まれな頬部腫瘍の2例

—副耳下腺腫瘍とステノン管原発腫瘍—

長谷川達央・内田 真哉・松波 達也*

Accessory Parotid Gland Tumor and
Tumor Arising from Stensen's Duct

Tatsuhisa Hasegawa and Masaya Uchida

(Nantan General Hospital)

Tatsuya Matsunami

(Kyoto Prefectural University of Medicine)

We treated two cases of tumors arising from accessory parotid gland and Stensen's duct. The first case was a 30-year-old female with a 10-year history of right cheek tumor. Sialo-CT findings suggested that the tumor detached from the parotid gland and enhancement around the tumor was not remarkable. Fine needle aspiration cytology demonstrated normal salivary gland cells. Therefore, this case was diagnosed as accessory parotid gland tumor and extirpation surgery was performed. The other case was an 86-year-old female with a 4 year history of right cheek tumor. Sialography demonstrated obstruction of Stensen's duct. Based on the surgical specimen, this case was diagnosed as tumor arising from Stensen's duct. We discuss the management of the facial nerve during resection of these tumors.

Key words : accessory parotid gland, Stensen's duct, sialography

はじめに

頬部に発生する腫瘍としてまれに耳下腺に付属する器官から発生するものが認められる。耳下腺に付属する器官としては、ステノン管および副耳下腺がそれに相当するが、副耳下腺は全人口の21～56%¹⁾²⁾に存在するといわれ、必ずしもすべての人にあるわけではない。今回われわれは、副耳下腺およびステノン管原発と考えられる腫瘍を経験したので、若干の考察を加え報告する。

症 例

(1) 症例1: 32歳, 女性。

主訴: 右頬部腫瘍。

現病歴: 平成4年頃から右頬部に腫瘤を自覚するも放

置していた。平成12年より近医外科にて経過観察されていたが、平成14年1月頃から腫瘍の増大を認めたため平成14年7月22日当科紹介となった。

現症: 当科初診時、右頬部に直径20mmの弾性硬で可動性良好な腫瘍を認めた。自発痛や圧痛はなく、顔面神経麻痺は認めなかった。

超音波検査: 右頬部にヤツガシラ状で境界明瞭な腫瘍を認めた。耳下腺組織に類似した等エコーの均質な組織が腫瘍の周囲に存在していた。

CT: 右頬部に良好に増強される腫瘍を認めた。シアロCTでは耳下腺および腫瘍の前縁にごく少量の造影剤の貯留を認めたが、明らかな腫瘍周囲への貯留を認めなかった(図1)。

図1 症例1. シアロ CT

右咬筋上に腫瘤を認める（矢印）. 腫瘍前縁にごく少量の造影剤が貯留している.

MRI: T1 強調画像, T2 強調画像ともに低信号でガドリニウムにて増強される腫瘍を認めた. 腫瘍と耳下腺, 表皮の間に連続性はなかった.

経過: 8月16日に FNA (穿刺吸引細胞診) を施行し, 異型性のない正常耳下腺組織との診断を得た. 以上より副耳下腺腫瘍の診断にて, 9月3日に頬部腫瘍摘出術を施行した. ステノン管を明確に同定するため, 術前にステノン管開口部より色素を注入した. 耳下腺手術に準じ耳前部より舌骨レベルまで S 字状に皮膚切開を行った. 耳下腺被膜上を前方に剥離し, 耳下腺前縁で神経刺激装置を用いて顔面神経各枝を同定し, さらに末梢側に剥離を進めた. 頬筋枝の深層に腫瘍を認め, これを咬筋より剥離, 挙上したところ, ステノン管より腫瘍に分枝する副導管を確認した. 副導管を結紮切断し腫瘍を摘出した (図2).

術後右顔面神経下顎縁枝の軽度の麻痺を認めたが, 術後3ヵ月で麻痺は消失した.

術後再発は認めていない.

病理学診断: 多形腺腫.

(2) 症例2: 86歳, 女性.

主訴: 右頬部腫瘍.

現病歴: 平成10年頃から右頬部腫瘍を自覚し, 近医外

図2 症例1. 術中所見

右上が頭側, 左下が尾側である. 副導管 (矢印) に連続して腫瘍 (星印) を認める.

