とともに耳下腺部痛が出現し, ホルモンの問題も考えられる。2 例ともに娘腫瘍を外に突出する型であり, 増殖傾向と血流あるいは間質の産生などのずれが壊死の原因とも思われた。

組織所見から逆にみると, 腫瘍被膜内側の壊

死化していない部が, X 線 CT 検査で造影剤により, リング状に造影されていたことがわかる。同様所見は, 悪性腫瘍のリンパ節転移や膿瘍などでもしばしばみられる像である⁹⁾¹⁰⁾。本例でみられたリングの特徴は, 耳下腺内にあったこと, 比較的均一にリングが出ていたこと, 周囲への浸潤像がなかったこと, 形が凹凸不整を示していたこと, 内部が均一であったことなどであった。

今回の症例は, 現病歴, 臨床所見, 検査所見から, 腫瘍よりもリンパ節炎あるいは耳下腺嚢胞などが考えられた。しかし組織学的には, 2 例ともに中心壊死を生じた多形腺腫であった。手術治療を行う場合には, このような例の存在も考え, リンパ節炎や嚢胞などと診断されても常に定型の手術を心掛け, 核出術などの不十分な手術を行うべきではないと思われた。

ま と め

1) 経過中増大縮小傾向を示した 2 例の耳下腺良性多形腺腫を報告した。

2) X 線 CT 検査では, 2 例とも造影剤でリング状に造影される耳下腺内腫瘍として認められた。

3) 超音波エコー検査, 耳下腺造影検査では, 良性パターンを示し, ^{67}Ga シンチグラムでは異常集積を認めなかった。

4) 組織学的には, 2 例ともに中心部に広範な壊死を認めた。

文 献

- 1) 北村 武: 耳下腺腫瘍の臨床像。耳下腺腫瘍の臨床(奥田 稔編)。61~86頁, 医学教育出版社, 東京, 1984。
- 2) 下里幸雄, 森永正二郎, 斉藤裕夫: 唾液腺腫瘍の病理。耳下腺腫瘍の臨床(奥田 稔編)。27~58頁, 医学教育出版社, 東京, 1984。
- 3) 村上 泰: 唾液腺良性腫瘍 一多形腺腫に関する最近の考え方。JOHNS 2 : 391~401, 1986。
- 4) 竹生田勝次: 耳下腺嚢胞。JOHNS 5 : 699~704, 1989。
- 5) 行木英生: 腺内リンパ節腫脹と耳下腺結核。

JOHNS 2 : 385~389, 1986.

- 6) 田中克彦, 末永 通, 寺倉直明, 他 : 耳下腺嚢胞性疾患の臨床的検討. 日耳鼻 89 : 1796~1804, 1986.
- 7) 山下敏夫, 友田幸一, 二之湯修, 他 : 耳下腺部腫瘍の総合診断 —RI, CT, 超音波—. 耳鼻臨床 71 : 951~965, 1978.
- 8) 宇野公一, 安西好美, 清水 昇, 他 : 唾液腺のMRI. JOHNS 5 : 1435~1447, 1989.

- 9) 杉本寿美子, 多田信平 : 咽頭疾患・頸部リンパ節. JOHNS 12 : 1259~1269, 1986.

- 10) 加藤孝邦, 都志見格, 部坂弘彦, 他 : CT の適応, 読影の要点. JOHNS 5 : 699~704, 1989.

原稿受付 : 平成 3 年 6 月 19 日

原稿採択 : 平成 3 年 9 月 30 日

別刷請求先 : 谷垣内由之

〒321-01 栃木県下都賀郡壬生町大字北小林880

獨協医科大学耳鼻咽喉科学教室