ステノン管が原発と考えられた扁平上皮癌の1例

松下直樹 井口広義 和田匡史
大石賢弥 岡本幸美 寺西裕一
神田裕樹 山根英雄

要旨：頬部に発生する腫瘍として耳下腺に付属するステノン管および副耳下腺を由来とするものが認められるがともに頻度は少ない。また原発がステノン管なのか副耳下腺なのかははっきりしないことも多い。しかし過去の報告からはステノン管を原発とするものは扁平上皮癌が多く、副耳下腺を原発とするものは粘表皮癌が多く扁平上皮癌は少ない。

今回われわれはステノン管が原発と考えられた扁平上皮癌を1例経験したので、若干の文献的考察を加えて報告する。症例は71歳の男性。右頬部腫脹を主訴に受診され、画像所見から副耳下腺扁平上皮癌として手術を施行した。術後の病理所見などを含めて総合的に判断すると、ステノン管が原発の扁平上皮癌と考えられた。
キーワード：ステノン管, 副耳下腺, 扁平上皮癌

Summary A case of squamous cell carcinoma originating from Stensen's duct:

Naoki Matsushita, Hiroyoshi Iguchi, Tadashi Wada, Masahiro Oishi, Sachimi Okamoto, Yuichi Teranishi, Yuki Koda and Hideo Yamane. Osaka City University Graduate School of Medicine, Department of Otolaryngology and Head & Neck Surgery

Some of the tumors in the buccal region arise from Stensen's duct or the accessory parotid gland. Both of them, especially Stensen's duct, are rare. However, it is often difficult to distinguish the origin; we think that there is a histopathologic tendency in each origin. According to previous reports, the most frequent types of the tumor arising from Stensen's duct and the accessory parotid gland are squamous cell carcinoma and mucoepidermoid carcinoma, respectively.

We report another case of primary squamous cell carcinoma arising from Stensen's duct. A 71-year-old man suffering from swelling in his right cheek was referred to our hospital. We located the tumor arising from the accessory parotid gland and performed local resection penetrating the buccal region from the skin of the cheek to the buccal mucosa and total neck dissection. Following histopathological examination, we generally diagnosed the tumor as primary squamous cell carcinoma originating from Stensen's duct.

Key words: Stensen's duct, accessory parotid gland, squamous cell carcinoma

[Received Feb. 10, 2014, Accepted Aug. 11, 2014]

はじめに

頬部に発生する腫瘍として耳下腺に付属するステノン管および副耳下腺を由来とするものが認められるがともに頻度は少ない。また原発がステノン管な

のか副耳下腺なのかははっきりしないことも多い。

今回われわれはステノン管が原発と考えられた扁平上皮癌を1例経験したので、若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

症例：71歳，男性。

大阪市立大学大学院医学研究科耳鼻咽喉病態学
[平成26年2月10日受付，平成26年8月11日受理]

図 1 初診時頬部所見
右頬部に約 3 cm 大の硬い腫瘤を認めた。

図 2 初診時口腔所見
右頬粘膜には潰瘍状の硬結を認めた。

既往歴：なし。

主訴：右頬部腫脹。

嗜好歴：喫煙 20 本/日，飲酒 焼酎 2 杯/日。

現病歴：平成 25 年 2 月頃より右頬部腫脹，また同部位に疼痛があり，他院 CT にて腫瘍性病変を指摘されたため同年 3 月当科紹介受診となる。

現症：右頬部は腫脹し頬粘膜はステノン管開口部付近で潰瘍状の硬結を認めた（図 1，図 2）。血液検査結果では腫瘍マーカー（SCC）が 2.7ng/ml と上昇していた他は異常所見を認めなかった。

画像所見：頸部造影 CT において，右耳下腺前方に主耳下腺とは離れて存在し，右咬筋に浸潤傾向のある辺縁不整な 30mm 大の腫瘍性病変を認め，接するステノン管の肥厚を認めた（図 3）。頸部リンパ節の腫大は認めなかった。頸部造影 MRI では，右耳下腺前方に T1 で低信号，T2 で筋肉より軽度高信号，全体が造影される 33.8×32mm 大の境界不明瞭な腫瘍性病変として認められた（図 4）。腫

図 3 頸部造影 CT
右耳下腺前方に主耳下腺とは離れて存在し，右咬筋に浸潤傾向のある辺縁不整な 30mm 大の腫瘍性病変を認め，接するステノン管の肥厚を認めた（矢印）。

