放射線療法が奏効した上顎広範進展の良性多形性腺腫の1例

鈴木加代子・清水正嗣・水谷 雄・尾島富貴子
岩城 博・大西正俊・塩田重利・堀内淳一*

A case of benign pleomorphic adenoma with wide involvement in the maxilla showing a good response to radiation therapy

Kayoko SUZUKI・Masatsugu SHIMIZU・Yu MIZUTANI・Fukiko OJIMA
Hiroshi IWAKI・Masatoshi OHNISHI・Shigetoshi SHIODA・Jun-ichi HORIUCHI*

はじめに

口腔領域に特有な唾液腺原発腫瘍のうち、多形性腺腫はその組織所見の多様性などから多くの検討が行われている¹⁻⁹⁾。今回われわれは、組織学的に良性と診断されたが広範囲摘出術後も、再発を繰り返し、放射線治療により良好な結果が得られ、さらに顎補綴処置により術後の機能障害の改善が計られた口蓋の大きな多形性腺腫の1例を経験したので報告する。

症 例

患 者： 49歳 男性

初 診：1972（昭和47）年1月

主 訴：口蓋の腫脹。

家族歴および既往歴：特記すべき事項なし。

現病歴：約7～8年前、左側口蓋の腫瘤を某歯科医に指摘されるも放置。以後腫瘤が徐々に増大したため、1972年1月、当科を受診した。

初診時現症

全身所見：顔面、所属リンパ節などに異常所見はみられない。

口腔内所見：腫脹は口蓋より左側口蓋全体に拡がり、

写真1 初診時口腔内所見

硬軟口蓋境界部でくびれて半球状に膨隆したおの約20×30 mm 大の2個の腫瘤よりなっている。境界は明瞭で圧痛なく、前方部は弾性硬、後方部は弾性軟で、被覆粘膜は正常色を呈し、潰瘍等はみられない（写真1）。

×線所見：各種方向撮影所見のうち写真2にみられるごとく、断層撮影フィルムで左上顎洞前壁下方部の吸収像、左鼻腔底の挙上が著明に認められる。血液検査ほか各種臨床検査において異常値は認められない。

処置および経過：1972年1月、外来にて硬軟口蓋各部より試験切除を行い、良性多形性腺腫との病理組織学的診断を得た（写真3）。

腫瘍全摘出の方針で、同年3月入院。同3月、全麻下にて口内法により周囲健全組織部を含めて腫瘍を一塊として摘出した。摘出物は大きな2個の結節状腫瘍を主としており、その重量は65 gであった。剖面所見は、肉眼的に白黄灰色の腫瘍組織がみられ、後方部分には被膜を介してさらに2個の小結節状腫瘍が認められた（写真4）。

病理組織学的検索の結果では、ヒアルン化あるいは軟骨様組織のみられる間質部分に、一部では腺管様構造が散在し、また他の部位では充実性で細胞成分よりなるなど、部位により多様な像を呈して、試験切除物と同様、

東京医科歯科大学歯学部第1口腔外科学教室（主任：塩田重利教授）

* 東京医科歯科大学医学部放射線科学教室（主任：鈴木宗治教授）

The First Department of Oral Surgery, Faculty of Dentistry, Tokyo Medical and Dental University (Chief: Prof. Shigetoshi Shioda)

* Department of Radiology, School of Medicine, Tokyo Medical and Dental University (Chief: Prof. Soji Suzuki)

受付日：昭和54年12月12日

写真 2 初回入院時顔面頭蓋正面
断層撮影所見
左上顎洞前壁下方部の骨の吸収像がみられる。

写真 3 試験切除物の病理組織学的所見 (×300—
原倍率, 以下同様)

良性多形性腺腫と診断された(写真5, 6)。

術後経過は良好であったが, 約1年8か月後, 写真7にみるごとく左上顎臼歯部より頬部にかけて腫脹が再発し, 1974年2月入院, 同3月, 再び全麻下で口内外法により腫瘍を広範囲に摘出した。

