V-Y Advancement Flap により再建した 上唇部基底細胞腺癌の 1 例

松崎 勇佑^{1,2)}・渡部 幸央¹⁾・丹羽 順子¹⁾
小林 大輔¹⁾・神山 勲¹⁾・重松 司朗¹⁾

A case of basal cell adenocarcinoma of the upper lip reconstructed with a V-Y advancement flap

MATSUZAKI Yusuke^{1,2)}・WATABE Yukio¹⁾・NIWA Junko¹⁾
KOBAYASHI Daisuke¹⁾・KAMIYAMA Isao¹⁾・SHIGEMATSU Shiro¹⁾

Abstract: We report a case of basal cell adenocarcinoma of the upper lip in which reconstruction was performed using a V-Y advancement flap. The patient was a 59-year-old man who presented with a left upper lip mass that was 15 mm in diameter, elastic hard, and mobile. The patient reported no pain on palpation, and no metastasis was evident in regional lymph nodes. The tumor was homogeneous inside the left upper lip on CT soft-tissue display, appearing somewhat hyperdense as compared with muscle. Based on the results of biopsy, adenocarcinoma was diagnosed. With the patient under general anesthesia, the left upper labial mucosa was dissected, and the tumor was excised en bloc with the overlying skin. We performed a reconstruction procedure combining a rhomboid flap and a V-Y advancement flap. The pathological diagnosis was basal cell adenocarcinoma. No local recurrence or metastasis has been seen as of 2 years postoperatively.

Key words: basal cell adenocarcinoma (基底細胞腺癌), V-Y advancement flap (V-Y 進展皮弁)

緒 言

唾液腺に原発する基底細胞腺癌の発生頻度は、唾液腺悪性腫瘍の 1 % 程度である¹⁾。発症部位は大唾液腺、とくに耳下腺に多く、小唾液腺に発症することは非常にまれである。著者らは、上唇に発生した基底細胞腺癌に対して V-Y advancement flap で再建した 1 例を経験したのでその概要を報告する。

症 例

患 者: 59 歳, 男性。
初 診: 2016 年 3 月。
主 訴: 左側上唇の腫瘍。

既往歴: 高血圧症。不整脈。

家族歴: 特記事項なし。

現病歴: 2013 年頃から左側上唇の腫瘍を自覚するも放置していた。しかし、その後徐々に増大し、2016 年 2 月に上記主訴で近医を受診し、同年 3 月、精査加療を目的に当科を紹介来院した。

現 症:

全身所見: 体格は中等度、栄養状態は良好であった。

口腔外所見: 左側上唇に隆起が認められた。しかし、腫瘍と皮膚に明らかな癒着はみられなかった。また、頸部リンパ節の腫大は認めなかった(写真 1)。

口腔内所見: 左側上顎前歯から犬歯部相当の上唇粘膜に直径約 15mm の表面滑沢な弾性硬で可動性の腫瘍を認めた(写真 2)。

画像所見:

CT 所見: CT 軟組織表示で左側上唇部に内部均一で筋と同等からやや高い濃度を示す腫瘍を認め、上唇部皮膚に及ぶことから皮膚浸潤も疑われた(写真 3)。

MRI 所見: T1, T2 ともに金属アーチファクトにより病変の描出は困難であった。

臨床検査所見: 血液検査、生化学検査、尿検査等で異常

¹⁾ 東京都立多摩総合医療センター 歯科口腔外科
(主任: 重松司朗部長)

²⁾ 東京歯科大学口腔顎顔面学講座
(主任: 柴原孝彦教授)

¹⁾ Department of Dentistry and Oral Surgery, Tokyo Metropolitan Tama Medical Center (Chief: Dr. SHIGEMATSU Shiro)

²⁾ Department of Dentistry and Oral Maxillofacial Surgery, Tokyo Dental College (Chief: Prof. SHIBAHARA Takahiko)
受付日: 2018 年 1 月 17 日
採択日: 2018 年 8 月 26 日

写真1 初診時顔貌写真(正面)