図3 症例2. ガドリニウム造影頸部 MRI

右頬部に軽度増強される腫瘍を認める. 腫瘍は皮膚, 咬筋に浸潤している.

科にて経過観察されていた. 平成13年から増大を認めたため2月6日切開生検を施行された. 扁平上皮癌との診断を得たため, 2月13日当科紹介となった.

現症: 当科初診時, 右頬部に 61×50 mm の腫瘍を触知した. 腫瘍は可動性不良であり, 皮膚に発赤を伴っていた. 疼痛, 顔面神経麻痺はなかった. 頬粘膜は正常であった.

CT: 右頬部に辺縁が一部不正で強く増強される腫瘍を

図4 症例2. 唾液腺造影

右ステノン管が先細り状に途絶している（矢印）。

認めた。腫瘍は頰骨および下顎骨と接していた。

MRI: T1 強調画像で低信号, T2 強調画像で高信号を示しガドリニウムにて増強される腫瘍を認めた (図3)。皮膚との境界は一部不明瞭であった。腫瘍と耳下腺の明らかな連続性は認めなかった。

唾液管造影: 右ステノン管の先細り状の途絶を認めた (図4)。

経過: 以上よりステノン管由来の腫瘍を疑い, 2月7日頰部腫瘍摘出術を施行した。右耳前部より下顎部にかけて皮膚切開を行い, 耳下腺後縁で顔面神経本幹を確認した。顔面神経本幹から耳下腺前方まで顔面神経表層で剥離し顔面神経全枝を同定した。ステノン管に連続する腫瘍が頰部に存在し, 顔面神経の頰筋枝, 頰骨枝, 側頭枝に癒着していたため, これらを切断した。腫瘍の皮膚浸潤部に10mmの安全域をつけ, 浸潤のある咬筋, 頰骨体部, 耳下腺浅葉と一塊に摘出した。頰骨体部が凍結標本で断端陽性であったため追加切除を行った。耳下腺部リンパ節に転移を認めなかったため, 頸部郭清は行わなかった。耳後部に広頸筋皮弁を作製し, 皮膚欠損部を再建した (図5)。

術後再発を認めていない。また再建部のカラーマッチングは良好であった。

病理学的所見: 低分化型扁平上皮癌の診断を得た。腫瘍と耳下腺組織の間に耳下腺被膜が存在し組織学的にも連続性は認められなかった (図6)。ステノン管は先細り状に閉塞しておりステノン管原発腫瘍と考えられた。

考 察

(1) 副耳下腺腫瘍について

副耳下腺は耳下腺とは独立して存在し独自の排泄管 (副導管) を有する耳下腺前方にある唾液腺組織と定義されている³⁾。全人口の21～56%¹⁾²⁾に存在するとされ, 大きさは米瘤大から母指頭大, 組織学的には漿液腺優位で耳下腺組織に類似しているが, 粘液腺の割合が耳下腺に比し多いとされている⁴⁾。

副耳下腺腫瘍は全耳下腺腫瘍の1～7.7%を占めるまれな腫瘍で¹⁾⁵⁾, 病理学的にも耳下腺腫瘍に類似し約半数が多形腺腫である。しかし, 一方で悪性腫瘍全体の発生率が高く, 30～50%⁵⁾⁶⁾を占めるとの報告もある。また粘表皮癌の発生率が20%以上あり⁶⁾, 耳下腺における粘表皮癌の割合である5%に比し高率となっている。これは, 副耳下腺に粘液腺が多いことが一因と考えられている。

診断にはCT, MRIにて腫瘍と耳下腺組織との間に連続性がないことが必要条件である。その上でシアロCTにて腫瘍周囲に造影剤の貯留が指摘されれば確定診断可能であるが, 本症例のように腫瘍周囲への造影剤の流入が不良な症例もある。Rodinoら⁷⁾は, 副耳下腺腫瘍であることを証明する方法としてFNAを挙げており, 本症例でもFNAにて唾液腺組織が認められ術前診断に有用であった。ただし唾液腺多形腺腫に対するFNAは播種の危険性も指摘されており, 近日中に手術的治療を行うことを前提として行うべき診断方法である。

