耳下線原発癌肉腫の一症例

中 澤 勉 岸 保 鉄 也 久 松 建 一
荻 野 純 鈴 木 幸 一* 加 藤 良 平*
村 上 嘉 彦

論文要旨

極めて稀な耳下腺原発の癌肉腫の一症例を経験したので報告する。症例は57歳男性、1989年5月開口障害と左耳下部疼痛出現、8月に左耳下腺深葉腫瘍の診断で腫瘍摘出術施行した。その後の化学療法や放射線療法にても効果なく腫瘍は増大傾向を示し、翌年の4月に再手術を行うも同月下旬には肺転移を認め8月に他界した。病理組織学的所見では、初回手術材料は粘液腫様の間質を伴った扁平上皮癌で、その後の手術材料では、低分化な癌腫成分とともに、横紋筋肉腫、軟骨肉腫、線維肉腫および悪性線維性組織球腫等多彩な組織成分が混在し、それらの成分の間に移行像が観察され、以上より癌肉腫と診断された。

Key words: 耳下腺 (parotid gland), 癌肉腫 (carcinosarcoma), 真の悪性混合腫瘍 (true malignant mixed tumor)

はじめに

唾液腺腫瘍の中で癌肉腫はきわめて稀である。癌肉腫とそれより発生した紡錘形細胞肉腫成分の為に二相性を呈する腫瘍で、喉頭、咽頭、食道、肺、子宮等において報告されている。今回、我々は耳下腺の癌肉腫と診断し得た一症例を経験したのでここに報告した。

症 例

症 例: K. F. 57歳, 男性。

主 訴: 開口障害・左耳下部腫脹。

既往歴: 7歳時 大腸カタル, 筋炎 (全麻下切除)。

50歳頃より高血圧降圧剤内服。

薬剤アレルギー (+)

嗜好: 喫煙20本/日, 飲酒5合/日。

家族歴: 特記すべきことなし。

現病歴: 1989年5月中旬より開口障害, 左耳下部疼痛出現した。疼痛は唾液分泌時に強く, 次第に左耳・後頸部・下顎にも波及した。同月下旬に近医耳鼻咽喉科を受診し左耳下腺炎または左顎関節炎の診断にて抗生剤内服するも症状の改善を認めず, さらに近医整形外科受診し鎮痛剤処方されるも疼痛軽快せず, 6月19日紹介にて山梨医科大学耳鼻咽喉科を初診した。

初診時所見: 1横指の開口障害と35×50mmの硬く

固定し圧痛を伴った左耳下部腫瘤を認めた。開口障害による摂食不良のため体重は減少し, 疼痛のため睡眠不足であった。尚, 顔面神経麻痺はなかった。

初診時検査所見: 血液生化学検査上, ごく軽度の肝機能障害と高尿酸血症が認められたが, その他に著変は認められなかった。超音波検査所見 (図1a) では, 左耳下腺に5.1×3.8×3.4cmの境界明瞭充実性の腫瘤を認め, 内部エコーは低エコーであったが, くびれ様構造と, 一部高エコーの部分が認められた。また, CT スキャン所見 (図1b) では, 左茎状突起から中咽頭外側壁に軟部組織陰影の腫瘤があり, 内頸動脈・第IV・X脳神経, 翼口蓋筋にも浸潤していた。次に施行したMRI所見 (図1c) では, 左耳下腺の内側, 副咽頭間隙に及ぶ直径40mmの腫瘤があり, 上縁は, 頭蓋底に接し, cot, 腫瘤の周辺部のみが増強されていた。左内頸動脈は内側に圧排され, 内頸静脈は腫瘤内を走行していたが血流は良好に保たれていた。

入院時経過: 精査の結果左耳下腺深葉腫瘍の診断にて1989年8月7日当科入院, 同月11日全身麻酔下に左耳下腺腫瘍摘出術を施行した。手術は, 耳下腺腫瘍を含め頭蓋底及び頸椎から口腔粘膜にかかる範囲を切除した。頸部リンパ節にも腫瘍の転移を認めた。腫瘍の術中迅速診断および手術材料の病理検査では扁平上皮癌の組織診断

山梨医科大学耳鼻咽喉科学教室, *同第二病理学教室

Tsutomu NAKAZAWA, Tetsuya GANBO, Ken-ichi HISAMATSU, Jun OGINO, Koichi SUZUKI*, Ryohei KATOH* and Yoshihiko MURAKAMI: Carcinosarcoma of the Parotid Gland A case study
Department of Otolaryngology and Second Pathology*, Yamanashi Medical College

図 1 a

図 1 b

を得た。粘液腫様の基質を伴った扁平上皮癌の細胞群が原発巣の深葉のみならず浅葉にも認められた。術創の縫合部の閉鎖が遅く、5-FU・CDDP による化学療法を10月6日より1クール、11月6日より更に1クール施行したが、11月27日の MRI 所見で左内側翼突筋・舌根部に腫瘍の再発を認め左耳下部に50Gy 照射した。1990 年になり照射に外れた部位より腫瘍を認め同部に追加照射30Gy を行った。2月に至り乳突洞への腫瘍の浸潤、その後腫瘍の浸潤増大を認め、再度2月27日より CDD-P/PEP による化学療法を施行したが、左耳下部・顎下

図 1 c

部腫瘍の増大傾向があり4月18日左頸部腫瘍摘出術・左上頸部郭清術・左耳後部腫瘍摘出術を施行した。同月24日より瘻孔形成し同部より腫瘍出現し左下咽頭にまで増殖していた為、28日局麻下気管切開術を施行した。29日の胸部X線写真で、左肺上葉に径約1cm の貨幣状陰影を認め、化学療法 (CBDCA, MTX, PEP) にても効果無く、7月11日の胸部X線写真では貨幣状陰影は増大していた。その後局所への5-FU の塗布、OK-432局注を行うも効果なく、8月20日に他界した。

