

頰部に発生した石灰化を伴う小唾液腺由来の多形腺腫の 1 例

吉岡 愛¹⁾ 木下 英荘¹⁾ 小笠原 利行²⁾
牧原 梨恵²⁾ 平井 里枝¹⁾ 西畑 貴喜¹⁾

要 旨: 今回、我々は頰部に発生した石灰化を伴う小唾液腺由来の多形腺腫の 1 例を経験したので報告する。症例は 50 歳代女性で、左頰部の大きなしこりを主訴に歯科口腔外科を受診した。CT にて境界明瞭な石灰化を伴う腫瘍を認めた。全身麻酔下に腫瘍を摘出し、多形腺腫との診断を得た。その後再発は認めていない。

(福井医療科学雑誌 19:20-23, 2022)

【Key words】 多形腺腫, 石灰化, 小唾液腺, 頰部

緒 言

多形腺腫は唾液腺腫瘍の中で最も発生頻度が高い腫瘍であるが、小唾液腺由来のものは 6.5~16%と比較的少ない。その中でも頰部に発生するものはまれであるとされている^{1,2)}。今回、我々は頰部に発生した石灰化を伴う小唾液腺由来の多形腺腫の 1 例を経験したので病理所見および文献的考察を加えて報告する。

症例紹介

患 者: 50 歳代, 女性

初 診: 2018 年 7 月

主 訴: 左頰部の腫瘍

既往歴: 虫垂炎, 腹膜炎

家族歴: 特記事項なし

現病歴: 10 年以上前より左頰部に腫瘍を自覚していたが放置していた。その後徐々に大きくなり、歯科口腔外科を受診した。

現症:

全身所見: 体格は中等度、栄養状態は良好であった。

口腔外所見: 左頰部に 35mm 程度の腫瘍を認め、顔貌は左右非対称であった。頰部皮膚は正常で圧痛、自発痛

は認めなかった。

口腔内所見: 左頰粘膜内に弾性硬の腫瘍を触知した。周囲組織との癒着は無く、被覆粘膜に異常は認めなかった。

臨床検査所見: 血液一般および生化学的検査で異常を認めなかった。

画像所見:

US 所見: 境界明瞭の低エコーの腫瘍を認め、一部石灰化を伴っていた。

造影 CT 所見: 一部に石灰化を伴う不均一な造影効果を呈する 37×26×42mm の境界明瞭な腫瘍を認めた。石灰化を比較的広範囲に認めた。(図 1)

MRI 所見: T2 強調画像で高信号域と低信号域が不均一に混在し、造影 T1 強調画像で不均一な造影効果を認めた。(図 2)



図 1 造影 CT



図 2 MRI T2 強調画像

臨床診断: 左頰部腫瘍

1) 福井総合クリニック 歯科口腔外科 歯科医師

2) 福井総合病院 歯科口腔外科 歯科医師

(採択日 2022年12月)

処置および経過：2018年8月、局所麻酔下に左頬粘膜から生検を施行し多形腺腫の診断を得た。同年9月に全身麻酔下に腫瘍摘出術を行った。ステノン管を涙管ブジーにて確認した。腫瘍直上の頬粘膜を近遠心方向に切開し、腫瘍の被膜に沿って剥離し摘出した。腫瘍は周囲組織との癒着は認めず、剥離容易であった。摘出時に内部からゼリー状の物質が流出するも、腫瘍を一塊として摘出した。術後経過は、唾液の分泌障害を認めず経過良好である。

病理組織学的所見：

摘出標本所見；摘出標本は32×20×23mm大で、薄い被膜に覆われていた。断面はゼリー状の淡黄褐色半透明部と黄白色の充実性の組織が混在して構成されていた。黄白色の充実性の部位の中に白い点状の石灰化を多数認めた。

病理組織学的所見；腫瘍細胞は上皮性成分と間葉系成分からなり、互いに移行していた。上皮細胞は管状あるいは充実性の増殖を示し、間葉系成分の部位では間質は粘液腫様間質や軟骨様間質、硝子状間質と多彩な像を示していた。硝子状間質には微小石灰化が多く認められた。

病理組織学的診断：多形腺腫

考 察

多形腺腫は唾液腺腫瘍の中で46.2～60.7%を占める最も発生頻度が高い腫瘍である^{1,2)}が、その発生部位は大部分が大唾液腺であり、小唾液腺に発生する多形腺腫の頻度は6.5～16%¹⁾と比較的少ない。小唾液腺由来の多形腺腫は口蓋に発生することが多く、頻度は70%程度であるとされている³⁾。

