副耳下腺と主耳下腺とに多発した単形腺腫

箕山 学・細井 裕司・田中 久哉
竹山 豊・村田 清高・太田 文彦*

Monomorphic Adenoma in Accessory and Main Parotid Glands ; A Case Report

Manabu Minoyama, Hiroshi Hosoi, Hisaya Tanaka,
Yutaka Takeyama and Kiyotaka Murata

(Kinki University School of Medicine)

Fumihiko Ohta

(Life Science Research Institute, Kinki University)

Accessory parotid glands are located far anterior to main parotid glands. They have been reported to be present in 20~30% of human cadavers. However, tumors of accessory parotid glands are rare. Only 18 cases have been reported in Japan.

We treated a 49-year-old woman who had had a mass in her left cheek for one year. The diagnosis was confirmed by sialogram and palpation of the parotid gland. The accessory parotid gland had its own duct which flowed into Stensen's duct. Although the sialogram revealed no tumors of the parotid gland, palpation was suggestive of small tumors in both the accessory and main parotid glands on the left. The tumor was resected surgically with en bloc resection of the main parotid gland. Histopathological study revealed a monomorphic adenoma.

Tumors arising in accessory parotid glands are a distinct entity. The diagnosis is made on the basis of clinical examination and a high index of suspicion.

Key words: cheek mass, accessory parotid gland, monomorphic adenoma

はじめに

耳下腺より遊離し独立して存在する小腺群を副耳下腺といい、異所性の唾液腺に属する¹⁾。その解剖学的研究はFrommer (1977)²⁾、青ら (1956)³⁾によって報告され、その発生頻度は20~30%と言われている²⁾³⁾。しかし、副耳下腺の疾患に関しては報告が少なく、腫瘍に関して

は我々が渉猟し得た限り本邦で過去17例の報告があるにすぎない。

我々は、副耳下腺および同側主耳下腺に同時に発生した単形腺腫の一例を経験したので文献的考察を加えて報告する。

症 例

患者：49歳，女性。

近畿大学医学部耳鼻咽喉科学教室（主任：村田清高教授）

* 近畿大学ライフサイエンス研究所

初診：平成3年2月12日。

主訴：左頬部腫瘍。

既往歴：特記すべきことなし。

家族歴：特記すべきことなし。

現病歴：平成2年10月ごろより左頬部腫瘍に気づいたため近医を受診し、耳下腺造影、MRI等により耳下腺腫瘍と診断されたが、疼痛、圧痛などを認めないため放置していた。しかし、徐々に増大傾向を示すため当科を受診した。

初診時所見：左頬部に拇指頭大の硬い腫瘍を認めた。腫瘍は皮下に存在し、深部組織との癒着は認めず、表面はほぼ平滑であるが腫瘍の前後に索状物を触れた。両耳下腺開口部は正常で唾液の流出も正常であった。顔面神経麻痺は認められなかった。左耳下腺部にも数個の硬い腫瘍を触れた。頬部腫瘍、耳下腺部腫瘍ともに圧痛、疼痛、発赤等は認めなかった。

検査所見：生化学検査では特記すべきものなく、単純耳下腺撮影にて特に異常所見を認めなかった。リピオドールによる耳下腺造影にて、耳下腺管の途中から上方へ分岐する細い排泄管を認め、この分岐に続いて腫瘍陰影を認めた(図1)。主耳下腺に関しては、排泄管の圧排像や、造影剤の欠損、あるいは実質内への漏洩像は認められなかった。

図1 本症例のジアログラム

太い矢印がステノン管から副耳下腺への分岐、
細い矢印が腫瘍陰影である。

またCTにて左咬筋外側に高密度な腫瘍陰影を認めた(図2)。

以上から副耳下腺に発生した腫瘍および耳下腺腫瘍と診断した。

手術所見：手術は全身麻酔下に施行した。左耳前部から下顎下部に至るS字状切開の後、耳下腺被膜上を前方へ剝離、耳下腺管、および顔面神経の分岐を確認の上、頬部腫瘍に到達した。腫瘍は耳下腺管上方に位置し、前方に排泄管を認め、耳下腺管に合流していた。表面は整で、弾性硬、黄褐色、径7mm大であった。周囲組

