症 例

広範な凝固壊死を伴った耳下腺多形腺腫の1例

慶應義塾大学病院病理診断部¹⁾, 同 耳鼻咽喉科²⁾

山内 友江¹⁾ 亀山 香織¹⁾ 草刈 悟¹⁾ 阿部 仁¹⁾

内田 侑子¹⁾ 小川 郁²⁾ 向井萬起男¹⁾ 秦 順一¹⁾

多形腺腫の穿刺吸引細胞診 (FNA) では多彩な細胞像が認められるが, 壊死物質を認めることはきわめてまれである。今回われわれは, 広範な凝固壊死を伴った特異な多形腺腫の1例を経験した。症例は40歳男性。平成6年より左耳下腺部の腫瘤に気づき, 近医にて経過観察されていた。平成9年9月頃より, 圧痛とともに腫瘤が急激に増大したため当院紹介となり, 穿刺吸引細胞診 (FNA) に引続き摘出術が施行された。FNAでは, 多量の壊死物質を背景に上皮細胞と間質細胞の大型集塊が多数, 混在して出現していた。上皮細胞は不規則配列で強い重積性を呈し, 個々の細胞はクロマチン濃染性だが, N/C比は低く核小体は目立たなかった。間質細胞は粘液変性を伴っているが整った配列を呈し, 異型性を認めなかった。多量の壊死物質を認めるも上皮細胞の異型性が乏しいこと, 良性の間質細胞を多数認めることから, 多形腺腫が強く疑われた。しかし, その他の病変や悪性の可能性も否定できなかった。摘出された腫瘍は径約3cm大で, その大部分は凝固壊死に陥っており, 残存腫瘍は被膜直下のみ認められた。腫瘍組織は, 充実性あるいは管状増殖を呈する細胞異型の乏しい2相性上皮成分と, 粘液腫状の間質成分が混在し, 多彩な像を呈していた。広範な凝固壊死を伴った多形腺腫と診断された。

Key words : Salivary gland—Fine needle aspiration—Pleomorphic adenoma—Necrosis—Case report

I. はじめに

多形腺腫は耳下腺に好発し, 唾液腺腫瘍の約65%を占める最も発生頻度の高い腫瘍である¹⁾。その細胞

像は多彩であり, 多角形あるいは紡錘形の上皮成分と, 粘液腫様, 軟骨様の間質成分が混在してみられ, これに加えて扁平上皮化生や脂腺細胞など, さまざまな細胞像がみられることがある。しかし, 広範な壊死を伴うことはきわめてまれであり, こうした例は現在まで9例の報告があるにすぎず^{2~7)}, 中でもFNAにて壊死物質を確認し得た報告は1例のみである²⁾。今回われわれは, 広範な凝固壊死を伴った特異な耳下腺多形腺腫の1例を経験したので, 文献的考察を交え報告する。

II. 症 例

症 例 : 40歳, 男性
既往歴 : 特記事項なし

A case of pleomorphic adenoma of the parotid gland with massive necrosis

Tomoe YAMAUCHI¹⁾, C.T., I.A.C., Kaori KAMEYAMA¹⁾, M.D., Satoshi KUSAKARI¹⁾, C.T., I.A.C., Hitoshi ABE¹⁾, C.T., I.A.C., Teruko UCHIDA¹⁾, M.T., Kaoru OGAWA²⁾, M.D., Makio MUKAI¹⁾, M.D., M.I.A.C., Jun-ichi HATA¹⁾, M.D.

