耳下腺と対側顎下腺に同時に認めた多形腺腫

瀧 正勝¹⁾・正垣 一博²⁾・島田 剛敏²⁾・久 育男²⁾
四ノ宮 隆³⁾・木村 隆保⁴⁾・立本 圭吾⁵⁾

Pleomorphic Adenomas in Parotid Gland and Submandibular Gland of the Other Side ; A Case Report

Masakatsu Taki

(Omihachiman City Hospital)

Kazuhiro Syogaki, Taketoshi Shimada and Yasuo Hisa

(Kyoto Prefectural University of Medicine)

Takashi Shinomiya

(Kyoto City Hospital)

Takayasu Kimura

(Otsu City Hospital)

Keigo Tatemoto

(Kyoto First Red Cross Hospital)

Pleomorphic adenomas in several salivary glands are rare. We report a patient with pleomorphic adenomas in the right parotid gland and the left submandibular gland. Preoperative MRI and neck echography revealed masses in the right parotid gland and the left submandibular gland. Right superficial parotidectomy and left submandibular sialoadenectomy were performed and the histopathologic diagnosis was pleomorphic adenoma, with no suggestion of malignancy and metastasis. To our knowledge, there have been no previous reports of pleomorphic adenoma both in the parotid gland and in the submandibular gland of the other side.

Key words : pleomorphic adenoma, parotid gland, submandibular gland

はじめに

耳下腺腫瘍は一側性、単発性であることが多く、多発性腫瘍のほとんどはワルチン腫瘍であり、多形腺腫が複数の大唾液腺にみられることは非常にまれである。われわれが渉猟しえた限りでは、複数の大唾液腺に多形腺腫を同時に認めた症例は、国内では両側耳下腺に認められた10数例の報告のみである。今回われわれは右耳下腺と

左顎下腺に同時に認められた多形腺腫の1例を経験したので、その概略を述べるとともに、若干の考察を加えて報告する。

症 例

患者：29歳，男性。

主訴：右耳下部腫脹。

1) 近江八幡市民病院耳鼻咽喉科

3) 京都市立病院耳鼻咽喉科

5) 京都第一赤十字病院耳鼻咽喉科

2) 京都府立医科大学耳鼻咽喉科学教室

4) 大津市民病院耳鼻咽喉科

既往歴：13歳 髄膜炎。

家族歴：弟 ネフローゼ症候群。

現病歴：平成10年2月頃、感冒にて近医内科を受診した際、右耳下部腫脹を指摘されていたが、特に無症状のため放置していた。平成11年2月中旬になり、指摘されていた腫脹が気になり始め、精査を希望し近医耳鼻咽喉科を受診したところ、右耳下腺腫瘍を疑われ、2月25日京都府立医科大学耳鼻咽喉科へ紹介となった。

現症：右耳下部に34×25 mmの腫瘍を触知した。表面は平滑で弾性硬であり、圧痛、癒着は認めず、顔面神経麻痺などの神経症状も認められなかった。また、左顎

下部にも腫瘍を触知したが、右耳下部の腫瘍よりも硬く、自発痛、圧痛、癒着を認めず、また患者によると幼少時より認めるとのことで、非特異的リンパ節腫脹と考えられた。

検 査

・右耳下部の穿刺吸引細胞診：クラスⅡ，多形腺腫。

・MRI 検査：右耳下腺下極に径約25 mmのT1強調画像で低信号、T2強調画像で高信号の内部は不均一で造影効果の良い境界明瞭な腫瘍を認めた。また、左顎下腺内に径約10 mmのT1強調画像で低信号、T2強調画像で高信号の内部はほぼ均一で、造影効果の乏しい境界

図1 MRI 検査

右耳下腺下極にT1強調画像で低信号(a；水平断)，T2強調画像で高信号(b；冠状断)の腫瘍を認めた。左顎下腺内にはT2強調画像で高信号(c；冠状断)の腫瘍陰影を認めた。