左側上唇部に軽度の隆起を認めるが、明らかな顔貌の左右差はない。

値は認められなかった。

臨床診断：左側上唇腫瘍。

処置および経過：2016年3月、唾液腺良性腫瘍を疑い、局所麻酔下に口腔内から組織生検を行った。病理組織では、被膜の欠如を認め Adenocarcinoma を疑う所見であった。上唇原発の唾液腺癌(T1N0M0)の診断下に、同年4月、全身麻酔下に上唇悪性腫瘍切除術および上唇再建術を施行した。左側赤唇を分割し最低でも7mm程度の安全域を設けて、腫瘍を口腔内外連続させて切除した。上顎骨骨膜には癒着を認めなかったため、骨膜は温存した。腫瘍切除後の欠損範囲は皮膚側で15×15mm、粘膜側で30×15mmであった(写真4)。粘膜側では頬粘膜筋弁による菱形皮弁を挙上し、180度回転させ欠損部を被蓋した(図1)。皮膚側はV-Y advancement flapのデザインで島状口輪筋皮弁を挙上した。皮弁を欠損部に移動し(図2)、皮弁挙上部は縫縮した(写真5A, B)。

病理組織学的所見：重層扁平上皮で被覆された検体で、被膜成分を欠いた病変がびまん性に広がっていた(写真6A)。病変は腺腔構造を形成しており、腺管は2層性の細胞成分で内腔側は腺上皮、外腔側は筋上皮由来の細胞からなっていた(写真6B)。間質との境界部は柵状の細胞配列を認め(写真6C)、間質は硝子様の基質を伴っていた。腫瘍は上皮との連続性はなく、神経への浸潤が著明であった(写真6D)。脈管侵襲は明らかではなかった。p53は陰性であり、Ki-67もKi-67 labeling index<10%であった。

病理組織学的診断：基底細胞腺癌。

術後経過：入院中は有害事象なく、在院10日で退院となった。皮弁の血行はきわめて良好で、整容的にも機能的にも満足な結果が得られた(写真7)。術後2年経過したが局所再発や転移は認められていない。

写真3 CT軟組織表示

CT軟組織表示で左側上唇部に内部均一で筋と同等からやや高いdensityを示す腫瘍を認め、上唇部皮膚に及んでいる。

写真4 摘出標本写真

摘出した腫瘍は類円形で弾性硬であり、大きさは30×30mmであった。

考 察

基底細胞腺癌は、1991年にWHO唾液腺腫瘍組織学的分類第二版で新たに加えられた疾患である。発生頻度は唾液腺悪性腫瘍の1%程度と言われ¹⁾、発症部位は大唾液腺に多く小唾液腺に発症することは非常にまれである。性差はなく60～70歳代に多い²⁾。約90%は耳下腺に発症し³⁾、2000年以降で我々が渉猟し得た限りでは、小唾液腺の報告は国内外合わせ23例と少ない^{4～8)}。また、上唇に発症したものは自験例を含め6例であった(表1)。

鑑別診断としては基底細胞腺腫、腺様囊胞癌、皮膚原発の転移性基底細胞癌が挙げられる。そのなかでもとくに基

図1 口腔内の菱形皮弁の模式図

図2 V-Y advancement flap の模式図

A

B

写真5 術中写真

A: 皮弁デザイン (V-Y advancement flap).

B: 手術終了時.

写真7 術後写真(顔貌正面)

基底細胞腺腫との鑑別が困難とされ²²⁾, 病理学的特徴に相違はない. 長尾ら²⁷⁾の報告では, Ki-67 発現は基底細胞腺腫で平均が2.1%であるが, 基底細胞腺癌では21%と有意に

高く, p53 は基底細胞腺腫では全例陰性であったのに対し, 基底細胞腺癌は55%が陽性であった. しかし, 自験例では, Ki-67 LI は10%未満, p53 は陰性であった. Jung MJ ら²⁸⁾は, 基底細胞腺癌と基底細胞腺腫に Ki-67 と p53 の発現に差はなく, とくに基底細胞腺癌ではすべて Ki-67 LI は5%未満であり, p53 も陰性であったと報告している. 免疫染色や組織所見, 腫瘍の一部を採取して行う生検材料では, とくに両者の鑑別は難しく, 鑑別は細胞異型および被膜による周囲組織との境界, 脈管・神経浸潤の有無が有用で, それらと臨床症状を加味して診断する必要がある^{27, 29)}. 自験例では, 腫瘍実質は腺腔構造から成り, 間質境界に柵状の細胞配列を認めることから, 基底細胞腺腫と基底細胞腺癌の所見として矛盾しなかった. 疼痛や潰瘍形成など悪性を示唆する所見はなかったものの, 腫瘍は被膜を欠いており, 神経浸潤を認めたことから悪性としての性格が強く, 基底細胞腺癌との診断に至った.

