摘出不適応と判断した耳下腺多形腺腫 2 症例

河田 了・島田 剛敏・四ノ宮 隆・村上 泰

Two Cases of Unresectable Pleomorphic Adenoma of the Parotid Gland

Ryo Kawata, Taketoshi Shimada, Takashi Shinomiya and Yasushi Murakami

(Kyoto Prefectural University of Medicine)

We report two cases of unresectable pleomorphic adenoma of the parotid gland. The first patient was a 34-year-old female on whom enucleation of the parotid tumor was performed in 1981. The tumor recurred 4 years later and extirpation of the tumor and superficial lobectomy were performed. However, the tumor recurred again in 1991 and we decided during the operation that the tumor could not be resected without sacrificing the facial nerve. The second patient was a 39-year-old female complaining of a tumor of the right parotid gland in 1992. Although we tried to resect the parotid tumor, it was impossible to carry out the operation and preserve the facial nerve. In 1995, we removed the tumor and sacrificed the facial nerve. In both cases, the tumor was located in a deep lobe of the parotid gland and developed in the direction of the superficial lobe, so that the facial nerve was sandwiched in a valley of the tumor. We recognized again that enucleation was contraindicated for pleomorphic adenoma.

Key words : unresectable case, pleomorphic adenoma, parotid gland, facial nerve

はじめに

耳下腺多形腺腫は基本的に良性腺腫で、切除手術に際しては顔面神経を温存することが大原則である。一方、被膜が脆弱なところがあって、そこから細胞播種が起これば、多発性の再発が生じる可能性があることが知られている^{1)~3)}。そのため、被膜に沿って核出することなく、正常耳下腺組織に包まれた状態で摘出することが切除の基本となっている。

これらの条件は相反するものであるから、どちらか一方を犠牲にしないと摘出できないものでは切除不可能と判断せざるをえない。切除不可能な症例はきわめてまれであり、一般に摘出が困難とされる深葉型腫瘍でも、丁寧に顔面神経枝を剥離すれば、それらの神経枝の上方あるいは下方、または中間から抜き取るように摘出できる。しかし、深葉から顔面神経枝を挟んでその両側に盛り上

がるよう増殖してしまうと、顔面神経を切断するか、あるいは腫瘍の一部を削り取って神経をどちらかへ移動させないかぎり摘出することができない。顔面神経合併切除では再縫合や移植が行われるが、その成功率は100%ではなく、また腫瘍部分切除では細胞播種が必発である。このような理由で切除不適応と判断した症例を2例経験したので、若干の文献的考察を交えて報告する。

症 例

症例1 : 34歳, 女性。

既往歴, 家族歴 : 特記すべきことなし。

現病歴 : 昭和56年(19歳), 右耳下腺腫瘍の診断にて腫瘍核出術を施行, 病理は多形腺腫であった。それ以外詳細不明で、なぜ核出術が行われたかについても理由は不明である。昭和60年(24歳)再発にて再手術。腫瘍は深葉

に存在, 腫瘍核出術および浅葉切除術が行われている。その後外来で経過観察していたが, 平成 3 年(30歳)右耳下部に腫瘍を触知した。画像診断でも腫瘍を認めたが, 本人の希望により経過観察とした。平成 6 年11月腫瘍が徐々に増大するため, 再々手術目的で入院となった。

入院時現症: 右耳前部および耳下部に大きさがそれぞれ 22 mm, 17 mm, 9 mm の腫瘍を認める。自発痛, 圧痛, 周囲との癒着なく顔面神経麻痺も認めない。その他耳鼻咽喉科領域に異常を認めない。

検査所見: 1) CT: 耳下腺正常組織よりやや density が高い複数の腫瘍を認める。内部は均一で造影効果を認める。MRI: 多結節性で境界明瞭な腫瘍を認める。

手術所見(図 1): 瘢痕形成が著しく剥離がきわめて困難であった。顔面神経主幹は前回行われた浅葉切除術の術後瘢痕によって, 硬く線維性であり, 剥離不能で発見することができなかった。腫瘍は 3 つの結節からなり, 深葉から浅葉方向に進展していた。結節に挟まれた谷間に下顎縁枝および頬筋枝と思われる枝の一部を明視下におくことができた。しかし, 顔面神経を温存して腫瘍を

摘出することは不可能と判断し手術室に家人を呼び術野を見せて, 十分説明した上で中止を決定して閉創した。退院後, 半年に 1 度の割合で外来で経過観察とし, いずれ顔面神経を含めて根治切除および顔面神経移植術を行う予定である。

症例 2: 39 歳, 女性。

既往歴, 家族歴: 特記すべきことなし。

現病歴: 平成元年(31歳)ごろ右耳下部の腫瘤に気づいたが放置していた。徐々に増大するため, 平成 4 年 2 月(35歳)当科初診, 手術目的で入院となった。

入院時現症: 右耳下部に 50×35 mm, 表面凹凸のある腫瘍を触知する(図 2)。自発痛, 圧痛, 癒着, 顔面神経麻痺を認めない。その他, 耳鼻咽喉科的に異常を認めない。

