上下顎骨を変形させた巨大な耳下腺多形性腺腫の1例

立川 敬子^{*,**}・平 健人^{**}・星野 了^{*}
酒井 英紀^{*}・三木 貴司^{*}・榎本 昭二^{*,**}

An extensive pleomorphic adenoma of parotid gland origin causing deformity of the maxilla and mandible

Noriko TACHIKAWA^{*,**}・Kento TAIRA^{**}・Satoru HOSHINO^{*}
Eiki SAKAI^{*}・Takashi MIKI^{*}・Shoji ENOMOTO^{*,**}

Abstract: A 30-year-old woman was seen in September 1995 because of a swelling of the left side of the face and an ulcer in the oral cavity. There was no sensory impairment. Computerized tomography demonstrated a large mass (75×50×50 mm) in the medial side of the left parotid gland. The maxilla and the mandible were deformed by the extending tumor. Examination of a biopsy specimen showed a benign pleomorphic adenoma of salivary gland origin. Under general anesthesia the tumor was removed with the left ramus via a cervical approach using a preauricular incision. She remains well with no evidence of tumor recurrence.

Key words: pleomorphic adenoma (多形性腺腫), parotid gland tumor (耳下腺腫瘍), deformity of maxilla and mandible (上下顎骨変形)

緒 言

耳下腺腫瘍は複数の診療科の境界領域にある疾患であり、その治療は患者が最初に受診した当該科が行うことが多い。本症例は副咽頭間隙に進展した耳下腺腫瘍が、口腔内に腫脹および潰瘍を形成し、また顎骨を変形させたことにより咬合偏位をきたしたために内科より当科に紹介された。

症 例

患 者：30歳，女性。
初 診：1995年9月■日。

主 訴：左側翼突下顎縫線部潰瘍および左頬部腫脹。

家族歴：特記事項なし。

既往歴：特記事項なし。

現病歴：1991年頃より左耳下腺部に腫脹を自覚するも疼痛がないため放置。1995年9月■日左頬部が腫脹し、口腔内左側上顎結節部に接触痛を自覚した。9月■日某病院内科を受診し、紹介により9月■日当科に来院した。

現 症：

全身所見：身長161cm，体重90kgで肥満体型であった。

顔貌所見：左側顎角部に触診にて45×42mm，弾性硬の腫瘍を認めた。同部位に発赤・熱感・自発痛はなく，圧痛もなかった。下顎は右側に偏位し，顔貌は左右非対称であった(写真1)。また，顔面皮膚の知覚異常，顔面神経麻痺は認められなかった。

所属リンパ節所見：左側顎下部に大豆大1個，小豆大1個，右側顎下部に大豆大1個のリンパ節を触知した。いずれも可動性で圧痛は認められなかった。

口腔内所見：下顎は右側に偏位し，歯列弓は上顎との正常な咬合関係になかった。左側上顎結節部を中心に10×10mmの潰瘍が存在し，その周囲に24×20mm

*東京医科歯科大学歯学部口腔外科学第二講座
(主任：榎本昭二教授)

**東京医科歯科大学歯学部附属病院インプラント治療部
(主任：榎本昭二教授)

*Second Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Faculty of Dentistry, Tokyo Medical and Dental University (Chief: Prof. Shoji Enomoto)

**Clinic for Oral Implant, University Hospital, Faculty of Dentistry, Tokyo Medical and Dental University (Chief: Prof. Shoji Enomoto)

