小唾液腺より発生した Malignant Oncocytoma の 1 症例

伊達 知仁・上田 勉・白根 誠・山根 哲実*

Malignant Oncocytoma Arising from a Minor Salivary Gland of the Buccal Mucosa ; A Case Report

Tomohito Date, Tsutomu Ueda, Makoto Shirane and Tetsumi Yamane
(National Kure Hospital)

We experienced the rare case of a malignant oncocytoma which arose from a minor salivary gland of the buccal mucosa. The case was a 57 year-old male with a small mass in his buccal mucosa as the chief complaint. External irradiation to the local field was performed after surgical removal of the primary lesion. Due to the presence of cervical metastasis, however, a left neck dissection performed 5 months later. The tumor cells were large, and acidophilic granules filled their cytoplasm. The nuclei were large and had very clear nucleoli. A tendency towards invasion into the veins and lymph ducts was also seen observed. These findings satisfied the clinical and pathohistological criteria for a malignant oncocytoma.

Key words : malignant oncocytoma, minor salivary gland, acidophilic granules, venous and lymph duct invasion

はじめに

Oncocytoma は、唾液腺腫瘍に占める割合が 1 % に満たないまれな腫瘍である。良性のものが大半を占めるが、10%前後に悪性の性質を持つ、いわゆる Malignant Oncocytoma が存在する。今回我々は、頬粘膜の小唾液腺より発生した、Malignant Oncocytoma の貴重な 1 症例を経験したので、若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

患者：57歳、男性。

主訴：左頬粘膜腫瘍。

既応歴：B型慢性肝炎、その他特記すべき所見無し。

現病歴：平成9年8月20日、左頬粘膜の無痛性の腫瘍に気付いた。8月25日近医受診後、8月27日当科へ紹介となった。

初診時所見：左頬粘膜、ステノン管開口部の前方に、

直径 2 cm 大でやや硬い、赤褐色の腫瘍を認めた。頸部リンパ節等、他の耳鼻咽喉科領域には、特記すべき所見はなかった。

血液所見：慢性肝炎に伴い、白血球 2700/ μ l、血小板 58000/ μ l と低値であったが、その他特記すべき所見はなかった。

経過(図1)：平成9年9月18日入院し、翌9月19日腫瘍摘出術を施行した。病理報告で、Malignant Oncocytoma との回答を得た。術後、局所に 60 Gy の外照射を加えた。経過良好で12月2日退院した。以後、外来にて経過観察していたところ、平成10年3月15日受診時、左頸下部リンパ節を触知した。その後、急速な増大傾向を認めたため、腫瘍の転移を疑った。4月13日再入院し、4月14日左頸部郭清術を施行した。結果、左頸下部リンパ節3個に転移を認めたが、他のリンパ節には転移は認めなかった。5月21日退院し、外来にて経過観察を続け

H9. 8/24 初診
 9/18 第1回入院
 9/19 腫瘍摘出術
 → Malignant Oncocytoma
 10/1~11/13 放射線治療 (60Gy)
 12/2 退院
 H10. 3/15
 左顎下部リンパ節が急激に増大
 4/13 第2回入院
 4/14 左頸部郭清術
 5/21 退院

現在, 外来にて経過観察中

図1 症例の経過

ているが, 現在までの5カ月間, 再発, 転移を認めていない。

病理所見: 図2に原発巣の病理所見(弱拡大)を示す。異型性に富む大小不同の腫瘍細胞が, 胞巣構造を形成していた。強拡大では, 腫瘍細胞は大型で, 核は大きく明瞭な核小体を有し, 細胞質に好酸性の顆粒が充満していた(図3)。また, 標本の一部には血管内に腫瘍細胞を認め, 腫瘍の浸潤を疑わせた(図4)。さらに, リンパ管内にも多数の腫瘍細胞が存在していた(図5)。