図2 CT像

左咬筋外側に高密度な腫瘍陰影を認める
(矢印)。

図3 手術時写真

矢印で示す部分が副耳下腺腫瘍である。S字状皮膚切開後、後方より副耳下腺を臨む。

PG：主耳下腺 S：耳下腺管

織との癒着はなかった(図3). 排泄管を結紮の上, 腫瘤を被膜外に一塊として摘出した(図4).

また, 主耳下腺浅葉内に直径5 mm~10 mm

図4 摘出後の副耳下腺腫瘍
連続する索状物はステノン管に続く管である。

図5 主耳下腺に散在する腫瘍(矢印)

図6 病理組織像(400倍, H-E 染色)
厚い被膜(写真左下)に囲まれた小結節. その内部に立方状細胞による小腺管が形成されている。

の腫瘍が5個散在しているのを認めた(図5). 顔面神経主幹を確認し顔面神経を保存しつつ, 耳下腺管本幹, および耳下腺管の深葉部への分岐を温存して浅葉を摘出した.

術後軽度の顔面神経麻痺を認めたが, 約2ヵ月で消失した.

病理組織学的所見: 頬部腫瘤, および耳下腺内腫瘤ともに唾液腺組織の中に硝子化をきたした厚い線維性被膜に囲まれた, 境界明瞭な小結節の形成がみられた. 結節の中に小腺管を形成し比較的規則正しく配列する立方状細胞を認め, その外側を紡錘形の筋上皮細胞と考えられる細胞が取り囲んでいた(図6). 病理組織学的診断は副耳下腺, および主耳下腺の単形腺腫(管状腺腫)であった.

考 察

1. 副耳下腺について

副耳下腺とは, 小川によると, 「固有の耳下腺より離れて, なお小なる腺葉群の咬筋上に位置することあり, これを副耳下腺という」と定義されている⁴⁾. また, Frommerによれば, 耳下腺本体からある距離を持って独立し, 固有の排泄管を持って耳下腺本管に注ぐ腺組織と定義されている²⁾.

その発生頻度は, 報告者によって様々である. Frommer²⁾は剖検例の21%, 日本人では, 小川⁴⁾が同じく剖検例により36.6%, 青ら³⁾によると35.2%に副耳下腺を認めている. また北村⁵⁾(1956)の耳下腺造影をもとにした報告では, 48%となっているが, これは耳下腺前突起を含めている可能性がある³⁾⁶⁾. いずれにしても, その発生頻度は低いとはいえず, 頬部腫瘤の診断上常に留意すべきである.

解剖学的位置についていえば, 多くが耳下腺管に接しており, その上方に存在する²⁾³⁾⁷⁾. 主耳下腺との関係は, 完全に独立している. 主耳下腺前縁からの距離は, Frommer²⁾によると平均6 mmであり, 藤ら⁷⁾によると約70%が5 mm以内であり, いずれも咬筋外側表面上に存在している.

本症例では、主耳下腺前縁からの距離は5 mm で、他の報告と同様咬筋外側表面上に存在した。

2. 副耳下腺腫瘍について

本邦における副耳下腺腫瘍の報告は、1978年島岡ら⁶⁾の多形腺腫を最初に、現在まで我々が渉猟し得た限りでは18例^{6)~17)}の報告があるにすぎない。その内訳を表1に示す。

年齢は6歳~73歳にわたり、平均年齢37.6歳である。左右差は右5例、左11例で圧倒的に左に多かった。Polayes ら¹⁸⁾の報告においても7例中6例が左に発生している。しかし副耳下腺の発生に関しては左右差を認めていない³⁾。このことから左副耳下腺における腫瘍新生に何らかの要因の関連が考えられるが、副耳下腺腫瘍の総数が少ないため現在のところ結論できず、今後この点に関しての研究が期待される。

