上顎洞に発生した多形性腺腫の1例

阿部 廣幸・安藤 智博・丸岡 靖史・水野 博之
桑澤 隆補・扇内 秀樹

A case of pleomorphic adenoma in the maxillary sinus

Hiroyuki ABE・Tomohiro ANDO・Yasubumi MARUOKA
Hiroyuki MIZUNO・Takaho KUWAZAWA・Hideki OGIUCHI**Abstract:** A rare case of pleomorphic adenoma arising in the maxillary sinus is reported.

A 58-year-old man complained of pus discharge from the oroantral fistula following the extraction of the right second molar.

CT scan revealed a mass of 30 HU unit suggesting a formation of post operative maxillary cyst. Surgical excision of the lesion was carried out by Caldwell-Luc's method, and the oroantral fistula was closed. The pathological diagnosis was pleomorphic adenoma. The patient showed no evidence of recurrence of the tumor for two years postoperatively.

Key words: pleomorphic adenoma (多形性腺腫), maxillary sinus (上顎洞)

緒 言

多形性腺腫は唾液腺腫瘍のなかでも最も頻度の高い良性腫瘍であり、大唾液腺では耳下腺に好発し、小唾液腺では口蓋に発生する頻度が高い。その他に鼻咽腔、気管領域にも発生することが知られているが、いずれもまれなもので、上顎洞に発生することはきわめて少ない。

今回、われわれは上顎洞に発生した多形性腺腫の1例を経験したのでその概要を報告する。

症 例

患 者：58歳 男性。

初 診：昭和61年12月。

主 訴：7] 抜歯窩からの排膿。

家族歴：特記事項なし。

既往歴：昭和23年両側副鼻腔炎にて上顎洞根治手術を受けている。

現病歴：昭和59年某歯科にて7] の抜髄処置を受けた

が、補綴処置は行わず放置していた。昭和61年同部頬側歯肉に膿瘍を形成したため、同月7日某歯科を受診、切開、投薬を受け、消炎後、7] を抜歯されたが抜歯窩からの排膿が持続するため当科へ紹介された。

現 症：体格中等度、栄養状態は良好で、全身所見に異常は認められなかった。顔貌は左右対称であったが、右頬部に軽度の圧痛を認めた。鼻腔所見では右下鼻道側壁にわずかな膨隆と、下鼻甲介の軽度の腫脹を認めるほかには異常は認めなかった。口腔内所見では⑥54③にブリッジが装着されていたが動揺は認めなかった。口腔粘膜は7] 抜歯窩相当部に直径約3mmの粘膜欠損があり、上顎洞との交通を認めたが、周囲歯肉は正常色で腫脹は認めなかった。穿孔部からは黄白色、粘稠性の膿様液の排出をわずかに認めた。所属リンパ節所見では、右顎下リンパ節に大豆大、可動性のリンパ節を触知した。

X線所見：オルソパントモグラムでは7] 抜歯窩相当部にX線透過像を認め、Waters法では右上顎洞の下側方壁は境界不明瞭で、膨脹性の囊胞性病変が疑われた(写真1)。断層撮影では右上顎洞は小さく、その側方壁および歯槽部を中心として骨欠損像を認め、骨硬化像を伴っていた(写真2)。

CT所見：右上顎洞にはCT値30HU、境界明瞭、内部均一な組織を認め、その後側方壁の吸収像を認めた(写真3)。

東京女子医科大学口腔外科学教室

(主任：扇内秀樹教授)

Department of Oral Surgery, Tokyo Women's Medical College (Chief: Prof. Hideki Ogiuchi)

受付日：平成元年5月22日

写真 1 X線写真

上：オルソパントモグラム

下：Waters 法

写真 2 X線写真

臨床検査所見：心電図検査にて完全右脚ブロックの所見を認めた他には、血液一般、生化学、尿検査において異常は認めなかった。

臨床診断：右術後性上顎嚢胞。

処置および経過：完全右脚ブロックについて、本院心研内科を受診させ、当科の手術に際しては問題がないむねの返信を得た。昭和62年4月 入院。同月

写真 3 CT 像

写真 4 上：摘出物

下：同剖面

GOE 全麻下に嚢胞摘出，上顎洞根治，口腔上顎洞瘻閉鎖術を施行した。7-2] 相当部に口腔上顎洞瘻閉鎖を予定した粘膜骨膜切開を加え，剝離，翻転したところ 7] 相当部に約 15×10 mm の骨吸収がみられ 同部上顎洞内に暗赤色，弾性硬の腫瘤を認めた。一部骨との剝離はやや困難であったが，洞粘膜とともに一塊として摘出し得た。洞粘膜剝離時に黄白色，粘稠性の膿様液の流出を認めた。骨面は平滑であったが，洞後方壁には小指頭大の骨欠損を認めた。下鼻道に対孔を形成し，口腔上顎洞瘻を閉鎖して手術を終了した。術後の経過は良好で同月25