頬部に発生する多形腺腫には、頬部小唾液腺由来のものと、耳下腺の異所性唾液腺である副耳下腺由来のものがある。副耳下腺はステノン管に沿って主耳下腺より独立して耳下腺前方および咬筋上部に位置する異所性の唾液腺であり、そのほとんどはステノン管に接しており、咬筋との位置関係では咬筋前縁を越えないことが多い。一方、頬部小唾液腺は頬筋外面で耳下腺が頬筋を通過する付近に帯状に広がる腺様群で、大部分はステノン管を中心として前後の2部に分かれて存在する²⁾。本症例では耳下腺やステノン管との連続性はなく腫瘍は咬筋前縁の前方に位置していたため、頬部小唾液腺由来の多形腺

腫と考えられ、本症例は比較的まれな多形腺腫であるといえる。

小唾液腺腫瘍は大唾液腺腫瘍に比べて悪性腫瘍の比率が高く40%程度との報告がある^{4,5)}。多形腺腫が悪性化する率は、多形腺腫が発生してから5年未満の症例では多形腺腫内癌の発生率が1.6%、15年以上の症例では9.6%と、発生してからの期間が長いほど高くなるとの報告がある⁶⁾。本症例では患者によると発生から約10年以上経過しているが、悪性所見は認められなかった。

多形腺腫は一般的にT2強調画像にて著明な高信号を呈するといわれている^{7,8)}が、本症例ではT2強調画像において不均一な信号強度を示す特徴的な画像を示し、組織学的にも信号強度に一致した腫瘍成分の局在性を認めた。低信号を示す場合には強い線維化や石灰化の沈着の優位性が示唆され、著明な高信号を示す場合は標本では半透明ゼリー状の部位と一致し、粘液腫様部の存在の優位性が示唆されるものと考えられる。(図3)

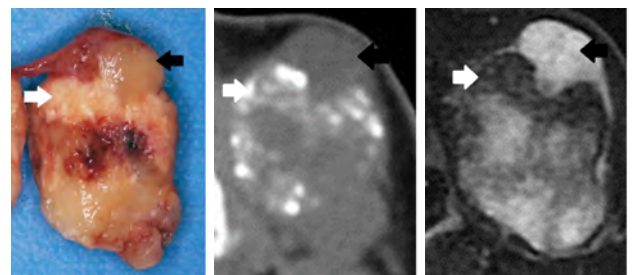


図3a 摘出標本(断面) 図3b 造影CT 図3c MRI T2強調画像

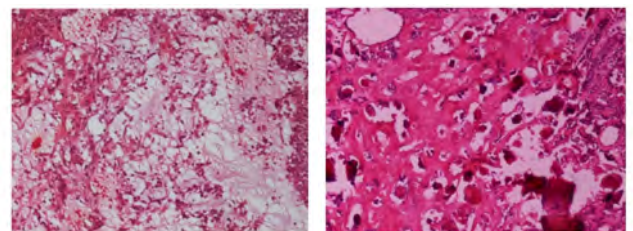


図3d 粘液腫様部 H-E 染色 (×100) 図3e 硝子様間質部に石灰化が認められる H-E 染色(×40)

図3

黒矢印の部位の半透明ゼリー状の部位は、MRI T2強調画像で著しい高信号を示し、同部は病理所見にて再発のリスクが高いと考えられている粘液腫様部を優位に認める。(図3d)

白矢印の部位はCT画像では粒状不透過像を示し、同部はMRI T2強調画像で低信号を示し、病理所見にて硝子状間質内に多数の石灰化物の沈着を認める。(図3e)

本症例では、腫瘍内の硝子状間質に微小石灰化を多数認めた。これは異栄養性石灰化によるもので、細胞ないし、組織が壊死に陥るか、あるいは甚だしく生活力が障害された時、同部に石灰が付着する現象である⁹⁾。本症例

の石灰化物は腫瘍内で腫瘍細胞の増殖により、栄養障害をきたした間質の一連の退行性変化の産物であると考えられる。故に石灰化物の出現は硝子状間質部に限定していた。

また、白川は多形腺腫を組織学的に①粘液腫様成分優勢型(間質型)②上皮成分優勢型(腺腫型)③筋上皮成分優勢型(充実型)の三型に分類しており、その中でも粘液腫様成分優勢型に再発が多いと報告している¹⁰⁾。

