副咽頭間隙に増大した巨大な多形腺腫の1例

別所央城¹⁾・山本信治¹⁾・作間 巧¹⁾
橋本貞充²⁾・高野伸夫¹⁾・柴原孝彦¹⁾

A case of bulky pleomorphic adenoma proliferating in the parapharyngeal space

BESSHO Hiroki¹⁾・YAMAMOTO Nobuharu¹⁾・SAKUMA Takumi¹⁾
HASHIMOTO Sadamitsu²⁾・TAKANO Nobuo¹⁾
SHIBAHARA Takahiko¹⁾

Abstract: Pleomorphic adenoma is the most frequent salivary gland tumor. The most common site of this tumor in the major salivary glands is the parotid gland, while that in the minor salivary glands is the palate. We report a giant pleomorphic adenoma that extended into the parapharyngeal space. The patient was a 55-year-old woman who had been referred to our hospital because of swelling of the left palate region. Magnetic resonance imaging (MRI) revealed a bulky mass extending from the skullbase to the left parapharyngeal space and the submandibular region. Although no malignancy was detected after cytodiagnosis and biopsy had been performed twice, a definitive diagnosis was difficult. Surgery was planned for a diagnosis of a benign tumor arising from the minor salivary glands of the pharynx since preoperative computed tomography and MRI showed interposition of a fat pad between the lesion and the parotid gland. The tumor was removed by an inverted L ramus osteotomy as described by Flood et al. rather than by a midline mandibulotomy to ensure safety because the tumor was large as well as for esthetic reasons. The excised tumor measured 80 × 70 × 50 mm. A postoperative histological examination revealed a pleomorphic adenoma. No recurrence was observed during 1 year of follow-up.

Key words: pleomorphic adenoma (多形腺腫), parapharyngeal space (副咽頭間隙), salivary gland tumor (唾液腺腫瘍), minor salivary gland (小唾液腺)

緒 言

多形腺腫は、唾液腺に発生する腫瘍の中で最も頻度が高く¹⁾、また多様な組織像を呈すること、再発²⁾あるいは悪性化³⁾をきたすものがあることなどから関心がもたれ、数多くの症例が報告されている。その発生は、大唾液腺では耳下腺に、小唾液腺では口蓋に多い¹⁾、また、発育が緩徐で明らかな臨床症状がないことから長期間放置され巨大に成長して発見されることが多い。しかし、副咽頭間隙に進

展したものは、極めてまれである⁴⁾。

今回、われわれは副咽頭間隙に進展した巨大な多形腺腫の1例を経験したので、その概要を報告する。

症 例

患 者：55歳、女性。

主 訴：左側口蓋部の腫脹。

初 診：2006年7月。

既往歴：平成17年9月から近内科通院し、高血圧症の診断下、クロチアゼパムを内服していた。

家族歴：特記事項なし。

現病歴：2006年1月頃より、発音障害を自覚するも放置していた。2006年7月、左側軟口蓋部の腫脹を自覚するも無痛性であったため放置していた。その後、症状に変化はなかったが、右側下顎臼歯部の疼痛を認めたため近医歯科を受診し、左側軟口蓋部の腫脹を指摘され、精査を勧め

¹⁾ 東京歯科大学口腔外科学講座
(主任：柴原孝彦教授)

²⁾ 東京歯科大学病理学講座
(主任：下野正基教授)

¹⁾ Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Tokyo Dental College (Chief: Prof. SHIBAHARA Takahiko)

²⁾ Department of Pathology, Tokyo Dental College (Chief: Prof. SHIMONO Masaki)

受付日：2007年10月22日

採択日：2010年2月23日

写真1 初診時病態写真

- A：口腔外写真 左側顎下部に比較的境界明瞭で弾性硬の無痛性腫瘍を触知した（矢印）。
- B：口腔内写真 左側軟口蓋から咽頭側壁に著明な膨隆を認める。さらに口蓋垂が右側（健側）に偏位している。

写真2 術前 MRI 写真

- A・B・C：水平断 左側咽頭部から顎下部に、境界明瞭、内部不均一で、T1 強調像（A）で筋肉よりやや高信号、T2 強調像（B）で高信号、造影 T1 強調像（C）で内部不均一な造影効果を認める。（A）に矢印で病変と比較的してやや高信号な脂肪帯介在部を示す。
- D・E・F：前額断 前額断で病変は頭蓋底まで進展している。外側翼突筋は上方へ、顎下腺は下方へ圧迫されている。また、病変により上咽頭から中咽頭は狭窄している。