画像所見: 平成10年3月19日のCT所見では, 左顎下腺周囲に数個の腫大したリンパ節を認め, 転移を疑わせた。

図2 原発巣の病理所見(HE染色 ×10)
 異型性に富む大小不同の腫瘍細胞が胞巣構造を形成していた。

図3 図2の強拡大(HE染色 ×40)
 腫瘍細胞は大型で, 核は大きく明瞭な核小体を有し, 細胞質に好酸性の顆粒が充満していた。

図4 図2の病理標本の一部
 血管内に腫瘍細胞を認めた。

図5 図2の病理標本の一部
 リンパ管内に多数の腫瘍細胞を認めた。

図6 平成10年3月19日のCT所見
左顎下部に数個の腫大したリンパ節を認めた。

た(図6)。

考 察

Oncocytoma は、唾液腺腫瘍に占める割合が1%に満たないまれな腫瘍である。耳下腺に好発するが、顎下腺や舌下腺、さらには喉頭、硬口蓋、軟口蓋、鼻副鼻腔などの小唾液腺からの発生例も報告されている^{1)~7)}。多くの Oncocytoma は良性であるが、きわめてまれに悪性の特徴を有する、いわゆる Malignant Oncocytoma が存在する。片岡ら²⁾によると、1953年に Bauer & Bauer⁸⁾が耳下腺の Malignant Oncocytoma を報告して以来、1990年までに32例の報告があるのみである。年齢的には50歳代から60歳代、性別では男性に多く発生する。由井ら⁹⁾は、その出現頻度は全 Oncocytoma 120例中20例に認められ、約16%であろうと推測している。

Malignant Oncocytoma の術前診断には、CT、MRI、エコー等の画像診断が、腫瘍の位置、大きさ、形状、広がり、周囲臓器との関連については有用であるが、術前の病理組織診断は容易ではない。安藤ら¹⁰⁾は、唾液腺の Oncocytoma の術前診断に、穿刺細胞診が安全かつ容易で、迅速に良性、悪性の判定と病理組織型の推定できる検査法であると報告している。

Malignant Oncocytoma の病理組織学的特徴として光

顕的には、HE 染色で腫瘍細胞は大型で、核は大きく明瞭な核小体を有し、細胞質に好酸性の顆粒が充満し、胞巣状の増殖を認める。また、特筆すべきは腫瘍細胞の、血管内、リンパ管内への浸襲傾向である¹⁾⁴⁾⁵⁾。これらの所見はすべて本症例に認められ、悪性と診断した重要な根拠であった。PTAH (燐タングステン酸ヘマトキシリン)染色においては、細胞質内に暗紫色の細顆粒を認める。

電顕的には、腫瘍細胞の細胞質内に多数の糸粒体が存在する事、ゴルジ装置や粗面小胞体が乏しい事等の特徴がある¹⁾⁴⁾⁵⁾。Ellis ら¹¹⁾は、悪性と診断するための診断基準として、核の著明な異型性と多型性、多数の核分裂像、異型核分裂像をあげ、特に重要な所見として、被膜の欠如、神経周囲腔への浸潤、リンパ管、血管への浸襲などを挙げている。前述した通り、本症例はこれらの所見をほぼ満たしていたため、Malignant Oncocytoma の診断に至ったが、症例によっては病理組織学的に悪性所見に乏しい事も少なくなく、特に本症例のような、小唾液腺原発の Oncocytoma は、病理組織学には良性でも、局所に破壊的浸潤を示すものも多い^{12)~14)}。ゆえに、確診に至るには病理組織学的所見のみならず、リンパ節転移、遠隔転移等の臨床経過から判断せざるを得ない場合もある。

Malignant Oncocytoma の臨床的特徴は、上記のごとく、頸部リンパ節転移や、肺、肝、脳等への血行性の遠隔転移を来しやすい事である。本症例でも、原発巣摘出後に局所への外照射を加えたが、約5カ月で左頸部リンパ節への転移を認めたため、左頸部郭清術を施行した。

Malignant Oncocytoma の治療法としては、原発巣の根治的手術が原則である。放射線治療や静注、動注などの化学療法の報告もあるが、大きな有用性は認められていない^{12)~14)}。

