

症例

長径 9 cm の軟口蓋多形腺腫の 1 症例

舘田勝¹⁾、天野雅紀¹⁾、大島英敏¹⁾、石田英一¹⁾、鈴木博義²⁾、橋本省¹⁾、菊地俊晶¹⁾、戸塚大幾¹⁾、小笠原真理¹⁾

1) 国立病院機構仙台医療センター 耳鼻咽喉科頭頸部外科

2) 国立病院機構仙台医療センター 病理診断科

抄録

右軟口蓋に発生した長径 9cm の巨大な多形腺腫の治療を経験した。症例は精神発達遅滞のある 41 歳男性で、8 年前から咽頭腫瘍を指摘され放置していたが、腫瘍増大によるいびきを生じたため当科を受診した。経鼻挿管による全身麻酔導入後に、腫瘍を経口的に摘出し、気道確保のため気管切開も施行した。切除標本は多形腺腫の診断であった。術後 7 年になるが再発は認めていない。

キーワード：小唾液腺 多形腺腫 経口的摘出

1. はじめに

多形腺腫のうち約 10 % が小唾液腺由来とされ、硬軟口蓋移行部に多く¹⁾、そのほとんどは 30mm 未満とされている²⁾。一方で発育が緩徐なため巨大化した腫瘍の報告が散見される²⁻⁵⁾。今回、我々は軟口蓋に発生した 9cm の巨大な多形腺腫を経験した。診断・治療につき文献的考察も含め報告する。

2. 症例

41 歳 男性

主 訴：咽頭腫瘍 いびき

現病歴：近医にて 8 年前から咽頭腫瘍を指摘されたが放置、腫瘍が増大し当科紹介受診。

既往歴：17 歳糖尿病 精神発達遅滞

初診時所見

右中咽頭軟口蓋を基部に口腔内に充満する腫瘍を認めた (図 1A)。含み声だが、明らかな呼吸苦は認めなかった。経口摂取に問題なく、食事は通常食であった。中咽頭は腫瘍で占拠されていたが、喉頭には異常を認めなかった (図 1BC)。

検査所見

MRI 検査では口腔内に長径 9.5*9.0*6.5cm の腫瘍を認めた。境界は比較的明瞭。T1 強調像、T2 強調像ともに高信号で造影効果の無い部位と、中間信号を示し造影される部分が混在していた (図 2ABC)。

3. 経過

術前に組織生検を 3 回、細胞診を 2 回施行したが、悪性所見は認めなかったものの確定診断には至らなかった。経過、画像から小唾液腺由来の多形腺腫等の良性腫瘍を考え、血糖コントロール後、全身麻酔下に経口的手術の方針とした。

経鼻挿管の上、経口的に切除した。腫瘍の基部の全体像ははっきりせず、液体成分を穿刺吸引し減量、概ね基部と考えられる右軟口蓋・中咽頭を粘膜切開し腫瘍部分を切除した (図 3)。残存粘膜を一期縫合 (図 4)。術後出血や血腫により気道狭窄の可能性を懸念し気管切開を施行した。術後 6 日で経口的に食事を開始、摂食・嚥下は術前より円滑であった。術後 7 日に経鼻胃管を抜去し、術後 10 日

図 1A

B

C

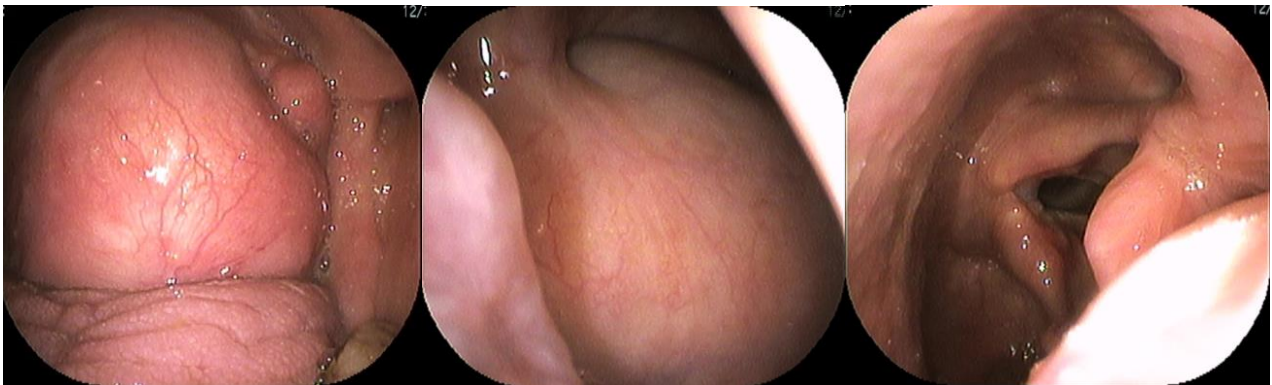


図 1 術前内視鏡所見 A：口腔内所見：右軟口蓋を基部にする巨大な腫瘍を認め、口蓋垂が左に変位している B：上咽頭所見：軟口蓋上面の腫脹を認める C：喉頭所見、喉頭に異常は認めなかった