検査所見: 1) エコー(図 3): 大きさは 47×24×21 mm で境界は明瞭であるが, 表面は凹凸があり分葉状である。内部エコーは均一で後方エコーの増強を認める。概して良性パターンである。2) CT (図 4): 大きさは 40×40 mm で腫瘍は耳下腺正常組織よりやや density

図 1 症例 1. 右耳前部および耳下部に直径 22 mm, 17 mm, 9 mm の腫瘍が存在。

図 2 症例 2. 右耳下部に 50×35 mm, 表面凹凸のある腫瘍が存在。

図3 エコー所見(症例2)

大きさは $47 \times 24 \times 21$ mmで境界は明瞭であるが、分葉状で表面に凹凸を認める。内部エコーは均一で、後方エコーの増強を認める。

図4 造影CT所見(症例2)

腫瘍は耳下腺正常組織よりややdensityが高く、境界はやや不明瞭である。

が高い。境界はやや不明瞭である。3) ^{99m}Tc シンチ：腫瘍に一致して欠損を認め、正常耳下腺が外方に圧排されている。4) FNA：多形腺腫疑い。

手術所見：腫瘍は深葉に発生し浅葉方向に盛り上がる

ように進展しており、顔面神経枝は腫瘍に挟まれて、ちょうど腫瘍と腫瘍の谷間を走行していた。顔面神経を温存して腫瘍を摘出することは腫瘍の突出する部分を削除しないかぎり不可能と判断し、家族に手術室に入室してもらい術野を見せて説明し、中止の同意を得て、そのまま閉創した。

経過：その後、外来で半年に1回の割合で経過観察していたが、徐々に増大するため、平成7年10月再手術目的で入院となった。

再手術所見：腫瘍は前回手術よりやや増大していた。腫瘍は前回の手術時と同様、深葉から顔面神経を挟んでその両側に盛り上がるように増殖していた(図5)。顔面神経主幹および腫瘍と腫瘍の谷間を走行するその枝を発見した。顔面神経は、中枢側は主幹で、末梢側は、主幹

図5 術中所見1(症例2)

腫瘍は深葉から顔面神経を挟んでその両側に盛り上がるように増殖している。

⇒：顔面神経本幹

が分枝部から約 3 cm のところで切断した。すなわち、下方から下顎縁枝、頬筋枝と頬骨枝がまもなく枝分かれるところ、および前額枝を切断した(図 6)。このように顔面神経を切断することより、腫瘍を一塊にして摘出することができた。神経移植には末梢が 3 本に分枝している頸神経叢を用いた。それぞれの断端を 7-0 ナイロン糸を用いて、各 4 針縫合した。病理診断は多形腺腫で悪性変化は認めなかった。術後 7 カ月頃から顔面運動を認めるようになり、1 年を経た現在正面視では麻痺はほとんどわからず、口唇、口角運動は良好だが、眼輪筋運動は不良で閉眼運動は満足に回復しておらずなお経過観察中である。

図 6 術中所見 2 (症例 2)

顔面神経は中枢側は主幹で、末梢側は主幹が分枝したところから約 3 cm 末梢で切断した。

☆：顔面神経分枝部 ⇨：顔面神経本幹

考 察

多形腺腫は耳下腺腫瘍の 70% をしめる最もポピュラーな腫瘍である。本腫瘍は基本的に良性であって、被膜に包まれて expansive な増殖形態をとり、癌にみられるような浸潤性増殖は認められない。ただし、同一腫瘍内でも多彩な組織構造が認められ、部位により増殖速度やパターンが異なることがある。また、被膜の厚さが症例により、また同一腫瘍でも部位により異なり、時には認められないこともあるとされている⁴⁾⁵⁾。そのため、同腫瘍を核出術で摘出した場合、微小な腫瘍組織が取り残されたり、細胞播種を来したりする危険性があり、後の局所再発の原因となりうる^{1)~3)}。

このような事実は、他の良性腫瘍には認められないことであり、多形腺腫に対する核出術の危険性を物語っている。これらの腫瘍特性により多形腺腫を準悪性あるいは亜悪性と呼ぶ病理学者もいる。以上より、多形腺腫に対する術式としては、核出術ではなく葉切除術が適当であると考えられ、術式を核出術から葉切除術に切り替えたことにより再発率が著しく低下したとの報告が多くある^{5)~7)}。

症例 1 は核出術再発の典型例であり、逆に症例 2 の第 1 回目の手術で不完全な摘出術を施行していたならば再発することが必発であったと思われる。以上のような理由から、症例 2 では、顔面神経を犠牲にした完全摘出および顔面神経移植が最善の方法であったと考えている。しかし、多形腺腫は基本的には良性腫瘍であり、たとえ再発腫瘍でも顔面神経麻痺をきたしたり、悪性腫瘍のように死の転帰をとることはない。したがって、その手術適応を考えたとき、美容上のことを除くと経過観察でもよいわけであるが、しかし多形腺腫の悪性変化の問題がある。

