巨大耳下腺多形腺腫例

加藤 尚美・牧本 一男・藤本 康子*

A Case of Giant Pleomorphic Adenoma of the Parotid Gland

Naomi Kato and Kazuo Makimoto

(Kyoto Minami Hospital)

Yasuko Fujimoto

(Kyoto University)

We present a case of giant pleomorphic adenoma of the parotid gland. A 59-year-old male had a giant tumor that developed in the left parotid region since more than 15 years. He consulted our hospital with a complaint of difficulty in left field vision when driving a vehicle. Ultrasonography, CT with a contrast agent and MRI (T1-, and T2-weighted) suggested a benign tumor. In Ga-scintigraphy, we noted warm areas in the lower portion of the tumor. Embolization of feeding arteries was performed two days before the surgery, and we were able to preserve the facial nerve in the surgical field. Blood loss during surgery amounted to 450 ml. A postoperative histopathology examination revealed a pleomorphic adenoma.

In this report we discuss the pathology of giant parotid tumor, facial nerve preservation during the surgical procedure and the prognosis after surgery.

Key words : pleomorphic adenoma, parotid gland, embolization of feeding arteries, giant parotid tumor, facial nerve paralysis

はじめに

耳下腺腫瘍のうち良性腫瘍は約8割を占め、60～70%が多形腺腫であるとされている¹⁾²⁾。多形腺腫は全唾液腺腫瘍の65%を占め³⁾、その増殖は緩徐であるが、その5%内外が悪性変化する⁴⁾。したがって大きさが鶏卵大に達した例では多くの場合手術を受けるため巨大耳下腺腫瘍は近年まれになっている。われわれは最近、長径約15 cmの巨大耳下腺腫瘍の1例を経験した。症例を報告するとともに、このような腫瘍の病理組織、術中の顔面神経の温存、術後の予後について、若干の文献的考察を加える。

症 例

患者：59歳，男性。

職業：[REDACTED]

主訴：左頸部巨大腫瘍と左方視障害。

既往歴，家族歴：特記すべきものなし。

現病歴：15年来，左耳下部に徐々に増大する腫瘍を自覚していたが，自発痛や顔面神経麻痺など日常に支障をきたすことなく経過していたため放置していた。しかし，その腫瘍により車の運転中，左の方が少し見にくくなってきたため，摘出希望にて2002年11月5日，当院外科を受診し，その後耳鼻咽喉科紹介となった。

初診時局所所見：図1に示すように成人頭大（20 cm

図 1 初診時所見
術前の巨大耳下腺腫瘍の状態を示す。

図 2 CT 所見

3D-CT では腫瘍の下端は甲状腺上極レベルに達し、その表面には努張する静脈を認めた。

弱)の巨大腫瘍が左耳下部を中心に耳前部から側頸部を占拠し、耳垂を後方から前方へ押し上げる状態になっていた。弾性軟と硬の混在する腫瘍で表面平滑、可動性は少なかった。開口障害、顔面神経麻痺は認めなかった。外耳道、鼻腔、咽喉頭、口腔に異常所見はなく、頸部リンパ節も触知しなかった。

血液検査:血液一般、血液生化学、腫瘍マーカー(SCC, CEA)の検査値に異常値はみられなかった。

頸部超音波検査:腫瘍内部は全体として比較的輝度が

高かったが、壊死性変化を疑わせる低輝度の部分も認められた。また底面エコー増強が認められ、ドップラー法では血流量は比較的多いようであった。

CT検査:図2に示されるように、CTでは腫瘍は耳下腺由来で血流に富み、周囲を圧排するように発育進展している所見が認められた。周囲の顎下腺や筋肉との境界は明らかで、周囲への浸潤を示す所見は認められなかった。

MRI検査:図3のMRI像では、左耳下腺が外側に大きく増大した充実性腫瘍として描出された。腫瘍は顎下腺を

図3 MRI所見

T1強調像で低～中等度、T2強調像で高～中等度信号を認め、内部は不均一であった。

図4 Ga シンチグラフィー所見

主に腫瘍の下部に RI の集積がみられた。

内側に圧排し、甲状腺左葉上極レベルにまで達していた。T1強調像で低～中等度、T2強調像で高～中等度信号を認め、内部は不均一であった。

^{67}Ga -citrate シンチグラフィー検査：図4の2つのシンチグラフィーにみられるように、左耳下腺腫瘍下方および腫瘍内部に散在する RI の集積が認められた。そのほかには異常集積が認められなかった。

穿刺吸引細胞診検査：腫瘍は好酸性多稜形上皮細胞と紡錘形細胞からなり、不整索状、巣状構造を呈し、一部管腔形成部では2相性を認めた。背景は粘液腫様。腫瘍細胞にはほとんど異型はなく、核分裂も認められないが、

