

症例報告

臼後部に生じた嚢胞腺癌の一例

伊達貴和子, 鎌谷 宇明, 吉濱 泰斗, 磯辺 友秀*
立川 哲彦*, 新谷 悟

要旨: 唾液腺由来の嚢胞腺癌は極めて稀であり, かつて悪性の嚢胞腺腫, 粘液産生型乳頭腺癌と呼ばれていた。我々は, 臼後部に生じた嚢胞腺癌の一例を報告する。症例は30歳の男性で左側下顎臼後部に直径約5mmの腫瘤を認めた。腫瘤は弾性軟であり, 周囲組織との癒着はなかった。下顎良性腫瘍という臨床診断の下, 全摘生検を施行した。組織学的診断の結果, 悪性の唾液腺腫瘍との診断を得たため, 10mmの安全域を設けて追加切除した。病理組織学的には腫瘍性上皮成分は充実性で篩状又は小嚢胞状を呈し, 小唾液腺を破壊しており, 軽度の核の異型性を認めたため, 嚢胞腺癌との確定診断を得た。腫瘍切除後, 約半年が経過し, 転移および再発は認められない。

嚢胞腺癌は唾液腺腫瘍のWHO新分類にて嚢胞腺腫の悪性型とされている。乳頭状で嚢状の増殖パターンを主体としながら, 他の唾液腺腫瘍の特徴を欠く癌腫群が嚢胞腺癌と定義されている¹⁾。

発生頻度は唾液腺腫瘍の0.2%に満たず, 中でも小唾液腺由来は稀である。同腫瘍57例をまとめたFossらによれば, 約60%が耳下腺に発生し, その他35%が口唇等の小唾液腺例である。年齢では50歳以上が7割を占め, 性差はない^{2,12,14)}。無症候性の腫瘤として緩慢な発育を示すものが多く, 局所再発や転移は稀で予後良好な腫瘍と考えられるが, 高悪性度症例の報告もある^{3~5)}。

今回我々は, 臼後部に発生した嚢胞腺癌の一例を経験したので, その概要を報告する。

症 例

患者: 30歳, 男性。

主訴: 左側臼後部の腫瘤の精査依頼。

全身的既往歴: 家族歴に特記事項はなし。

現病歴: 初診1年程前から, 左側臼後部の無痛性腫瘤を自覚していたが放置していた。歯科受診の際に指摘され, 当科を紹介され来院した。

口腔内所見: 左側臼後部に有茎性で, 弾性軟, 可動性の5mm大の腫瘤を認めた。周囲に硬結は触知せず, 圧痛はなかった (Fig. 1)。

検査所見: パノラマエックス線所見では骨吸収像などの異常所見, および智歯周囲炎等の炎症性病変を疑う所見は認められなかった (Fig. 2)。良性腫瘍の臨床診断の

下, 全摘生検を施行した。病理組織学的には周囲組織との境界が比較的明瞭な充実性の腫瘍がみられ, 悪性の唾液腺腫瘍で, 切除断端に腫瘍細胞が認められた (Fig. 3)。

PET-CTを施行したところ, 左側下顎内側部に集積がみられたが, 転移を疑わせる所見は認められなかった (Fig. 4)。

処置および経過: 悪性腫瘍の診断結果を受け, 周囲に約10mmの安全域を設け, 腫瘍組織を追加切除した。術中迅速病理の結果, 切除断端に腫瘍細胞は認められなかった。

病理組織学的所見: 正常被覆粘膜上皮から移行的に, 乳頭状で大小の嚢胞を形成しながら増殖している立方状から円柱状の腫瘍細胞が, 軽度の核異型を伴い, 周囲組織へ浸潤増殖している (Fig. 5a,b)。

病理組織診断: 嚢胞腺癌。

考 察

嚢胞腺癌は, 唾液腺に発生する稀な疾患である。卵巣, 乳腺, 甲状腺, 上気道, 脾臓, 胆管などに発生しやすく, 口腔領域に発生することは少ない。他の唾液腺腫瘍が主に大唾液腺に好発するのに対し, 嚢胞腺癌は小唾液腺由来の口蓋に好発する^{1,2,6,8)}。

臨床的に本腫瘍は自覚症状に乏しく, 緩慢な発育経過を示すことが多い。そのため, 症状発現から来院までの期間は1か月~5年(平均14か月)と悪性腫瘍にしては長期である⁷⁾。本症例においても腫瘤を自覚してから初診までは約1年経過していた^{1,2,10)}。

昭和大学歯学部顎口腔疾患制御外科学教室 (主任: 新谷 悟教授)

*昭和大学歯学部口腔病理学教室 (主任: 立川哲彦教授)

(2010年10月27日受付; 2011年1月14日受理)



Fig. 1 A pedunculated, movable and elastic soft tumor about 5 mm was observed on the left retro-molar region.



Fig. 2 The panorama X-ray finding shows no remarkable bone absorption.