られ当科紹介初診となった。

現 症：

全身状態；身長 157 cm，体重 40 kg，体格やせ型，栄養状態やや不良。

口腔外所見；左側顎下部に直径約 35 mm 大の表面平滑で弾性軟の無痛性腫瘍を触知した（写真 1A）。周囲組織との癒着はなく境界は比較的明瞭で可動性を有し，自発痛，圧痛，波動はなく，同部皮膚の炎症所見もみられなかった。頸部リンパ節の腫大も認めなかった。

写真3 術中写真

- A：骨切り時 下顎枝前縁から後方に水平骨切りし，次に水平骨切り線後端から下顎下縁まで垂直に骨切りを行った。
- B：摘出時 骨片をワイヤーで牽引しながら腫瘍摘出を行った。病変は被膜で覆われ，健常組織との境界は明瞭である。

口腔内所見；左側軟口蓋ならびに咽頭側壁が著明に腫脹し，境界明瞭な弾性軟の腫瘍を認めた。表面は平滑で口腔粘膜に覆われ潰瘍形成は認められず，自発痛，圧痛，可動性，神経麻痺症状はなかった。口蓋垂は腫瘍により右側に圧排され大きく偏位し，舌根部は下方に圧排されてい

た（写真 1B）。呼吸困難，嚥下困難は訴えなかったが，発声は軽度の発語不明瞭でいわゆる「ふくみ声」を呈していた。

画像所見：

超音波所見；左側顎下部に境界不明瞭，内部不均一，内部に血流を伴う低エコー領域として腫瘍が描出された。左側咽頭部にも同様の境界不明瞭，内部不均一な腫瘍が描出されたが，内部に明らかな血管の流入は認められず，栄養血管は同定されなかった。

写真4 摘出標本写真

- A：摘出標本 腫瘍は分葉状の類円形を呈し、大きさは80×70×50 mmであった。表面は線維性の被膜に覆われていた。
- B：摘出標本断面 断面は多結節状の充実性で黄白色を呈し、一部嚢胞様空洞を認め、茶褐色の内容物を認めた。

MRI 所見；左側咽頭部から顎下部にかけて、境界明瞭、内部不均一、T1 強調像で筋肉よりやや高信号、T2 強調像で高信号を呈する腫瘤性病変が認められた。また、腫瘍と耳下腺間に一層の脂肪帯 (fat plane) の介在が認められた (写真 2A, B, C)。前額断で病変は頭蓋底まで進展していた。ガドリニウム造影 T1 強調像で外側翼突筋は上方へ、顎下腺は下方へ圧迫されていた。また、病変により上咽頭から中咽頭部の気道が狭窄していた (写真 2D, E, F)。

臨床検査所見：特記事項なし。

処 置：初診当日に軟口蓋部より穿刺吸引細胞診を施行した。茶褐色漿液性の内容物が採取され、細胞診の所見は赤血球、好中球、リンパ球が散在され、悪性像

写真5 摘出標本の病理組織像

- A：腫瘍細胞は、硝子様あるいは粘液腫様部へと移行している (H-E 染色, ×10)。
- B：腫瘍実質に二層性の明瞭な腺管構造や敷石状配列がみられる。細胞成分の乏しい線維性結合組織からなる腫瘍間質を認める (H-E 染色, ×20)。
- C：腺管構造が乏しい部分では、紡錘形の腫瘍性筋上皮細胞の密な増殖がみられる (H-E 染色, ×20)。
- D：粘液腫様部は、組織化学染色でアルシアンブルー強陽性を示す (アルシアンブルー染色, ×20)。

写真6 術後1年経過時のMRI写真

A (水平断 T1 強調像), B (水平断 T2 強調像)

C (前額断 T1 強調像), D (前額断 T2 強調像)

左側軟口蓋から左側顎下部ならびにその周囲組織に再発を示唆する所見は認められない。

は認められなかった。さらに再度、顎下部より穿刺吸引細胞診を実施したが、前回と同様の所見であった。そこで、病理学的診断と口蓋腺由来か否かを確定するために、2006年8月、左側軟口蓋部の粘膜上皮を含め病変部を生検した。生検標本は菲薄な被膜を伴う非充実性組織であり、内部には導管の拡張とその周囲に軽度のリンパ球浸潤が認められ、唾液腺炎との病理診断を得た。しかし、画像所見と一致しないことなどから、再度、同部位の生検を施行したが、病理組織学的所見としての種々の厚さの平滑筋層を伴う静脈性血管の増生が認められ、血管腫の疑いと診断された。このように本症例は、2度の穿刺吸引細胞診と生検にもかかわらず確定診断が得られなかったが、CTとMRIでは境界明瞭で液状成分の貯留を伴った非充実性腫瘍性病変であり、良性腫瘍の可能性が高いと診断した。

