再発を繰り返した多形性腺腫の1例

井口 次夫・大野 彰彦・池尻 茂

A case of pleomorphic adenoma with several recurrences

Tsugio INOKUCHI・Akihiko OHNO・Shigeru IKEJIRI

緒 言

唾液腺多形性腺腫はきわめて多彩な像を示す腫瘍として、従来、いわゆる唾液腺混合腫瘍の名で呼ばれてきた¹⁾。

本腫瘍は病理学的にも、また臨床的にも良性腫瘍の範疇に整理されているが²⁾、ときに再発³⁾あるいは悪性化⁴⁻¹⁰⁾があるといわれており、十分な予後観察が必要と思われる。

われわれは、最近、上顎に発生して著明な骨吸収をきたし、再発を繰り返した多形性腺腫の1例を経験したので報告する。

症 例

患 者：46歳の男性。

初 診：昭和45年2月■。

主 訴：右上上顎歯槽突起部の腫脹。

既往歴：昭和19年、戦地にてマラリアに罹患。

現病歴：半年前、上顎義歯不適合のため、某歯科医院を受診したところ、右上上顎大臼歯部に拇指頭大、無痛性の腫瘍を指摘されたが放置した。その後、腫瘍は徐々に増大の傾向を示したので本学附属病院を紹介されて来院した。

現 症

全身所見：特別の異常所見は認められなかった。

局所所見

口腔外所見：顔貌は対称で皮膚の色に異常は認められないが、右側眼窩下部はやや滲透性に腫脹し、羊皮紙様感がみられた。圧痛、熱感とも認められず、所属リンパ節の腫脹はみられなかった(写真1)。

口腔内所見：右上上顎小臼歯部から上顎結節部にか

写真1 正面顔貌像

写真2 初診時の口腔内所見

て、口蓋・歯肉頬移行部に及ぶ境界はほぼ明瞭な拇指頭大、卵円形で、弾性硬の腫瘍を認めた。表面は凹凸を示し、一部はビラン状を呈していた。圧痛はないが歯肉頬移行部において羊皮紙様感を認めた(写真2)。

X線所見：右上上顎骨は歯槽突起、眼窩下部、頬骨突起にわたって骨吸収像がみられ、右上上顎洞はかなり縮小して、眼窩下部内側に認められた(写真3、4)。

臨床検査成績：一般末梢血、血清生化学および尿検査において異常値は認められなかった。

臨床診断：右上上顎多形性腺腫の疑い。

処置および経過

1) 第1回手術：入院後、昭和45年3月■、まず試

九州歯科大学第2口腔外科学教室(指導：池尻 茂教授)

Second Department of Oral Surgery, Kyusyu Dental School (Director: Prof. Shigeru Ikejiri)

受付日：昭和52年6月27日

写真 3 初診時のX線像

写真 5 第1回手術による摘出腫瘍の病理組織学的所見

写真 6 写真5の強拡大。2層性腺管状構造が明らか

写真 4 初診時のX線像

験片切除を行い、ただちに迅速病理標本を作製して、多形性腺腫の診断を得たので、腫瘍を中心に7~21相当部歯肉頬移行部、上顎結節前方部、口蓋正中部、眼窩下部にわたる右側上顎亜全摘術を行った。術後の経過は良好で、術後28日に退院し、顎補綴を行った。

摘出腫瘍は、一部分では充実性であったが、全体的に嚢胞状を呈し、黄褐色の内容液を含んでいた。病理組織学的には、Eosin 好性の、異型性は認められない、多角形の上皮性細胞が、多くは充実性の胞巣をなして増殖

し、一部腺管状構造が観察された。その腺管状構造はEosin 好性分泌物を含む2層性構造を示していた(写真5, 6)。また、腫瘍組織と唾液腺組織との近接が認められた。