写真 5 病理組織像 上皮組織の部分、腺管様構造を示し内腔に粘液様分泌物を入れている。

上：H-E ×10

下：H-E ×50

日退院した。術後約2年を経過した現在、再発などの臨床症状は認めていない。

摘出物所見：摘出物は表面暗赤色、弾性硬、直径約20mm、類球形の腫瘍とこれに連続した洞粘膜であった。腫瘍の断面所見は灰白色を呈した被膜に包われた充実性腫瘍であった（写真4）。

病理組織学的所見：上皮組織と間質成分よりなる腫瘍で、上皮組織は管状あるいは腺状構造を示し、内腔に好酸性の粘液様分泌物をいれているものが多く、間質成分は線維性で軟骨様組織、粘液腫様部などが認められた（写真5, 6, 7）。

病理組織学的診断：多形性腺腫。

考 察

多形性腺腫は、従来、混合腫瘍という名称が Billroth (1859)²⁾ 以来用いられてきたが、近年では本腫瘍は真の混合腫瘍ではなく、唾液腺介在部導管上皮細胞を幹細胞として発生すると考えられる³⁾ 上皮性腫瘍で、腺腫に属するものと考えられ、その名称も多形性腺腫 (Willis 1948)⁴⁾ が一般的に用いられている。

写真 6 病理組織像

上：線維性の間質成分の部分 (H-E ×25)

下：軟骨様組織の間質成分の部分 (H-E ×25)

本腫瘍の発生頻度は唾液腺腫瘍のなかで最も高く、一般に唾液腺腫瘍全体の60～65%を占め⁵⁾、その発現度は Rauch⁶⁾ によれば耳下腺84%、顎下腺8%、舌下腺0.5%、小唾液腺6.5%、その他が1%とされている。さらに Rauch ら¹⁾ は文献上の多形性腺腫6,000例以上を検索した結果、小唾液腺由来のものは口腔領域が約5.5%であり、2.5%のみが鼻咽腔、気管領域のもので、その他に側頭骨、甲状舌管、下顎骨に発生した症例をあげている。また Payne ら⁷⁾ は気管支に発生した症例を報告している。

小唾液腺由来の多形性腺腫は口蓋に最も多く発生し、顎下腺とはほぼ同数を示すとされ⁸⁾、その他の口腔領域では藤林ら⁹⁾ によると口咽頭部、頬粘膜、歯槽部、口底、口唇にみられ、また Spiro ら¹⁰⁾ の鼻、副鼻腔領域での報告によると小唾液腺腫瘍132例中、本腫瘍は4例のみみられ、鼻腔に2例、鼻咽頭、上顎洞に各1例ずつみられたと述べている。

上顎洞内に発生した多形性腺腫症例は、われわれが渉猟し得た本邦文献¹⁰⁻¹⁵⁾ においては6例をみるに過ぎず、自験例は7例目であると思われる（表1）。国外においてもわれわれが渉猟し得た限りでは Martis ら¹⁶⁾ の76歳、女性の右上顎洞底原発の1例と、前述の Spiro ら¹⁰⁾

表 1 上顎洞に発生した多形性腺腫

報告者	報告年	患者	主 訴	患側	初診までの期間	大 き さ	手 術 法	再発観察期間
① 野村ら ¹⁰⁾	1955	48歳 女	頬部腫脹	右	6 か月	鶏卵大	腫瘍摘出	
② 村島ら ¹¹⁾	1978	44歳 女	頬部腫脹	左	2 年	鳩卵大	腫瘍摘出 (5FU 動注, ⁶⁰ Co 照射)	
③ 大越ら ¹²⁾	1983	68歳 男	頬部腫脹 6) 相当部粘膜 からの排膿	右	2 か月		上顎洞根治	1 年 (—)
④ 毛呂ら ¹³⁾	1986	33歳 女	頬部腫脹	左	6 か月	鶏卵大	腫瘍摘出	6 か月 (—)
⑤ 住西ら ¹⁴⁾	1987	63歳 男	口蓋部腫脹	左	21年	52×50 mm	上顎骨全摘	7 か月 (—)
⑥ 中山ら ¹⁵⁾	1988	33歳 男	膿性鼻汁	左	2 か月	2×2×2.5 cm	腫瘍摘出	16か月 (—)
⑦ 自験例	1989	58歳 女	7) 抜歯窩からの 排膿	右	3 年	20 mm 大	腫瘍摘出 上顎洞根治	2 年 (—)