過去の症例においては、肺、肝、脳等への遠隔転移を来したものが、高頻度に認められており、Malignant Oncocytoma の予後は不良であると報告されている^{12)~14)}。今後、長期にわたる注意深い経過観察が必要であると考ええる。

ま と め

1) 頬粘膜の小唾液腺より発生した、Malignant Oncocytoma の貴重な1症例を経験した。

2) 腫瘍は大型で、核は大きく明瞭な核小体を有し、

細胞質には好酸性の顆粒が充満していた。また一部では、血管内、リンパ管内への浸潤傾向を示していた。これらの所見は、文献に報告されている病理組織学的特徴を満たすものであり、本症例を“悪性”と診断した重要な根拠であった。

3) 原発巣摘出後、局所への外照射を追加したが、約5ヵ月で左頸部リンパ節への転移を認めたため、左頸部郭清術を施行した。この経過は、文献に述べられている本疾患の臨床的特徴に一致していた。

稿を終えるにあたり、本論文のご校閲を賜りました夜陣紘治教授に深謝します。

本論文の要旨は、第24回日本耳鼻咽喉科学会中国地方部会において口演した。

参考文献

- 1) 新宅雅行, 諸岡 健: 唾液腺膨細胞癌 (Oncocytic carcinoma) の1例. 癌の臨床 **43**: 999~1004, 1997.
- 2) 片岡隆嗣, 兵 行和, 星谷 勤, 他: Malignant Oncocytoma の2症例. 耳鼻臨床 補37: 327~339, 1990.
- 3) 浅野庄三, 暁 清文, 吉田愛知, 他: 原発巣不明の頸部 Malignant Oncocytoma の一例. 耳鼻臨床 **76**: 12, 3203~3207, 1983.
- 4) 佐井博範, 中山 敏, 松浦秀博, 他: 耳下腺 Oncocytic carcinoma の1例. 癌の臨床 **43**: 990~992, 1997.
- 5) 宮口 衛, 石田 稔, 荻野 敏, 他: 耳下腺 malignant oncocytoma の1症例. 日耳鼻 **84**: 272~274, 1981.
- 6) Gray SR, Cornog JL and Seo IS: Oncocytic neoplasms of salivary glands; a report of fifteen cases including two malignant oncocytomas. Cancer **38**: 1306~1317, 1976.
- 7) Goode RK and Corio RL: Oncocytic adenocarcinoma of salivary glands. Oral Surg Oral Med Oral Pathol **65**: 61~66, 1988.
- 8) Bauer WH and Bauer JD: Classification of salivary glands; study of one hundred forty three cases. Arch Pathol **55**: 328~346, 1953.
- 9) 由井誠一郎, 三吉康郎, 板倉康夫, 他: Oncocytoma の2症例. 耳鼻臨床 **69**: 919~926, 1976.
- 10) 安藤一郎, 上原紀夫, 仙石 規, 他: 唾液腺 oncocytic cell tumor の細胞診. 耳喉 **59**: 1016~1017, 1987.
- 11) Ellis GL, Auclair PL, Gnepp DR, et al: Other malignant epithelial neoplasms. Surgical pathology of the salivary glands (ed Ellis GL, Auclair PL and Gnepp DR). pp 455~488, W.B. Saunders Company, Philadelphia, 1991.
- 12) 小上芳春, 奥田 稔, 川堀眞一: 耳下腺 Oncocytoma の電顕像. 耳鼻臨床 **71**: 825~833, 1978.
- 13) Brandwein MS and Huvos AG: Oncocytic tumors of major salivary glands; a study of 68 cases with follow-up of 44 patients. Am J Surg Pathol **15**: 514~528, 1991.
- 14) Ellis GL: "Clear Cell" oncocytoma of salivary gland. Hum Pathol **19**: 862~867, 1988.

(別刷請求先: 伊達知仁
〒737-0023 呉市青山町3-1
国立呉病院耳鼻咽喉科)