初診時の主訴に関しては、表1からも解るよ

うにほとんどが無痛性の頬部腫瘍である。良性、悪性にかかわらず無痛性で、発赤などなく、腫瘍以外に局所の訴えは認められていない。また耳下腺管開口部には異常所見を認めず、顔面神経機能に関しても全例異常を認めていなかった。解剖学上副耳下腺が、顔面神経の頬筋枝に近接している³⁾¹⁹⁾²⁰⁾ことを考慮すると、大きさ、良性、悪性に関係なく顔面神経機能に異常を認めないことは興味ある所見である。我々の症例においても顔面神経機能に関しては術前異常を認めなかった。

3. 診断について

副耳下腺は、耳下腺本体からわずかしき離れておらず、触診のみで副耳下腺由来の腫瘍であることを診断することは困難である。

一般に頬部腫瘍として鑑別されるべき疾患は、脂肪腫、表皮様嚢腫、血管腫、線維腫、神経腫などの腫瘍性疾患のほかには耳下腺管の唾石など

表 1 本邦における副耳下腺腫瘍報告例

	報告者	報告年	症例	左右	主 訴	病理組織
1	島岡ら	1978	34歳女性	左	無痛性耳下腺部腫脹	多形腺腫
2	辻本ら	1982	12歳女性	右	無痛性耳前部腫瘍	粘液性類表皮腫
3	三宅ら	1982	68歳男性	左	記載なし	悪性リンパ腫
4	〃	〃	16歳女性	右		海綿状血管腫
5	〃	〃	6歳女性	左		海綿状血管腫
6	〃	〃	16歳男性	右		多形腺腫
7	〃	〃	19歳女性	左		多形腺腫
8	吉村ら	1984	43歳女性	左	無痛性頬部腫瘍	ワルチン腫瘍
9	神保ら	1984	28歳男性	左	無痛性頬部腫瘍	粘液性類表皮癌
10	〃	〃	42歳女性	左	無痛性頬部腫瘍	粘液性類表皮癌
11	熊井ら	1984	62歳男性	左	記載なし	悪性混合腫瘍
12	井関ら	1987	21歳男性	左	無痛性頬部腫瘍	多形腺腫
13	田中ら	1987	44歳女性	左	頬部腫瘍、増大傾向	多形腺腫
14	豊田ら	1989	73歳男性	右	頬部腫瘍	腺 癌
15	森川ら	1990	記載なし	記載なし	記載なし	腺 癌
16	〃	〃	記載なし	記載なし	記載なし	腺 癌
17	高岡ら	1991	66歳女性	右	頬部腫瘍	多形腺腫
18	箕山ら	1993	49歳女性	左	無痛性頬部腫瘍	単形腺腫

を疑うことも重要である。しかしこれらを術前の触診だけで鑑別することは困難であり、それが副耳下腺由来であることを確診することはなお困難である。Perzik ら²¹⁾によると、副耳下腺由来の腫瘍は、臨床上耳珠と、上口唇と鼻翼の中間点を結んだ線の中央 1/3 の部位に認められると述べている。副耳下腺腫瘍の診断は、まずその解剖学的位置からその疑いをもち、耳下腺造影を行うことが有効な診断方法である。表 1 に示した症例の多くは術前耳下腺造影にて、耳下腺管から分岐する管を認めており、それが頬部腫瘍の存在する付近に流入することが確認されている。また野井倉ら²²⁾の報告によれば耳下腺造影の際、撮影法によっては、副耳下腺と耳下腺前突起との像が重なり、副耳下腺の存在を認知することが困難となるため、耳下腺造影の際にオルソパントモ撮影法の併用を勧めている。