嚢胞腺癌は低悪性唾液腺腫瘍と考えられ、良性腫瘍に対する治療法に準じて対処し得ると述べられている³⁾。しかし、我々が渉猟し得た文献においては、良性疾患を念頭において切除を行ったものの、病理組織学的に腫瘍の残存や内容物を認め、追加治療として放射線療法¹³⁾や追加切除、ならびに頸部郭清術を施行した症例が報告されている^{5,6,9,11)}。唾液腺原発の本腫瘍では、局所再発が7.5%、リンパ節転移を初診時に7.5%、55カ月後に2.5%認めたと報告されている²⁾。自験例においても、

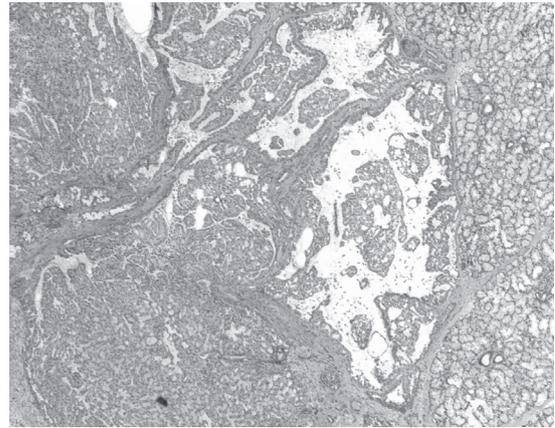


Fig. 3 A biopsy of the tumor showed solid cribriform and cystic pattern with slight atypical cells ($\times 100$).

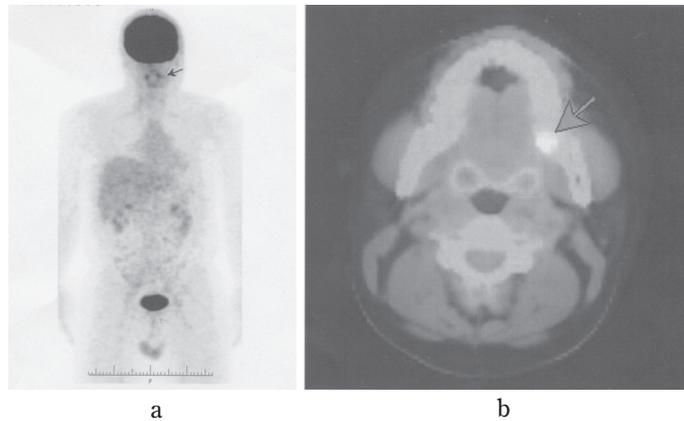


Fig. 4 A positron emission tomography with computed tomography scan revealed foci of increased uptake in the left lower mandible with no other abnormality.

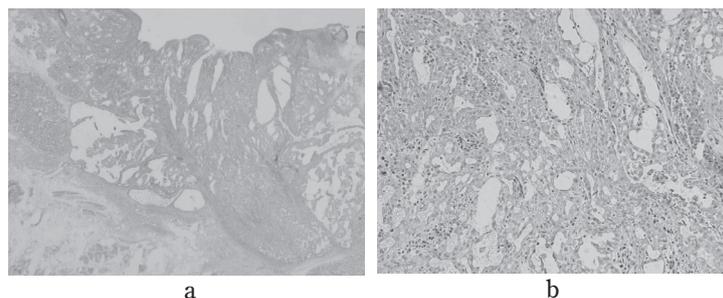


Fig. 5 Histologically, covering epithelium was developed into invasive tumor cells with papillary and cystic growth (a: $\times 40$, b: $\times 100$).

良性腫瘍を念頭におき切除を施行したが病理組織検査の結果、悪性唾液腺腫瘍が疑われたため、追加切除を行った。また、文献的検討において33.3%に局所再発がみられ、うち1例は腫瘍切除術および頸部郭清術を行ったにもかかわらず6カ月後に再発したと報告している^{4,7)}。したがって、臨床的に良性腫瘍と考えられても、再発や転移をきたす高悪性型悪性腫瘍と考えられるものが存在することも念頭に置いて治療を行うべきであると考えられる。

病理学的所見において、嚢胞腺癌は乳頭状構造と嚢胞形成を主な特徴とし、核の異型性や大小不同は乳頭状嚢腺腫と比較し多くみられる。嚢胞内腔を裏装する上皮を small cuboidal, large cuboidal, tall columnar, これらの混合型の4種類に分類したところ、本腫瘍57例中各 cell type の頻度は small cuboidal 61.4%, large cuboidal 15.8%, tall columnar 12.3%, combined type 10.5% で、転移をきたした症例中75%が columnar type であったとしている。すなわち、裏装上皮が columnar type の腫瘍で転移能が高いと述べている^{2,15)}。自験例では裏装上皮は combined type であったので転移の可能性は低いと言える。

本疾患の予後は、ほとんどが1年以上非担癌状態で生存経過し、比較的良好とされている⁷⁾。自験例は術後約半年が経過しており、再発転移の傾向をみとめず経過良好である。しかし、今後の厳重な経過観察が必要と考えられる。

結 語

今回、我々は左側下顎臼後部に発生した小唾液腺由来の嚢胞腺癌を経験したので報告した。発生頻度が稀であるため、臨床所見、病理組織学的所見、および若干の考察を加えて報告した。