治療の第一選択は外科的切除であり, 自験例でも外科的切除を選択した. 自験例での安全域に関しては, 生検の結

写真2 口腔内写真

左側上顎前歯から犬歯部相当の上唇粘膜に直径約15mmの表面滑沢な弾性硬で可動性の腫瘤を認める。

果から低悪性であったことに加え、審美的な問題から鼻翼の再建が難しくなること等を考慮して、7 mm 以上の安全域を確保することとした。温熱、化学、放射線療法の併用により良好な治療効果を得た例もあるが⁹⁾、外科切除した19例では、2例に局所再発を認め、1例に遠隔転移を認めたのみで概ね良好な結果を得ている。自験例では神経浸潤を認めたものの、基底細胞腺癌は悪性度に基づいた悪性唾液腺腫瘍分類では低悪性度がんに分類され、切除断端は陰性であったので経過観察とした。

自験例では、上唇に15mm大の皮膚欠損を生じたため、単なる欠損の被覆のみならず、整容的に満足できるような形態の再現が必要となった。そこで組織再建にはV-Y advancement flapを用いた。上唇の再建法には、遊離前腕皮弁、DP皮弁、前額皮弁などの遠隔皮弁、cheek advance-

写真6 病理組織像

- A: H-E 染色 (×1.25); 被膜成分を欠いた病変がびまん性に広がっている。
 B: H-E 染色 (×40); 病変は腺腔構造を形成しており、腺管は2層性の細胞成分で内腔側は腺上皮、外腔側は筋上皮から成る。
 C: H-E 染色 (×40); 腫瘍の实质と間質の境界部には柵状の細胞配列を認める。
 D: H-E 染色 (×40); 腫瘍細胞の神経への浸潤が著明である。

表 1 小唾液腺に生じた基底細胞腺癌の報告例

症例	報告者	報告年	年齢	性別	部位	腫瘍径 (mm)	治療法	再発	転移	転帰	観察期間
1	Sousa ら ⁷⁾	2000 年	24	女	口蓋	30	切除	なし	なし	生存	5 年
2	Wada ら ⁸⁾	2000 年	65	男	頬粘膜	30	切除	なし	なし	生存	3 年 7 か月
3	池田ら ⁹⁾	2002 年	56	男	上唇	不明	温熱療法 化学療法 放射線療法	なし	なし	生存	1 年 9 か月
4	Jayakrishnan ら ¹⁰⁾	2003 年	67	女	頬粘膜	10	切除	あり	なし	生存	5 年
5			47	女	口蓋	13	切除	なし	なし	生存	3 年
6			51	男	上唇	35	切除	なし	なし	生存	6 年 6 か月
7	豊田ら ¹¹⁾	2003 年	64	女	口蓋	15	切除	なし	なし	生存	1 年 10 か月
8	Gross ら ¹²⁾	2004 年	55	男	頬粘膜	30	切除 放射線療法	なし	なし	生存	2 年
9	Poulopoulos ら ¹³⁾	2005 年	61	男	上唇	15	切除	なし	なし	生存	3 年
10	Yamagata ら ¹⁴⁾	2006 年	86	女	口蓋	20	放射線療法	あり	なし	生存	3 年 6 か月
11	Parashar ら ¹⁵⁾	2007 年	66	女	頬粘膜	20	切除	なし	なし	生存	8 年
12			42	女	口蓋	10	切除	なし	なし	生存	2 年
13	Ward ら ¹⁶⁾	2009 年	69	女	口蓋	25	切除	なし	なし	生存	1 年
14	Hirai ら ¹⁷⁾	2009 年	76	男	上顎歯肉	42	切除	なし	なし	生存	3 年 4 か月
15	Gupta ら ¹⁸⁾	2010 年	65	男	舌	10	切除	不明	不明	不明	不明
16	Akiyama ら ¹⁹⁾	2012 年	69	男	口蓋・翼口蓋窩	40・31	切除	なし	なし	生存	8 か月
17	Sakalhoğlu ら ²⁰⁾	2012 年	41	男	上唇	25	切除	なし	なし	生存	不明
18	Sarath ら ²¹⁾	2013 年	55	男性	口蓋	40	化学療法 放射線療法	なし	なし	生存	1 年 2 か月
19	Desai ら ²⁶⁾	2014 年	58	女	上唇	20	切除	なし	なし	生存	1 年
20	上嶋ら ²²⁾	2015 年	81	女	口蓋	60	放射線治療	なし	なし	生存	2 年
21	Chen ら ²³⁾	2015 年	40	男	頬粘膜	15	切除 放射線治療	なし	肝臓	生存	1 年 8 か月
22	David ら ²⁴⁾	2015 年	52	男	口蓋	30	切除 化学療法 放射線療法	あり	なし	生存	不明
23	武富ら ²⁵⁾	2016 年	65	女	口蓋	18	切除	なし	なし	生存	3 年
自験例		2018 年	59	男	上唇	15	切除	なし	なし	生存	2 年