以上の所見により多形性腺腫と診断した。

2) 第2回手術: 術後約1カ年を経過した昭和46年2月初め、手術部に小指頭大の潰瘍を認めて再来した。試験片の組織診断の結果、多形性腺腫の再発として、同年3月、前回手術部周囲の切除を行ったのち、放射線科に依頼したところ、ペーカートロン総線量 3,000 rad の照射が行われた。

病理組織学的には、前回とはほぼ同様な細胞の充実性胞巣からなり、わずかではあるが管腔様構造がみられた。

3) 第3回手術: 前回手術より3年経過後の昭和49年5月初め、右側眼窩部から頬部にかけて瀰漫性の腫脹がみられ、右側眼球のわずかな突出を認めた(写真7)。口腔内は、前回の手術による上顎欠損部の外側縁から頬粘膜部にかけて、わずかな腫脹がみられる以外に変化は認められなかった。X線では右側頬骨突起、右側眼窩下縁の骨吸収が認められた(写真8)。試験切除片においては、初回時とはほぼ同様の腫瘍細胞からなる充実性胞巣

写真 7 第3回手術前所見

写真 10 第3回手術による切除腫瘍の病理組織学的所見

写真 8 第3回手術前X線所見

写真 11 第1回手術時摘出腫瘍の病理組織学的所見

写真 9 第3回手術前の試験切除片の病理組織学的所見

写真 12 第4回手術前の口腔内所見

そこで、昭和49年6月■，右側上顎骨頬骨突起，眼窩底部の骨，右側眼球を含めて腫瘍の拡大完全摘出手術を行った。

腫瘍の中心部は壊死に陥り嚢胞状を呈していた。病理組織学的には上皮性腫瘍細胞の充実性胞巣からなり，初回時と比較すると，初回時にはみられなかった細胞多形性が認められた（写真10，11）。

4）第4回手術：昭和50年9月，前回の手術時よりみられていた，鼻中隔中央部の小豆大肉芽様腫瘍が増大の

の辺縁部において，異型を示す細胞の出現があり，腫瘍の悪性化を疑わせる所見がみられた（写真9）。

写真 13 第4回手術時、鼻中隔腫瘍の病理組織学的所見

写真 14 術後の口腔内所見

傾向を示し、さらに、上顎欠損部の正中縁後端に帯青色の大豆大、弾性硬の腫瘍の出現を認めた(写真12)。

腫瘍の再発として入院後、昭和50年10月■日、正中部上顎骨および鼻中隔下半部を含めて腫瘍の追加切除を行った。病理組織学的には前回と同様の所見を呈していたが、鼻中隔の腫瘍は孤立性に存在し、周囲は健常組織で完全に囲まれていた(写真13)。

手術1年7カ月後の現在、再発はなく、顎補綴を行い順調に経過している(写真14, 15)。

考 察

本例は腫瘍細胞が充実性胞巣をなして増殖していたが、ある部分では粘液様分泌物を入れた2層性腺管状構造を認め¹¹⁾、多形性腺腫と診断した。しかしながら、粘液腫様あるいは軟骨様組織がみられず、島田⁹⁾のいう単純型に相当するものと思われる。

初回時の組織所見では、特に悪性像は認められないが、再発したものでは2層性腺管構造はみられず充実性胞巣からなり、初回にみられなかった細胞の異型や多形性が認められ、悪性化を思わせる所見を示していた。

多形性腺腫の良性と悪性との鑑別点⁹⁾としては、1)

写真 15 術後の顔面所見

被膜の形成が不完全または皆無、2) 周囲組織特に骨組織等への浸潤性発育、3) 異型度、多形性ともに高度、4) 多数の核分裂像、5) 臨床的な急速かつ弥漫性の増殖、などがあげられている。しかしながら、中間的な型をとるものもあり¹²⁾、組織像から予後を推測することは必ずしも容易ではないとされている。したがって、最近、本腫瘍を low grade malignant な腫瘍として、常に正常な組織とともに切除することを提唱した報告もみられる¹²⁾。また、本腫瘍は良性・悪性とも放射線感受性が少ないとされているが、本症例でも同様の結果を示したと考えるべきであろう。

