下垂体部に発生した異所性唾液腺の1症例

加藤 功・会田 敏光・阿部 弘・宮町 敬吉・飛騨 一利・種田 雅彦
緒方 昭彦*

Ectopic Salivary Gland within the Pituitary Gland

Case Report

Tsutomu KATO, Toshimitsu AIDA, Hiroshi ABE, Keikichi MIYAMACHI,
Kazutoshi HIDA, Masahiko TANEDA and Akihiko OGATA*

Department of Neurosurgery and *Second Department of Pathology, Hokkaido University, Sapporo

Abstract

An ectopic salivary gland was discovered within the pituitary gland of an 11-year-old boy who had been diagnosed as a pituitary dwarf at the age of 9. On admission his height was 129.5 cm and his weight 31 kg. Pituitary function studies revealed only hyposecretion of growth hormone. There was no neurologic deficit. Plain computed tomography showed a well-defined, high-density mass extending from the sella into the suprasellar cistern. Magnetic resonance imaging demonstrated a cystic lesion, with reduction of the spin-lattice relaxation time (T_1) and spin-spin relaxation time (T_2). The cyst was totally removed through the trans-sphenoidal approach. Histopathologic examination disclosed that the cyst, which was situated in the posterior lobe of the pituitary gland, contained acid to neutral mucopolysaccharides and acinar tissue formed from simple epithelium. The cells were cuboidal or columnar, with distinct walls. The diagnosis was typical salivary gland. Other cases of extracranial ectopic salivary glands have been reported. However, symptomatic ectopic salivary glands having a pituitary origin are very rare. Nonetheless, ectopic salivary gland should be included in the differential diagnosis of sellar and parasellar lesions. The authors describe this case in detail and review the pertinent literature.

Key words: ectopic salivary gland, pituitary gland, intrasellar cyst, suprasellar cyst

I はじめに

トルコ鞍近傍疾患は多々あるが、今回我々は臨床的に低身長をきたし、病理組織学的に下垂体部の非腫瘍性嚢胞を伴う異所性唾液腺と診断されたまれな症例を経験したので報告する。

II 症 例

<患者> 11才, 男児

主訴: 低身長

家族歴・既往歴: 特記すべきことなし

現病歴: 満期自然分娩, 3,500 gにて出生した。1983年9才時に, 低身長を指摘され, 下垂体性小人症の診断にてヒト成長ホルモンの投与が開始された。1985年11才時, CTスキャンにてトルコ鞍内から鞍上部にかけて high density mass が認められ, germinoma が疑われたため 2,000 rad の照射が行われたが変化なく, 1986年4月25日当科へ紹介され入院した。

入院時所見: 身長129.5 cm, 体重31 kgで, ともに平均値より2~3 SDの低値を示していた。神経学的には視野を含めて異常所見を認めなかった。

一般検査所見: 血液検査, 生化学検査, 尿検査, 心電図

北海道大学脳神経外科 *同病理学第二講座

Address reprint requests to: T. Kato, M.D., Department of Neurosurgery, Hokkaido University, North-15, West-7, Kita-ku, Sapporo 060.

受稿 1987年5月6日 受理 1988年2月10日

Fig. 1 Plain (left) and contrast-enhanced (right) computed tomography scans, showing a high-density mass extending from the intrasellar to the suprasellar region and exhibiting no enhancement.

に異常所見なく、下垂体機能検査では GH 分泌機能において基礎値が 0.76 ng/ml , insulin, arginine 負荷試験は低反応を呈していた。また TSH, gonadotropin および prolactin 分泌機能は、基礎値が TSH $2.4 \mu\text{U/ml}$, LH 9.1 mIU/ml , FSH 5.9 mIU/ml , prolactin 7.7 ng/ml と正常範囲内で、負荷試験も正常反応であった。

神経放射線学的所見：トルコ鞍断層撮影において、拡大や石灰化等の異常所見は認められなかった。単純 CT ではトルコ鞍内から鞍上部、さらにはわずかに鞍背を越えた比較的境界明瞭な high density mass を認め、増強効果はほとんど認められなかった (Fig. 1)。この部分は MRI において inversion recovery (IR) 法で high signal intensity (Fig. 2), spin echo (SE) 法で low signal intensity を示し、 T_1 ・ T_2 ともに短縮していた。そして、 T_1 短縮の所見より血腫、脂肪、粘液組織等が示唆された。脳血管撮影では、tumor stain などの異常所見を認めなかった。