手術時所見として腫瘍は弾性軟, 脆弱性で容易に破碎され, en bloc では摘出しがたく, かつ出血傾向の強いことが特徴的であり, 切除範囲の広範であったこととあわせて, 両側外頸動脈結紮が必要とされた。

術後経過は良好で同年3月退院, 外来にて経過を観察することとした。

術後約1年後, 左頬骨弓下方口腔内に腫脹が再発して

写真 4 初回手術摘出物

写真 5 初回手術摘出物の全体組織像 (×2)

きたので, 1975年2月, 局麻下に鳩卵大の腫瘍を摘出した。

摘出物の組織学的検索では, 充実性の細胞成分に富む像から良性多形性腺腫の再発と診断されたが, ときに明細胞腫または粘表皮腫と類似の像も認められると報告された(写真8, 9)。

本症例がこのような再発を繰り返したことから外科的根治性の困難さを考慮し, 臨床的には悪性への移行の可能性も考えられ, 1975年2月より5か月間 FT-207 による化学療法を行った。この間総量 87 g を投与したが, 上顎欠損部内側口蓋部より腫瘍の再発, 増大傾向がみられたため, 翌1976年7月入院, 同7月, 全麻下にて口内外法により左上顎骨半側切除術を行った。しかし, 腫瘍構成細胞の多形性および異型性には病理組織学的に悪性化を疑わしめるものは認められなかった。

ついで, 術後後遺した機能的障害, すなわち発音, 咀嚼, 開口等の障害について, これらの改善に努めた。ま

写真 6 初回手術摘出物の病理組織学的所見
線維軟骨化生の部分 (×300)

写真 9 明細胞腫と類似の所見 (×300)

写真 7 初回再発時の口腔内所見

写真 10 Tele ⁶⁰Co 放射線照射完了時の口腔内所見
腫瘍部分は縮小

写真 8 第3回手術摘出物の病理組織学的所見
細胞充実性部分 (×300)

ず、開口障害については、1977年8月 ■■■、局麻下にて左側顎間皺壁部瘢痕伸展術による開口域拡大術を行い、 $\frac{1}{1}$ 間で約 19 mm の開口域を約 26 mm まで拡大させ、 $\frac{1}{1}$ 間でオムニバック製の簡易切除義顎を作製、装着し

た。

1977年9月下旬頃より、患者は左上眼瞼下垂および視力低下を訴え、他覚的にも切除腔内に腫瘍の膨隆が認められたため、本学医学部附属病院に眼科および脳外科の精査を依頼したところ、EMI スキャンニング所見などより腫瘍の広範進展を思わせる所見が報告された。この間、肝機能低下が認められ、また脳外科的にも手術の適応はないと判断されたので、放射線治療を試みることとなり、同放射線科にて1977年10月より同年12月までの間 ⁶⁰Co 遠隔照射 (6,000 R) を行った。その結果、切除腔内の腫瘍は著明に縮小し、眼科的異常も改善されたので (写真 10)、1977年12月 ■■■退院した。

以後経過は良好で、外来通院下に観察を進めたが、数回の手術のため広範な口蓋の実質欠損により固有共鳴腔を失い、軟口蓋の瘢痕収縮から鼻咽腔閉鎖不全を起こし、著明な開放性鼻声による構音の歪みが発現した。そのため口蓋欠損部に対してはオムニバック製の中空の栓塞子を、咽頭部にはレジンのパルプを付与した切除義顎を作製し、装着した (写真 11)。これにより言語機能は

写真 11 透明オムニバックプレートによる栓塞部を有するバルブ附与の切除義顎全体像 重量 23 g

著明に改善された。同義顎装着前後の言語所見は次のごとくである。

＜切除義顎装着前の言語所見＞

(1) 単音の構音検査において全体に高度の開鼻声による歪みがあり、特に摩擦音の [s], [ʃ], 破裂音の [dʒ], [tʃ], [ts] において著明であった。

