左側舌尖部に発生した乳頭状腺癌の1例

梁川 哲雄・加地 亮詞・板東 高志・川又 均
由良 義明・吉田 秀夫・佐藤 光信・出口 博代*
林 良夫*

A case of papillary adenocarcinoma arising on the left apex of the tongue

Tetsuo YANAGAWA・Ryoji KAJI・Takashi BANDO・Hitoshi KAWAMATA
Yoshiaki YURA・Hideo YOSHIDA・Mitsunobu SATO
Hiroyo DEGUCHI*・Yoshio HAYASHI*

Abstract: A papillary adenocarcinoma with metastasis occurred in a 68-year old man. The neoplasma arose on the left apex of the tongue and metastasized to both neck lymph nodes. A partial glossectomy, marginal resection of the mandible and total neck dissection of both sides of the neck were performed. Histopathologic examination showed that the tumor was papillary adenocarcinoma, which invaded into deep muscle tissues and adjacent minor salivary glands but not in to the sublingual gland. In addition, metastatic papillary adenocarcinoma of 10 lymph nodes in the remaining 26 left cervical lymph nodes and 1 lymph node in the remaining 16 right cervical lymph nodes were observed.

To clarify whether papillary adenocarcinoma of the tongue originated in the minor salivary gland or ectopic thyroid gland the immunohistochemical method was applied with the result that amylase (salivary type) was positive but thyroglobulin was negative. These results including clinical manifestation indicated that tumor originated in the minor salivary gland.

Key words: papillary adenocarcinoma (乳頭状腺癌), apex of the tongue (舌尖部), minor salivary gland (小唾液腺由来)

緒 言

口腔に発生する小唾液腺由来の腫瘍は口蓋に発生することが最も多く、舌尖部あるいは舌下面に発生すること

はきわめてまれである^{1,2)}。また、小唾液腺由来の悪性腫瘍は病理組織学的に腺様囊胞癌が最も多く発生し、乳頭状腺癌の発生はきわめてまれである^{1,3-6)}。最近、われわれは左側舌尖部に発生した乳頭状腺癌を経験したので報告する。

症 例

患 者：68歳 男性。
初 診：昭和63年10月[]。
主 訴：左側舌尖部の腫瘍形成。
既往歴および家族歴：特記事項なし。
現病歴：昭和63年6月頃左側上頸部の腫瘍形成に気づくも、無病性のため放置していた。10月[]左側上頸部の腫瘍精査目的にて某病院外科を受診し、頸部リンパ節の摘出生検術を受けた。病理組織診断は乳頭状腺癌のり

徳島大学歯学部口腔外科学第2講座
(主任：佐藤光信教授)

* 徳島大学歯学部口腔病理学講座
(主任：林 良夫教授)
Second Department of Oral and Maxillofacial
Surgery, Tokushima University School of Dentistry (Chief: Prof. Mitsunobu Sato)

* Department of Oral Pathology, Tokushima
University School of Dentistry (Chief: Prof.
Yoshio Hayashi)

受付日：平成2年10月31日

写真 1 左側舌尖部腫瘍

写真 2 病理組織像 (H-E 染色, ×120)

ンパ節転移であった。原発部位検索のため甲状腺および上部消化管の精査を行うも、特に異常所見を認めなかった。しかし、左側舌尖部に腫瘍の形成を認め原発部位として疑われたため、10月■当科へ紹介され来科した。

現 症：左側舌尖部から舌下面にかけて長径が 2.7 cm の境界が比較的明瞭な腫瘍の形成を認める（写真 1）。硬度は弾性軟で、表面粘膜に潰瘍形成は認めない。左側頸下リンパ節 3 個、上内深頸リンパ節 1 個、および、右側頸下リンパ節 1 個に転移と考えられるリンパ節腫脹を認める。

臨床診断：舌癌および頸部リンパ節転移。

処置ならびに経過 まず、左側舌尖部の腫瘍の試験切除術を行った。病理組織診断は乳頭状腺癌であり、某病院でのリンパ節摘出生検術で得た頸部リンパ節の転移癌と同様の病理組織所見であった。遠隔転移の有無精査のため全身 CT にて検索したが遠隔転移は認めなかった。両側頸部リンパ節転移を伴う左側舌尖部に発生した乳頭状腺癌（TNM 分類 T2N2M0）と診断し、昭和63年11月■全麻下にて、気管切開術、両側全頸部郭清術、舌部分切除術および下顎辺縁切除術を施行した。術後15日目より OK 432 と UFT による維持免疫化学療法を開始したが、12月初旬より左側鎖骨上窩に腫瘍の形成を認めたので、12月■摘出術を行った。病理組織学的検索によりリンパ節 4 個に転移癌を認め、乳頭状腺癌の像であった。そこで、昭和64年1月■より2月■まで両側頸部に術後照射（ ^{60}Co 2 Gy/日、総線量 50Gy）を行った。以後、OK 432（5 KE/2 週）と UFT（300 mg/日）による維持免疫化学療法を行い、平成 2 年10月■現在、再発転移を認めず経過良好である。

