腺リンパ腫を合併した両側耳下腺基底細胞腺腫例

吉村 勝弘・今中 政支・中村 雅宏
河田 了・竹中 洋

Bilateral Basal Cell Adenomas in the Parotid Glands Combined with Warthin's Tumor Unilaterally; A Case Report

Katsuhiko Yoshimura, Masashi Imanaka, Masahiro Nakamura,
Ryo Kawata and Hiroshi Takenaka

(Osaka Medical College)

We treated an extremely rare case of bilateral basal cell adenomas combined with Warthin's tumor in the left parotid gland. The patient was a 65-year-old male who complained of swelling in the bilateral parotid areas. We removed bilateral parotid masses. Histopathological examination demonstrated adenoma and Warthin's tumor. The incidence of bilateral parotid tumors is rare, and synchronous tumors with different histopathological types in a single salivary gland are extremely rare.

Key words : basal cell adenomas, Warthin's tumor, bilateral parotid tumors, synchronous tumors

はじめに

基底細胞腺腫 (basal cell adenoma) は、唾液腺良性腫瘍としては比較的まれな組織型であり、その発生頻度は約 2 ~ 5% と報告されている^{1) ~ 3)}。また耳下腺腫瘍は片側性に発生することがほとんどで、両側に発生する腫瘍としてはワルチン腫瘍が知られている。

今回われわれは、両側耳下腺に基底細胞腺腫が発生し、また一側耳下腺にワルチン腫瘍が合併したきわめてまれな 1 例を経験したので、若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

患者 : 65 歳, 男性。

主訴 : 両側耳下部の腫脹。

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 : 平成 6 年頃より両耳下部の腫脹を自覚していたが、特に症状は認めなかったため放置していた。右耳

下部腫脹が徐々に増大してきたため、平成 7 年 10 月 12 日当科を受診し、平成 8 年 3 月 14 日手術目的に入院となった。

入院時現症 : 右耳下部に直径 20 mm 大、左耳下部に直径 10 mm 大の腫瘍を触知した。両側とも弾性軟、可動性は良好で疼痛や顔面神経麻痺は認めなかった。

各種検査所見 : 超音波検査 (以下、エコー) では、右耳下腺内に直径 18 mm 大、左耳下腺内に直径 9 mm 大の低エコー域を認めた。いずれも内部均一で、辺縁整であった。エコー下に施行された穿刺吸引細胞診 (以下、FNA) では、組織球が認められるのみで異型細胞は認められなかった。CT 検査では、右耳下腺に直径 12 mm 大と深葉に直径 6 mm 大の腫瘍陰影を認めた。また左耳下腺には直径 5 mm 大の腫瘍陰影を認めた (図 1)。いずれも辺縁整で、右の 12 mm 大の腫瘍は辺縁が高吸収域で、内部が低吸収域を示し、6 mm 大の腫瘍は内部が均一で等吸収域を呈していた。左の 5 mm 大の腫瘍は内部が均一で等吸収域であった。テクネシウムによる唾液腺シンチグラフィでは、集積は認めなかった。なお、血液検査では

図 1 CT (単純) (平成 8 年)

右耳下腺に直径 12 mm 大と 6 mm 大の腫瘤陰影 (矢印) を, 左耳下腺に直径 5 mm 大の腫瘤陰影 (矢印) を認める。

図 2 基底細胞腺腫 (充実型) (HE 染色, 3.3 × 20 倍)

異常は認めなかった。

入院後経過: 平成 8 年 3 月 18 日, 増大傾向のみられた右耳下腺腫瘍に対して手術を施行した。大きい方の腫瘍が耳下腺浅葉に存在していたため, 顔面神経頰筋枝と下顎縁枝を確認保存し, まず浅葉部分切除を行った。深葉の腫瘍は頰枝の外側から剥離し摘出した。病理組織検査で, いずれも充実型の基底細胞腺腫と診断された (図 2)。

退院後経過: 術後, 全く顔面神経麻痺はなく経過良好であったため, 平成 8 年 3 月 30 日退院となった。以後外来で経過観察していたが, 平成 12 年 4 月頃より左耳下部腫瘍の増大を認めるようになり, 同年 9 月 13 日手術的に入院となった。

図 3 CT (造影) (平成 12 年)