剖検時所見：腫瘍は左耳下部から顎下にかけて20×15 cm の大きさに突出し、また口腔にも充満しており、きわめて強い壊死傾向を伴っていた (図2上)。腫瘍の剖面は白色から黄白色調で光沢があり不完全な胞巣を形成し、広範な壊死を伴っていた (図2下)。左肺上葉に径4 cm, 左肺下葉と右肺中葉にそれぞれ径1 cm 大の転移巣を認め、気管分岐部と左肺門部リンパ節にも転移が見いだされた。

病理組織所見：腫瘍は、扁平上皮癌および低分化の癌腫成分の像 (図3a)と共に軟骨肉腫、紡錘形細胞から成る肉腫成分が混在していた (図3b)。また所により、線維肉腫や悪性線維性組織球腫様の部分、さらに明らかな横紋を有する横紋筋肉腫等の所見が認められた (図3c)。なお以上の所見をふまえ初回手術材料を全割し検討し

図 2

ところ、腫瘍内には良性の多形腺腫の存在を示唆する所見は得られず耳下腺原発の癌肉腫との診断を得た。

考 察

今回我々の経験した症例は、扁平上皮癌および低分化の癌腫成分の像と共に軟骨肉腫、紡錘形細胞から成る肉腫成分が混在し、一部に、線維肉腫や悪性線維性組織球腫様の部分、さらに明らかな横紋を有する横紋筋肉腫等極めて多彩な腫瘍組織が混在して認められた。また肉眼的所見でも、断面は白色から黄白色調で光沢があり不完全な胞巣を形成し、広範な壊死を伴っていた。このような所見をふまえた初回時手術材料の検討によると、腫瘍内には良性の多形腺腫の存在を示唆する所見は得られず耳下腺原発の癌肉腫と診断するに至った。

ここで悪性混合腫瘍 (malignant mixed tumor) という言葉についてであるが、この定義には多少の混乱があるといわれている¹⁻³⁾。すなわち、本来 WHO 分類で悪性混合腫瘍と呼ばれている多形腺腫の“癌化” (多形腺腫由来の癌) と、多形腺腫の一部に存在する上皮細胞ないし筋上皮細胞成分が悪性化を示す多形腺腫内癌腫 (carcinoma in pleomorphic adenoma) と、我々の経験した狭義のまたは真の悪性混合腫瘍 (true malignant mixed tumor: Batsakis⁴⁾; LiVolsi and Perzin⁵⁾) を合せて使用する場合がある。ここで真の悪

図 3 a

図 3 b

図 3 c

性混合腫瘍とは、多形腺腫の上皮性成分と非上皮性成分が同時に悪性化を示すもので、いわば多形腺腫内癌肉腫 (carcinosarcoma in pleomorphic adenoma) というべきものである。この範疇にはいる腫瘍の中でも多形腺腫の部分が全く崩壊して認められず、唾液腺原発の癌肉腫 (carcinosarcoma) としか診断し得ない症例がある。

そこで我々の経験した左耳下腺深葉に原発した腫瘍であるが、組織学的に極めて多彩な悪性組織成分からなっており、多形腺腫内癌腫を示唆するような先行する多形

腺腫の存在が確認されず、まさに癌肉腫と診断された症例であると考える。唾液腺原発の true malignant mixed tumor 中でも癌肉腫は非常に稀であり、本邦でも数例の報告を見るのみである。しかも、これまでの報告の多くは2, 3種類の悪性成分から成っているものが大部分で、本症例の様に多彩な成分が混在するものはほとんどない。さらに、明らかな横紋筋肉腫を含むものは、現在まで検索したところ本例のみである。

結 語

以上、左耳下腺深葉に原発した腫瘍で組織学的に上皮性、非上皮性の多彩な悪性組織成分から成っており、癌肉腫と診断し得た一症例を報告した。

尚、本論文の主旨は第16回日本頭頸部腫瘍学会において報告した。

SUMMARY

True malignant mixed tumor, or carcinosarcoma, of the salivary glands is exceedingly uncommon. We present a rare case of parotid gland carcinosarcoma occurring in a 57-year-old male patient. His chief complaints were left subparotid pain and disturbance of mouth opening. Despite intensive irradiation and chemotherapy, and total parotidectomy, he finally died of rapid tumor recurrence and spreading metastases to the lungs one year later. Three recurrent tumor and autopsy specimens showed features of carcinosarcoma consisting of many components, including squamous cell carcinoma, undifferentiated carcinoma, chondrosarcoma, spindle cell sarcoma, fibrosarcoma and leiomyosarcoma. Metastatic nodules in both the lungs and pulmonary hilar lymph nodes showed the same pattern.

文 献

- 1) 長尾孝一：唾液腺腫瘍の鑑別診断 (6). 病理と臨床 5 : 573-580, 1987.
- 2) 下里幸雄, 森永正二郎, 斎藤裕夫：唾液腺腫瘍の病理. 耳下腺腫瘍の臨床 (奥田稔編). 27~58頁, 医学教育出版, 東京, 1984.
- 3) 長尾孝一：耳下腫瘍の病理. 耳下腺腫瘍—その基礎との臨床— (奥田 稔, 金子敏郎編). 8~47頁, 文光堂, 東京, 1987.
- 4) Batsakis, J. G.: Tumors of the Head and Neck. Clinical and pathological considerations. 2nd ed., Baltimore, Williams and Wilkins, 1979.
- 5) LiVolsi, V. A. and Perzin, K. H.: Malignant mixed tumors arising in salivary glands. 1. carcinomas arising in benign mixed tumors: A clinicopathologic study. Cancer 39 : 2209-2239, 1977.