(2) ステノン管原発腫瘍について

ステノン管は耳下腺より頰粘膜に開口する導管であり, 組織学的には多列線毛上皮, 杯細胞, 基底膜, 線維性結合織よりなる⁸⁾。

ステノン管原発腫瘍に関する報告はわれわれの渉猟し得た限りでは国内が5例, 海外が25例^{9)～14)}と, きわめてまれな腫瘍である。病理学的には全例が悪性腫瘍であり, うち粘表皮癌が9例, 扁平上皮癌が7例であった。

ステノン管腫瘍の必要条件としてCarpenterら¹⁵⁾は「ス

図5 症例2. 手術所見

左図：腫瘍浸潤部周囲に 10 mm の安全域をつけ皮膚を切除，耳後部に作製した広頸筋皮弁で，切除部を再建。
右図：腫瘍はステノン管（矢印）に連続して存在している。

図6 症例2. 病理所見（HE 染色，100 倍）

萎縮をきたした耳下腺組織（左側）と腫瘍組織（右側）が耳下腺被膜により明瞭に境されている。

ステノン管に沿って存在し，ステノン管の閉塞をきたし，かつ耳下腺組織と独立してあること」としている。ステノン管には腺房細胞が存在しないため，腺房由来と考えられる腺癌や腺様嚢胞癌も除外するべきとの意見もあ

る¹⁰⁾。またステノン管周囲には豊富な結合組織が存在し間葉系の腫瘍はこれらを母地として発生した可能性があり，厳密にはこれら肉腫も除外するべきと思われる。本症例は，ステノン管内腔を閉塞する腫瘍であり耳下腺，副耳下腺との連続性はなかった。また病理組織学的には扁平上皮癌であり導管由来の腫瘍として矛盾はなかった。以上から本症例はステノン管原発腫瘍と考えられた。

術前診断には唾液腺造影にてステノン管の狭窄，閉塞を認めること，CT，MRI，超音波検査などで腫瘍に接して耳下腺，副耳下腺を認めないことが必要である。しかし，病理学的にも副耳下腺腫瘍とステノン管原発腫瘍との鑑別は困難なことがあり，術前にステノン管が原発であることを診断することはほぼ不可能と思われる。

(3) 治療について

副耳下腺腫瘍，ステノン管原発腫瘍も同様に治療の第一選択は手術的治療となる。

摘出術式としては，口内法，腫瘍直上切開による摘出，耳前部切開による摘出が挙げられる。口内法は，美容的には最も優れているが術野が得られにくく，悪性腫瘍の

多いこれらの腫瘍には適用しがたい。また、副耳下腺良性腫瘍であっても腫瘍が咬筋表層にあることが多いため口腔内からのアプローチは困難が伴い、ほとんど行われていない。腫瘍の直上を切開する方法は比較的切開線が短いことが特徴であるが、術野も狭く顔面神経の同定が困難なため不適切であるとする意見が多い。耳前部切開による術式は顔面神経の同定が確実であり、手術に伴う顔面神経麻痺の危険性が少ない。事実、Johnson ら⁵⁾は腫瘍直上切開のアプローチで摘出術を施行した10例中4例に顔面神経麻痺を認めたのに対し、耳前部切開13例中麻痺は1例も生じなかったと報告している。また切開線が比較的大きいにもかかわらず、頭髪や顎下部の皺線で術創が隠されるため、美容的にも優れている。以上の理由から、耳前部切開によるアプローチが推奨される。

顔面神経分枝の同定方法としては耳下腺前縁で同定する方法と、顔面神経本幹を確認し、そこから末梢に剥離して確認する方法がある。耳下腺前縁での同定は剥離する距離が短いと神経に対する侵襲が少ないという利点がある¹⁶⁾が、分枝自体が細く同定が困難な場合がある。これに対して本幹から確認する方法は神経を剥離する距離が長い反面、分枝を確実に同定できるという利点がある。したがって、良性の小腫瘍に対しては、耳下腺前縁での分枝の同定が望ましく、大きい腫瘍、悪性腫瘍に対しては本幹からの剥離が良いと思われる。特にステノン管悪性腫瘍では腫瘍が導管に沿って浸潤し得るため、耳下腺の浅葉もしくは全部を合併切除するべきとの意見もあり¹⁰⁾、腺内での顔面神経の走行が確認できる本幹からのアプローチが有用である。