(2) 軟口蓋破裂音である [k], [g] においては誤りが多く、子音の省略や [h], [ç], [ø] などへの置換の傾向がみられた。

(3) 口唇破裂音の [p] においては、一部左側上唇の麻痺により、口唇の完全閉鎖が不可能なため一部 [h], [ç] へ置換された。

(4) 5段階法の会話明瞭度においてはⅣ度（時々わかる語がある）であった。

(5) 田口式マノメーターによる呼吸の鼻腔漏出気量は約50%であった。

＜同義顎装着後の言語所見＞

(1) 全体に著明な開鼻声の低下がみられると同時に子音の明瞭度がよくなり、[z] が [dʒ] へ置換される以外は特に問題はみられなかった。

(2) 会話明瞭度はⅠ度（よくわかる）に改善された。

(3) 鼻漏気量は約28%で装着前の約半分に減少した。

(4) 装着前においてほとんどみられなかった軟口蓋の動きは装着数か月後良好となった。

考 案

口腔領域に特異的に発症する多形性腺腫は組織学的に大部分は良性とされる¹⁾が、その性状は現在なお十分に把握されているとはいえず、組織学的に一部悪性の潜在能をもつもの、あるいは悪性型の報告³⁻⁸⁾とともに、臨床的動態との対応およびその解明は臨床的にも組織学的

にもいまだ不十分である。

本症例においては組織学的に良性と考えられた病理学的所見からの類推と異なり、その臨床的経過は悪性に準じたものであった。すなわち、その組織像は、初発時にはほぼ典型的な良性多形性腺腫の像を呈していたが、再発時には一部角化の著しい扁平上皮化生のみられる充実性の細胞成分に富む像へ移行しており、さらに唾液腺由来の他の良性腫瘍と類似の像を示すなど、本腫瘍の多様性、複雑さを思わせたが、周囲を線維性結合組織で被包され、細胞の多形性も一貫してごくわずかであるなど、組織学的には良性の範囲を越えるものではなかった。このように、本腫瘍が良性であるにもかかわらず再発を繰り返す原因として多中心性発生がいわれており、本症例のごとく初回手術時すでに近接してなお独立した2個の大結節および数個の小結節が認められた報告はまれである。したがって、広範進展例では外科摘出手術にあたって小結節の残留が疑われるものであり、このことは本症例が根治的手術を実施したにもかかわらず再発を示した大きな原因とも考察される。また、腫瘍細胞の分離性が異常に高いことは悪性の場合のみでなく腺系良性の場合にも観察される。これについては細胞学的に、あるいは組織培養学的検索においても認められ報告している¹⁰⁾が、このことは本腫瘍広範進展例における腫瘍組織の遊離芽状進展を説明するものとして腫瘍再発の大きな原因とも考えられる。

また、その治療に当たっては従来より良性、悪性ともに放射線感受性は低いとされているが、本症例では⁶⁰Co照射が著明に奏効し、照射後約1年半経過後も腫瘍の新たな再発がなく良好に経過しており、この点、放射線照射の線質および同技術の進歩によるところも大であると考えられる。また、同時に腫瘍摘出、減量手術、さらに制癌剤 FT-207 の投与などが積極的に有効性を高めるべく、あるいは相乗的に働いたとも推察されるが、詳細な検討は専門家とともに別の機会にゆずりたい。

腫瘍摘出術後の上顎実質欠損と言語障害、あるいは切除義顎によるその修復に関する報告は、わが国においても数多くみられる。すなわち、1958年に鶴養らは義顎の栓塞子の形態と発音機能について、天蓋開放型と中空型の比較検討を行い、前者の方が優れていると結論し¹¹⁾、1967年に江口らは口蓋欠損の部位、大きさとの関係から栓塞子についてはその隆起が術創腔の70%を占める中央の高い山型のものが発音改善が大であると報告している¹²⁾。また、構音障害をとり上げた報告は既述の江口ほか、弘田 (1958)¹³⁾、向野 (1962)¹⁴⁾、山里 (1968)¹⁵⁾らによって行われている。しかし、なおその形態、機能およびそれらの評価法などについては内外の諸報告においても種々であり、かつ多くの不全点もみられ、それらの改善を求めて近年ますます顎補綴への関心がはられ検討研究されている。