大型で核小体の目立つ細胞が散在していた。以上の所見より多形腺腫との診断を得た。

血管造影検査および塞栓術：図5に塞栓前と塞栓後の外頸動脈造影像を示す。左外頸動脈からの栄養血管が腫瘍に最も血液供給していた。その主要血管として上行咽頭動脈、後頭動脈、顔面動脈が考えられたため、その起始部にコイルによる塞栓を実施した。

手術所見：皮膚切開線の一つは耳前部耳介上端から耳垂直下を経てS字状に舌骨下方正中に至る線。もう一つは耳垂直下より後下方に向け後方僧帽筋前縁2～3cm外方に至る線。三つ目の線として舌骨下方正中と僧帽筋前縁2～3cm外方を結ぶように下方に弯曲した線を腫瘍下方に置いた。これら3線に囲まれた余分の皮膚を腫瘍につけて紡錘形に切除するようにした。まず腫瘍と周囲組織の剥離を前方より行い、総頸動脈、外頸動脈、内頸静脈、舌下神経などを確認した。次に腫瘍の下方、後方を剥離し、腫瘍裏面で動静脈、頸部諸筋より剥離した。腫瘍を下方より上方へ起こすように持ち上げたところ、顎二腹筋へ到達でき、その起始へ向け剥離した。腫瘍が十分に動かせるようになってから、外耳道の前・下壁を出し、乳様突起と腫瘍との間を鋭的に分離した。ポインターを出し、鼓室乳突裂を同定した後、この部分にある筋膜のなかに顔面神経を探索すると、本幹がその上方内側を通常の方で走行しているのを認めた。顔面神経の内側に健常な深葉の腺組織がわずかに存することより、腫瘍は浅葉由来と考えられた。図6に示すように腫瘍上方で側頭顔面枝（上主枝）を、腫瘍下方で顎顔面枝（下主枝）

図5 血管造影所見

左外頸動脈の起始部から造影。左側に塞栓前、右側に塞栓後の像を示す。①上行咽頭動脈、②後頭動脈、③顔面動脈からの血液供給が考えられた。

図6 術中所見

顔面神経の側頭顔面枝（上主枝）を露出させた後（左）、頰顔面枝（下主枝）を露出した（右）。

図7 摘出標本

摘出した腫瘍は17×13×12 cm, 重量は1.13 kgであった。剖面は、やや分葉状で結節や黄白色充実部, 灰白色ゼリー状部, 中心部一部壊死を認めた。

図8 組織所見 (HE 染色. 左: ×100, 右: ×400)

左: やや好酸性の上皮様細胞, 星状ないし紡錘形間質様細胞の充実, 索状, 網状, 小管状構造がみられた. 間質の主体は粘液腫様であった.

右: 核の大小不同が認められたが, 核分裂はほとんど認められなかった.

を露出した. 顔面神経への癒着はなく, 主要な分枝すべてを温存し得た. 腫瘍を剥離摘出後, 胸鎖乳突筋はやや萎縮していたが, その約 1/2 の筋束を使用して上方部に rotation flap (上方基部) を作製し, 顔面神経露出部を被覆した. 術中出血量は 450 ml, 手術時間は 5 時間であった. 摘出した腫瘍を図 7 に示す. 大きさは 17×13×12 cm, 重量は 1.13 kg であった. その断面はやや分葉状で, 結節や黄白色充実部, 灰白色ゼリー状部, 中心部の一部壊死を認めた. 皮膚浸潤の所見は認められなかった.

病理組織学的所見: HE 染色での所見を図 8 に示す. やや好酸性の上皮様細胞, 星状ないし紡錘形間質様細胞の充実, 索状, 網状, 小管状構造がみられた. 間質の主体は粘液腫様であった (図 8 左). 構成細胞の一部に大型核を有する bizarre neoplastic cell (通常の腫瘍細胞の 2~3 倍の大きさで, 不定形でヘマトキシリンに濃染する核を有する) が散在するのが認められたが, 核分裂はほとんど認められなかった (図 8 右). 核の大小不同があることから, 増殖能をみるため MIB-1 染色を施行したが, 染色されないことから核分裂が認められないことを確認した. 血管内腫瘍細胞, 皮膚浸潤などの悪性を示す所見は認められなかった. 組織反応を伴わない凝固壊死変性巣が中心部に認められた. この病巣の一部に線維性被膜がみられたが, 周辺は浮腫状で軽度の炎症細胞の浸潤を伴っていた. 以上より, 腫瘍内癌を含まない多形腺腫との診断を得た.

経過: 術後全身状態には問題はなかったが, 創部の後

術後 14 日

術後 90 日

図9 術後顔面所見

2 週間後の退院時 (左) には閉眼可能となるも軽度麻痺は残存していたが, 90 日後 (右) には, ほぼ改善した.