いずれにしても、副耳下腺腫瘍の確定診断は、手術所見並びに病理組織学的診断による。術中所見にて耳下腺管を確認し、それより分岐する排泄管を認め、それが主耳下腺とは完全に独立し分離される腫瘍に達しておれば副耳下腺腫瘍と診断できるが、摘出標本の病理組織学的診断で耳下腺組織が確認され確診に至る。本症例においても解剖学的位置並びに耳下腺造影所見から副耳下腺の疑いをもち、手術所見並びに病理組織学的所見から確診に至った。

4. 手術法について

副耳下腺腫瘍における皮膚切開には、腫瘍直上で皮膚切開を行う方法¹¹⁾と、耳下腺腫瘍摘出術に準じた耳前部から下顎角まで S 字状に皮膚切開をおく方法がある。前者の方法は、副耳下腺の解剖学的位置を考慮すると、顔面神経、耳下腺管を損傷する可能性があり、術後合併症の可能性が高まるため用いるべきではない¹¹⁾¹⁸⁾²¹⁾。

我々は以下の理由で S 字状皮膚切開が良いと考えている。耳下腺腫瘍摘出術に準じた S 字状皮膚切開では広い術野のもと、顔面神経、耳下

腺管などを確認した上で副耳下腺を摘出することができる。次に、後述の通り、副耳下腺腫瘍は、主耳下腺腫瘍に比して悪性である確率が高い。S 字状に皮膚切開をおけば、悪性症例に対して、耳下腺の一部と副耳下腺を en bloc に摘出することが可能であり、再発を予防することができる⁸⁾。表 1 の症例のほとんどが S 字状皮膚切開を用いており、腫瘍直上切開を用いた症例は、術後再発を認めている¹¹⁾。

今回我々の症例は、術前に副耳下腺腫瘍を疑い、また耳下腺腫瘍を合併していたため、S 字状切開にて、顔面神経、耳下腺管を確認の上、腫瘍を摘出することができた。

5. 副耳下腺腫瘍の組織学的考察

本邦、および海外における、副耳下腺腫瘍の報告例を組織別にまとめた神保ら¹¹⁾の表を一部改変して表 2 に示した。良性腫瘍は 59 例(65%)、悪性腫瘍は 32 例(35%)である。本邦における報告(表 1)を検討すると、全 18 例中良性腫瘍 11 例(53%)、悪性腫瘍 7 例(47%)である。これは主耳下腺の悪性腫瘍が、23% (Eneroth 1971²³⁾)、12.1% (北村ら 1971²⁴⁾)などに比較して圧倒的に高率である。前述のごとく、副耳下腺腫瘍は主耳下腺腫瘍に比して悪性である可能性が高いと考えておくべきである。このことか

表 2 副耳下腺腫瘍組織分類
(神保好夫, 他: 1984¹¹⁾ より改変)

良	多形腺腫	38	65%
	嚢胞	8	14%
	ワルチン腫瘍	2	3%
	脂肪腫	2	3%
	線維腫	2	3%
	神経線維腫	2	3%
	その他	5	9%
	計	59	100%
悪	粘液性類表皮癌	23	72%
	腺房細胞癌	2	6%
	その他	7	22%
	計	32	100%

