軟口蓋に発生した腺様嚢胞癌の1例

長山 勝・上田 実・糟谷政代・岡 達

Adenoid cystic carcinoma found in the soft palate

Masaru NAGAYAMA・Minoru UEDA・Masayo KASUYA・Tohru OKA

Abstract: Recently we came across a case of adenoid cystic carcinoma in the soft palate, rarely found in past medical literature. The patient, a 56-year-old woman, was treated by surgical resection of palatal tumor with immediate reconstruction of the palate after radiotherapy and chemotherapy. The most difficult part was repairing the defects of the soft palate. Reconstruction was done by using a mucoperiosteal flap of hard palate. Detailed procedures of reconstruction are described and discussed in the paper.

Postoperative recovery was uneventful and, after 17 months, no evidence of recurrence or metastasis has been observed. Pronunciation disturbance was not serious and was much less than expected. No further complications nor adverse results due to the operation were observed.

Key words: adenoid cystic carcinoma, soft palate, soft palate reconstruction

緒 言

腺様嚢胞癌は大唾液腺、小唾液腺の他、鼻咽腔、副鼻腔、気管支、涙腺、乳腺、食道などに発生する比較的まれな悪性上皮性腫瘍である。本腫瘍の発育は緩慢で浸潤性であり、局所再発、遠隔転移を生じやすく、一般に予後は不良とされている^{1,2)}。

今回、われわれは軟口蓋に原発した腺様嚢胞癌の1例を経験した。発現部位の関係から腫瘍の外科的切除により言語、嚥下障害の発現が予想されるが、その再建手術法がそれら障害の機能回復に重要な意味を有すると考えられる。われわれが採用した再建手術法と治療経過の概要を報告する。

症 例

患 者：56歳 女性。
初 診：昭和57年12月■日。
主 訴：右側軟口蓋部腫脹。
家族歴・既往歴：特記事項はない。

名古屋大学医学部口腔外科学教室
(主任：岡 達教授)
Department of Oral Surgery, Nagoya University
School of Medicine (Chief: Prof. Tohru Oka)
受付日：昭和59年8月13日

写真1 口腔内所見
腫瘍潰瘍部(矢印)は生検による

現病歴：昭和57年12月中旬、右側軟口蓋部に発赤を伴う無痛性の腫脹を自覚し、1週間後、当科を受診した。

現 症

全身所見：体格中等度、栄養状態は良好で、特記すべき異常所見は認められなかった。顔貌は左右対称、顔色やや不良。右側頸下部に大豆大、小豆大各1個のリンパ節を触知、可能性で圧痛は認めなかった。頸部リンパ節は触知しなかった。

局所所見：右側軟口蓋部に約20×25mmの半球状、比較的境界明瞭な弾性硬の腫瘍を認めた。腫瘍は正中をわずかに越え、左側軟口蓋にも及び、被覆粘膜は正常で

写真2 硬口蓋の粘膜骨膜弁作製

写真3 術後1年の口腔内所見

あった(写真1)。

X線所見：胸部X線像には異常所見なく、腫瘍周囲の骨の破壊、吸収像は認められなかった。

臨床検査所見：血液一般、血液凝固、生化学、尿、心電図等の臨床検査で異常所見を認めなかった。

診断：口蓋腺様嚢胞癌。

臨床診断として口蓋多形性腺腫疑診としたが、昭和57年12月■、生検を行い、腺様嚢胞癌の病理組織診断を得た。TNM分類では T2N1M0 (UICC, 1978年)。

処置および経過：昭和58年1月■より放射線治療と化学療法を開始し、10 MeV 電子線を 3 Gy/回、3 回/週、1月■日までに総線量 24 Gy の体腔管照射を施行した。また、同日より 5-FU 500 mg/日の点滴静注を行い、5日間投与後、250 mg/日に減量、1月■日までに総量 3,500 mg を投与した。その後、1月26日より Adriamycin 10 mg/日を4日間連日静注、1クール投与し、1週間休薬後、2日間静注、総量 60 mg 投与した。患者は1月末より咽頭痛、嚥下痛、摂食障害を訴えはじめ、数日後からは全身倦怠感、食欲不振、嘔吐が発現してきた。