写真 7 病理組織像

上：粘液腫様，軟骨様組織を示す部分 (H-E ×25)

下：被膜の部分 (H-E ×25)

の小唾液腺腫瘍の集計のなかの1例の計2例のみであった。Martis ら¹⁶⁾の症例は6年間で鶏卵大に発育し、頬部腫脹と口蓋突出をきたしたため、摘出術が行われ、術後2年を経て再発はなかったものであったが、Spira ら⁹⁾の症例は年齢、性、臨床症状などは不明であった。

本腫瘍の発現年齢はあらゆる年代にわたっているが、

20～50歳代に多くみられ、性別では著しい差はないが、女性に多くみられるようである。発育は一般にゆるやかで、無痛性であるため、摘出までの期間は5年くらいのものであるが、小唾液腺部のものは比較的早期に処置を受けているとされている⁵⁾。上顎洞に発生した本腫瘍の場合には、自覚症状にとぼしく、術前の診断も困難なため、腫瘍がかなり大きくなった時点で処置されるものが多いように思われ、X線照射を行ったもの¹¹⁾や、初診までの期間が21年を要したもの¹⁴⁾もみられる。自験例は58歳、男性、右術後性上顎嚢胞の臨床診断のもとに手術を行った。この臨床診断は、既往歴で38年前に両側副鼻腔炎にて手術を受けたこと、局所所見で口腔上顎洞嚢を認め同部よりの排膿の持続を認めたこと、X線所見において小さな上顎洞と上顎骨外側壁の骨欠損像を認めたが、CT 所見において嚢胞様の像を認めたことなどからなされたが、病理組織学的診断は多形性腺腫であった。

本腫瘍の組織学的所見はきわめて多様な像を示し、同一の腫瘍でも部位によって像が異なる。上皮組織と間質成分との割合は種々であるが、上皮細胞は腺管状、充実性、円柱腫状、ときには腺房状の胞巣をつくり、典型例では間質部に粘液腫様および軟骨様組織が認められる⁵⁾。上皮組織は立方状ないし円柱状のかなり小型の細胞からなり、二層性または一層性に配列して腺管構造や嚢胞をなし、または索状や塊状の充実性増殖像を呈する。管腔には粘液があり、これは硝子様や線維様、ときに軟骨様構造に移行したりする^{15,17)}。自験例は上皮組織、間質成分、腺管構造、粘液様分泌物、軟骨様組織、粘液腫様部などあらゆる成分が混在しており、被膜を認め、ほぼ典型的な多形性腺腫であった。

本腫瘍の組織形態から予後を判断する目安として被膜の状態、周囲組織への腫瘍の浸潤、細胞の密度や異型性、核分裂像の頻度、筋上皮細胞の有無、扁平上皮成分の量などがこれまで取り上げられてきた^{17,18)}。白川¹⁸⁾は

本腫瘍を①粘液腫様成分優勢型(間質型), ②上皮成分優勢型(腺腫型), ③筋上皮成分優勢型(充実型)に分け, これら三型の混合型が多いことはいうまでもないが, 再発例は間質型に最も多くみられ, 腺腫型では少なく, 充実型では再発をみていないと述べ, 再発が細胞成分の少ない間質型に多い理由として1) 腫瘍が軟らかく内容がゼリー状であり, 内容が手術時漏れて散布されやすい, 2) 粘液腫様基質内に散在する紡錘型細胞が充実性の上皮細胞成分より増殖能が盛んである, 3) この型では被膜形成が不完全な傾向にあり, 早期の再発結節では被膜がまったく不良であることを指摘している. 自験例は上皮成分優勢型(腺腫型)に該当するものであった. しかし, これらの組織形態より, 予後すなわち再発と関係する最も重要な要因は不完全な手術術式にあることは多くの論文で指摘されている. 馬場ら¹⁷⁾は常に本腫瘍を正常組織とともに切除し, 良好な成績を収めていると述べており, 藤林ら⁸⁾も線維性被膜の外層に腫瘍巣がみられたり, 腫瘍によると考えられる潰瘍形成などがみられたことから, 手術法としては電気メスで周囲の正常組織の部分で切除し, 被覆上皮を含めて腫瘍塊を除去し, 必要に応じて口蓋骨の表層をも削除する方法をとっている. 自験例は上顎洞に発生した多形性腺腫であったが, 手術所見および摘出物所見にて, 上顎洞内に限局した充実性腫瘍で, 被膜に覆われていた. 摘出腔骨面は平滑であったが一部骨欠損を認めた. しかしこれは發育様式が充実性¹⁹⁾で, 骨を圧迫するような發育態度を示したため, 一般的な發育様式であろうと考えられる. また腫瘍は上顎洞粘膜と連続しており, 本腫瘍の由来は上顎洞上皮の上顎洞腺²⁰⁾と考えられるが, その発生時期については不明である.