図 4 頸部造影 MRI
右耳下腺前方に全体が造影される 33.8×32mm 大の境界不明瞭な腫瘍性病変を認める。腫瘍は咬筋に浸潤しており，ステノン管は拡張し増強効果がみられ浸潤を疑う所見であった（矢印）。

瘍は咬筋に浸潤しており，ステノン管は拡張し増強効果がみられ浸潤を疑う所見であった。また右耳下腺は萎縮および増強効果を認め，腫瘍によるステノン管閉塞に伴う慢性炎症が示唆された。

頬粘膜の潰瘍は腫瘍が頬粘膜に進展したものと判断でき，同部位より生検を行い高分化型扁平上皮癌の診断を得た。

PET では腫瘍部位に SUV11.7 の異常集積を認め他は異常集積を認めなかった。

治療経過：右副耳下腺癌 cT4aN0M0 の診断で右

図 5 手術所見

- a: 頬部腫脹部位より1横指の安全域をとり皮膚を合併切除。なお、頬部と頸部の切開創は連続しておらず、頸部は横切開のみで全頸部郭清を施行した。
 b: 腫瘍摘出後。下顎骨下顎枝前方、頬骨下方、上顎骨前壁外側は骨が露出している（白矢印：頬骨）。また口腔内と交通し、切除部位1時方向に上歯肉、上臼歯が確認できる（黒矢印）。
 c: 摘出標本断面。ステノン管に沿って腫瘍が口腔内へ進展する所見を認めた（太矢印）。

副耳下腺拡大全摘，右保存的全頸部郭清術（胸鎖乳突筋，副神経，顔面神経下顎縁枝，舌神経，舌下神経，内頸静脈温存），気管切開術を施行した。頸部郭清においてはⅡ領域に楕円形ではあるが腫大リンパ節（術前のCTにおいて13.4×7.2mm大）を認めたため全頸部郭清を行った。腫瘍切除においては、頬部腫脹部位より1横指の安全域をとり皮膚を合併切除した（図5a）。下顎骨下顎枝前方，頬骨下方，上顎骨前壁外側は骨膜下に剥離を行った。なお，画像上は下顎骨，頬骨への浸潤も疑われたが，骨膜は容易に剥離が可能であった。つまり，耳下腺前縁は咬筋の一部とともに合併切除したが，その際顔面神経の頬骨枝と頬筋枝は切除側に含まれている。下顎縁枝は明らかに温存される位置であったため本幹は同定せずに切除した。なお，側頭枝も温存され则认为していたが，術後に閉眼障害の麻痺を生じた。口腔内においても安全域をとりながら頬粘膜を切開した。切除部上方下方では歯肉のみが残存し，臼後部粘膜もほぼ全て切除側に含めた。皮膚側，口腔側から安全域を確認しながら腫瘍を切除した（図5b）。形成外科により外側大腿遊離皮弁と植

皮により再建した。摘出標本断面において，ステノン管に沿って腫瘍が口腔内へ進展する所見を認めた（図5c）。

術後病理結果にて断端は全て陰性であり，頸部リンパ節転移も認めなかった。しかし腫瘍は副耳下腺が原発と考えていたが，腫瘍周囲に副耳下腺と思われる組織も認めなかった。ただし，腫瘍細胞の浸潤が著明であり，ステノン管に沿って進展していることも確認はできなかった。

当初はT4aであったことから術後照射を予定していたが，唾液瘻等で創治癒に時間を要し，また誤嚥性肺炎などで全身状態が悪化した時期もあったため，術後照射は行わないこととした。また顔面神経側頭枝麻痺に対し術後3か月で側頭筋移行術を形成外科により施行した。皮弁のカラーマッチングは良好であった（図6a, b）。現在までに再発所見は認めていない。

考 察

頬部に発生する腫瘍として耳下腺に付属するステノン管および副耳下腺から発生するものが認められ

図6 術後所見 (a: 頬部, b: 口腔内)。頬部側は植皮で、粘膜側は皮弁で再建されている。

るがともに頻度は少ない。

副耳下腺が原発であることの診断には、画像や術中所見で腫瘍と耳下腺組織との間に連続性がないことが必要条件である。副耳下腺腫瘍の特徴としては耳下腺腫瘍に比べ悪性腫瘍の占める割合が高いことが指摘されており、治療に際して念頭においておかなければならない。以前の当科の報告でも悪性は29例/65例 (44.6%)¹⁾であった。これは悪性の割合が顎下腺腫瘍における悪性の割合 (30～50%) に類似していることから、副耳下腺組織は漿液腺である耳下腺組織と異なり粘液線を含む混合腺であり、顎下腺と発生学的に類似している可能性を指摘されている^{2,3)}。組織型としては、粘表皮癌が10例³⁻¹²⁾と最も多く、扁平上皮癌の報告は3例のみ^{2,11,13)}であった。