病理組織所見：舌の左側縁部より下面にかけて、粘膜固有層および深部の筋組織内に舌腺組織と密接に関連して分葉状に増殖した腫瘍組織を認める。腫瘍組織は高分化型の腺癌で、拡張した管腔内には腫瘍細胞の乳頭状増殖が認められる。腺管状構造物は 1 層の円柱～立方上皮からなり、乳頭状を呈する部分は、これらの細胞が重

積している。また、腺管内には粘液性物質がみられ、時には小石灰化物もみられる。全般に腫瘍組織は異形成が強く、核分裂像も散見される（写真 2）。また、深部の筋組織への浸潤性増殖が認められる。なお、腫瘍組織と舌下腺組織との関係は認められない。頸部リンパ節への転移を検索したところ、左側頸部では 26 個のリンパ節中 10 個に転移（頸下リンパ節 7 個中 3 個、上内深頸リンパ節 7 個中 5 個、中内深頸リンパ節 7 個中 1 個、下内深頸リンパ節 4 個中 1 個）を認め、また、中内深頸リンパ節転移部位ではリンパ節周囲の結合組織中に小さな腫瘍塊を認めた。右側頸部リンパ節 16 個中 1 個に転移（頸下リンパ節 4 個中 1 個）を認めた。

免疫組織化学的所見：唾液腺上皮のマーカーとして唾液型アミラーゼを、甲状腺上皮のマーカーとしてサイログロブリンを選び、それぞれの抗体、すなわち、抗アミラーゼ家兔血清、抗サイログロブリン家兔血清（Nordic Immunology, Tilburg, The Netherlands）を用いて Sterenberger らの開発した免疫酵素抗体法⁷⁾により本腫瘍を検討した。その結果、乳頭状増殖部の腫瘍細胞はアミラーゼに陽性を示したが（写真 3）、ほとんどの腫瘍細胞はサイログロブリンに陰性であった（写真 4）。

考 察

口腔内に発生する小唾液腺由来の腫瘍は、口蓋に最も多く発生し、次いで頬部、口唇に発生する¹⁾。舌に発生することはまれで、Gold Blatt らは口腔内に発生した小唾液腺由来の腫瘍症例報告を集計して、良性腫瘍は 2 %、そして悪性腫瘍は 10.8 % 舌に発生したと報告している²⁾。また、舌に発生する小唾液腺由来の腫瘍は大半舌中央部から後部にかけて発生し、舌尖部あるいは舌下面に発生することはきわめてまれである。渉猟した限りでは、舌尖部あるいは舌下面に発生した小唾液腺由来の腫瘍は良性腫瘍が 4 例⁸⁻¹¹⁾、そして、悪性腫瘍が 3 例³⁻⁵⁾ 報告されているのみである。良性腫瘍は 4 例とも多形性

写真 3 免疫組織化学的所見
抗唾液型アミラーゼ染色，陽性（×360）

写真 4 免疫組織化学的所見
抗サイログロブリン染色，陰性（×360）

腺腫で悪性腫瘍は Crocker らが報告した5歳男子の乳頭状腺癌症例³⁾，Tanaka らが報告した68歳男子の乳頭状腺癌症例⁴⁾と，Yajima らが報告した59歳男子の管状腺癌症例である⁵⁾（表1）。

本症例においては，左側頸部の腫瘍の形成を主訴に某病院外科を受診し，リンパ節生検摘出術を受け，病理組織学的検索にて乳頭状腺癌のリンパ節転移と判明した。頭頸部領域では乳頭状腺癌は甲状腺に原発することが多く，甲状腺の精査が行われたが，特に異常を認めなかった。また，舌根部に異所性甲状腺由来の乳頭状腺癌の発生をみることがあるが，本症例では舌根部に腫瘍の形成を認めなかった。上部消化管に発生した乳頭状腺癌の舌尖部への遠隔転移も考えられるため，腹部CT精査を行ったが，特に異常を認めなかった。舌尖部の腫瘍組織につき，免疫酵素抗体法にて唾液型アミラーゼとサイログロブリンの局在の有無を検索したところ，乳頭状増殖部の腫瘍細胞にアミラーゼの局在を認めたが，ほとんどの腫瘍細胞にサイログロブリンの局在は認めなかった。甲状腺腫瘍に特異的に発現するサイログロブリンの局在を認めなかったことから甲状腺腫瘍の遠隔転移あるいは異