臨床診断：副咽頭間隙～顎下部良性腫瘍の疑い。

手術所見：初診後約4か月経過した2006年11月中旬、経鼻挿管による全身麻酔下にて腫瘍摘出術を行った。皮膚切開は乳様突起から顎下部にかけて弧状切開とした。深頸

筋膜浅層で広頸筋を剥離挙上し、顔面神経下顎縁枝は温存した。下顎骨を横切る顔面動・静脈は切離した。咬筋と骨膜を下顎下縁で切開し、これらを下顎枝外側面から剥離し、下顎切痕の高さまで下顎枝外側面の骨面全体を露出させた。骨の処理は「下顎枝逆L字型骨切り法」を用いた(写真3A)。近位骨片と遠位骨片の骨面に小穴をあけワイヤーを用いて骨片を外側へ展開し腫瘍を明示した。周囲粘膜の剥離に際しては腫瘍本体の若干の圧迫と下顎骨骨片の外側への牽引が必要であった。腫瘍は被膜に覆われ、周囲組織との位置関係は内側に咽頭収縮筋、外側に下顎骨、耳下腺、前方に内側翼突筋、舌神経、下方に軟口蓋粘膜、舌下神経、後方に内・外頸動脈、内頸静脈に囲まれていた。これらと癒着はなく鈍的に剥離し、一塊として摘出した(写真3B)。下歯槽神経、舌神経は温存した。摘出後、下顎骨を整位し、4穴チタンプレート2枚でスクリュー固定し手術を終了した(手術時間：3時間、出血量：160ml)。

摘出標本所見：腫瘍は分葉状の類円形を呈し、大きさは80mm×70mm×50mmであった。表面は線維性の被膜に覆われ(写真4A)、断面は多結節状の充実性で黄白色を呈しており、一部嚢胞様空洞を認めた(写真4B)。

病理組織学的所見：腫瘍組織は線維性結合組織からなる被膜に被われ、類円形の核をもつ多角形の腫瘍細胞が二層性の明瞭な腺管構造や敷石状を呈して充実性に増殖していた。紡錘形の腫瘍性筋上皮細胞が密に増殖する部分や、アルシアンブルーに陽性を示す粘液腫様部や強い硝子化を示す部分も認められた。腫瘍間質は線維性結合組織からなり、細胞成分に乏しかった(写真5A～D)。

病理組織学的診断：多形腺腫。

経過：術後に術中下顎骨を外方へ展開牽引したことによる axonotmesis (軸索断裂) と考えられる一時的な下歯槽神経知覚鈍麻は出現したが回復は良好であった。咬合の偏位等なく術後翌日より食事は経口摂取が可能であった。また、審美的にも満足のいく結果が得られた。術後1年経過した現在、画像診断上も再発所見はなく(写真6)、術後一過性に発現していた左側下歯槽神経知覚鈍麻も改善し経過良好である。

考 察

副咽頭間隙は上方の頭蓋底を底面、下方の舌骨を頂点とする逆ピラミッド形の間隙であり、内側に咽頭収縮筋、外側に下顎骨、耳下腺、前方が外・内翼突筋、後方が椎前筋となる。この間隙には、顎動脈、上行咽頭動脈、咽頭静脈叢、下歯槽神経、舌神経、耳介側頭神経、内頸動脈、内頸静脈、交感神経幹、第Ⅸ～Ⅻ脳神経など重要臓器により構成されている。本症例は、抵抗の弱い内側、あるいは下方へ進展し、顎下部の腫脹、軟口蓋や咽頭側壁の膨隆を認めた。

副咽頭間隙内の多形腺腫は dumb-bell 型と round 型に分類され、前者は耳下腺深葉、後者は stylomandibular tunnel より内側の耳下腺、茎突下顎靱帯より下内側の耳下腺下極または上咽頭収縮筋の外側あるいは内側に存在する小唾液腺由来とされている²⁾。今回の症例では腫瘍と耳下腺間に一層の脂肪帯 (fat plane) の介在、病変による耳下腺の圧迫が認められたことから本腫瘍は耳下腺原発の可能性は低く、咽頭部の小唾液腺由来とすると診断された。

多形腺腫は、手術や穿刺の際に播種し易く、再発するリスクも高い唾液腺腫瘍で、Gnepp⁵⁾ は多形腺腫の 6.2 % が悪性腫瘍へ変化すると報告している。このため、術前の診断方法が重要であり、今回行った診断方法としては、画像診断、穿刺吸引細胞診、病理組織診などであるが、本症例のような副咽頭間隙腫瘍では CT や MRI で進展範囲、周囲組織との関係、特に腫瘍の占拠部位、血管の偏位を同定することが極めて重要である。また発生部位が耳下腺由来か咽頭部の小唾液腺由来かを診断することが重要である。

