再発した多形性腺腫（混合腫瘍）の一例

小笠原 寛・吉村 史郎・戸田 勝也・入谷 寛

A Case of Recurrent Pleomorphic Adenoma
(Benign Mixed Tumor) in the Parapharyngeal SpaceHiroshi Ogasawara, Shiro Yoshimura, Katsuya Toda
and Hiroshi Iritani

(Hyogo College of Medicine)

The patient was a 20-year-old male who complained of swelling in submandibular area for a year. A large mass extended from the base of the skull to the upper border of the thyroid cartilage. The histopathological diagnosis was pleomorphic adenoma with peroral biopsy. Enucleation of the tumor was done through the a combination of peroral and cervical approaches. Histopathologically, components of the tumor consist of myoepithelia, stroma and a nest of squamous cell with keratinization, mitosis were infrequently encountered, and a part of the tumor capsule was very thin. The tumor seemed to arise from the mucosa of the palate. Salvage operation was done 5 years later, with a transparotid-cervical approach with mandibulotomy in the ramus mandible, which gave a wide field for surgery.

Key words : pleomorphic adenoma, parapharyngeal space, transparotid-cervical approach

はじめに

副咽頭間隙とは、頭蓋底、脊椎、下顎枝、耳下腺、咽頭壁に囲まれた円錐形の間隙である。この部位に発生する腫瘍の多くは良性の多形性腺腫や神経原性腫瘍で、稀に悪性リンパ腫等の悪性腫瘍をみる¹⁾²⁾。

多形性腺腫は耳下腺または口蓋や咽頭側壁の小唾液腺から生じ、自覚症状に乏しいためにしばしば巨大になってから受診する。組織学的には良性腫瘍であるが、ときには悪性腫瘍が混在することもある。生検により播種したり、解剖学的に摘出困難な部位にあるため全摘できずに

再発することも多く、治療は必ずしも容易ではない。

我々は巨大な多形性腺腫を生検の後に口内法と外切開法とにより一塊として摘出したが、5年後に再発し頸部から経耳下腺法と下顎枝の一時離断術によって再摘出を行った一例を経験したので、病理組織像と手術手技を中心に報告する。

症 例

症 例：20才，男子，学生

初 診：1980年2月19日

既往歴および家族歴：特記すべき事なし

現病歴：約 1 年前に右顎下部腫瘍に気付いたが放置していた。腫瘍は徐々に増大してきたが、自発痛、圧痛、嚥下障害、呼吸困難はなかった。学校検診で咽頭の腫脹を指摘され来院した。

初診時所見：右軟口蓋から咽頭側壁にかけて膨隆を認め、顎下部と下顎後部に腫瘍を触知した。咽頭と顎下部の腫瘍は双手診で可動性は良く、一塊であった。右上咽頭腔は圧排され、閉塞していた。軟口蓋粘膜の可動性は一部不良であった。耳鏡、鼻鏡所見には異常はなく、頸部リンパ節腫脹、全身の異常所見も認めなかった。神経鞘腫または混合腫瘍を疑って腫瘍に最も近い部位で生検が行われ、病理組織診断は多形性腺腫であった。

検査所見：唾液腺造影では顎下腺、耳下腺への腫瘍の進展はなく、耳下腺は外側へ圧排されていた。CT-scan では右副咽頭間隙に巨大な腫瘍を認め、陰影は不均一で、一部に壊死を思わせる部分も存在した。造影剤による陰影増強は認めなかった。腫瘍の範囲は、上方は頭蓋底、下方は甲状軟骨上縁、外側は下顎骨、前方は翼状突起、後方は脊椎に接していた。耳下腺と腫瘍との間には間隙がみられた (図 1)。

手術所見：1980年 4 月 2 日、経鼻挿管による全身麻酔下に、口内法と外切開法とを併用して手術を施行した。腫瘍は弾性硬、平滑で被膜をもち、周囲組織とは容易に剝離できた。腫瘍は顎下腺、耳下腺とは関係なく、被膜を破ること

なく一塊として摘出できた。形は亜鈴型、重量は 119 g で、病理組織学的には多形性腺腫であった (図 2)。

病理組織所見：腫瘍組織は、管状や充実性に増生した筋上皮細胞と、角化を伴い扁平上皮へ分化した細胞成分に富む上皮細胞と、軟骨様に増生した非上皮細胞の基質とから構成されていた。細胞の異型性はなく、核分裂像はほとんど認めなかった。被膜は存在したが一部途中で途ぎれたり、細胞成分の少ない軟骨様基質のところでは菲薄になったりしていた。