多形腺腫の悪性変化の頻度は 2~5% とされ、発癌までの平均日数は約 30 年といわれている。その危険信号としては、高齢者、急激な増大、顔面神経麻痺などが挙げられる⁸⁾。しかし、特に小さな悪性変化症例の診断は困難とされ、本症例のように顔面神経を犠牲にしなければ完全摘出できない多形腺腫に対する手術のタイミングはきわめて難しく、本例のような若年女性ではさらに難渋する。その手術適応(タイミング)としては、1) 悪性変化の危険性があるもの、2) 美容上問題のあるもの、3) 再発腫瘍、などが挙げられる。1) については、病理学的に悪性変化が確認されれば、絶対適応であるが、その

他の場合は増大傾向や悪性徴候など臨床症状で判断せざるをえない。悪性徴候を示せば手術適応とし、また増大傾向のあるものも、美容上の問題も含めて手術適応と考えている。3)については、不完全な摘出で再々発を繰り返すことがあり、臨床的悪性と呼ぶにふさわしい。病理学的にそれだけ増殖能が強いと思われ、事実再発を重ねた症例では再発期間が短くまた再発率も高いとされている⁹⁾¹⁰⁾。そのうえ再発を繰り返すうちに悪性化する可能性が高くなると考えられるから、初発腫瘍と比較して再発例はより積極的な手術適応であると考えている。以上のような適応基準とは別に、まず本人の同意が重要であることは当然である。

両症例ともに、顔面神経を犠牲にすることなく切除することが不可能であることを術前に診断できなかった。本症例のように腫瘍が深葉から発生して浅葉方向に盛り上がるように進展し、顔面神経が腫瘍と腫瘍の谷間を走行したとき、顔面神経を犠牲にせず完全摘出することはまず不可能である。両症例ともに画像診断では、凹凸のある腫瘍であることは確認できたが、神経の走行を知ることが不可能であった。一般に多形腺腫の場合、被膜の弱いところから押し出すように発育するため、球形のものは少なく、多くは knobby, lobulated に娘腫瘍を突出させて凹凸が認められるものが多い¹¹⁾。そのため凹凸という所見はむしろ一般的で、腫瘍の凹凸のどこに神経が走行しているか画像で判断することは困難であると考えられる。したがって、本症例のように顔面神経の走行を確認して閉創し、次回改めて根治手術をするのもやむをえないと考えている。

まとめ

1) 顔面神経を温存して切除することが不可能と判断した耳下腺多形腺腫の2症例を経験した。

2) 症例2では、増大傾向を認めるため初回手術から3年10ヵ月後顔面神経を含む腫瘍摘出術を施行した。症例1は外来で経過観察中である。

3) 両症例ともに術前に顔面神経を温存して摘出することが可能かどうか判断することができなかった。

4) 症例1は初回手術として施行された核出術が再発の原因と考えられ、あらためて多形腺腫に対する核出術の危険性を認識させられた。

本論文の要旨は第58回耳鼻咽喉科臨床学会(1996年6月、名古屋)で口演した。

参考文献

- 1) Patey DH: Tumors and other diseases of the salivary glands in relation to general physiology and pathology. J Laryngol Otol 82: 853~866, 1968.
- 2) Winsten J and Ward GE: Mixed tumors of the parotid gland. Surg 42: 1029~1035, 1957.
- 3) Krolls SO and Boyers RC: Mixed tumors of salivary glands, long-term follow-up. Cancer 30: 276~281, 1972.
- 4) 谷垣内由之: 耳下腺多形腺腫被膜形成に関与する因子. 耳鼻臨床 85: 247~252, 1992.
- 5) Donovan DT and Conley JJ: Capsular significance in parotid tumor surgery; reality and myths of lateral lobectomy. Laryngoscope 94: 324~329, 1984.
- 6) Lanier VC, Mcswain B and Rosenfield L: Mixed tumors of salivary glands; a 44 year study. Southern Med J 65: 1485~1488, 1972.
- 7) Conley J and Clairmont AA: Facial nerve in recurrent benign pleomorphic adenoma. Arch Otolaryngol 105: 247~251, 1979.
- 8) Spiro RH, Huvos AG and Strong EW: Malignant mixed tumor of salivary origin; a clinicopathologic study of 146 cases. Cancer 39: 388~396, 1977.
- 9) Grage TB, Lober PH and Shaton DB: Benign tumors of the major salivary glands. Surg 50: 625~633, 1961.
- 10) Fee WE and Goffinet DR: Recurrent mixed tumors of the parotid gland-results of surgical therapy. Laryngo 88: 265~273, 1978.
- 11) 村上 泰: 唾液腺良性腫瘍. 多形腺腫に関する最近の考え方. JOHNS 2: 391~401, 1986.

原稿受付: 平成8年11月26日

原稿採択: 平成8年12月25日

別刷請求先: 河田 了

〒602 京都市上京区河原町通広小路上ル梶井町465
京都府立医科大学耳鼻咽喉科学教室