左耳下腺内に約 15 mm 大の辺縁整, 内部が均一で造影効果を受けない嚢胞状の腫瘤陰影を認めた (矢印)。

入院時所見: 左耳下部に 22 × 18 mm 大の弾性軟, 表面平滑, 可動性良好な腫瘤を触知した。疼痛はなく, 顔面神経麻痺も認めなかった。

各種検査所見: エコーでは, 左耳下腺内に約 13 mm 大の境界明瞭で内部が均一, 後方エコーの増強を伴う低エコー域を認めた。造影 CT 検査では, 左耳下腺内に約 15 mm 大の辺縁整, 内部が均一で造影効果を受けない嚢胞状の腫瘤陰影を認めた (図 3)。テクネシウムによる唾

図4 基底細胞腺腫（充実型）（HE 染色，3.3 × 20 倍）

図5 ワルチン腫瘍（HE 染色，3.3 × 10 倍）

液腺シンチグラフィーでは，同部に集積を認めた．なお，右耳下腺に腫瘍の再発は認めなかった．

入院後経過：以上の検査結果よりワルチン腫瘍を強く疑い，平成 12 年 9 月 18 日，S 状切開にて左耳下腺腫瘍摘出術を施行した．腫瘍は，顔面神経頰筋枝と下顎縁枝の中間に位置していたが神経との癒着はなく，腫瘍周囲に十分な正常耳下腺組織を付けて浅葉を摘出した．術後に一過性の顔面神経麻痺も認めなかった．摘出した浅葉内に 2 つの腫瘍が認められた．いずれも弾性軟の腫瘍で，比較的厚い被膜を有する割面が灰白色で嚢胞状のもの（腫瘍①）と，薄い被膜を有するもの（腫瘍②）であった．

病理組織学的所見：腫瘍①では，線維性被膜に囲まれ，腫瘍細胞は充実性あるいは索状に配列し増殖している．腫瘍細胞の辺縁側では上皮様配列を示す．核の大小および分裂像は認めない（図 4）．以上より基底細胞腺腫の充

実型と診断された．腫瘍②では，被膜形成がみられず，リンパ組織のなかに二層性の上皮細胞で囲まれた嚢胞が認められた（図 5）．こちらはワルチン腫瘍と診断された．

術後経過：一過性の顔面神経麻痺も認めず，経過良好であったため退院となり，以後外来で経過観察中であるが再発等は認めていない．

考 察

基底細胞腺腫（basal cell adenoma）は，1967 年に Kleinsasser ら¹⁾ が“皮膚の基底細胞癌（basal cell carcinoma）に形態的に類似した唾液腺腫瘍”を“basal zell adenoma”として記載したのが最初である．以来，1972 年の耳下腺腫瘍 WHO 分類では単形腺腫（monomorphic adenoma）の亜分類に，1991 年の新分類では独立した腫瘍として分類されている．

本腫瘍は比較的まれな腫瘍であり，Kleinsasser ら¹⁾ はその頻度を全唾液腺腫瘍中 2%，Thackray ら²⁾ は 1.8%，長尾³⁾ は 5.3%としている．好発年齢は 50 歳以上で，女性にやや多いとされている．好発部位は耳下腺が最も多く，上口唇の小唾液腺，顎下腺，舌下腺，軟口蓋，硬口蓋，頬粘膜にも報告がみられる⁴⁾．

肉眼的には円形から卵円形の弾性硬の腫瘍で，表面は薄い線維性被膜により覆われ，断面は灰白充実性であるが時に漿液性の内容液を含む嚢胞を認めることがある⁵⁾．

病理組織学的には，充実型（solid type），索状型（tubular type），腺管型（trabecular type），膜様型（membranous type）の 4 亜型に分類され，充実型が最も多いとされているが，これらが混在することもあり．腫瘍細胞巢は充実性で細胞層の外層の腫瘍細胞は 1 列に配列を示し，核の観兵式配列を示す．また，細胞巢の中心部は腺管形成やまれに扁平上皮への分化傾向を示すこともあり，嚢胞形成，腺様嚢胞構造，偽腺管構造を伴うこともある．銀染色では肥厚した基底膜様構造が染色され，特徴的な像を示すとされている³⁾．

治療は手術が基本であり，完全摘出されていれば予後は良好とされているが，再発・悪性化の報告もあり⁶⁾⁷⁾，被膜を含めた完全摘出と経過観察が重要である．

耳下腺腫瘍の両側発生はまれで，Turnbull ら⁸⁾ によると全耳下腺腫瘍症例 1805 例中 24 例（1.3%），Catania ら⁹⁾ によると 544 例中 3 例（0.6%），Byrne ら¹⁰⁾ によると 231 例中 8 例（3.5%），渡辺ら¹¹⁾ によると 212 例中 13 例