術後経過：手術後一時的に開口障害が生じたが 3 ヶ月後には消失し、構音障害や嚥下障害もなく経過した。しばらく来院がなく、1984 年 11 月にリンパ節腫脹と下顎角部に腫瘍を触れ、再発が確認された。

再発時所見：腫瘍は初回とほぼ同じ位置に存在し、上方は咽頭陥凹まで咽頭側壁の腫脹が認められ、下方は舌背の高さまでであった。顎下後部と下顎角に、小豆大と $25 \times 15 \text{ mm}$ の弾性硬で可動性良好な腫瘍を触知した。耳下部の腫脹は耳下腺と腫瘍が一塊となっているものと思われた。CT-sialogram では耳下腺深葉が腫瘍を取り囲むようにあり、耳下腺と腫瘍の間には間隙は認められなかった。腫瘍は造影剤による陰影増強はみられず、陰影の不均一なところがみ

図 1 初回治療時の CT-scan

図 2 管状や充実性に増生した筋上皮細胞と、角化を伴った扁平上皮細胞、軟骨様の基質より腫瘍は構成されている。被膜は一部途中で途切れ、外側の薄い被膜のみになっている。

られた。頭蓋底，脊椎，下顎骨，翼状突起の破壊はなく，これらに囲まれたところに腫瘍が局在した（図3）。

再手術所見：1985年2月27日，経口挿管による全身麻酔下に施行した。多形性腺腫の再発とリンパ筋腫脹が存在したため，準悪性腫瘍として，上顎部リンパ節清掃と腫瘍周囲の軟部組織を含めて一塊とした摘出を試みた。S状皮膚切開を顎下部まで延長し，前回の手術瘢痕部は広顎筋を摘出側につけた。耳下腺浅葉を剝離し，

図3 再発時のCT-sialogram

図4 腫瘍摘出後の術野

顔面神経は頸枝を除き上方へ挙上した。下顎骨は図4のように下顎枝の下顎孔の上方で鉤状に一時的に離断し，上前方に翻転した。内頸静脈は温存し，外頸動脈は舌動脈の上で結紮切断了。腫瘍は耳下腺深葉と癒着しており，軟口蓋瘢痕組織とも癒着があった。これらと顎下腺，下顎骨膜，顎二腹筋，茎突舌筋，内側翼突筋，咬筋，口蓋骨水平板を含めて腫瘍を摘出した。腫瘍の上端は頸動脈孔におよんでいた。舌神経，下歯槽神経，舌下神経，迷走神経，交感神経は明視下に温存できた。下顎骨は鋼線で固定し，軟口蓋は頬粘膜弁で閉鎖した。

病理組織所見：初回時と同様に，管腔形成，扁平上皮化成，軟骨様の非上皮細胞が混在する多形性腺腫であった。核分裂像はほとんど認めなかった。リンパ節への転移はなく，顎部瘢痕部に孤立性の小さな腫瘍巣を認めた。

術後経過：手術後顔面神経麻痺と開口障害を生じたが，術後11ヶ月の現在，軽度の下口唇の顔面神経麻痺以外の機能障害はなく，美容形態にも問題はなく，現時点では再発はみられない。

考 察

副咽頭間隙の腫瘍で良性と考えられた場合には生検の適応はなく、もし既に口腔から生検が行われていたならば咽頭粘膜と咽頭収縮筋を含めて腫瘍を摘出すべきである。しかしこのように生検部位を含めて摘除しても、内頸動脈に沿って播種されている可能性があり、腫瘍摘出は不完全になることがある³⁾。McIlrath¹⁾も術中の迅速組織診断の用意は意味があるが、生検なしに摘出すべきであると述べている。本例は生検が行われ、第1回手術時に被膜を破ることなく全摘出されたので、生検も再発の原因として否定はできない。

多形性腺腫では病理組織学的に細胞成分が少なく、軟骨粘液器質をもつ腫瘍は被膜が不完全なことが多く再発しやすいという⁴⁾。また多数の細胞分裂像が観察される腫瘍では、再発、転移、悪性化しやすいといわれている⁵⁾。本例の初回摘出標本では図1に示したように、細胞成分の少ない部分に一致して被膜が途ぎれるように薄くなった部位が認められ、腫瘍は一塊として摘出されたが、散布されやすい状態であったと考えられた。細胞分裂像はほとんどなく、臨床経過も悪性を思わせる所見はないが、将来悪性化する可能性は否定できない。しかし悪性混合腫瘍への変化は少なく、47例の悪性混合腫瘍のうち以前に良性腫瘍として手術を受けた既往のあるものはそのうちの9例のみであったという報告もある⁶⁾。