ところで、本症例は十分広範囲に切除したと思われるにもかかわらず、再発を繰り返したものである。その原因として腫瘍の取り残しも考えられるが、鼻中隔にみられた孤立性腫瘍が興味深い。鼻中隔の腫瘍は3回目の手術時にすでに認めていたものであるが、原発部とは距離をおいて存在しており、その周囲に異常所見はなく、当初、腫瘍とは認めたがなかったものである。鼻中隔腫瘍は原発部とはかなりの距離を隔てていること、過去において鼻中隔へ1度も手術を加えていないこと、腫瘍周囲は健常な組織で囲まれていたこと、また、鼻中隔において多形性腺腫の報告のあること¹³⁾などから、原発部からの浸潤によるものではなく、原発部とは別個に存在していたものであると思われる。

多形性腺腫については多発性病巣(多中心発生)のあることがいわれている¹⁴⁾が、現在では一般的に primary case には多発性病巣は存在しないとされている¹⁵⁾。しかし、再発腫瘍では多発性病巣がしばしば認められることが報告されている¹⁵⁾。本症例に関しても、鼻中隔腫

瘍を考えれば、多発性病巣の存在も想像され、それが、たびたびの再発の原因となった可能性もあながち否定できないと思われる。

いずれにせよ、多形性腺腫の再発例では、多中心性発育のみられることが指摘され、また、本症例の再発例では細胞の多形性や異型性が認められるなど、一部悪性化を思わせる所見のみられたことなどから、初回時の手術において、より広範囲の切除を行うべきではなかったかと痛感している。

ま と め

46歳の男性で3回の再発を繰り返した多形性腺腫の1例を報告した。

文 献

- 1) 石川梧朗, 秋吉正豊: 口腔病理学, 後編, 永末書店, 東京, 1969, 1066頁.
- 2) Thoma, K. H., Gorlin, R. J. & Goldman, H. M.: Oral Pathology, ed 6, C.V. Mosby Co, St Louis, 1960, p 1003.
- 3) 滝川富雄, 他: 唾液腺腫瘍について, 歯科時報 4: 22 1969.
- 4) 藤林孝司, 他: 小唾液腺腫瘍の臨床的研究, 口科誌 21: 901 1972.
- 5) 青木清雄: 悪性化を疑った多形性腺腫の1例, 口科誌 10: 225 1961.
- 6) 岡野光雄, 他: 肺, 肝等に転移を伴った耳下腺混合腫瘍の1剖検例, 口科誌 8: 205 1962.
- 7) 大浦 稔, 他: 耳下腺混合腫瘍の1例, 口外誌 6: 170 1960.
- 8) 玉生みい: 唾液腺腫瘍の臨床的研究, 特に小口腔腺腫瘍について, 口外誌 5: 2 1959.
- 9) 島田義弘: 所謂唾液腺混合腫瘍の組織発生に就いて—唾液腺腫瘍の諸型の比較研究—, 日本病理学会誌 44: 243 1955.
- 10) Evans, R. W. and Cruickshank, A. H.: Epithelial tumors of the salivary glands, W.B. Saunders Company, Philadelphia, London, Toronto, 1970, p 210.
- 11) 牛島 宥: 唾液腺腫瘍, 文光堂, 東京, 1974, 15頁.
- 12) 馬場謙介, 他: 唾液腺腫瘍—その組織型と予後—, 癌の臨床 19: 893 1973.
- 13) 加納禎雄, 他: 鼻中隔に発生した所謂唾液腺型混合腫瘍の1例, 耳鼻咽喉科 37: 669 1965.
- 14) Delarue, J.: Les "tumeurs mixtes" plurifocales de la grande parotide. Ann Anat Path 1: 34 1956.
- 15) Lucas, R. B.: Pathology of Tumours of the Oral Tissues, Churchill Livingstone, Edinburgh and London, 1972, p 276.