唾液腺癌は一般的に放射線治療に抵抗性であるとされてきたが¹⁷⁾、術後照射による予後の改善が証明されており、リンパ節転移陽性例、高悪性腫瘍、T3以上の症例には放射線治療が推奨されている¹⁸⁾。扁平上皮癌であった症例2についても術後照射の適応であったが、年齢と本人の希望を考慮し照射は行わなかった。

まとめ

副耳下腺腫瘍とステノン管原発腫瘍を経験した。それぞれの臨床的特徴について述べた。手術においては顔面神経の同定方法が問題となるが、良性の小腫瘍では耳下腺前縁での分枝の同定が、大きい腫瘍、悪性腫瘍では本幹からの同定が適していると考えられた。

参考文献

- 1) Perzik SL and White LL : Surgical management of preauricular tumors of the accessory parotid apparatus. *Am J Surg* 112: 498 ~ 503, 1966.
- 2) Toh H, Kodama J, Tsuno K, et al. : Incidence and significance of the human accessory parotid gland. *J Fukuoka Dent Coll* 18 : 420 ~ 425, 1992.
- 3) 小川睦之輔 : 耳下腺の形態に就いて。京都医誌 15 : 465 ~ 485, 1918.
- 4) 武田泰典, 佐々木利明, 野坂洋一郎 : ヒト副耳下腺の組織学的検討—特に粘液細胞の出現について—。岩医大歯誌 10 : 47 ~ 54, 1985.
- 5) Johnson FE and Spiro RH : Tumors arising in accessory parotid tissue. *Am J Surg* 138 : 576 ~ 578, 1979.
- 6) 北吉 光, 佐藤武男, 吉野邦俊, 他 : 副耳下腺から発生した多形腺種の1例。形成外科 35 : 781 ~ 785, 1992.
- 7) Rodino W and Shaha AR : Surgical management of accessory parotid tumors. *J Surg Oncol* 54 : 153 ~ 156, 1993.
- 8) Raymond AK and Batsakis JG : Stensen's duct carcinomas. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 100 : 1035 ~ 1036, 1991.
- 9) Steiner M, Gould AR, Miller RL, et al. : Malignant tumor of Stensen's duct. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 87 : 73 ~ 77, 1999.
- 10) 島田剛敏, 今村裕美子, 林戸 功, 他 : ステノン管原発腫瘍の1症例。JOHNS 17 : 627 ~ 630, 2001.
- 11) 長田哲次, 大関 悟, 笹栗正明, 他 : Primary carcinoma of Stensen's duct の1症例。口腔腫瘍 7 : 281, 1995.
- 12) 北尻真一郎, 田淵圭作, 森田武志, 他 : ステノン管由来と思われた唾液管癌例。耳鼻臨床 92 : 999 ~ 1002, 1999.
- 13) 小林泰輔, 高須賀信夫, 村上信五, 他 : 耳下腺主管より発生したと考えられた乳頭状腺癌例。日耳鼻 93 : 654, 1990.
- 14) 中村 宏, 矢原三十美, 林崎勝武, 他 : ステノン管より発生したと考えられる adenocarcinoma の1症例。日耳鼻 89 : 1093, 1986.
- 15) Carpenter R, Watkins RM and Thomas JM : Primary carcinoma of Stensen's duct. *Br J Surg* 73 : 926 ~ 927, 1986.
- 16) 吉原俊雄 : 副耳下腺腫瘍の手術。口咽科 14 : 219 ~ 223, 2002.
- 17) 岡本美孝 : 唾液腺腫瘍の治療における顔面神経の取り扱い。JOHNS 15 : 1907 ~ 1910, 1999.
- 18) Johns ME : Parotid cancer; a rational basis for treatment. *Head Neck Surg* 3 : 132 ~ 144, 1980.

原稿受付 : 平成15年7月11日

原稿採択 : 平成15年9月10日

別刷請求先 : 長谷川達央

〒601-8566 京都市上京区河原町通広小路上の梶井町465

京都府立医科大学耳鼻咽喉科学教室