明瞭な腫瘤を認めた(図1)。

そのため左顎下部腫瘤はリンパ節腫脹ではなく、左顎下腺腫瘍と考え精査を進めた。

・超音波検査：右耳下腺下極に $23 \times 32 \times 17$ mm の表面はやや粗く、境界明瞭、内部は low echoic で不均一な分葉状の腫瘤を認めた。また、左顎下腺内に $17 \times 19 \times 12$ mm の表面平滑で、境界明瞭、内部は low echoic で均一の腫瘤を認めた(図2)。

そのほか明らかなリンパ節腫脹は認めなかった。

治療：以上より右耳下腺腫瘍に加え、左顎下腺腫瘍の

存在を確認し、患者にも説明、了承の上、平成11年3月24日全身麻酔下に両腫瘍の摘出術を施行した。

手術所見：まず左顎下腺摘出術を施行した。左顎下部に切開を加え、広顎筋直下で剥離を進めると顔面神経辺縁枝の直下に左顎下腺より突出する腫瘤を確認し、注意深く剥離した。顔面動静脈、舌神経は温存し、ワルトン管を結紮、切離し左顎下腺を摘出した。次いで右耳下腺浅葉切除術を施行した。右耳前部より下顎にかけS字状切開を加え剥離を進めると、腫瘍は耳下腺下極に存在した。胸鎖乳突筋前縁を露出し顔面神経本幹を確認した。

図2 超音波検査

a : 右耳下腺腫瘍, b : 左顎下腺腫瘍

図3 病理所見(HE染色, ×200)

a : 右耳下腺腫瘍, b : 左顎下腺腫瘍
両腫瘍とも病理組織は多形腺腫であった。

耳下腺浅葉組織とともに腫瘍を顔面神経を末梢まで温存しながら切除した。両腫瘍ともに癒着を認めず容易に摘出できた。

病理所見：肉眼所見では、右耳下腺腫瘍は被膜に包まれ、断面は分葉状、乳白色であり、左顎下腺腫瘍もまた被膜に包まれ断面は分葉状、乳白色であった。組織所見では両腫瘍ともに、二層性の細胞よりなる腺管構造を示す上皮成分と、その周囲を取り巻く粘液質と紡錘形の細胞がみられる間葉成分を認め、病理組織診断では両者とも多形腺腫であった。また、上皮成分と間葉成分の割合は病理切片の部分によっては差があるが、特に右耳下腺腫瘍と左顎下腺腫瘍に差はなかった。悪性変化を疑う活発な細胞分裂、周囲組織への浸潤も認めなかった(図3)。

考 察

多形腺腫は唾液腺腫瘍、特に耳下腺腫瘍では最も頻度

が高いものである。しかしながら、複数の大唾液腺に多形腺腫を同時に有する症例はきわめて少ない。海外の報告例では、Byrne ら¹⁾は167例の耳下腺腫瘍中3例の両側耳下腺腫瘍、Turnbull ら²⁾は大唾液腺腫瘍2072例中27例に複数の唾液腺に多形腺腫、そのうち1例のみに耳下腺と顎下腺に多形腺腫を有したとの報告している。また Sataloff ら³⁾、Becker ら⁴⁾による両側深葉の耳下腺多形腺腫症例の報告がある。ほかには Foote ら⁵⁾が耳下腺および同側顎下腺に多形腺腫を有した症例を報告している。

国内では安部ら⁶⁾、古川ら⁷⁾の両側耳下腺多形腺腫症例の10数例の報告のみである。複数の大唾液腺に生じた多形腺腫としては、耳下腺と対側顎下腺に多形腺腫を有した例は今まで報告がない。

成因に関する報告としては Nagler ら⁸⁾は幼少時に放射線照射の既往のある右耳下腺および右顎下腺の多形腺腫の症例を、Takeichi ら⁹⁾の広島の大原被爆生存者における多形腺腫の発生率が非被爆者における発生率と比較して有意に多いという報告を引用し、放射線被曝が多形腺腫を発生、多発させた可能性を述べている。しかしながら本症例では放射線被曝の既往はなかった。