ment flap, および Abbe flap, Gilies fan flap などの古典的な下唇からの皮弁などがよく知られている³⁰⁾。しかし、自験例では鼻翼基部および口輪筋を含む上唇の小皮膚欠損例であるため、上記再建法は不適當である。自験例に採用した V-Y advancement flap は皮弁のデザインや皮下茎の位置および移動の自由度が比較的高く、縫合線を relaxed skin tension line (RSTL) やシワの方向に容易に一致させることができる。また、dog-ear 形成がほとんどなく、創閉鎖による変形も少ない優れた皮弁である³¹⁾。本法は元来、口唇以外の顔面の小皮膚欠損部の再建に好んで用いられるが^{32~34)}、上唇再建のため本法を用いて良好な結果得たという報告もある³⁰⁾。自験例でも V-Y advancement flap で機能はほとんど損なわれず、整容的にも上唇の形態変化を最小限にすることができた。

術後 2 年を経過し再発、転移を認めていない。基底細胞

腺癌は低悪性であることが多く、比較的予後は良好と報告されているが、臨床経過からは腺様嚢胞癌と同様の経過をとることが示唆されており³⁾、長期経過観察が必要である。自験例では神経浸潤を認めており、今後も厳重な経過観察が必要であると考えている。

結 語

上唇に発生した基底細胞腺癌に対して V-Y advancement flap で再建した 1 例を経験したので、その概要を報告した。

謝辞

稿を終えるにあたり、治療にご尽力いただきました東京都立多摩総合医療センター形成外科 磯野伸雄先生、また病理学的診断に関してご意見を賜りました都立多摩総合医療センター病理科 江夏一彰先生に深謝致します。

