舌下腺腺様嚢胞癌例

平野 滋・北村 溥之・宮田 耕志
金子 賢一・安里 亮・田渕 圭作*

Adenoid Cystic Carcinoma of Sublingual Gland ; A Case Report

Shigeru Hirano, Hiroyuki Kitamura, Koji Miyata,
Ken-ichi Kaneko and Ryo Asato
(Tenri Hospital)

Keisaku Tabuchi
(Takatsuki Red Cross Hospital)

Malignant tumors of the sublingual gland are uncommon. We report here a case of adenoid cystic carcinoma of the sublingual gland.

A 36-year-old woman was referred to our hospital with a swelling of the floor of the mouth on the left side. MRI showed a tumor of the left sublingual gland. Fine needle aspiration biopsy (FNA) revealed adenoid cystic carcinoma. Resection of the left oral floor and left submandibular neck dissection were performed, and 50 Gy post operative irradiation was given.

MRI and FNA were very useful in the diagnosis of the sublingual tumor.

Key words: adenoid cystic carcinoma, sublingual gland, FNA

はじめに

大唾液腺腫瘍の殆どは耳下腺、顎下腺に発生し、舌下腺に発生する割合は0.2~4.7%¹⁾と極めて稀で、その80%以上が悪性とされている²⁾³⁾。今回、舌下腺原発の腺様嚢胞癌の一例を経験し、その診断と治療法につき若干の知見を得たので報告する。

症 例

患者：36歳，女性。

主訴：口腔底腫脹。

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：初診の約1年前より、口腔底の腫脹を自覚していたが放置し、徐々に腫脹の増大と疼痛を覚え、平成4年3月10日当科を受診した。

初診時所見：左口腔底に最大径32 mmの表面不整で硬い腫瘍を認めた(図1)。表面の粘膜は正常で、周囲との癒着はなく、可動性も良好であったが、圧痛を認めた。頸部にリンパ節腫脹を触知しなかった。

検査所見：MRI上、左舌下腺にT1強調像で高信号を呈し、ガドリニウムによって著明に

増強される腫瘍を認めた。周囲への浸潤はなかった(図2)。穿刺吸引細胞診(fine needle aspiration biopsy; FNA)で核の増生と cribriform pattern の細胞配列を認め、Papanicolaou の分類で class V, 腺様嚢胞癌と診断された(図3)。

全身所見：一般血液生化学検査，尿検査に異常なく，心電図，胸部X線も正常であった。

入院後経過：以上の局所所見，検査結果より，舌下腺原発の腺様嚢胞癌 T2aN0M0 と診断し，全身麻酔下に手術を施行した。先ず口腔底切開により腫瘍を摘出した。腫瘍は周囲との癒着なく容易に摘出できた。術中迅速病理で“腺様嚢

胞癌”の確定診断を得た後，舌神経，ワルトン管を含めた口腔底の郭清と，左顎下部の郭清を行った。

摘出標本：断面が白色均一な舌下腺の殆どを占める充実性腫瘍であった(図4)。

術後14日目より原発巣にリニアック 50 Gy を照射し，平成4年6月21日退院した。

病理組織所見：典型的な cribriform pattern の腺様嚢胞癌であった(図5)。

退院後経過：退院後1年であるが，再発，転移徴候を認めていない。

図1 初診時口腔底所見
口腔底左側の腫脹を認める(↑)。
粘膜は正常である。

図3 細胞診所見
核の異型は少ないが，核の増生と cribriform pattern の配列を示し，典型的な腺様嚢胞癌の細胞像を呈している。

図2 MRI 所見

左：T1 強調像で左舌下腺に高信号を呈する腫瘍を認める(→)。
右：ガドリニウムで著明に増強されている(→)。

考 察

舌下腺悪性腫瘍の報告は1930年 Brunschwig に始まり、Uchiyama らが1988年までの73例を集計している¹⁾が、今回我々が渉猟し得た限りでは、自験例を含め内外あわせて82例^{1)4)~7)}で、稀な疾患といえる。病理組織像は腺様嚢胞癌が最も多く33例で、以下粘表皮腫、多形腺腫内癌の順となっていた(表1)。

舌下腺腫瘍の場合、その大部分が悪性とされており、腫瘍の性状に関する正確な診断と適切な治療が必要となる。術前診断には、顎下腺造影、CT、MRI、シンチグラム、更に生検があるが、今回の症例での経験から、MRI と FNA とが特に有用と考えられた。すなわち、口腔底