本症例の特徴点を述べると、まず、開口障害に対し頬部粘膜の瘢痕束切除、伸展による開口域拡大術を実施し、2分割法による欠損部の印象が十分に可能な開口域が得られ、同時に最適な大きさの栓塞子を付与した義顎が作製可能となったことである。さらに、義顎にバルブを附与することにより鼻咽腔閉鎖不全の改善を行い、また軽量化のため栓塞子のみオムニバックプレートによる中空のものとし、より良好な結果を得た。本法は水谷、大西らによって報告された¹⁶⁾透明プレート使用による即時切除義顎の永久義顎への応用ともいえるものであり、上記の利点のほかに、作製操作が簡便で、特に欠損部形態の変形が起りやすい術後期間での装用には必要に応じて栓塞部のみの作り直しが簡単に行いうること、また、透明で適合状態の確認が容易である、などがあげられる。

これにより、患者は審美的ならびに機能的回復を得て前職に復しているが、そのリハビリテーションおよび経過観察に当たってはさらに悪性腫瘍に準じた長期にわたる観察が必要と考えられる。

ま と め

今回われわれは、病理組織学的に良性と診断されたが再発を繰り返し広範囲に進展し、臨床的には悪性に準じた特異な経過をとった49歳男性の口蓋に発生した多形性腺腫の1例を経験した。本症例に対しては、初め口内法、次いで口外法による根治的手術を数回実施したにもかかわらず再発を繰り返し、化学療法を併用しつつ放射線療法を行い良好な結果を得た。また、術後後遺した種々の障害に対しては、社会復帰への配慮とともに切除義顎の作製を行い、特に言語機能の著明な改善が得られた。

引 用 文 献

- 1) 石川梧朗, 秋吉正豊: 口腔病理学 II. 永末書店, 京都, 1969, 1066頁.
- 2) Saksela, E., Takkanen, J. and Kohonen, A.: The malignancy of mixed tumors of the parotid gland. Acta Otolaryng 62 1970.
- 3) 岡本次郎, 森 昌彦: 多形性腺腫の臨床的病理学的研究. 日口外誌 23: 193 1976.
- 4) 馬場謙介, 他: いわゆる良性混合腫瘍. 耳喉 49: 809 1977.
- 5) 藤林孝司, 他: 小唾液腺腫瘍の臨床的研究. 口科誌 21: 901 1972.
- 6) 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.
- 7) 大浦 稔, 他: 耳下腺混合腫瘍の1例. 日口外誌 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. 日口外誌 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——. 日病学会誌 44: 243 1955.
- 10) 清水正嗣: 口蓋腫瘍の細胞診断学的研究. 口科誌 21: 679 1972.
- 11) 鶴養 弘, 他: 硬口蓋部欠損に対する栓塞子に関する臨床実験. 補綴誌 2: 214 1958.
- 12) 江口実美, 佐藤意生: 口蓋欠損が音声言語に及ぼす影響について. 耳喉 39: 71 1967.
- 13) 弘田仁哉, 吉沢典男, 他: 上顎癌摘出による構音障害の1例. 音響学会誌 14: 235 1958.
- 14) 向野興雄, 能美貞典: 上顎全摘出後の発語障害について. 耳鼻と臨床 8: 162 1962.
- 15) 山里 進, 他: 軟口蓋原発多形性腺腫摘出後の構音障害にスピーチエイドを応用した一治験例. 口病誌 35: 520 1968.
- 16) 水谷 雄, 他: 透明プレート使用による新しい即時切除義顎. 顎顔面補綴 2: 29 1979.