左側臼後三角部に再発し、全身転移をきたした粘表皮腫の1例

川島稔弘・和田 健・森田展雄
宮田和幸・湯浅祥司・坂本忠幸

A case of a recurrent mucoepidermoid tumor of the left retromolar triangle with multiple metastasis

Toshihiro KAWASHIMA · Takeshi WADA · Nobuo MORITA
Kazuyuki MIYATA · Shoji YUASA · Tadayuki SAKAMOTO

Abstract: A case of a recurrent mucoepidermoid tumor of the left retromolar triangle with multiple metastasis is reported.

A 66-year-old man came to the outpatient clinic of our hospital with a complaint of trismus. He had undergone irradiation and resection of a tumor on the left retromolar pad region 24 years ago. There had been no signs of tumor recurrence for 24 years.

CT scans showed a high density area in the left infratemporal fossa. He was treated by segmental mandibulectomy and resection of the tumor. Histological examination of the resected specimen revealed that it was similar to the first lesion removed 24 years ago. About 1 year later, the tumor recurred and progressed to general metastasis, followed by death.

Although this tumor was a well differentiated type mucoepidermoid tumor, recurrence and general metastasis occurred 24 years after primary treatment.

This experience, indicates that patients with even low grade mucoepidermoid tumors should be followed up over the long term.

Key words: mucoepidermoid tumor (粘表皮腫), recurrent tumor (再発性腫瘍), multiple metastasis (多発性転移)

緒 言

粘表皮腫は、実質が類表皮細胞、粘液産生細胞および中間型細胞からなるのを特徴とする腫瘍である。粘液産生細胞に富み嚢胞様構造があり、3構成成分が分かれて存在するものが高分化型、扁平上皮類似細胞が多く、3構成成分が混在するものが低分化型とされている。臨床経過も、一般に高分化型は良好に経過し、低分化型は予後不良であるとされる¹⁾。しかし、高分化型であっても再発をきたしたり、あるいは悪性経過をとるとする報告も散見される^{1, 2, 3)}。今回われわれは高分化型粘表皮腫で初回治療の24年後にほぼ同部

位に再発を認め、全身転移をきたした1症例を経験したので報告する。

症 例

患 者: 66歳 男性。

初 診: 平成3年6月。

主 訴: 開口障害

既往歴: 昭和60年より甲状腺機能亢進症の治療中。

家族歴: 特記すべき事項なし。

現病歴: 昭和42年4月当科にて左側臼後三角部の粘表皮腫の診断下に4600cGyの放射線療法の後、同年9月、下顎骨部分切除術、舌骨上頸部郭清術が施行された。術後より頬部皮膚の瘢痕収縮のため、開口度は2横指であった。以後4か月間、経過観察が行われていた。その後開口度に変化はなかったが、平成元年(術後22年)より開口障害の悪化を自覚し始め、平成3年4月頃より、開口度1横指となったため、6月来

和歌山県立医科大学歯科口腔外科学教室

(主任: 坂本忠幸教授)

Department of Oral and Maxillofacial Surgery,
Wakayama Medical College (Chief: Prof.
Tadayuki Sakamoto)

受付日: 平成6年3月28日

写真1

上段
初診時、オルソパントモグラム
下段
初診時、CT像

写真2 腹部皮膚転移

写真4 24年前の病理組織学所見 (HE 染色×100)

写真3 体幹、大腿に多発転移を認める全身ガリウムシンチグラム像

院した。

現 症：全身所見は、体格中等度、栄養状態は良好であった。口腔外所見は、左側頬部に癰痕による陥凹および左側耳下腺咬筋部の腫脹を認めた。腫脹の硬さは軟骨様硬であった。顎下および頸部リンパ節は触知しなかった。開口度は、上下総義歯を装着した状態で切歯間距離5mmと著しい開口障害を認めた。顔面神経の異常は認めなかったが、左側オトガイ部に知覚の低下を認めた。口腔内所見は、上下顎ともに無歯顎で、左側顎間皺壁部に癰痕様のヒダを認め、同部粘膜下に上下顎骨に癒着した軟骨様硬の腫瘤を触知した。

X線所見：初診時のオルソパントモグラムにおいて、左側下顎枝前縁および筋突起部に圧迫様骨吸収像を認めた。CT像において、左側側頭下窩に充満する腫瘍様病変を疑わせる high density area を認めた(写真1)。

処置および経過：平成3年7月、粘表皮腫の再発を疑い入院の上、同日生検を施行したところ粘表皮腫の病理診断が得られ、24年前の粘表皮腫の再発が強く示唆された。

同年7月、腫瘍切除術を施行した。皮膚切開はBlairの切開線で、口腔内は癰痕を取り囲むように顎間皺壁部に切開を行い、下顎骨は咬筋前縁で離断、頬骨弓は連続離断し、内側翼突筋、外側翼突筋、咬筋、側頭筋、および耳下腺の一部を切除し、腫瘍を一塊として摘出した。下顎骨の再建は下顎頭付きチタン・再建プレートで行った。

術後より、頬部、下顎角部に癰痕収縮による陥凹を認めたが、開口度は1.5横指に改善され、同年8月

、経過良好につき退院した。しかし、平成4年2月頃より左側頬部皮膚に腫瘍の再発を認め、同年4月、再度腫瘍切除術施行するも、その後、顔面皮膚に再発、腹部皮膚(写真2)および全身ガリウムシンチグラム(写真3)が示すように、体幹、大腿に多発性の転移をきたし、平成4年7月不幸な転帰をとった。