放射線治療、化学療法の併用治療では腫瘍の縮小はほとんど認められなかった。局所の消炎状態が得られた2月14日、右全頸部廓清術、腫瘍切除術、切除部即時再建

図1 手術術式
太い実線は切開線を示す

図2 手術術式
口蓋弁の後方移動と縫合

術を施行した。手術は頸部廓清術にひきつづき、腫瘍の周囲 1~1.5 cm の安全域を設けて軟口蓋を切除した。右側大口蓋神経血管束は保存しえたが、切除範囲は口蓋垂を含め、左側軟口蓋にまで及んでいた(図1)。切除後、硬口蓋全域にわたる粘膜骨膜弁を作製(写真2)、両側大口蓋動脈を十分に伸展させ、大口蓋孔後方の骨を除去し、この弁を可能な限り後方移動し、右側の咽頭側壁粘膜を一部剝離した上で、頬粘膜、軟口蓋外側、口蓋弓の切縁に縫合固定した。さらに右側頬粘膜部に作製した粘膜弁を利用し、軟口蓋組織欠損部の1次再建を行った(図2)。硬口蓋前部に広範に生じた骨露出面にはテトラサイクリン軟膏ガーゼを圧抵し、床副子を装着した。

写真 4 摘出物病理組織像 (H-E 染色, $\times 200$)
篩状小嚢胞腔を形成する部分

写真 5 摘出物病理組織像 (H-E 染色, $\times 100$)
粘膜下から筋層内への腫瘍の浸潤を認める

術後、口蓋弁の後もどりは認められず、硬口蓋前部の上皮化も順調で、ほぼ予定通りの軟口蓋再建が得られた(写真3)。術後より鼻咽腔閉鎖不全が認められ、軽度の開鼻声を呈したが、acceptable speech が得られた。現在、言語機能の改善を図り、speech aid を装用している。2月■日より adjuvant chemoinmunotherapy (Picibanil, Futraful) を開始し、退院時まで継続した。また、3月■日より Linac X線 10 MV の回転照射を行い、途中一時休止したが5月■日まで総線量 40 Gy 照射した。5月■日退院後、外来にて adjuvant chemotherapy (Futraful) を継続しつつ、観察しているが、術後17か月を経過した現在、局所再発および遠隔転移は認められず、経過は良好である。

病理組織学的所見：摘出物の全切片片で濃染性、円形の核と乏しい細胞質を有する小型の腫瘍細胞が内部に篩状小嚢胞腔を形成し増殖しており(写真4)、粘膜下から筋層内への著明な浸潤が認められた(写真5)。腫瘍は篩状小嚢胞腔を形成する部分と管状構造を示して増殖している部分が混在していたが、充実性増殖を示す部分は乏しく、また間質の硝子化は認められなかった。

考 察

腺様嚢胞癌の治療法としては外科的切除、放射線治療、化学療法がある。外科的切除は本腫瘍の根治的治療法として従来より推奨されているが、放射線治療や化学療法の単独、または手術との併用療法も報告されてい

る。放射線治療に関しては、本腫瘍が放射線感受性が低いという報告^{1,9)}もあるが、感受性が高いという説^{4,7)}も多くあり、本腫瘍の高頻度な局所再発を考慮すると、手術後に積極的に試みるべき療法と考える。化学療法に関するまとまった報告は少なく、その抗腫瘍効果も明確ではないが、Adriamycin^{8,9)}をはじめとして、Cisplatin¹⁰⁾、5-FU^{9,11)}などでも有効であったとの報告がある。したがって根治的療法とはなりえないとしても、補助的療法として採用すべきであろう。

本腫瘍の発育が浸潤性で、神経周囲組織への浸潤が多い^{8,12,13)}という性格上、切除範囲はできるだけ広範であることが望まれる。本症例では軟口蓋の切開線を腫瘍の周囲 1~1.5 cm の安全域を設けて設定したが、これで根治的な十分な切除量とは考えていない。ただ、本症例のようにその組織欠損が言語、嚥下などの機能障害と密接に関連する場合は切除量を無制限に拡大することはできず、必要にして十分な切除範囲に留めなければならない。術後、放射線照射を追加したのも治療をさらに確実なものとしたいとの考えからである。

手術は切除範囲の決定とともに軟口蓋組織欠損部をいかに再建するかが問題となった。近年、頭頸部領域の腫瘍、特に悪性腫瘍切除に伴う組織欠損の再建には、deltopectoral flap¹⁴⁾、myocutaneous flap^{15,16)}、forehead flap¹⁷⁾などが広く応用されている。軟口蓋部組織欠損の再建には上記の皮弁、筋皮弁の使用が考えられるが、tongue flap¹⁸⁾による再建も報告されている。本症例では deltopectoral flap, forehead flap の利用を検討した

が、これらは弁がやや過大となり過ぎる点、患皮部の審美的障害、弁切離のため二次手術を要する点などが問題であり、採用しなかった。tongue flap で再建するには欠損部が過大すぎ、困難と考えられた。われわれは口蓋裂の push back operation を応用し、口蓋弁の後方移動を図ったが、大口蓋動脈の伸展に限度があり、十分な後方移動が得られず、本症例に鼻咽腔閉鎖不全を後遺した。しかし、術前に予想したよりも軽度な言語障害に留まっている。