本論文の要旨は第35回(一社)日本口腔腫瘍学会総会・学術大会(2017年1月,福岡)で発表した。

本論文に関して,開示すべき利益相反状態はない。

引用文献

- 1) 藍沢茂雄, 白川正順, 他: 耳下腺基底細胞腺腫の3例. 癌の臨 26: 1361-1365, 1980.
- 2) Ellis GL, Auclair PL, et al: Basal cell adenocarcinoma, surgical pathology of the salivary glands. Saunders, Philadelphia, 1991, p441-454.
- 3) Ellis GL, Wiscovitch JG, et al: Basal cell adenocarcinoma of the major salivary gland. Oral Surg Oral Med Oral Pathol 69: 461-469, 1990.
- 4) Lo AK, Topf JS, et al: Minor salivary gland basal cell adenocarcinoma of the palate. J Oral Maxillofac Surg 50: 531-534, 1992.
- 5) Yoshida H, Okamoto M, et al: Basal cell adenocarcinoma arising in a minor salivary gland of the mandible. Oral Med Pathol 1: 97-102, 1996.
- 6) Plath T and Dallenbach F: Basalzelladenokarzinom der kleinen speicheldrüsen des gaumens. Mund Kiefer Gesichts Chir 2: 275-278, 1998.
- 7) Sousa SOM, Schwarzschild M, et al: Basal cell adenocarcinoma of the palate with squamous metaplasia. J Clin Pathol 53: 153-156, 2000.
- 8) Wada T, Morita N, et al: Basal cell adenocarcinoma of the minor salivary gland: A case report. J Oral Maxillofac Surg 58: 811-814, 2000.
- 9) 池田順行, 飯田明彦, 他: 上唇に発生した基底細胞腺腫の1例. 日口外誌 48: 168-171, 2002.
- 10) Jayakrishnan A, Elmalah I, et al: Basal cell adenocarcinoma in minor salivary glands. Histopathology 42: 610-614, 2003.
- 11) 豊田博紀, 山口万枝, 他: 口蓋に発生した基底細胞腺腫の1例. 日口外誌 49: 99-102, 2003.
- 12) Gross M, Maly B, et al: Basal cell adenocarcinoma in a buccal minor salivary gland. Acta Otolaryngol 124: 213-216, 2004.
- 13) Pouloupoulos AK, Andreades D, et al: Basal cell adenocarcinoma of the minor salivary gland: Case report and cell adhesion molecules immunocytochemical profile. Oral Oncol 41: 150-153, 2005.
- 14) Yamagata K, Oka K, et al: Basal cell adenocarcinoma arising from the minor salivary gland in the soft palate: A case report. Pathol Res Pract 202: 475-480, 2006.
- 15) Parashar P, Baron E, et al: Basal cell adenocarcinoma of the oral minor salivary glands: review of the literature and presentation of two cases. Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod 103: 77-84, 2007.
- 16) Ward BK, Seethala RR, et al: Basal cell adenocarcinoma of a hard palate minor salivary gland: case report and review of the literature. Head Neck Oncol 1: 41, 2009.
- 17) Hirai H, Harada H, et al: Basal cell adenocarcinoma of upper gingiva. Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod 107: 542-546, 2009.
- 18) Gupta G, Singh R, et al: Basal cell adenocarcinoma in the tongue: An unusual presentation. Clin Med Insights Oncol 4: 127-131, 2010.
- 19) Akiyama K, Karaki M, et al: A massive basal cell adenocarcinoma of the palatal minor salivary gland that progressed into the pterygopalatine fossa. Int J Oral Maxillofac Surg 41: 444-447, 2012.
- 20) Sakalhoğlu O, Pehlivan S, et al: Basal cell adenocarcinoma of the minor salivary gland: a case report. Kulak Burun Bogaz Ihtis Derg 22: 46-49, 2012.
- 21) Sarath PV, Kannan N, et al: Basal cell adenocarcinoma of the minor salivary gland involving palate and maxillary sinus. J Clin Imaging Sci 3: 4, 2013.
- 22) 上嶋伸知, 新村兆一郎, 他: 口蓋の小唾液腺に発生した基底細胞腺腫の1例. 日口外誌 61: 363-367, 2015.
- 23) Chen S, Yang S, et al: Basal cell adenocarcinoma of buccal minor salivary gland with liver metastasis. Ann Saudi Med 35: 318-320, 2015.
- 24) David WC, Nikhila R, et al: Minor salivary gland basal cell adenocarcinoma; a systematic review and report of a new case. JAMA Otolaryngol Head Neck Surg 141: 276-283, 2015.
- 25) 武富孝治, 轟 圭太, 他: 軟口蓋に発生した基底細胞腺腫の1例. 口腔腫瘍 29: 53-58, 2017.
- 26) Rajiv S Desai, Bansari A Bhuta, et al: Basal cell adenocarcinoma of the upper lip: a case report: Case Reports in Clinical Pathology 1: 33-35, 2014.
- 27) Nagao T, Sugano I, et al: Basal cell adenocarcinoma of the salivary glands comparison with basal cell adenoma through assessment of cell proliferation, apoptosis, and expression of p53 and bcl-2. Cancer 82: 439-447, 1998.
- 28) Jung MJ, Roh JL, et al: Basal cell adenocarcinoma of the salivary gland: a morphological and immunohistochemical comparison with basal cell adenoma with and without capsular invasion. Diagn Pathol 8: 171-179, 2013.
- 29) Cheuk W and Chan JKC: Salivary gland tumors; Diagnostic Histopathology of tumors. second ed. Churchill Livingstone, London, 2000, p231-311.
- 30) 山本正樹, 井本敏弘, 他: V-Y Advancement Flap (口輪筋筋皮弁) にて再建した左上口唇の基底細胞腺腫例. 石川中病医誌 25: 99-101, 2003.
- 31) Trevaskis AE, Rempel J, et al: Sliding subcutaneous-pedicule flap to close a circular defect. Plast Reconstr Surg 46: 155-157, 1970.
- 32) Emmett AJJ: The closure of defects by using adjacent triangular flaps with subcutaneous pedicles. Plast Reconstr Surg 59: 45-52, 1977.
- 33) Zook EG, Van Beek AL, et al: V-Y advancement flap for facial defects. Plast Reconstr Surg 65: 786-797, 1980.
- 34) 池田佳奈枝, 四ツ柳高敏: 【研修医・外科系医師が知っておくべき形成外科の基本知識と手技】. 形成外科 55: 115-119, 2012.