下方にびまん性腫脹をきたした. その部の皮膚には変化がなかったので経過をみていたところ徐々に腫脹は軽減していった. 術直後顔面神経麻痺は認めなかったが, 翌日より軽度麻痺が口角より出現し, 2 日後には閉眼困難となったため, ビタミン B12 やベタメタゾンの点滴を施行した. 図 9 に示すように, 14 日後の退院時には閉眼可能となるも軽度麻痺は残存していたが, 90 日後にはほぼ改善した.

表 1 本邦における巨大耳下腺腫瘍

報告者	性, 年齢	病歴 期間	疼痛	術前顔面 神経麻痺	病理組織	術後顔面 神経麻痺	重量 (size)	報告年 (科)
岩本ら ⁶⁾	女, 58	18 年	(-)	(-)	多形腺腫+腺癌	(+)	1.74 kg	75 年 (外)
	男, 76	20 年	(+)	(-)	多形腺腫+扁平上皮癌	(+)	1.32 kg	
山本ら ⁷⁾	女, 78	68 年	(+)	(+)	多形腺腫+異型細胞	(+)	1.15 kg (17×14×12 cm)	85 年 (耳)
服部ら ⁸⁾	女, 71	40 年	(+)	(-)	粘表皮腫	(-)	1.7 kg (20×15×12 cm)	93 年 (耳)
木田ら ⁹⁾	女, 81	20 年	(+)	(-)	多形腺腫	(-)	1.0 kg (18×14 cm)	95 年 (耳)
白石ら ¹⁰⁾	女, 64	44 年	(-)	(-)	多形腺腫	(-)	(10×10×13 cm)	96 年 (耳)
加納ら ¹¹⁾		20 年	?	?	多形腺腫	?	(9×10×11 cm)	98 年 (耳)
町野ら ¹²⁾	女, 80	40 年	?	?	多形腺腫	?	1.99 kg (31×43×50 cm)	98 年 (形)
門司ら ¹³⁾	?	10+α 年			多形腺腫	?	(15×13 cm)	99 年 (耳)
自験例	男, 59	15 年	(-)	(-)	多形腺腫	(-)	1.13 kg (17×13×12 cm)	04 年 (耳)

考 察

耳下腺腫瘍の手術にあたって最も重要なことは腫瘍の病理組織が良性か悪性か、そして悪性の場合にはその悪性度はどうかということである。特に本症例のように巨大腫瘍の場合はその面積、容積が大きいため、部分的に腫瘍内に癌病巣が存在する場合は術前にそれを確定することはきわめて困難といわなければならない。巨大でその全体が癌腫である場合は、病歴、症状、視・触診で初診の段階で多くの例が手術不可能または適応外と判断されると考えられる。悪性所見に乏しい巨大耳下腺腫瘍にあっては腫瘍内癌の有無を術前に判断することは多くの例で不可能であるため、現実的にはそれによって手術適応、手術法を決めることは不可能といわざるを得ない。

Schultz-Coulon⁵⁾の1989年までの140年間の文献調査では、1 kg 以上の巨大耳下腺混合腫瘍（最大重量 26.5 kg）の 31 例（女性 20 例、男性 11 例）で、腫瘍内癌が認められたものは 3 例（10%）であった。表 1 に記載するように本邦の報告例^{6)~13)}では、巨大耳下腺腫瘍 9 例（1 例⁸⁾は腫瘍内癌ではなく全体が粘表皮癌であった。）のなかに腫瘍内癌が認められたものは 2 例であった。このように巨大耳下腺腫瘍で手術が施行された例は 10 例中 9 例がその病理組織の主体は多形腺腫であったことになる。

本症例では、術前の診断として CT, MRI, Ga シンチグラフィ、FNA を施行したが、このうち Ga シンチグ

ラフィーのみが腫瘍内の悪性病巣が否定できない結果を得た。またドップラー法を用いた超音波検査や造影 CT で腫瘍内に比較的血流が多く認められたことから、術前に血管造影を施行し、主要な栄養血管に塞栓術を施行した。これは術中、周囲組織、顔面神経との剥離操作において、もし癒着・浸潤の所見があった場合は、術中凍結標本も必要となり、これで悪性所見が認められた際は拡大手術に切り替えざるを得ないことと出血量を考慮していたためであった。本症例では術中の剥離操作は比較的容易で剥離中の出血も少なかった。