(6.1%)と報告されている。一般に、両側に発生する耳下腺腫瘍中ではワルチン腫瘍が50～85%を占め、またワルチン腫瘍中5～15%が両側に発生するとされている。そのほか両側に発生する腫瘍には多形腺腫、腺房細胞癌が知られている。

単一耳下腺内に組織型の異なる腫瘍が存在することは非常にまれで、Janeckaら¹²⁾は耳下腺腫瘍約2000例中7例(0.4%)のみであったと報告している。7例中、一方がワルチン腫瘍であったものは6例、多形腺腫であったものは5例であった。この2種の腫瘍の組み合わせは4例(57%)であり、残り3例(43%)は悪性腫瘍(粘表皮癌2例、腺癌1例)との合併であった。Gneppら¹³⁾は単一耳下腺に複数の腫瘍が発生した症例25例の検討を行っている。25例中、一方がワルチン腫瘍であったものは17例、多形腺腫であったものは10例であった。ワルチン腫瘍と多形腺腫が混在した例が6例で最多(24%)であり、悪性腫瘍との合併は6例(24%)であった。同様に、假谷ら¹⁴⁾も多発性耳下腺良性腫瘍29例の検討を行っているが、多形腺腫とワルチン腫瘍の混在が20例で約70%を占めている。以上のことから、多発性耳下腺腫瘍例では、ワルチン腫瘍、多形腺腫を念頭に置き、また悪性腫瘍の混在にも注意を払う必要があると考えられた。

本症例では両側の耳下部腫脹を同時期に自覚し、画像検査でも両側耳下腺腫瘍が認められた。増大傾向のあった右側のみ手術が施行され、病理組織検査により基底細胞腺腫と診断された。左側は経過観察されていたが増大傾向が認められたため手術が施行され、基底細胞腺腫とワルチン腫瘍が混在していた。

基底細胞腺腫の両側発生例はまれであり、われわれが渉猟し得た限りでは国内外9例^{15)～23)}のみであった。また一側耳下腺に基底細胞腺腫とワルチン腫瘍が発生したという報告は、3例¹³⁾²⁴⁾²⁵⁾のみであった。本症例のように両側耳下腺に基底細胞腺腫が発生し、また同一耳下腺に2種類の良性腫瘍が存在した症例報告はなく、きわめてまれな症例であると考えられた。

現在、外来で経過観察中であるが、再発等は認めていない。

ま と め

1) 両側耳下腺に基底細胞腺腫が発生し、また一側耳下腺に同時にワルチン腫瘍が存在したきわめてまれな1例

を経験した。

2) 渉猟し得た限りでは、両側基底細胞腺腫症例は国内外9例で、一側に基底細胞腺腫とワルチン腫瘍が同時に存在した症例は3例であった。本症例と同様の報告はなく、きわめてまれな1例と考えられた。

3) 耳下腺腫瘍を認めた場合は、反対側も十分な検索および経過観察が必要と思われた。また、多発性耳下腺腫瘍の場合、悪性腫瘍の混在にも注意する必要があると考えられた。