所性甲状腺由来の腫瘍は否定され，そして，唾液型アミラーゼの局在を認めたことから，舌尖部に発生した本腫瘍は小唾液腺由来の乳頭状腺癌と考えられる。

治療法としては，外科療法が第一選択と考えられる。そして，唾液腺由来の腺癌は局所浸潤性の増殖と広範な転移を示す悪性度の高い腫瘍であるので¹²⁾，本症例に対しては下顎辺縁切除術を含む舌部分切除術と両側全頸部郭清術を施行した。原発部位の手術材料を病理組織学的に検索したところ，腫瘍細胞は深部の筋組織への浸潤性増殖が認められた。また，両側全頸部郭清術で得た手術材料を病理組織学的に検索したところ，左側頸部は26個のリンパ節中10個にリンパ節転移を認め，右側頸部では16個のリンパ節中1個にリンパ節転移を認めた。また，術後20日目頃より，左側鎖骨上窩に腫瘍の出現を認め，4個のリンパ節に転移を認めた。先に述べたように，舌尖部あるいは舌下面に発生した小唾液腺由来の悪性腫瘍は本症例を含めて現在まで4例の報告があるが，3例に頸部リンパ節転移を伴っていた。また，本症例および管状腺癌症例では全頸部郭清術後早期に鎖骨上窩リンパ節へ転移を認めている。舌尖部あるいは，舌下面に発生した小唾液腺由来の悪性腫瘍症例は頸部リンパ節転移を好発するので，全頸部郭清術を施行する際には慎重を期さねばならない。

表 1 舌尖部あるいは舌下面に発生した
小唾液腺由来の腫瘍症例

症例	年齢	性別	病理組織診断	報告者	報告年度
1	5	男	乳頭状腺癌	Crocker	1983 ³⁾
2	68	男	乳頭状腺癌	Tanaka	1984 ⁴⁾
3	59	男	管状腺癌	Yajima	1989 ⁵⁾
4	68	男	乳頭状腺癌	自験例	1990
5	65	男	多形性腺腫	松本	1979 ¹⁾
6	65	男	多形性腺腫	杉浦	1983 ⁹⁾
7	12	女	多形性腺腫	Rogers	1989 ¹⁰⁾
8	79	女	多形性腺腫	矢島	1989 ¹¹⁾

結 語

68歳男性の左側舌尖部に発生した小唾液腺由来と考えられる，きわめてまれな乳頭状腺癌の症例を経験したので報告した。

引 用 文 献

- 1) Spiro, R.H., Koss, L.G., et al.: Tumors of minor salivary origin. A clinicopathologic

- study of 492 cases. *Cancer* 31: 117-129 1973.
- 2) Gold Blatt, L.I. and Ellis, G.L.: Salivary gland tumor of the tongue Analysis of 55 new cases and review of the literature. *Cancer* 60: 74-81 1987.
 - 3) Crocker, T.P., Kreuther, A.Jr., et al.: Papillary adenocarcinoma of minor salivary gland origin in a child. *Arch Otolaryngol* 109: 827-831 1983.
 - 4) Tanaka, N., Shioda, S., et al.: An Ultrastructure of a papillary adenocarcinoma occurred in the anterior sublingual aspect of the tongue. *J Clin Electron Microscopy* 17: 5-6 1984.
 - 5) Yajima, M., Yamazaki, T., et al.: Tubular adenocarcinoma of the tongue. *J Oral Maxillofac Surg* 47: 86-88 1989.
 - 6) Allen, M.S.Jr., Fitz-Hugh, G.S. et al.: Low-grade papillary adenocarcinoma of the palate. *Cancer* 33: 153-158 1974.
 - 7) Sterenberger, L.A., Hardy, P.H., et al.: The unlabelled antibody enzyme method of immunohistochemistry: Preparation and properties of soluble antigen antibody complex (horseradish peroxidase-anti-horse-radish peroxidase) and its use in identification of spirochetes. *J Histochem Cytochem* 22: 1077-1083 1970.
 - 8) 松本和彦, 末続義幸, 他: 舌に発生した唾液腺多形性腺腫(いわゆる混合腫瘍)の1例. *耳喉* 51: 711-715 1979.
 - 9) 杉浦正幸, 栗田賢一, 他: 舌に発生した多形性腺腫の1例. *日口外誌* 29: 1611-1615 1983.
 - 10) Rogers, T.R., Johnson J.V., et al.: Pleomorphic adenoma of the anterior tongue in a 12-year-old girl. *J Oral Maxillofac Surg* 47: 89-90 1989.
 - 11) 矢島幹人, 栗田 浩, 他: 舌尖部に発生した多形性腺腫の1例. *日口外誌* 35: 146-150 1983.
 - 12) 白砂兼光: 唾液腺腫瘍. 宮崎 正編集: 口腔外科学, 第1版, 医歯薬出版, 東京, 1988, 556-584頁.