の部位診断に、CT ではアーチファクトを受けやすく周囲組織との位置関係が不明瞭であり、MRI の方がより明瞭に腫瘍の描出が可能であることがわかった。術前の生検に関しては賛否両論があり、これに関する報告¹⁾⁴⁾もみられるが、生検では侵襲も少なくなく、播種の危険性も懸念され、Rankow ら²⁾も否定的な見解を述べている。一方、FNA の利点は、生検に比べ侵襲が少なく、播種の危険性が極めて小さいこと、それでいて高い正診率を得られることにある。今回の文献的検索では FNA 施行の報告は見いだせなかったが、近年、耳下腺、顎下腺腫瘍に対する FNA の有効性、安全性の報告は多く⁸⁾⁹⁾、本例でも FNA で組織型まで正しく診断できており、今後舌下腺腫瘍に対しても FNA を利用すべきと思われた。

治療法は手術中心となっているが、腺様嚢胞癌では、神経浸潤を来しやすいことを考慮すると、舌神経を含め周囲組織を充分付けた腫瘍の完全摘出が必要と考えられる。放射線療法に関しては、感受性は低いとされながらもその有効性を指摘する報告は多く¹⁰⁾¹¹⁾、Berdal ら¹¹⁾は、radiocurable ではないが radiosensitive であると述べている。腺様嚢胞癌が緩徐な発育を示し10年以上経過してからも局所再発や遠隔転移を来すことがある点を考慮すると、手術+術後照射が妥当な治療法と考えられた。

舌下腺癌の予後は、これに関する文献が少なく推定が困難であるが、腺様嚢胞癌に関しては、

図4 摘出標本
断面が白色均一の充実性腫瘍であった。

図5 病理組織像(H.E. 染色 ×100)
典型的な cribriform pattern の配列を認め、腺様嚢胞癌と診断された。

表1 舌下腺悪性腫瘍の組織像

腺様嚢胞癌	33例
粘表皮腫	18
多形腺腫内癌	11
腺 癌	9
腺房細胞腫	5
類表皮癌	1
未分化癌	1
その他	4
計	82

死亡例 1 例²⁾, 9 カ月から 13 年の観察期間で生存例 5 例と報告されており, 本例のように完全摘出ができれば予後は良好と考えられるが, なお長期的な観察が必要であろう。

ま と め

1. 舌下腺原発の腺様嚢胞癌の一例を経験した。

2. 診断に MRI と FNA が有効であった。

3. 治療は手術による腫瘍の完全摘出と術後放射線療法が最も良い方法と考えられた。

稿を終えるに当たり, 御校閲, 御指導を賜りました京都大学医学部耳鼻咽喉科学教室本庄 巖教授に深謝致します。

本論文の要旨は, 第 242 回日耳鼻大阪地方部会において口演した。

参考文献

- 1) Uchiyama K, Ikeuchi S, Shiba H, et al : Adenocarcinoma of the sublingual gland. *Keio J Med* **40** : 20~24, 1991.
- 2) Rankow RM and Mignogna F : Cancer of the sublingual salivary gland. *Am J Surg* **118** : 790~795, 1969.
- 3) Turnbull AD and Frazell EL : Multiple tumors of the major salivary glands. *Am J Surg* **118** : 787~789, 1969.
- 4) 渡辺昭仁, 野平久仁彦, 畔田 貢, 他 : 舌下腺にみられた腺癌例. *耳鼻臨床* **84** : 193~196,

1991.

- 5) 篠原正徳, 嶋田 誠, 堀之内康文, 他 : 唾液腺悪性腫瘍の臨床的・病理組織学的検索 — 舌下腺, 小唾液腺原発症例について —. *日本唾液腺学会誌* **31** : 87~90, 1990.
- 6) 松下文彦, 水野明夫, 中村真一, 他 : 口底に発生した粘表皮腫の 2 例. *口科誌* **38** : 609~614, 1989.
- 7) Hamper K, Brugmann M, Caselitz J, et al : Prognosis of salivary adenocarcinomas. *Virchows Archiv A Pathol Anat* **416** : 57~64, 1989.
- 8) Smith MA and Frable WJ : Fine needle aspiration biopsy of salivary glands. *Laryngoscope* **101** : 245~249, 1991.
- 9) 野々村光栄, 福島英行, 児嶋久剛, 他 : 耳下腺腫瘍における術前診断の検討. *耳鼻臨床* **83** : 1409~1413, 1990.
- 10) Illes RW and Brian MB : A review of the tumors of the salivary gland. *Surg Gynecol Obstet* **163** : 399~404, 1986.
- 11) Berdal P, Beshe A and Mylius E : Cylindroma of salivary glands ; a report of 80 cases. *Acta Otolaryngol* **263** : 170~173, 1970.

(原稿受付 : 平成 4 年 10 月 8 日

原稿採択 : 平成 5 年 12 月 2 日

別刷請求先 : 平野 滋

〒632 天理市三島町 200

天理よろづ相談所病院耳鼻咽喉科)