本論文の要旨は第275回日本耳鼻咽喉科学会大阪地方連合会(2000年12月、大阪市)において口演した。

稿を終えるにあたり、病理学上の御教授を頂いた大阪医科大学病院病理部 辻 求先生に深く感謝の意を表します。

参考文献

- 1) Kleinsasser O and Klein HJ : Basalzelladenome der Speicheldrüsen. Arch Klin Exp Ohren Nasen Kehlkopfheilk 189:302～316, 1967.
- 2) Thackray AC and Lucas RB : Tumors of the major salivary glands. Atlas of Tumor Pathology. Second Series Fascicle 10 (ed by Firminger HI). pp 14, Armed Forces Institute of Pathology, Washington, DC, 1974.
- 3) 長尾孝一:唾液腺. 外科病理学(石川栄世, 遠城寺宗知編). 145～173頁, 文光堂, 東京, 1999.
- 4) 大塚明弘, 鈴木俊哉, 佐藤圭司, 他:両側性副咽頭間隙腫瘍例. 耳鼻臨床 91:63～67, 1998.
- 5) Luna MA and Mackay B : Basal cell adenoma of the parotid gland; case report with ultrastructural observations. Cancer 37:1615～1621, 1976.
- 6) 中川雅文, 竹澤裕之, 渡辺雅子, 他:顎下腺に発生した基底細胞腺腫の1例. 耳鼻 43:590～593, 1997.
- 7) Nagao T, Sugano I, Ishida Y, et al. : Carcinoma in basal cell adenoma of the parotid gland. Pathol Res Pract 193:171～178, 1997.
- 8) Turnbull AD and Frazell EL : Multiple tumors of the major salivary glands. Am J Surg 118:787～789, 1969.
- 9) Catania VC, Bandieramonte G and Salvadori B : Bilateral tumors of the parotid glands. Tumori 61:39～43, 1975.
- 10) Byrne MN and Spector JG : Parotid masses; evaluation, analysis, and current management. Laryngoscope 98:99～105, 1988.
- 11) 渡辺哲生, 一宮一成, 鈴木正志, 他:当科における両側性耳下腺腫瘍症例の検討. 日耳鼻 102:1169～1174, 1999.
- 12) Janecka IP, Perzin KH and Sternschein MJ : Rare synchronous parotid tumors of different histologic types. Plast Reconstr

- Surg 72 : 798 ~ 802, 1983.
- 13) Gnepp DR, Schroeder W and Heffner D : Synchronous tumors arising in a single salivary gland. Cancer 63 : 1219 ~ 1224, 1989.
- 14) 假谷 伸, 赤木博文, 結縁晃治, 他 : 同一耳下腺内に同時に2種類の良性腫瘍を認めた1症例. 耳喉頭頸 68 : 312 ~ 316, 1996.
- 15) Reingold IM, Keasbey LE and Graham JH : Multicentric dermal-type cylindromas of the parotid glands in a patient with florid turban tumor. Cancer 40 : 1702 ~ 1710, 1977.
- 16) 加藤高行, 内藤準哉, 金子敏郎, 他 : 両側耳下腺に原発した Basal cell adenoma の1例. 癌の臨床 29 : 147 ~ 151, 1983.
- 17) 黒野祐一, 藤吉達也, 梅原豊治, 他 : 両側耳下腺腫瘍一多発性基底細胞腺腫の1例. 耳鼻臨床 77 : 423 ~ 428, 1984.
- 18) Herbst EW and Utz W : Multifocal dermal-type basal cell adenomas of parotid glands with co-existing dermal cylindromas. Virchows Arch A Pathol Anat Histopathol 403 : 95 ~ 102, 1984.
- 19) 鈴木茂憲, 赤池徹哉, 菅野秀貴, 他 : 両側耳下腺に発生した基底細胞腺腫の一症例. 耳鼻臨床 補 83 : 103 ~ 107, 1995.
- 20) Zarbo RJ, Ricci A Jr, Kowalczyk PD, et al. : Intranasal dermal analogue tumor (membranous basal cell adenoma); ultrastructure and immunohistochemistry. Arch Otolaryngol 111 : 333 ~ 337, 1985.
- 21) Schmidt KT, Ma A, Goldberg R, et al. : Multiple adnexal tumors and a parotid basal cell adenoma. J Am Acad Dermatol 25 : 960 ~ 964, 1991.
- 22) Issing PR : Bilaterales Basalzelladenom der Parotis und Multiple Zylindrome der Haut. Ein syndromaler Zusammenhang? Laryngorhinootologie 78 : 155 ~ 159, 1999.
- 23) Katsuno S, Ishii K, Otsuka A, et al. : Bilateral basal-cell adenomas in the parotid glands. J Laryngol Otol 114 : 83 ~ 85, 2000.
- 24) Goh PM and Cheah E : Synchronous tumors of the parotid gland with different histology. Br J Oral Maxillofac Surg 27 : 198 ~ 202, 1989.
- 25) 清水義友, 長谷川博雅, 松島正和, 他 : 腺リンパ腫(ワルチン腫瘍)と基底細胞腺腫が同側耳下腺に合併した1例. 日大医誌 56 : 334 ~ 340, 1997.
-
- 原稿受付 : 平成13年12月27日
原稿採択 : 平成14年4月24日
別刷請求先 : 吉村勝弘
〒569-8686 高槻市大学町2-7
大阪医科大学耳鼻咽喉科学教室