上顎洞に発生した多形性腺腫の症例の再発あるいは悪性化などの報告は現在のところみられない. 自験例は術後約2年を経て経過良好であるが, さらに長期間にわたる注意深い経過観察が必要であると考えられる.

結 語

今回, われわれは58歳, 男性の右上顎洞に発生した多形性腺腫というきわめてまれな症例を経験したのでその概要を報告した.

本論文の要旨は, 第32回日本口腔外科学会総会(昭和63年名古屋)において発表した.

引 用 文 献

- 1) Gorlin, R.J. and Goldman, H.M.: Thoma's

- Oral pathology II, 6th Ed, Mosby Co, St Louis, 1970, p 1011-1018.
- 2) Billroth, T.: Beobachtungen über Geschwülste der Speicheldrüsen. Virchow Arch of Path Aut 17: 357-375 1859.
- 3) 佐藤光信: ヒト唾液腺癌細胞の増殖・分化と癌遺伝子. 日口科誌 36: 957-975 1987.
- 4) Willis, R.A.: Pathology of tumors. 1st Ed, Butterworth Co, London, 1948, p 320-348.
- 5) 石川梧朗監修: 口腔病理学Ⅱ. 改訂版, 永末書店, 京都, 1982, 718-728頁.
- 6) Rauch, S.: Die pleomorphen Adenome (Speicheldrüsenmischtumoren) und die Fragwürdigkeit ihrer Genese, Pract Otorhinolaryng 21: 159-168 1959.
- 7) Payne, W.S., Schier, J., et al.: Mixed tumors of the bronchus (salivary gland type). J Thoracic and Carciovass Surg 49: 663-668 1965.
- 8) 藤林孝司, 小幡幸男, 他: 小唾液腺腫瘍の臨床的研究. 日口科誌 21: 901-928 1972.
- 9) Spiro, R.H., Koss, L.G., et al.: Tumors of minor salivary origin, A clinicopathologic study of 492 cases. Cancer 31: 117-129 1973.
- 10) 野村郁雄, 小泉敏夫: 上顎洞唾液腺腺腫の1例. 耳喉 27: 637-639 1955.
- 11) 村島二郎, 前田剛面, 他: 副鼻腔混合腫瘍症例. 耳喉 50: 375-377 1978.
- 12) 大越哲也, 近藤博之, 他: 上顎洞内に発生したと考えられた多形性腺腫の1例. 日口外誌 29: 1747-1750 1983.
- 13) 毛呂光一, 近江健司, 他: 上顎洞内に発生した多形性腺腫の1症例(抄). 日口外誌 32: 2569 1986.
- 14) 住西良之, 小島宏司, 他: 上顎洞および鼻腔内に発生した多形性腺腫の1例(抄). 日口外誌 33: 2670 1987.
- 15) 中山むつみ, 飯田政弘, 他: 上顎洞に発生した多形性腺腫症例. 耳鼻臨床 81: 1451-1460 1988.
- 16) Martis, C.S. and Karakasis, D.T.: Pleomorphic adenoma arising in the maxillary sinus. Plastic & Reconst Surg 47: 290-292 1971.
- 17) 馬場謙介, 鷺津邦雄, 他: 唾液腺腫瘍—その組織型と予後—, 癌の臨床 19: 893-911 1973.
- 18) 白川正順: 唾液腺腫瘍の臨床病理学的研究. 慈医誌 95: 1402-1419 1980.
- 19) 白川正順, 藍沢茂雄: 唾液腺腫瘍の臨床病理学的研究. 一多形性腺腫の組織型と予後との関係を中心として—. 歯科ジャーナル 19: 95-104 1984.
- 20) 尾持昌次訳: Orban 口腔組織・発生学, 第1版, 医歯薬出版, 東京, 1977, 377-391頁.