当初われわれはその画像所見において腫瘍が主耳下腺の前方で主耳下腺より離れて存在していることから、副耳下腺原発の悪性腫瘍と診断し手術加療を行った。しかし摘出標本においてステノン管に沿って腫瘍の進展が明らかであったこと、術後病理検査にて腫瘍周囲に唾液腺組織が認められなかったことからステノン管由来である可能性が考えられた。過去に報告された副耳下腺扁平上皮癌の3例ともにステノン管由来かどうかの検討はされておらず、1例²⁾については本症例と同様にステノン管に沿って口腔内への進展を認めている。副耳下腺腫瘍であることを裏付けるには排泄管 (ステノン管の副管) のステノン管への流入を確認することが必要と言及する報告もある³⁾が、手術時 wide resection に努めれば必然的に副管は確認できないし、そもそも本症例のように頬粘膜にまで進展した例に関しては、ステノン管は本管も副管も浸潤をうけているためその同定は不可能である。

一方、ステノン管腫瘍の必要条件として Carpenter ら¹⁴⁾は「ステノン管に沿って存在し、ステノン管の開

塞をきたし、かつ耳下腺組織と独立してあること」としている。ステノン管原発の悪性腫瘍に関する報告は、渉猟し得る限り国内で14例のみ¹⁵⁻²⁷⁾であり、極めて稀な腫瘍であるといえる。自験例を含めて15例中10例^{17,20-27)}が扁平上皮癌であり、海外での報告²⁴⁾を含めても扁平上皮癌が最も多く、粘表皮癌がその次に頻度が高い。これは副耳下腺における組織型の頻度とは逆転している。なお、副耳下腺原発との鑑別については、鑑別が困難であったと言及されているもの^{22,23)}や、検討されていないものがほとんどであった。

ステノン管原発腫瘍の症状としては頬部腫脹の他、耳下腺炎の反復、ステノン管からの血性滲出液などが挙げられており^{24,25)}、画像所見としてはステノン管の拡張や耳下腺の慢性炎症がその特徴として挙げられている^{25,26)}。画像上のステノン管の拡張部位はステノン管よりも耳下腺側で閉塞が原因と考えられるものもあるが^{22,26)}、本症例のように口腔側のものもある²⁵⁾。口腔側での拡張は腫瘍の進展によるものと考えられる。

本症例においては術前の造影MRIにおいて耳下腺管は特に口腔側で拡張し増強効果がみられ浸潤を疑う所見があったとともに、右耳下腺は萎縮および増強効果を認め、腫瘍によるステノン管閉塞に伴う慢性炎症が示唆されていた。術前診断は副耳下腺癌であったが、総合的に判断するとステノン管原発であったと考えられた。

副耳下腺由来かステノン管由来かについては、病理学的にすら鑑別は困難であり、術前の画像所見や手術所見などを加味して総合的に判断しなければならない。もちろん、ステノン管由来であっても副耳下腺由来であっても治療の第一選択は拡大切除であり、手術の手順などに影響はないが、その組織型については、過去の文献を検討すると原発部位により傾向が異なることが示唆された。