文 献

- World Health Organization Classification of Tumours: Pathology and Genetics of Head and Neck Tumours (Chapter 5), 2005
- Foss RD, Ellis GL, Auclair PL: Salivary gland cystadenocarcinomas. A clinicopathologic study of 57 cases. *Am J Surg Pathol*, **20**: 1440-1447, 1996
- 小野 徹, 金子恭士, 下村加奈, 又賀 泉, 石井 馨, 片桐正隆: 上唇に発生した乳頭状嚢腺癌の1例. *日口外誌*, **48**: 86-89, 2002
- 加納直行, 牧本一男, 藤村英一: 過去10年における耳下腺腫瘍の統計. *耳鼻臨床*, **75**: 1657-1666, 1982
- 望月隆一, 牟田 弘, 小野淳二, 竹田雅司, 坂田義治: 耳下腺 Papillary Cystadenocarcinoma の1例. *耳鼻臨床*, **88**: 355-360, 1995
- 小宮正道, 西村 均, 秋元芳明, 宇都宮忠彦, 岡田裕之, 山本浩嗣: 顎下腺に発生した乳頭状嚢腺癌の1例. *日口外誌*, **48**: 455-458, 2002
- 堀川拓郎, 山根源之, 外木守雄, 野々山進, 横澤貴宏, 田中陽一: 舌に発生した乳頭状嚢腺癌の1例. *口腔腫瘍*, **12**: 337-341, 2000
- 土井理恵子, 柴田昌美, 片岡礼子, 田窪千子, 阪本博文, 領家男: 舌下腺に発生した乳頭状嚢腺癌の1例. *日口外誌*, **49**: 501-504, 2003
- 大井一浩, 由良晋也, 大賀則孝, 泉山ゆり, 寺畑信太郎: 下顎臼後部に発生した嚢胞腺癌の1例. *口科誌*, **56**: 61-64, 2007
- Cavalcante RB, da CostaMiguel MC, Carvalho ACS, Nogueira RLM: Papillary cystadenocarcinoma: Report of a case of high-grade histopathologic malignancy. *Auris Nasus Larynx*, **34**: 259-262, 2007
- Yamada S, Matsuo T, Baba N, Rokutanda S, Kawasaki G, Mizuno A, Fujita S: High-grade papillary cystadenocarcinoma of the sublingual gland: A case report. *J Oral Maxillofac Surg*, **65**: 1223-1227, 2007
- Tomioaka H, Harada H, Okada N, Omura K: Papillary cystadenocarcinoma arising in the floor of the mouth: Report of a case. *J Oral Maxillofac Surg*, **64**: 864-867, 2006
- Kimura Y, Ariyoshi Y, Miyatake S, Shimahara M, Kawabata S, Ono K: Boron neutron capture therapy for papillary cystadenocarcinoma in the upper lip: A case report. *Int J Oral Maxillofac Surg*, **38**: 293-295, 2009
- Johnston NJ, Rose DSC, Lutterloch MJ: Cystadenocarcinoma of salivary gland presenting as a cystic lesion in the mandible. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod*, **101**: 201-204, 2006
- Aydin E, Turkoglu S, Ozen O, Akkuzu B: Mucinous cystadenocarcinoma of a minor salivary gland in the upper lip: Case report. *Auris Nasus Larynx*, **32**: 301-304, 2005

A Case of Cystoadeno Carcinoma in the Retromolar Region

Kiwako DATE, Takaaki KAMATANI, Yasuto YOSHIHAMA, Tomohide ISOBE*,
Tetsuhiko TACHIKAWA* and Satoru SHINTANI

*Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Showa University School of Dentistry
2-1-1 Kitasenzoku, Ohta-ku, Tokyo, 145-8515 Japan*

**Department Oral Pathology, Showa University School of Dentistry
1-5-8 Hatanodai, Shinagawa-ku, Tokyo, 142-8555 Japan*

(Received October 27, 2010 ; Accepted for publication January 14, 2011)

Abstract : Cystadenocarcinoma of the salivary gland is rare malignant tumor. It has previously been called malignant papillary cystadenoma, mucous-producing adenopapillary carcinoma, low-grade papillary adenocarcinoma, and papillary adenocarcinoma. We present a rare case of a malignant salivary gland tumor arising in the retromolar of a 30-year-old Japanese man. He presented with a history of a mass on the left lower gingiva. Intraoral examination revealed a tumor about 5 mm diameter on the left side of retromolar region of the mandible. The tumor was soft, non-tender, and did not adhere to the mucosa. Under the clinical diagnosis of benign tumor of the mandible, an excision of the tumor biopsy was performed. After the histopathological diagnosis of malignant tumor of the salivary gland was established, complete excision of the tumor with a minimum of 1 cm tumor-free margins was performed again. The histological examination revealed normal oral mucosa overlying part of a tumor that appeared to be arising from, and destroying, a minor salivary gland. Moderate nuclear pleomorphism was evident with few mitotic cells. The lesion was diagnosed as cystadenocarcinoma. After surgical removal of the lesion and the adjacent tissues, the patient had been referred to our department and remains well almost 6 months later.

Key words : cystadenocarcinoma, malignant tumor, retromolar region.