受付日：平成11年4月9日

写真1 初診時顔貌写真
下顎は右側に偏位し、顔貌は左右非対称であった。

写真3 初診時パノラマ X 線写真
左下顎頭から下顎枝後縁にかけて、および左上顎結節部の骨に変形が認められた。また、下顎骨は右側に偏位し、咬合不全が生じていた。

写真5 MR 写真 (T2 強調画像)
耳下腺の内側から上顎部に進展する充実性の腫瘍を認めた。同部は T2 強調画像で高信号を示し、内部は不均一であった。

写真2 初診時口腔内写真
左側翼突下顎縫線部に潰瘍を伴った腫脹が存在した。

写真4 三次元 CT 像
腫瘍は下顎枝を前外方に変形、偏位させ、内方より皮質骨の一部を吸収していた。

写真6 切除標本の病理組織像
腫瘍細胞は好酸性の分泌物を容れる管腔を作ったり、数石状ないし索状を呈し、あるいは遊離した形で増殖していた。腫瘍全体は薄い結合組織性被膜で覆われているが、被膜内浸潤が散見された。(H-E 染色)

の硬結を触知した(写真2)。開口度は32mmと制限されており、また左側耳下腺管開口部からの唾液の流出はほとんどなかった。

単純 X 線所見；パノラマおよび左側方 X 線撮影により左下顎頭から下顎枝後縁にかけて、および左上顎結節部の変形が認められた(写真3)。また、シュラー法による顎関節 X 線写真から、左側下顎頭は下顎窩から逸脱しており、ほとんど機能していないと考えられた。

三次元 CT 像所見；左耳下腺腺体に75×50×50mmで辺縁がおおむね平滑な腫瘍が認められた。この腫瘍は左耳下腺深葉部から下顎枝と茎状突起の間を通して傍咽頭隙に進展しており、外側および内側翼突筋を変形・偏位させて左下顎枝の内方を占めていた。これにより、下顎枝は前外方に偏位し、内側の皮質骨の一部

吸収されていた(写真4)。さらに前方では左頬筋および上顎洞後壁まで進展し、上顎骨を変形させており、後方では内頸動静脈と接し、これを偏位させていた。

唾液腺造影画像所見；左耳下腺内導管の主管は断裂し、深葉へ向かう領域が無影となっていた。残存している腺体は腫瘍により圧排されており、わずかに斑紋状に描出されていた。

MRI 所見；左耳下腺の内側から上顎部に進展する充実性の腫瘍を認めた。同部は T1 強調画像で低～中等度の信号、T2 強調画像で高信号を示し、内部は不均一であった(写真5)。

シンチグラム所見；⁶⁷Ga-citrate シンチグラムおよび^{99m}Tc-HMDP シンチグラムでは異常集積は認められなかった。

試験切除標本所見；針生検では索状に増殖した立方

状の細胞が観察されたが、異型性の強い細胞は認められなかった。これより良性腫瘍との判断を下し、確認のために直接生検を行ったところ、多形性腺腫との結果であった。

臨床診断：左耳下腺良性腫瘍。

処置および経過：1996年3月■日、全身麻酔下にて腫瘍摘出術を施行した。皮膚切開は側頭部から耳前部、さらに顎下部に弧状に施した。最初、顔面神経を温存しつつ剥離を進めたが、腫瘍の進展範囲が明らかになるにつれ、保存不可能と判断し切断することになった。腫瘍組織は下顎骨の内側に入り込み、これを外方に変形させながら増大していたため、下顎骨は顎角部で切除した。さらに、下顎頭は下顎窩への腫瘍の進展により前外方に転位しており、腫瘍と癒着していたため関節包を含めて下顎枝を除去することとした。

術前は健側に偏位していた下顎骨が下顎枝の切除により患側に偏位すること防ぐために、術後数ヶ月にわたって顎間ゴムを装着させた。しかし、腫瘍の増大とともに徐々に偏位してきたと思われる咬合は歯の転位も伴っており、下顎骨を復位させても上下顎の歯列を咬合させることはできなかった。このため、最終的には全顎に及ぶ歯冠修復および歯冠補綴を行った。