耳下腺の多形腺腫の大半は浅葉由来で、深葉由来はおよそ 10%といわれている¹⁾。本症例では、術前の画像検査から、下顎後静脈との関係および腫瘍の進展様式から浅葉由来と推定された。顔面神経の剖出には鼓室乳突裂を指標としてまず主幹を露出し、末梢に向けて神経刺激器を使用しながら神経剥離を行っていった。このように通常より広範な術野において顔面神経分枝を温存するように努めた。しかし本症例では術後 2 日目より顔面神経麻痺が発生した。その原因は特定できなかったが術野の神経露出部が長い距離にあることが関連していると考えられた。表 1 にみられるように巨大耳下腺腫瘍では記載のあった 6 例中、3 例で術後麻痺が現れている。術野が広範であるために神経露出部の乾燥、監視不十分のために起こるであろう物理的な牽引、圧迫等これらの可能性

に留意する必要があると考えられる。

巨大耳下腺腫瘍の摘出においては、同時に切除する周囲の健常組織を多くとることはできない。したがって手術では腫瘍の被膜に近接して剥離するために被膜からの細胞播種が起こる可能性が高いと考えなければならない。播種があれば術後に再発の起こる危険性があり、再発が起ると、そのほとんどが多発性であるといわれている¹⁴⁾¹⁵⁾。本症例でも長期にわたる十分な経過観察が必要であると思われる。このような術後の再発、術後の顔面神経麻痺の状態に関しては、これまで遠隔成績が報告されていない。表1に列举した10例の場合も個々の例について手術経験が報告されたものであり、Schultz-Coulon⁵⁾の31例についての調査でも予後については調査されていない。巨大耳下腺腫瘍の術後の遠隔成績について多数例を対象として調査することが今後の課題と考えられる。

ま と め

重量1 kgを越える近年まれにみる巨大な耳下腺腫瘍を経験し、発育年数と組織型と術後の顔面神経麻痺について、若干の文献的考察を加え報告した。

謝 辞

手術にあたって協力をいただいた当院外科、血管造影を施行していただいた脳神経外科、病理部の諸先生に感謝します。

本論文の要旨は、第65回耳鼻咽喉科臨床学会(2003年7月、京都)にて発表した。

参考文献

1) Gnepp DR and El-mofty SK : Salivary glands. Anderson's Pathology (ed by Damjanov I and Linder J). pp 1616 ~ 1646, Mosby, St. Louis, 1996.

- 2) 切替一郎：唾液腺の疾患。新耳鼻咽喉科学，第9版（野村恭也編）。490～511頁，南山堂，東京，1998。
- 3) Patrick J Bradley : Tumours of the salivary gland. Diseases of the Head and Neck, Nose and Throat (ed by Jones AS, Phillips DE and Hilgers FJM). pp 330 ~ 346, Arnold, Avon, 1998.
- 4) 賀来 亨：唾液腺の病変。新病理学各論，第12版（菊池浩，吉木 敬編）。227～230頁，南山堂，東京，1996。
- 5) Schultz-Coulon HJ : Pleomorphe Riesenadenome der Glandula Parotis. Laryngorhinotologie 68 : 445 ~ 449, 1989.
- 6) 岩本宗久，久保光伸，森脇 宏，他：巨大耳下腺混合腫瘍の2例。和歌山医学 26 : 63 ~ 69, 1975.
- 7) 山本祐三，宮宗 彰，武田一雄，他：悪性化した巨大な耳下腺由来混合腫瘍の1例。耳鼻臨床 78 : 533 ~ 538, 1985.
- 8) 服部雅彦，浜口幸吉，坂倉康夫，他：巨大な耳下腺腫瘍例。耳鼻臨床 86 : 1283 ~ 1287, 1993.
- 9) 木田亮紀，榎本知恵，根本則道，他：巨大耳下腺腫瘍の1例。耳鼻臨床 補 78 : 147 ~ 152, 1995.
- 10) 白石修悟，岩井 大，山下敏夫，他：巨大耳下腺腫瘍の1例。耳鼻 42 : 248 ~ 251, 1996.
- 11) 加納有市，向高洋幸：巨大耳下腺腫瘍の1例。日耳鼻 101 (増) : 732, 1998.
- 12) 町野千秋，囃 宗久，廣瀬 勇，他：超巨大耳下腺腫瘍の治験。日形会誌 12 : 707, 1999.
- 13) 門司幹男，杉本俊彦，進 武幹，他：動悸を主訴とした巨大耳下腺腫瘍の1例。日耳鼻 102 (増) : 1066, 1999.
- 14) Eneroth CM : Histological and clinical aspects of parotid tumors. Acta Otolaryngol Suppl 191 : 1 ~ 99, 1964.
- 15) Maran AG, Mackenzie IJ and Stanley RE : Recurrent pleomorphic adenomas of the parotid gland. Arch Otolaryngol 110 : 167 ~ 171, 1984.

原稿受付：平成15年9月17日

原稿採択：平成15年11月26日

別刷請求先：加藤尚美

〒600-8876 京都市下京区西七条南中野町8

京都南病院耳鼻咽喉科