¹⁾Division of Diagnostic Pathology, ²⁾Division of Otolaryngology, Keio University Hospital

論文別刷請求先 ☎ 160-8582 東京都新宿区信濃町 35 慶應義塾大学病院病理診断部 山内友江

平成10年8月26日受付

平成10年10月16日受理

Photo. 1 Computed tomographic observation. The left parotid gland enlarged with high density. Note low density area located in the center of the mass

Photo. 3 a: Epithelial cells have hyperchromatic smudged nuclei with low N/C ratio. Nucleoli are unclear. b: Elongated nuclei of stromal cells show no atypia (Pap. stain, a: $\times 100$, b: $\times 40$)

Photo. 2 Cytological findings of the specimen obtained by fine needle aspiration. a: The large cluster of loosely cohesive epithelial cells in a necrotic background. b: Stromal component of mucous and necrotic-appearing background (a, b: Pap. stain, $\times 20$)

家族歴: 父, 52歳時脳血栓

現病歴および臨床経過: 平成6年より左耳下腺部の腫瘍に気づき, 近医を受診し経過観察されていた。平成9年9月, 放置しておいた腫瘍が圧痛とともに急激に増大したため, 当院紹介となった。CT上, 左耳下腺に3×3cm大の腫瘍が認められ, 中央部には低吸収域がみられた (Photo. 1)。その後, FNAに引続き左耳下腺摘出手術を施行した。術後8ヵ月の現在まで再発などの徴候はない。

細胞所見: 多量の壊死物質を背景に, 上皮性細胞の大型集塊と, 非上皮性細胞の集塊が多数混在して出現していた (Photo. 2)。上皮性細胞は不規則で強い重積性を呈し, 個々の細胞は小型でクロマチン濃染性, 核形不整を認めるもN/C比は低く, 核小体も目立たなかった (Photo. 3 a)。非上皮性細胞は粘液変性を伴っているが, 細胞間距離も整っており, 異型性を認めなかった (Photo. 3 b)。これらの細胞像から, 多形腺腫が疑われた。しかし背景に認められる多量の壊

Photo. 4 Histological findings of the tumor. a: The tumor has thick fibrous capsule and massive central necrosis. b: Viable tissue is present only just beneath the capsule (H-E stain, a: loupe image, b: $\times 10$)

Photo. 5 Viable tumor tissue shows tubular epithelial proliferation (a), and myxoid or chondroid stroma (b). (a, b: H-E stain, $\times 20$)

死物質から、その他の病変や悪性の可能性も否定できなかった。

組織所見: 摘出された腫瘍は径3 cm 大で、周囲は線維性被膜で覆われていた。その中心部は大部分が凝固壊死に陥っており、残存腫瘍は被膜直下のみ認められた (Photo. 4)。腫瘍部の上皮成分は、充実性もしくは管状増殖、あるいは一部で扁平上皮化生をきたしていた。間質成分は粘液腫状、軟骨様であり、多彩な像を呈していた (Photo. 5)。こうした所見より、広範な壊死を伴った多形腺腫と診断した。

III. 考 察

壊死性変化をきたす唾液腺良性腫瘍には Warthin 腫瘍が知られている^{8,9)}が、多形腺腫に認められることはきわめてまれである。多形腺腫は多彩な細胞像を呈するも、広く壊死性変化を伴うことは通常なく、今回のように広範囲に壊死を生じた多形腺腫の報告は、

われわれの知る限り9例に過ぎない。そのうち耳下腺に生じたものが4例、顎下腺が1例、残りは口蓋などの小唾液腺である。また、術前のFNAにて壊死を認めた報告は、Layfieldら²⁾による耳下腺の1例のみである。

壊死の発生については、FNAの外科的侵襲による梗塞が原因であるという説がある^{5,6)}。しかしわれわれの症例は、初回時のFNAにおいてすでに壊死物質を認めており、FNAが原因とは考え難い。一方、口蓋の小唾液腺に認められた壊死については、周囲が硬組織で覆われているため、圧排により梗塞を生じたという考察がなされている³⁾が、本症例の病変は耳下腺であり、これとは異なる機序に因ると思われる。われわれはstep-sectionにて組織所見をさらに検討したが、Layfieldらの症例と同様、明らかな梗塞の原因は特定できなかった。

本症例は圧痛とともに腫瘤の増大がみられた。多形腺腫においては長い経過中、悪性化 (多形腺腫内癌) することがある。村上らの多形腺腫内腺癌例では、全例において、腫瘤が痛みを伴って急激に増大してきた