悪性化には正常の唾液腺から悪性混合腫瘍が発生するように良性混合腫瘍から発生するという説と、良性混合腫瘍は発生時に既に形態的、細胞学的悪性部分を含んでいるという説の二説がある。しかしLivolsi⁶⁾は、悪性混合腫瘍は悪性唾液腺腫瘍の15%と多く、良性混合腫瘍には多くは未分型腺癌が伴うことから上記二説には否定的で、悪性混合腫瘍は良性混合腫瘍と関係なく発生すると述べている。

副咽頭間隙腫瘍の鑑別診断には、自覚症状は軽度なことが多いため役にたつことは少なく視

診や特に触診が重要である。

多形性腺腫の多くは耳下腺から発生する。耳下腺腫瘍の場合、咽頭側壁が腫脹することは少なく、腫脹をみた場合は耳下腺深葉原発か咽頭粘膜原発かの鑑別が必要である。耳下腺原発では腫瘍は咽頭収縮筋の外側にあるため、咽頭粘膜は腫瘍に対し常に可動性をもっている。一方、粘膜原発では腫瘍は咽頭収縮筋の内側にあるため、粘膜や筋肉の可動性は前者より不良で癒着していることが多い。粘膜原発腫瘍が成長して筋肉を圧排分割して副咽頭間隙へ進展することもあるが、多くは耳下腺原発であるとFluur⁷⁾は述べている。Som等⁸⁾は、CT-sialogramで咽頭粘膜原発腫瘍は耳下腺と腫瘍との間に線維と脂肪組織を認めるが、耳下腺原発腫瘍の場合にはこれが存在しないこと、CT-scanで、造影剤によって陰影が増強されないものは、血管撮影でも血管の増生はみられず、故にCT-scanで陰影増強されない腫瘍に対しては血管撮影の必要はないこと、また悪性リンパ腫やリンパ節転移も造影剤で増強されないが、結節状を呈する点が多少異ると述べている。本例の初回治療時には、耳下腺造影では耳下腺が外方に圧排され、CT-scanでは腫瘍と耳下腺との間に間隙を認め、口蓋粘膜と腫瘍との可動性は不良であったことから、口蓋粘膜原発腫瘍と考えられた。

副咽頭間隙には、内頸動脈、内頸静脈、舌咽神経、迷走神経、副神経、舌下神経、頸部交感神経が含まれるため手術手技は難しい。副咽頭間隙腫瘍の摘出には従来から、口内法や外切開法が単独または両者を組み合わせて行われている。口内法では小さな腫瘍が適応となるが、口内法では術野はせまく、また頭蓋底、下顎縁に近いところや咽頭後壁の処置は困難で、用手剝離を行うことが多くなり血管や神経損傷を起す危険がある。Shoss等¹⁰⁾は耳下腺深葉から発生した混合腫瘍は口内法による生検や摘出は播種や手術時の副損傷の危険があり、外切開法を用いるべきと述べている。また、Som等⁸⁾は茎

状突起におよんでいる腫瘍は、口内法のみでは危険なので外切開法と組み合わせるべきであると述べている。外切開法は舌骨の高さで皮膚切開をして副咽頭間隙に入るが、顎二腹筋、茎突舌筋、茎突舌骨靱帯があり、内側、上方、後方の術野がとりにくい。下顎骨を上方に強く引いたり、下顎骨離断を行うと術野は広がる。外切開法のひとつとして経耳下腺法があり、主として耳下腺深葉から発生した腫瘍に用いられる。耳下腺浅葉を除去した後、顔面神経を露出し、これを温存して腫瘍の摘出を行うというものである⁸⁾。外切開法に下顎骨正中離断を加え、口腔から咽頭に到達する方法は、より巨大な耳下腺原発以外の副咽頭間隙腫瘍の摘出に適している⁸⁾⁹⁾。この方法では頭蓋底の露出が可能で、血管の処置も容易である。更に広く術野をとれば耳下腺深葉を含めた摘出ができる。