ま と め

・頬部に発生したステノン管が原発と考えられた扁平上皮癌を経験した。

・頬部に発生する腫瘍として耳下腺に付属するステノン管および副耳下腺を由来とするものが認められるがともに頻度は少なく、その鑑別は非常に困難である。

・ステノン管原発悪性腫瘍では扁平上皮癌の頻度が高く、副耳下腺原発悪性腫瘍では粘表皮癌の頻度が高い傾向があった。

本論文の要旨は、第24回日本頭頸部外科学会（平成26年、香川市）において発表した。

著者は申告すべき利益相反を有しない。

文 献

- 井口広義, 和田匡史, 山本秀文, 他: 副耳下腺腫瘍の臨床的検討. 日耳鼻, 116 : 1300-1307, 2013.
- 白土秀樹: 比較的稀な腫瘍 副耳下腺腫瘍について. 耳鼻と臨床, 58 : 96-100, 2012.
- 篠 美紀, 大氣誠道, 大池信之, 他: 頬部に発生した粘表皮癌の1症例. 耳喉頭頸, 79 : 861-865, 2007.
- 辻本俊弥, 玉置弘光, 石田 稔, 他: 副耳下腺腫瘍—臨床と文献的考察. 耳喉, 54 : 183-186, 1982.
- 神保好夫, 菅又 章, 野本猛美, 他: 副耳下腺腫瘍の2手術治験例. 日形会誌, 4 : 326-332, 1984.
- Ishikawa T, Yasui R, Fujito T: Large retention cyst of the accessory parotid gland associated with a mucoepidermoid tumor in the cyst wall. J Oral Maxillofac Surg 49 : 884-886, 1991.
- 小坂正明, 杉本 一, 清水隆司, 他: 副耳下腺に生じた Mucoepidermoid Carcinoma の1例. 日形会誌, 13 : 150-156, 1993.
- 鈴木偉彦, 奈良 卓, 湊 祐廣, 他: 耳下腺腫瘍の臨床統計と副耳下腺腫瘍の検討. 岩手医誌, 48 : 11-17, 1996.
- Yoshihara T, Suzuki S, Nagao K: Mucoepidermoid carcinoma arising in the accessory parotid gland. Int J Pediatr Otorhinolaryngol, 48 : 47-52, 1999.
- 榎本由貴乃, 梅本尚可, 池田涼子, 他: 頬部に生じた粘表皮癌 (mucoepidermoid carcinoma) の1例. Skin Surg, 17 : 87-89, 2008.
- 愛宕義浩, 千田英二, 永島千咲, 他: 当科における大唾液腺腫瘍手術症例 109 例の臨床的検討. 札幌病医誌, 69 : 21-28, 2009.
- 鈴木健介, 篠崎 剛, 林 隆一, 他: 副耳下腺に発生した粘表皮癌の1例. 頭頸部外科, 21 : 185-190, 2011.
- Sakurai K, Urade M, Kishimoto H, et al: Primary squamous cell carcinoma of accessory parotid gland duct epithelium: report of a case. Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod 85 : 447-451, 1998.
- Carpenter R, Watkins RM, Thomas JM: Primary carcinoma of Stensen's duct. Br J Surg 73 : 926-927, 1986.
- 中村 宏, 矢原三十美, 林崎勝武, 他: ステノン管より発生したと考えられる adenocarcinoma の1症例. 日耳鼻, 89 : 1093, 1986.
- 小林泰輔, 高須賀信夫, 村上信五, 他: 耳下腺主管より発生したと考えられた乳頭状腺癌例. 日耳鼻, 93 : 654, 1990.
- 長田哲次, 大関 悟, 笹栗正明, 他: Primary carcinoma of Stensen's duct の1例. 口腔腫瘍, 7 : 281, 1995.
- 北尻真一郎, 田渕圭作, 森田武志, 他: ステノン管由来と思われた唾液管癌例. 耳鼻臨床, 92 : 999-1002, 1999.
- 島田剛敏, 今村裕美子, 林戸 功, 他: ステノン管原発腫瘍の1症例. JOHNS, 17 : 627-630, 2001.
- 前野博昭, 木西 實, 吉田尚史, 他: ステノン管由来と考えられた扁平上皮癌症例. 口咽科, 14 : 67, 2001.
- 井門謙太郎, 中川嘉隆, 岡崎英登, 他: 右頬部腫瘍で見つかったステノン管由来の扁平上皮癌. 日耳鼻, 105 : 1008, 2002.
- 富永由紀子, 石丸純一郎, 内野 晃, 他: Stensen 管由来と考えられる扁平上皮癌の1例. 日本医放会誌, 63 : S379, 2003.
- 長谷川達央, 内田真哉, 松波達也: まれな頬部腫瘍の2例—副耳下腺腫瘍とステノン管原発腫瘍—. 耳鼻臨床, 97 : 245-249, 2004.
- 諸富公昭, 新田匡章, 石椛寛芳, 他: ステノン管由来の扁平上皮癌と考えられた耳下腺腫瘍の1例. 形成外科, 50 : 931-936, 2007.
- 山本信治, 小林史明, 高木 亮, 他: ステノン管原発扁平上皮癌の1例. 日口外誌, 57 : 274-278, 2011.
- 森倉一朗, 木村光宏, 青井典明, 他: ステノン管内に発生したと考えられる耳下腺悪性腫瘍の2症例. 口咽科, 25 : 322, 2012.
- 大和良輔, 橋本一郎, 安倍吉郎, 他: 耳下腺管に生じた扁平上皮癌の1例. 西日皮膚, 75 : 379, 2012.