病理組織学所見：ヘマトキシリン・エオジン染色において、24年前の腫瘍(写真4)も、再発時の腫瘍(写真5)も、腫瘍実質は類表皮細胞および粘液産生細胞を主体としているが粘液産生細胞成分のほうが多く認められた。円形ないし楕円形を呈する扁平上皮様細胞は認められるも、著しい異型性や核分裂像は示さなかった。しかし、24年前の腫瘍の方が、再発時の腫瘍よりも、小囊胞状構造が多数認められた。

両腫瘍ともPAS染色およびアルシアン・ブルー染色において、陽性を示した。

全身転移時における皮膚転移腫瘍の組織学的所見は、24年前の腫瘍および、再発時の腫瘍とは異なり、腫瘍実質は類表皮細胞が大多数を占め、扁平上皮癌様(写真6)を呈した。しかし、PAS染色陽性細胞も認め、粘液産生細胞由来の腫瘍成分を含むことが示唆された(写真7)。

病理組織学的診断：粘表皮腫

考 察

梶山ら²⁾によると粘表皮腫は全唾液腺腫瘍の3.7%から22%をしめ、大部分が大唾液腺由来であり、下顎臼後部からの発生は5.3%と、比較的少ないとされている。再発については、低悪性型では少ないが高悪性

写真5 再発時の腫瘍の病理組織学所見 (HE 染色×100)

写真7 皮膚転移腫瘍のPAS染色所見 (PAS 染色×200)

写真6 皮膚転移腫瘍の病理組織学的所見 (HE 染色×100)

表1 当科における粘表皮腫の再発例

症例	性別	年齢	部位	悪性度	再発までの期間	転帰
1	男	59	下顎歯肉	高悪性	5年	腫瘍死
2	男	52	上顎歯肉	高悪性	1年, 4年	他病死
3	女	26	上顎歯肉	低悪性	6年	生存
本症例	男	66	下顎歯肉	低悪性	24年, 25年	腫瘍死

型では42.9%にみられたと報告している。小守ら^{1, 3)}は, Grade I (分化のよいもの) 0%, Grade II (中等度に分化したもの) 6%, Grade III (分化の悪いもの) 21%の再発率であったと報告している。また, 石川ら⁴⁾によると再発例の多くは1年以内であったとされている。

再発とは, 臨床的な言葉であり, 腫瘍が摘出, 放射線療法, その他により, 一応治癒した後一定期間を経て再び前と同様の性状の腫瘍が形成されることであり, 残存した腫瘍細胞が再発の基となるのはもちろんであり, 新たに同一腫瘍が原発したものではないとされている^{5, 6)}。今回の症例は放射線による誘発という可能性は否定できないが, 24年前の手術において, 左側下顎第1, 第2大臼歯歯槽部から下顎枝前縁にかけての下顎骨の部分切除が行われ一応治癒の状態となっていたと考えられ, ①病理組織において, はほぼ同一の組織像であったこと, ②耳下腺がほぼ正常であったこと (耳下腺との連続性が認められなかったこと), ③今回の手術所見では下顎枝後縁を残して浸潤しており, はほぼ前回と同部位から周囲へ進展したと考えられること, 以上の点より, 再発と考えるのが妥当である。

宮田ら⁷⁾によると当科にて加療した粘表皮腫13例のうち, 一次治療終了後再発をきたしたものは, 本症例を除いて3例であり, 第1例は5年後, 第2例は1年後と4年後, 第3例は6年後の再発であった (表1)。本症例のごとく24年後に再発し, その後, 急速に全身転移をきたしたこと, また, 組織学的にも, 再発時の

腫瘍と皮膚転移腫瘍を比較すると, 皮膚転移腫瘍の方が, あきらかに類上皮細胞が大多数を占め, 悪性度が増大したこと, 以上のことを考慮すれば, 粘表皮腫の一次治療後の予後観察期間や再発の有無の検索法を再検討する必要があると考えられる。

結 語

今回われわれは, 部位的にもまれで, 24年という長期間を経て再発, 全身転移をきたした粘表皮腫の1例を経験したので, その概要を報告した。

引 用 文 献

- 1) 小守 昭, 高木 功, 他: 唾液腺粘表皮腫の悪性度についての検討. 口病誌 46: 19-29 1979.
- 2) 小守 昭, 高木 功, 他: 唾液腺に原発した粘表皮腫の病理組織学的検討. 口病誌 45: 263-279 1978.
- 3) 梶山 稔, 黒川英雄, 他: 下顎に発生した粘表皮腫の1症例. 日口外誌 32: 88-94 1986.
- 4) 石川梧朗監修: 口腔病理学 II. 改訂版. 永末書店, 京都, 1982, 740-745 頁.
- 5) 相沢 幹, 菊池浩吉: 新病理学総論, 第14版. 南山堂, 東京, 1987, 498 頁.
- 6) 鈴江 懐編: 病理学総論, 第2版. 医学書院, 東京, 1971, 724 頁.
- 7) Kazuyuki MIYATA, Nobuo MORITA, et al.: Tumors of salivary glands: A clinicostatistical observation of 72 cases. Proceedings of the 16th Congress of International Association for Maxillofacial Surgery 1991, 332-335.