以上より、嚢胞性病変を伴った頭蓋咽頭腫を疑い、5 月 2 日、経蝶形骨洞経路にて腫瘍摘出術を行った。

手術所見：健常な下垂体に切開を加えると、境界明瞭だが明らかな被膜をもたない褐色から灰白色透明なゼリー状の物質を認め、鞍背の後上方への伸展も認めたが、これを

Fig. 2 Magnetic resonance imaging demonstrating a high-intensity mass (arrow) in the inversion recovery image.

Fig. 3 Intraoperative photograph and corresponding illustration. A mucinous substance (M) was observed above the dorsum sellae (D).

Fig. 4 Photomicrographs showing salivary gland in the posterior lobe of the pituitary gland. HE stain, $\times 200$ (upper), $\times 400$ (lower).

全摘出した (Fig. 3)。

病理組織学的所見：ゼリー状の物質は PAS および alcian blue 染色陽性であり、酸性あるいは中性ムコ多糖類と考えられ、細胞成分は認められなかった。また別の部位の HE 染色にて、下垂体後葉組織のなかに円柱ないし立方の単層上皮により構成された腺房様腺組織を認めた (Fig. 4)。同部位の PAS および alcian blue 染色では、ともにそ

の管腔側の胞体内に陽性物質を認めた。

以上の所見より、この腺房様腺組織は酸性あるいは中性ムコ多糖類を分泌し、その形態学上唾液腺と考えられた。

術後経過：術後一過性に尿崩症様症状を呈したが改善し、CT スキャンにて腫瘤全摘が確認され、退院した。

III 考 察

トルコ鞍内および鞍上部に発生する嚢胞性病変には、出血あるいは壊死を伴った下垂体腺腫、頭蓋咽頭腫、奇形腫、皮様嚢腫、類表皮腫、クモ膜嚢胞、Rathke 嚢腫、コロイド嚢腫、胞虫嚢腫、異所性組織等がある^{1,4,6,7,12-17,19)}が、このうち非腫瘍性のものはクモ膜嚢腫、Rathke 嚢腫、コロイド嚢腫、胞虫嚢腫、異所性組織である。円柱あるいは立方上皮から成るものは Rathke 嚢腫とコロイド嚢腫であるが、いずれも腺房様腺組織を呈することはないため、本症例は異所性組織以外に考えられず、病理組織学的所見と照らし合せると下垂体部に発生した異所性唾液腺と考えられた。

異所性唾液腺は比較的まれと言われているが、中耳や頸部、時に直腸や外陰部などの頭蓋外に発生したという報告が散見される^{2,5,8-10,18)}。しかし、本症例のように頭蓋内³⁾特に下垂体部の発生は、Pesavento ら¹⁰⁾(Bevacqua, 1911; Oberling, 1924; Marza, 1934), Schochet ら¹¹⁾(1974)の報告をみるのみである。Schochet ら¹¹⁾は、2,300の剖検例のうち、組織学的検索により78例に異所性唾液腺組織を認めたとしている。しかし、いずれも無症候性であり、本症例のように臨床症状を呈したとの報告は我々が調べた限りではいまだみられていない。

唾液腺は、第1鰓弓の原始口腔上皮から発生し、また下垂体は原始口腔上皮と原始間脳からの2つの膨隆部が合一して発生することから、下垂体部に唾液腺を認めても発生学的には矛盾しない。また、Schochet ら¹¹⁾の剖検例では、唾液腺組織が Rathke's cleft あるいは Rathke 嚢腫の後壁に近接して存在し、唾液腺の腺管がそこに開口していた。本症例においても、下垂体前葉と後葉の間にムコ多糖類を認めたことより、本来 Rathke's cleft がある部分に唾液腺からの分泌物が貯留し嚢胞となった可能性が考えられる。しかし、組織学上 Rathke 嚢腫を思わせる1層の円柱または立方上皮により囲まれた cyst 壁はまったく認められなかったことより、Rathke 嚢腫ではなく単に前葉と後葉の間に唾液腺の分泌物が貯留したものと考えられた。本症例は、今後トルコ鞍近傍疾患の鑑別診断を行う上で、重要な症例と考えられた。