また、良性であるにもかかわらず、多形腺腫の肺等多臓器への転移が報告されている。Chen¹⁰⁾や Freeman ら¹¹⁾、Shinohara ら¹²⁾によると、多形腺腫の転移は高度な細胞分裂像および浸潤増殖像を示すが良性像を保つと述べている。Wenig ら¹³⁾はフローサイトメトリーを用いて原発および転移腫瘍のDNAプロイディパターンを調べ、両者とも diploid pattern であり、組織像は両者とも上皮成分と間葉成分を持ち、上皮成分は紡錘形の筋上皮型細胞に囲まれた腺管構造、間質成分は粘液質、軟骨様のマトリックスと筋上皮型細胞よりなり、悪性所見である異型、活発な細胞分裂像、周囲組織への浸潤、神経および血管への浸潤等はみられないと述べている。本症例では両腫瘍ともに細胞分裂像や被膜の浸潤像はみられず、顎下腺腫瘍から耳下腺への転移は考えにくい。また不完全な手術症例や核出術を施行された多形腺腫症例では被膜の損傷により細胞播種による再発も知られているが、本症例では特に左顎下腺の手術歴はなかった。よって発生としては両者は個別に発生したと考えられる。

長期間を経た多形腺腫は悪性化することが知られているが、本症例は左顎下腺腫瘍については10年以上経っているが、悪性の所見はみられなかった。

ま と め

耳下腺と対側顎下腺に多形腺腫を同時に有したきわめてまれな1例を経験した。

多形腺腫も多発することがあるので原発部位以外の唾液腺も精査する必要がある。

なお、本論文の要旨は、第73回日耳鼻京滋合同地方部会、第12回口腔・咽頭科学会にて発表した。

参考文献

- 1) Byrne MN and Spector JG : Parotid masses ; evaluation, analysis, and current management. *Laryngoscope* **98** : 99~105, 1988.
- 2) Turnbull AD and Frazell EL : Multiple tumors of the major salivary glands. *Am J Surg* **118** : 787~789, 1969.
- 3) Sataloff RT, Price DB and Roberts BR : Bilateral synchronous mixed tumors of the parotid glands. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg* **113** : 880~881, 1987.
- 4) Becker FF and Tabb HG : Bilateral benign mixed tumor of the deep lobe of the parotid gland. *Arch Otolaryngol* **94** : 158~161, 1971.
- 5) Foote FW and Frazell EL : Tumor of the major salivary glands. *Atlas of Tumor Pathology. section IV, Fasc. II. Armed Forces Institute of Pathology, Washington, 1954.*
- 6) 安部治彦, 井上都子 : 両側同組織型耳下腺腫瘍の遺伝性に関する一考察. *日耳鼻* **94** : 325~332, 1991.
- 7) 古川勝朗, 白神かおり, 中島智子, 他 : 両側性に発生した耳下腺多形腺腫例. *耳鼻臨床* **88** : 59~63, 1995.
- 8) Nagler RM and Laufer D : Synchronous pleomorphic adenomas of the major salivary glands ; a case report. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* **87** : 735~737, 1999.
- 9) Takeichi N, Hirose F, Yamamoto H, et al : Salivary gland tumors in atomic bomb survivors, Hiroshima, Japan ; II. pathologic study and supplementary epidemiologic observations. *Cancer* **52** : 377~385, 1983.
- 10) Chen KT : Metastasizing pleomorphic adenoma of the salivary gland. *Cancer* **42** : 2407~2411, 1978.
- 11) Freeman SB, Kennedy KS, Parker GS, et al : Metastasizing pleomorphic adenoma of the nasal septum. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg* **116** : 1331~1333, 1990.
- 12) Shinohara M, Ikebe T, Nakamura S, et al : Multiple pleomorphic adenomas arising in the parotid and submandibular lymph nodes. *Br J Oral Maxillofac Surg* **34** : 515~519, 1996.
- 13) Wenig BM, Hitchcock CL, Ellis GL, et al : Metastasizing mixed tumor of salivary glands ; a clinicopathologic and flow cytometric analysis. *Am J Surg Pathol* **16** : 845~858, 1992.

(原稿受付 : 平成12年9月13日
原稿採択 : 平成12年10月25日
別刷請求先 : 瀧 正勝
〒523-0892 近江八幡市出町395
近江八幡市民病院耳鼻咽喉科)