最近、下郷ら¹⁹⁾は硬口蓋の島状粘骨膜弁による軟口蓋再建を報告しているが、この方法は弁の移動が自由であり、比較的大きな軟口蓋組織欠損部を被覆することが可能で、適応の多い再建法と考えられる。本症例では軟口蓋欠損が後縁、口蓋垂を含め両側にわたる広範囲となるので、この手術法を採用しなかったが、硬口蓋両側より島状粘骨膜弁を作製すれば十分に軟口蓋欠損部を再建できる見込みもあり、今後、試みるべき方法と考えている。

術後17か月を経過した現在、経過は良好であるが、本腫瘍の発育が緩慢で浸潤性であり、術後、長期間を経て局所再発、遠隔転移が発現すること多いという性格上、今後長期にわたる経過観察が重要であると考えられる。

結 語

われわれは軟口蓋に発生した腺様嚢胞癌の1例を経験、治療経過の概要と、われわれが行った軟口蓋の再建手術法につき報告した。

本論文の要旨は昭和59年6月22日、第8回日本頭頸部腫瘍学会（久留米）において発表した。

引 用 文 献

- 1) Moran, J.J., Becker, S.M., et al.: Adenoid cystic carcinoma. A clinicopathological study. *Cancer* 14: 1235-1250 1961.
- 2) Spiro, R.H., Huvos, A.G., et al.: Adenoid cystic carcinoma of salivary origin. A clinicopathologic study of 242 cases. *Am J Surg* 128: 512-520 1974.
- 3) Foote, F.W. and Frazell, E.L.: Tumors of the major salivary gland. *Cancer* 6: 1065-1133 1953.
- 4) 堀内淳一, 斎藤俊孝, 他: 口腔領域の腺様嚢胞

癌 (Adenoid cystic carcinoma) とその放射線治療経験. 臨牀 13: 457-467 1968.

- 5) Berdal, P., Besche, A., et al.: Cylindroma of salivary glands. A report of 80 cases. *Acta Otolaryngol* 263: 170-173 1970.
- 6) Eby, L.S., Johnson, D.S., et al.: Adenoid cystic carcinoma of the head and neck. *Cancer* 29: 1160-1168 1972.
- 7) Conley, J. and Dingman, D.L.: Adenoid cystic carcinoma in the head and neck (cylindroma). *Arch Otolaryngol* 100: 81-90 1974.
- 8) 犬山征夫, 堀内正敏, 他: 頭頸部 adenoid cystic carcinoma に対する化学療法法の検討. 耳喉 53: 45-52 1981.
- 9) Budd, G.T. and Groppe, C.W.: Adenoid cystic carcinoma of the salivary gland. Sustained complete response to chemotherapy. *Cancer* 51: 589-590 1983.
- 10) Schramm, V.L., Srodes, C., et al.: Cisplatin therapy for adenoid cystic carcinoma. *Arch Otolaryngol* 107: 739-741 1981.
- 11) Tannock, I.F. and Sutherland, D.J.: Chemotherapy for adenocystic carcinoma. *Cancer* 46: 452-454 1980.
- 12) 高城 功: 唾液腺原発腺様嚢胞癌についての病理学的検討. 口病誌 43: 64-86 1976.
- 13) Yoshimura, Y., Hasegawa, K., et al.: Metastasis of adenoid cystic carcinoma of the mandible to the Gasserian ganglion. *J Am Dent Assoc* 96: 469-473 1978.
- 14) Bakamjian, V.Y.: A two-stage method for pharyngoesophageal reconstruction with a primary pectoral skin flap. *Plast Reconstr Surg* 36: 173-184 1965.
- 15) Ariyan, S.: Pectoralis major, sternomastoid, and other musculocutaneous flaps for head and neck reconstruction. *Clin Plast Surg* 7: 89-109 1980.
- 16) 村上 泰: 頭頸部再建外科最近の進歩——myocutaneous flap の発展とその現況——. 耳喉 53: 77-87 1981.
- 17) McGregor, I.A.: The temporal flap in intraoral cancer: Its use in repairing the post-excisional defect. *Br J Plast Surg* 6: 318-335 1963.
- 18) Chamber, R.G., Jaques, D.A., et al.: Tongue flaps for intraoral reconstruction. *Am J Surg* 118: 783-786 1969.
- 19) 下郷和雄, 富田陽二, 他: 口蓋島状弁による軟口蓋再建について. 日口外誌 30: 700-704 1984.