IV 結 語

1. 低身長にて発症した下垂体部の非腫瘍性嚢胞を伴う異所性唾液腺のまれな1症例を報告した。

2. 下垂体部に発生する異所性唾液腺は無症候性のことが多いが、今後内分泌障害などの臨床症状を呈する下垂体部病変の鑑別診断として、本症例のごとき病態を考慮しなければならない。

文 献

- 1) Baskin DS, Wilson CB: Transsphenoidal treatment of non-neoplastic intrasellar cysts. *J Neurosurg* 60: 8-13, 1984
- 2) Cotelingam JD, Gerberi MP: Parotid heterotopia with pleomorphic adenoma. Report of an unusual neck mass. *Arch Otolaryngol* 109: 563-565, 1983
- 3) Curry B, Taylor CW, Fisher AWF: Salivary gland heterotopia. *Arch Pathol Lab Med* 106: 35-38, 1982
- 4) Fager CA, Carter H: Intrasellar epithelial cysts. *J Neurosurg* 24: 77-81, 1966
- 5) Hulbert JC: Ectopic mixed salivary tumour in the neck. *J Laryngol Otol* 92: 533-536, 1978
- 6) 栗坂昌宏, Pearl GS, 武井義雄, Tindall GT: 嚢胞を伴う prolactin 産生脳下垂体腺腫 — その光顕、電顕および免疫組織化学的検討 —. *Neurol Med Chir (Tokyo)* 22: 453-460, 1982
- 7) Leech RW, Olafson RA: Epithelial cysts of the neuraxis. Presentation of three cases and a review of the origins and classification. *Arch Pathol Lab Med* 101: 196-202, 1977
- 8) Marwah S, Bermn ML: Ectopic salivary gland in the vulva (choristoma): Report of a case and review of the literature. *Obstet Gynecol* 56: 389-391, 1980
- 9) Ostfeld E, Fisher J: Ectopic salivary gland in the lower neck. *Isr J Med Sci* 15: 463-464, 1979
- 10) Pesavento G, Ferlito A: Benign mixed tumour of heterotopic salivary gland tissue in upper neck. Report of a case with a review of the literature on heterotopic salivary gland tissue. *J Laryngol Otol* 90: 577-584, 1976
- 11) Schochet SS Jr, McCormick WF, Halmi NS: Salivary gland rests in the human pituitary. *Arch Path (Chicago)* 98: 193-200, 1974
- 12) Spaziante R, de Divitiis E, Stella L, Cappabianca P, Donzelli R: Benign intrasellar cysts. *Surg Neurol* 15: 274-282, 1981
- 13) 田鹿安彦, 久保長生, 神谷増三, 氷室 博, 別府俊男, 沖野光彦, 喜多村孝一: Rathke's cleft cyst を含む5例の下垂体部嚢腫の臨床病理像. *脳神経外科* 10: 1055-1064, 1982
- 14) 高橋 徳, 川合省三, 上農哲朗, 平松謙一郎, 前川基継, 湯浅隆史, 宮元直数, 服部 裕: Suprasellar arachnoid cyst の1例. *脳神経外科* 10: 435-441, 1982
- 15) 土屋一洋, 町田 徹, 飯尾正宏: 鞍上部嚢胞性病変のCT. *脳と神* 35: 1109-1115, 1983
- 16) Verkijk A, Bots GThAM: An intrasellar cyst with both

- Rathke's cleft and epidermoid characteristics. *Acta Neurochir (Wien)* 51: 203-207, 1980
- 17) Weber EL, Vogel FS, Odom GL: Cysts of the sella turcica. *J Neurosurg* 33: 48-53, 1970
- 18) Weitzner S: Ectopic salivary gland tissue in submucosa of rectum. *Dis Colon Rectum* 26: 814-817, 1983
- 19) 山本昌昭, 高良英一, 今永浩寿, 神保 実, 久保長生 : Rathke's cleft cyst の 2 例. 脳神外科 12: 609-616, 1984
- [別刷請求先 : 〒060 札幌市北区北15条西 7 丁目, 北海道大学脳神経外科, 加藤 功]