これらの画像の結果をもとに腫瘍の大きさ、血管、神経の損傷の危険性、他の良性腫瘍や悪性腫瘍の可能性も考慮し手術を予定した。

副咽頭間隙腫瘍の摘出方法としては、頸部外切開法、口内法、両者の併用および下顎骨正中離断法が挙げられるが、頸部外切開法による摘出法が主流とされている⁶⁾。本症例のような直径が 50 mm 以上ある腫瘍は渉猟した範囲では 4 例あるが^{8～11)}、長径が 80 mm に達する巨大腫瘍は非常にまれである。副咽頭間隙腫瘍に対して視野の確保、止血操作、腫瘍の剥離が容易であることから下顎骨正中離断法を併用した術式で摘出を行った症例が報告されている^{2, 4, 8～10)}。今回は特に腫瘍が巨大であり、上述のような副咽頭間隙に存在する重要器官を可能な限り安全な手術を施行するため、視野の確保を第一に考え、下顎骨の離断によるアプローチとした。また、審美面にも考慮し下顎骨正中離断法ではなく、Flood ら¹¹⁾ が報告した副咽頭間隙腫瘍へ頸部外部切開アプローチに従い「下顎枝逆 L 字型骨切り法」を用いた腫瘍摘出術を施行した。この方法は腫瘍を直視できるため盲目的な剥離操作を避けることが可能であった。腫瘍と

周囲組織との癒着はなく剥離は比較的容易であり、被膜を損傷せずにほぼ完全な形で摘出可能であった。また、下歯槽神経や舌神経を下顎小舌より上方で骨切りを行うことにより温存できた。

一般に、多形腺腫の発育は非常に緩慢で、無痛性の発育であるため長期間放置されることが多いが、本症例も画像所見上、気道閉塞を認めるにもかかわらず、呼吸障害や嚥下障害を自覚せず、患者はほとんど自覚症状を認めず長期間経過していた。しかし、多形腺腫は良性腫瘍にもかかわらず再発²⁾ や悪性転化³⁾ の報告があるため、手術による摘出は最良の治療であり、今後も再発を含めたさらなる経過観察が必要と考える。

結 語

副咽頭間隙に増大した巨大な多形腺腫の 1 例に対し、口外法による下顎枝逆 L 字型骨切り法を用いた腫瘍摘出術を行った症例を報告した。

本論文の要旨は、第 26 回日本口腔腫瘍学会 (平成 20 年 1 月、別府市) において発表した。

引 用 文 献

- 1) 石川梧郎, 秋吉正豊: 唾液腺の腫瘍. 口腔病理学Ⅱ, 改訂版, 永松書店, 京都, 1982, 716-728 頁.
- 2) 前田顕之, 小村 健, 他: 広範な多発性再発をきたした副咽頭間隙多形性腺腫の 1 例. 日口外誌 48: 318-321 2002.
- 3) 佐野大輔, 河原 康, 他: 口蓋多形性腺腫の表在粘膜に扁平上皮癌が合併した 1 例. 日口外誌 52: 618-621 2006.
- 4) 足立光朗, 石永 一, 他: 副咽頭間隙の巨大胞形成を伴う多形腺腫例. 耳鼻臨床 94: 821-824 2001.
- 5) Gnepp, D.R.: Malignant mixed tumors of the salivary glands: a review. Pathol Annu 28: 279-328 1993.
- 6) 吉原俊雄, 佐藤美知子, 他: Dumbbell 型, 副咽頭間隙型耳下腺多形腺腫の切除法. 口咽科 8: 193-201 1996.
- 7) 横林康男, 中条智恵, 他: 口蓋に生じた巨大な多形性腺腫の 1 例. 富山中病医誌 25: 10-12 2002.
- 8) 長屋 淳, 高田 訓, 他: 咽頭腔の狭窄をきたした多形性腺腫の 1 例. 奥羽大歯誌 25: 243-246 1998.
- 9) 古城慎太郎, 小川 淳, 他: 中咽頭に発生した巨大な多形性腺腫の一例. 日口診誌 2: 251-253 2004.
- 10) 玉山公基, 村上淳一, 他: 硬・軟口蓋部から咽頭部にかけて腫大した耳下腺腫瘍の 1 例. 日口外誌 40: 470-472 1994.
- 11) Flood, T.R., Hislop, W.S.: A modified surgical approach for parapharyngeal space tumours: use of the inverted 'L' osteotomy. Br J Oral Maxillofac Surg 29: 82-86 1991.