粘液腫様成分優勢型に再発が多い理由として、粘液腫様成分優勢型は腫瘍が軟らかく内容がゼリー状であり、内容が手術時漏れ出て散布されやすいこと、粘液腫様基質内に散在する紡錘型細胞が充実性の上皮細胞成分より増殖能が盛んであること、また、この型では被膜形成が不十分な傾向にあることがあげられる¹⁰⁾。多形腺腫は薄い被膜に被包されていることが多いが、連続性が不完全なものでは腫瘍細胞が被膜外に浸潤していることがある¹¹⁾。このことから腫瘍周囲の健康軟組織を含めた切除が望ましいとされている。しかし、解剖学的制約がある場合は、腫瘍を完全に摘出することを前提に、機能的、整容的障害を最小限にするように安全域を縮小せざるを得ない場合もある。山本ら^{11,12)}が行った初代培養細胞の細胞動態所見の報告では、腫瘍が大きく、多結節性の症例ほど、その培養細胞の増殖活性が高いため、腫瘍が球状で小さく、周囲との癒着がなければ摘出で十分で、腫瘍が結節状で大きめの腫瘍であれば周囲組織を含めて切除することがより確実であると述べている。

本症例のように腫瘍成分の局在性が比較的明瞭な場合、MRI T2 強調画像で著明な高信号を示す部位は、再発のリスクが高い粘液腫様成分の存在の優位性が示唆されるため、摘出時には切除の安全域を拡大するなどの臨床上的対応を要すると考えられる。しかし、本症例においては、腫瘍は球状で周囲との癒着を認めなかったため、腫瘍を周囲から剥離摘出し、周囲組織の切除は行わなかった。

結 語

今回、我々は左頬部に発生した小唾液腺由来の石灰化を伴う多形腺腫の一例を経験した。本症例では MRI T2 強調画像にて高信号の部位を含み、再発が多いとされる粘液腫様優勢型を含んでいたが、癒着を認めなかったこと

から周囲組織から剥離摘出した。現在まで再発は認めていないが、今後も長期的な経過観察が必要であると考えられる。

謝 辞

稿を終えるにあたり、多大なご協力をいただきました福井総合病院病理診断科 河原栄先生、放射線科 岩崎俊子先生、土田千賀先生に心より御礼申し上げます。

本論文の要旨は、第 64 回(公社)日本口腔外科学会総会・学術大会(2019 年 10 月、札幌市)にて発表した。

本論文に関して、開示すべき利益相反状態はない。

引用文献

- 1) 吉福孝介, 西元謙吾, 松崎勉. 頬部に発生した小唾液腺由来多形腺腫の 1 症例. 頭頸部外科 2015;25(2): 223-226
- 2) 前多雅仁, 上里博世, 関泰ほか. 頬部多形性腺腫の 1 例. 愛院大歯誌 2002; 40(4): 587-591
- 3) 田中泰彦, 金山亮治, 齋藤晋ほか. 頬部小唾液腺多形腺腫例ー手術アプローチを考えてー. 耳鼻臨床 2010; 103(11): 1015-1019
- 4) 羽田達正: 小唾液腺の臨床統計. 日唾液腺会誌 1989; 30: 75-78
- 5) 中村哲, 竹内万彦, 坂井田寛ほか. 当科における口腔・中咽頭小唾液腺腫瘍の検討. 耳鼻頭頸 2008; 80(3): 205-208
- 6) Eneroth CM, Zetterberg A: Malignancy in pleomorphic adenoma. A clinical and microspectrophotometric study. Acta Otolaryngol 1974; 77: 426-432
- 7) 大前麻理子, 岩井大, 池田耕士ほか. 耳下腺多形腺腫における MRI 画像と病理所見. 口腔科 2005; 17(3): 393-398
- 8) 金田隆, 久山佳代 Case Based Review 画像診断に強くなる 顎口腔領域の疾患 読影ポイントから病理診断, 治療方針まで. 第 1 版, 京都: 永末書店; 2017, 234-235

- 9) 亀山嘉光, 榊祥宏, 山田長敬. 石灰化を伴った多形腺腫の1例. 九州歯会誌 1987; 41(3): 737-741
- 10) 白川正順. 唾液腺腫瘍の臨床病理学的研究. 慈医誌 1980; 95: 1402-1419
- 11) 山本悦秀, 小浜源郁, 成松英明. 初回手術の15年後に再発が確認された頬部小唾液腺腫瘍の1例. 日口外誌 1982; 28(12): 2047-2051
- 12) 山本悦秀, 清水正嗣, 上野正. 多形性腺腫の組織培養学的研究: 臨床所見と培養所見との関連性について. 日口外誌 1976; 22: 649-654