図 2A

B

C

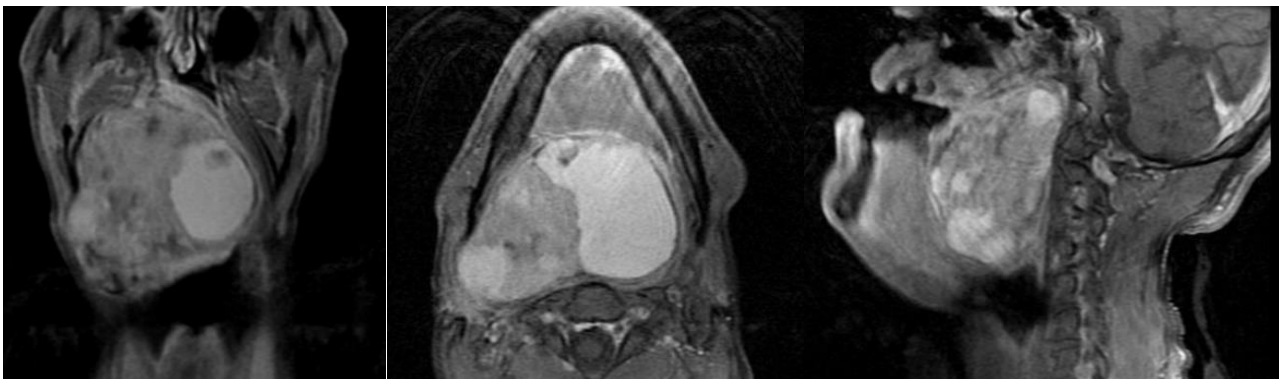


図 2 術前 MRI 画像（ガドリニウム造影 T1 強調像）、A：冠状断像：右軟口蓋が基部と思われる長径 9.0*6.5cm の巨大な腫瘍を認める B：横断像：長径 9.0*6.5cm C：矢状断像：長径 9.5*6.5cm

で気管カニューレ抜去した。いびきは消失、自覚的にも摂食・嚥下も円滑になった。術後 13 日で気管孔を閉鎖し、術後 16 日で退院した。病理診断は多形腺腫の診断（図 5）で、悪性所見は認めなかった。術後 7 年時点で腫瘍の再発は認めていない（図 6）。

4. 考察

小唾液腺腫瘍の発生部位は口蓋腺が約半数を占め、続いて口唇腺、頬腺が続き、舌腺、口底腺、臼後腺での発生はまれである⁶⁻⁹⁾。日本の報告では小唾液腺全体で悪性は 37-47%、口蓋腺では 22-34%と報告で他国より低い傾向にある⁶⁻⁹⁾。口蓋腺腫瘍の病理組織型では良性腫瘍の 9 割以上が多形腺腫、悪性腫瘍は粘表皮癌、腺様嚢胞癌が同程度で他は稀である⁷⁻⁹⁾。多形腺腫は途中経過で悪性化の報告もあり注意が必要である^{10, 11)}。

小唾液腺腫瘍の大きさは数 mm から 12cm で、平均 2.5-3.5cm のものが多いが、症状は腫瘍以外に自覚に乏しい¹²⁾。口腔内の腫瘍では半数以上は腫瘍以外の症状は自覚がなく時に 4cm を越える巨大化したものが報告される^{2-5) 12)}。緩徐な進行のため病期期間が 10 年を越える症例もみとめる³⁻⁵⁾。多くは経過途中で構語障害、嚥下障害、いびき、腫瘍出血などで受診する。本症例は 8 年前から口腔内腫瘍を指摘されていたが、精神発達遅滞のため受診のきっかけがなく、いびきがひどくなり受診となった。

術前診断では生検や細胞診が行われるが、腫瘍が大きい場合には必ずしも確定診断には至らず^{2, 5)}、切除後の全体検索で確定診断がなされる。本症例も 2 回の生検で術前確定診断には至らなかった。過去の報告より巨大な口蓋腺腫瘍は多くが多形腺腫であること、MRI などの画像診断から境界は明瞭な良



図3 摘出標本 9cm程度の腫瘍で嚢胞成分で内容液を除去し壁が薄い部分には穿孔を認める

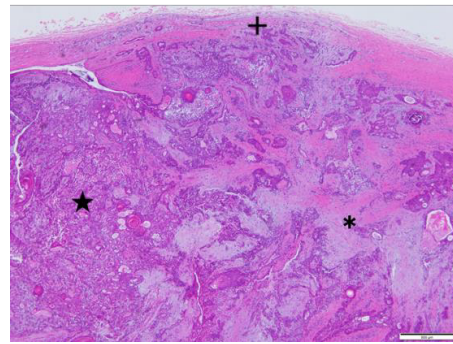


図5 病理組織所見 (HE 染色 x20) 筋上皮の増生巣内に管状腺管が散在性に認められる (★)。類粘液状の間質が認められる (*). 多形腺腫の像である。一部で線維性被膜が菲薄化しているが、被膜外浸潤は認められない (+)。