本例の初回手術では、下方は甲状軟骨上縁まであったため口内法と外切開法とを併用して、下顎骨離断を行うことなく、肉眼的には被膜に覆われた腫瘍を一塊として摘出できた。しかし組織学的には被膜の形成が菲薄であったり途ぎれたりしており、盲目的剝離が播種の原因となったことは否定できない。このような被膜が不完全な巨大な腫瘍や耳下腺深葉から発生した多形性腺腫は経耳下腺法や下顎骨一時離断術を行い、術野を拡大するとともに出来るだけ健常組織を含めた摘出が必要であると考ええる。

再手術時には耳下腺深葉へ腫瘍が突出し、翼状突起、頭蓋底に接していたので経耳下腺法を用いた。耳下腺浅葉を分離し、顔面神経を遊離し、咬筋を一部離断することによって下顎骨の操作は容易となった。下歯槽神経を保存し、かつ術後の下顎偏位を防ぐため、下顎孔の上方で鉤状に下顎を一時離断した。離断した下顎骨関節突起側を外前方に回転させ、他方下顎体部側は前方に引くことにより広い術野を得ることができた。つまり耳下腺の摘除と下顎枝の離断が相持ち合って、後方や上方の視野は十分で、血管、神経、頭蓋底の処置が可能であった。一部

口蓋粘膜を含めた腫瘍摘出のため、内側の剝離は口内法を用いたが、術野は十分でなかった。組織学的には良性腫瘍であるために、下顎骨の正中離断術式の適応はためられるが、経耳下腺法と併用した拡大手術は一考に値する。本例に行った術式でも十分に頭蓋底を視野に入れることができ、血管や神経の保存が可能であったことを強調したい。本例では、顔面神経、舌神経、舌下神経、舌咽神経、下歯槽神経、副神経、頸部交感神経は保存され、開口障害、構音不全もきたさなかったが、再々発や悪性腫瘍の出現には今後長期の経過観察が必要である。

まとめ

副咽頭間隙に発生した巨大な腫瘍のため、顎下部腫瘍を主訴として受診した、20才男子の多形性腺腫の一例を報告した。

生検後、口内法と外切開法を用い一塊として摘出したが5年後に再発した。

病理組織学的には、管腔形成、扁平上皮、非上皮細胞よりなる多形性腺腫で、被膜の一部は薄く途ぎれたようになっていた。この薄い被膜が原因で生検時または摘出時に腫瘍細胞が散布され再発したと考えられた。

腫瘍は口蓋粘膜から発生し副咽頭間隙へ進展したと考えた。

再手術は、経耳下腺法に下顎枝の一時離断を加えることにより頭蓋底も明視下になり腫瘍摘出が可能となった。

参考文献

- 1) McIlrath DC, et al : Tumors of the parapharyngeal region. Surg Gyn Obst 114 : 88~94, 1963.
- 2) Work WP and Hybels RL : A study of tumors of the parapharyngeal space. Laryngoscope 84 : 1748~1755, 1974.
- 3) Work WP : Tumors of the parapharyngeal space. Tr Am Acad Ophth Otol 73 : 389~394, 1969.
- 4) Naeim F, et al : Mixed tumors of the salivary glands. Arch Pathol Lab Med 100 :

- 271~275, 1976.
- 5) Ryan RE, et al : Cellular mixed tumors of the salivary glands. Arch Otolaryngol 104 : 451~453, 1978.
- 6) Livolsi VA and Perzin KH : Malignant mixed tumors arising in salivary glands. I. Carcinomas arising in benign mixed tumors : a clinico-pathologic study. Cancer 39 : 2209~2230, 1977.
- 7) Fluor E : Parapharyngeal tumors. Arch Otolaryngol 80 : 557~565, 1964.
- 8) Som PM, Biller HF and Lawson W : Tumors of the parapharyngeal space, preoperative evaluation, diagnosis and surgical approaches. Ann Otol Rhinol Laryngol 90 Suppl 80 : 3~15, 1981.
- 9) 弓崎明輝, 茂木五郎, 藤吉達也 : 副咽頭間隙腫瘍一下顎骨正中切断による手術法一. 耳鼻 31 : 493~496, 1985.
- 10) Shoss SM, Donovan DT and Alford BR : Tumors of the parapharyngeal space. Arch Otolaryngol 111 : 753~757, 1985.
- (別刷請求先 : 小笠原 寛
〒663 西宮市武庫川町 1-1
兵庫医科大学耳鼻咽喉科学教室)