切除物所見：摘出した検体は60×60×50mmであり、表面は暗赤色で大きな結節状を呈し、弾性硬であった。腫瘍は同時に切除した下顎骨を圧迫して変形させていた。

病理組織学的所見：腫瘍組織は円形ないし類円形の核を有し、好酸性の細胞質をもつ多角形の細胞からなっていた。腫瘍細胞は好酸性の分泌物を容れる管腔を作ったり、数石状ないし索状を呈し、あるいは遊離した形で増殖していた。また、一部の細胞は角化を伴う扁平上皮化生を示していた。間質はmyxoid changeを示しているところもあるが、ほとんどが硝子化および軟骨化を呈していた。腫瘍全体は薄い結合組織性被膜で覆われているが、被膜内浸潤が散見された(写真6)。

病理組織診断：左耳下腺多形性腺腫。

考 察

副咽頭間隙に生じる腫瘍は、全頭頸部腫瘍の0.5%にすぎず、比較的まれな腫瘍である¹⁾。その組織型としては、国内における過去の報告でも耳下腺多形性腺腫がもっとも多く、次いで神経原性腫瘍の順になっている²⁾。一般的に唾液腺腫瘍の診断法としては、唾液腺造影、CT スキャン、MRI、超音波検査、放射性同位元素を用いたシンチグラフィー等が行われているが、生検の是非については異論のあるところである。特に副咽頭間隙の腫瘍に対する生検は腫瘍の播種や血管および神経の損傷の危険性がある。あるいはなかなか確定診断が得にくいなどの理由から生検を行わないとする

意見も多い³⁾。一方、Goodwin ら⁴⁾は、確実な治療方針をたてるために生検を行うことの重要性を主張している。本症例においては、腫瘍が巨大であり手術前に悪性か良性かを明らかにしておく必要があったこと、また、皮膚側への膨隆が明らかであり確実に腫瘍組織を採取することが可能と判断したため生検を行った。

副咽頭間隙に存在する腫瘍の切除方法としては、外切開法と口内法があり、外切開法には経耳下腺切開法と経頸部切開法とがある。外切開法によりなお、切除が困難な場合は口内法あるいは下顎骨離断法の併用を考慮するとされている⁵⁾。今回われわれは顎関節へのアプローチが必要なため、耳前部の切開を側頭部まで延長し、また、側頭下窩に入り込んだ腫瘍を追求するために下顎骨の顎角部での離断を行った。文献的には、下顎骨の骨切りを行った場合でも、良性腫瘍の場合は下顎骨を再固定するとされているが、本症例の場合、下顎窩に腫瘍が侵入しており、関節包との癒着がみられたため、腫瘍の完全切除ならびに術後の顎関節強直を考慮して筋突起を含めた下顎枝の切除を行った。

一般的に耳下腺腫瘍切除術後の合併症としては、顔面神経麻痺、Frey 症候群等がある。本症例の場合、腫瘍の完全切除のために顔面神経の保存は不可能であると判断し切断した。その結果として術後、患側の眼瞼閉鎖不全がわずかに出現した。

結 語

われわれは、耳下腺深葉より発生した多形性腺腫が副咽頭間隙に進展して顎骨を変形・偏位させた結果、咬合の偏位をきたした症例を経験したのでその概要を報告した。

引 用 文 献

- 1) Stell, P.M., Mansfield, A.O., et al.: Surgical approach to tumors of the parapharyngeal space. *Am J Otolaryngol* 6: 92-97 1985.
- 2) 吉原俊雄, 佐藤美知子, 他: Dumb-bell 型, 副咽頭間隙型耳下腺多形性腺腫の切除法. *口咽科* 8: 193-201 1996.
- 3) 溝尻源太郎, 柴 裕子, 他: 副咽頭間隙病変の生検について. *日耳鼻* 94: 685-692 1991.
- 4) Goodwin, W.J. and Chandler, J.R.: Transoral excision of lateral parapharyngeal space tumors presenting intraorally. *Laryngoscope* 98: 266-269 1988.
- 5) Som, P.M., Biller, H.F., et al.: Tumors of the parapharyngeal space; Preoperative evaluation, diagnosis and surgical approaches. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 90 (Suppl 80): 3-15 1981.