と報告している¹⁾。また、広範な壊死を伴った多形腺腫の9例のうち、5例においても同様の症状が確認されている^{2,3,7)}。したがって、急激な痛みの発生は悪性転化、あるいは梗塞を生じた徴候と解され、こうした症状を認めた場合はFNAを含めた十分な精査が望まれる。壊死の存在は通常、悪性を疑わせるものであるが、耳下腺部のFNAにおいて壊死物質を認めた場合は、悪性腫瘍を疑うと同時に本例の様な良性病変の存在も念頭におく必要がある。また多形腺腫は、ときに腫瘍細胞に強い異型を伴って出現する場合があります、良悪の判定に苦慮する。Layfieldらの症例においては、FNAにて悪性と誤診されている。一方、本例の様に広範囲ではないが、部分的に壊死巣を認めた多形腺腫を集積した報告では、その30%が悪性転化をきたしたとされ³⁾、壊死を伴った多形腺腫の、術前のFNAにおける組織型の推定には十分な注意を要すると考えられる。

本要旨は第39回日本臨床細胞学会総会（札幌）において発表した。

Abstract

Background : Necrotic change is uncommon in salivary gland tumors. We report here a rare histological variant of pleomorphic adenoma of the parotid gland with massive necrosis.

Case : A 40-year-old male complained of left parotid swelling in 1994. The mass enlarged suddenly with tenderness in Sep. 1997 and a tumorectomy was performed following fine needle aspiration (FNA). The FNA revealed many large clusters of epithelial cells and a stromal component with mucous degeneration against a background of necrotic debris. Epithelial cells had small pyknotic smudged nuclei, but no malignant features. Based on these findings, the lesion was suspected to be a pleomorphic adenoma. Necrosis is unusual in pleomorphic adenoma, and therefore we were not able to rule out malignancy. The excised tumor was 3×3 cm and showed broad central necrosis with a small

amount of tumor tissue beneath the fibrous capsule. Histological examination revealed variable features, including solid or tubular epithelial proliferation and myxoid or chondroid stroma. Squamous metaplasia was seen focally. A histological diagnosis of pleomorphic adenoma with massive necrosis was made.

Conclusion : This case indicates that cytologists should be aware of the possibility of a benign lesion, even if necrotic material is aspirated from a salivary gland tumor.

文 献

- 1) 村上 泰. 耳下腺多形腺腫の臨床特性. *JOHNS* 1997; 13: 7~12.
- 2) Layfield, L.J., Reznicek, M., Lowe, M., Bottols, K. Spontaneous infarction of a parotid gland pleomorphic adenoma: Report of a case with cytologic and radiographic overlap with a primary salivary gland malignancy. *Acta Cytol* 1992; 36: 381~386.
- 3) Allen, C.M., Damm, D., Neville, B., Robu, B., Page, D., Weathers, D.R., et al. Necrosis in benign salivary gland neoplasms. Not necessarily a sign of malignant transformation. *Oral Surg. Oral Med. Oral Pathol.* 1994; 78: 455~461.
- 4) Auclair, P.L., Ellis, G.L. Atypical features in salivary gland mixed tumors: Their relationship to malignant transformation. *Mod Pathol.* 9; 6: 652~657.
- 5) Pinto, R.G.W., Couto, F., Mandreker, S. Infarction after fine needle aspiration. A report of four cases. *Acta Cytol* 1996; 40: 739~741.
- 6) Gottschalk-Sabag, S., Glick, T. Necrosis of parotid pleomorphic adenoma following fine needle aspiration. A case report. *Acta Cytol* 1995; 39: 252~254.
- 7) 伊藤慈秀, 清水道生. 高度の壊死を伴った良性多形腺腫の1例. *岡山外科病理雑誌* 1995; 32(1-2): 64~65.
- 8) Kern, S.B. Necrosis of a Warthin's tumor following fine needle aspiration. *Acta Cytol* 1988; 32: 207~208.
- 9) Eveson, J.W., Cawson, R.A. Infarcted ('infected') adenolymphomas. A clinicopathological study of 20 cases. *Clin Otolaryngol* 1989; 14: 205~210.