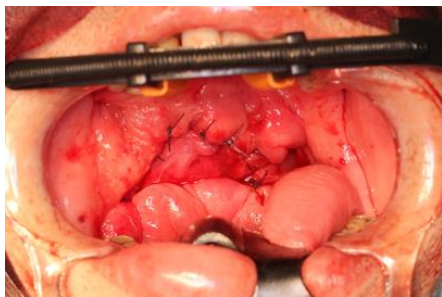


図4 腫瘍切除後の咽頭所見 軟口蓋一咽頭側壁に基部が有り一期縫合した



図6 術後7年目の咽頭所見 軟口蓋一咽頭側壁に瘢痕を認める

性腫瘍と考え手術を施行した。

気道確保、切除法、切除後の創部保護については術前の十分な計画が必要である。巨大な腫瘍の場合、口腔内は腫瘍で占拠されており全身麻酔での経口挿管は困難である。本症例は術前評価にて喉頭は問題無く、気管切開の準備をして経鼻挿管を施行した。他の報告でも経鼻挿管が行われているが^{3, 5)}、局所麻酔下気管切開が行われている症例もある¹³⁾。手術は経口的切除が施行されるが、下顎離断での症例も報告されている¹³⁾。また創部は一期縫合や真皮欠損グラフトが使用されている。本症例は経鼻挿管が施行できたが、術後の粘膜下出血による気道狭窄の予防のため摘出後気管切開を施行した。創部は粘膜に余裕は有り一期縫合した。

術後の経過観察では、術後再発や遠隔転移の報告も認め注意が必要である^{11, 14)}。その経過観察の頻度や期間については議論が残るが、本症例では

年に一度経過観察をしており術後7年再発を認めていない。

5. まとめ

長径9cmの巨大な口蓋腺由来の多形腺腫を経験した。経鼻挿管での経口的摘出を施行、術後気道狭窄予防に気管切開を施行した。術前病理確定診断は必要だが、診断が困難な場合もある。口蓋腺由来の腫瘍は、日本では約7割程度が良性とされ、巨大腫瘍であっても悪性化の可能性は少数であることから、診断目的の切除も選択肢になると考える。

6. 文献

- 1) Barnes L, Eveson JW, Reichart P, Sidransky D. World Health Organization Classification of Tumors: Pathology and Genetics of the Head and Neck Tumours. Lyon: IARC Press ;

- 2005; p254-258
- 2) 脇本真理、山田朋弘、植野高章、他：呼吸障害と嚥下障害をきたした軟口蓋多形腺腫の1例
日本口腔外科学会雑誌 2011;57:345-349
 - 3) 海野智、上田恵美、河原日登美、他：巨大な軟口蓋多形性腺腫によって生じた構音障害とその術後の改善 口科誌 2003;52:276-280
 - 4) 大貫尚志、大西真、田辺啓太、他：睡眠時無呼吸と構語障害を合併した巨大な軟口蓋多形腺腫
日本口腔外科学会雑誌 2010;56:40-44
 - 5) 武永芙美子、若杉哲郎、永谷郡司、他：口腔に発生した巨大な多形腺腫 口咽科 2013;26:185-190
 - 6) 小川郁子、工藤保誠、高田隆：唾液腺腫瘍の病理—小唾液腺腫瘍を中心に— 口腔腫瘍 2011;23:50-58
 - 7) Takahashi H, Fujita S, Tsuda N, et al. Intraoral minor salivary gland tumors: a demographic and histologic study of 200 cases. Tohoku J Exp Med. 1990;161:111-128
 - 8) Kusama K, Iwanari S, Aisaki K, et al. Intraoral minor salivary gland tumors : A reterospective study of 129 cases. J. Nihon Univ. Sch.Dent 1997;39 :128-132
 - 9) Sentani K, Ogawa I, Ozasa K, et al. Characteristics of 5015 Salivary Gland Neoplasms Registered in the Hiroshima Tumor Tissue Registry over a Period of 39 Years. J. Clin. Med. <https://doi.org/10.3390/jcm8050566> 2020 年 5 月 20 日アクセス
 - 10) Kim KM, Lee A, Yoon SH, et al. Carcinoma ex pleomorphic adenoma of the palate – a case report – J Korean Med Sci 1997;12:63-66
 - 11) 杉原一正、向井洋、川島清美、他：口蓋に発生した carcinoma in pleomorphic adenoma の1例
日本口腔外科学会雑誌 1988;34:1506-1509
 - 12) 高橋光明 口腔咽頭喉頭疾患 7) 唾液腺腫瘍 耳喉頭頸 2009;81:567-576
 - 13) Forde CT, Millard R, Ali S. Soft palate Pleomorphic adenoma of a minor salivary gland: An usual presentasion Case Reports in Otolarngology <https://doi.org/10.1155/2018/3986098> 2020 年 5 月 20 日アクセス
 - 14) 矢野一彦、神山亮介、安部志乃、他：副咽頭間隙に原発し遠隔転移した多形腺腫例 口腔・咽頭科 2004;16:327-336