ら、頬部皮下腫瘍の診断と治療に際して、常に副耳下腺腫瘍に対する考慮が必要であり、診断に至れば摘出するのが妥当だと考える。

本論文の要旨は第54回耳鼻咽喉科臨床学会(高槻, 1992年)にて発表した。

文 献

- 1) 石川梧朗, 秋吉正豊: 唾液腺の病変. 口腔病理学(石川梧朗編). 872~907頁, 永末書店, 京都, 1969.
- 2) Frommer J: The human accessory parotid gland its incidence, nature, and significance. *Oral Surg* **43** : 671~676, 1977.
- 3) 青 久雄, 岡田典雄: 副耳下腺の解剖学的研究. 東京歯科大学解剖学教室業績集 **1** : 1~5, 1956.
- 4) 小川睦之輔: 耳下腺の形態に就て. 京都医会誌 **15** : 465~485, 1918.
- 5) 北村 武: 唾液腺造影法. 日耳鼻 **59** : 1989, 1956.
- 6) 島岡成和, 連 利隆, 白数力也, 他: 副耳下腺から発生したと思われる良性多形腺腫の1症例. 日口腔外会誌 **24** : 833~837, 1978.
- 7) 藤 英俊, 浜田法康, 大森忠雄: ヒト副耳下腺の解剖学的研究. 福岡歯大会誌 **11** : 38~43, 1984.
- 8) 辻本俊弥, 玉置弘光, 石田 稔, 他: 副耳下腺一その臨床と文献の考察一. 耳喉 **54** : 183~186, 1982.
- 9) 三宅淳一, 安藤晋一郎, 赤尾明俊, 他: 副耳下腺に発生した腫瘍. 日形成外会誌 **2** : 697~698, 1982.
- 10) 吉村陽子, 中島辰夫, 上 敏明, 他: 副耳下腺に発生した Warthin 腫瘍の1例. 耳喉 **56** : 509~512, 1984.
- 11) 神保好夫, 菅又 章, 野本猛美, 他: 副耳下腺腫瘍の2手術治験例. 日形成外会誌 **4** : 326~332, 1984.
- 12) 熊井恵美, 高橋光明, 海野徳二, 他: 副耳下腺腫瘍の1例. 耳鼻臨床 **77** : 525~526, 1984.
- 13) 井関富雄, 覚道健治, 虫本浩三, 他: 副耳下腺に発生した多形性腺腫の1例. 日口腔外会誌 **33** : 1501~1504, 1987.
- 14) 田中秀行, 上田 廣, 牛尾裕樹, 他: 副耳下腺腫瘍の1例. 茨城臨医誌 **23** : 61, 1987.
- 15) 豊田哲朗, 下郷和雄, 近藤和彦, 他: 副耳下腺腫瘍の1例. 日口腔外会誌 **38** : 795, 1989.
- 16) 森川和宏, 萩家康弘, 高嶋正広, 他: 副耳下腺由来と思われる腺癌の2症例. 日形成外会誌 **10** : 668, 1990.
- 17) 高岡哲郎, 犬山征夫, 大熊敦子, 他: 副耳下腺に発生した多形腺腫の一例. 口咽科 **3** : 131~135, 1991.
- 18) Polayes IM and Rankow RM: Cysts, masses, and tumors of the accessory parotid gland. *Plast Reconstr Surg* **64** : 17~23, 1979.
- 19) 藤 英俊, 大森忠雄, 浜田法康, 他: ヒト副耳下腺の解剖学的研究(II). 福岡歯大会誌 **14** : 389~394, 1988.
- 20) Richards AT, Chait LA and Skudowitz RB: Tumors of accessory parotid gland. *S Afr Med J* **65** : 971~972, 1984.
- 21) Perzik SL and White IL: Surgical management of preauricular tumors of the accessory parotid apparatus. *Am J Surg* **112** : 498~503, 1966.
- 22) 野井倉武憲, 有田一郎, 原 邦嘉: 副耳下腺の1例. 歯放線 **16** : 232~235, 1976.
- 23) Eneroth J: Salivary gland tumors in the parotid gland, submandibular gland, and the palate region. *Cancer* **27** : 1415~1418, 1971.
- 24) 北村 武, 金子敏郎, 戸川 清, 他: 耳下腺腫瘍の臨床. 耳鼻臨床 **64** 増: 1286~1301, 1971.

(原稿受付: 平成4年11月2日
原稿採択: 平成4年12月11日
別刷請求先: 箕山 学
〒589 大阪狭山市大野東377-2
近畿大学医学部耳鼻咽喉科学教室)