

# 10年の経過を経て再発した下顎角部皮下異所性多形性腺腫

瀧田正亮<sup>1</sup> 西川典良<sup>1</sup> 高橋真也<sup>1</sup>  
京本博行<sup>1</sup> 阪井 剛<sup>2</sup> 仙崎英人<sup>3</sup>

大阪府済生会中津病院 歯科口腔外科<sup>1</sup> 放射線診断科<sup>2</sup> 病理診断科<sup>3</sup>

## 和文抄録

患者：66歳・男性。左側下顎角部皮下に発生した異所性多形性腺腫を10年前に摘出されていた。今回も全く同様な病態（単発性）で発生し、病理組織学的にも組織像はやや異なるものの（多形像の割合が減少し筋上皮の占める割合が増加）多形性腺腫と診断された。多形性腺腫の異所性に発生する報告例は極めて少なく、再発例についての報告も重要と考え短報とした。

**Key words**：異所性良性唾液腺腫瘍，頸部リンパ節，胎生期遺残上皮

## 緒 言

多形性腺腫は唾液腺腫瘍のなかでは最も頻度の高い良性唾瘍である<sup>1,2</sup>が、唾液腺とは無関係に顎周辺や頸部に異所性に発生する例が最近でも極めて稀にみられる<sup>3,4,5</sup>。今回われわれは下顎角部皮下に異所性に発生した多形性腺腫（既報告）<sup>6</sup> 摘出後10年を経て同一部位に同一病態として発生し、病理組織像はやや異なるものの多形性腺腫と診断された症例を経験したので報告する。

## 症 例

患者：66歳・男性。

初診日：202X年Y月Z日。

既往歴：10年前に左側下顎部皮下の小指頭大腫瘤を局所麻酔下で摘出し多形性腺腫と診断された<sup>6</sup>。術後1年間異常なく経過し終診とされた。他、特記事項なし。

現病歴：6ヶ月前より10年前と同部位に同様な無痛性小腫瘤を自覚し徐々に目立つようになったため受診された。

現症：左側下顎角部付近の皮下に径約2 cmの弾性軟、比較的可動性の腫瘤を触知し、この所見は10年前の来院時と同様であった。

造影CT所見：10年前と同様に左側下顎角部付近の軟組織中に20×13×20mmの淡く増強される腫瘤が描出されており、今回も耳下腺下極外側腫瘤の疑い（リン

パ節炎の可能性を含む）と読影された（図1）。

経過および手術所見：疲労時にやや腫脹感を自覚されていたが、初診11ヶ月後に全身麻酔下で摘除を行った。腫瘤直上すなわち10年前と同一切開線により剥離すると、腫瘤は広頸筋より深層で以前と同様に浅頸リンパ節に相当する位置にあり、耳下腺とは分離独立し被膜に包まれた腫瘤として認められた。できるだけ周囲脂肪組織も含めて被膜の外側で慎重に剥離を進め一塊として摘除した。

病理組織所見：筋上皮の著明な増殖像を主体とするなかで、扁平上皮様構造、管腔構造や硝子様基質の部分も少なからず観察され、多形性腺腫と診断された。摘除はされているが腫瘍の被膜への浸潤や被膜内に腫瘍結節が観察された。診断剖面での組織標本ではリンパ節構造や正常唾液腺組織は見られなかった（図2-1～7：10年前の病理組織像と対比）。

## 考 察

多形性腺腫の被膜内浸潤と本例の治療経過について多形性腺腫は摘出後も長期経過の後に再発することが知られているが、その原因は腫瘍実質の被膜内浸潤を伴うため、手術時の被膜の損傷により被膜外に腫瘍を播種させてしまう危険性による<sup>1,2</sup>。加えて多形性腺腫の被膜の脆弱性も腫瘍細胞の播種の危険性を高める<sup>1,2</sup>。本例では10年前の手術所見並びに摘出物の病理組織標本から被膜の損傷なく摘出されたと考えられ

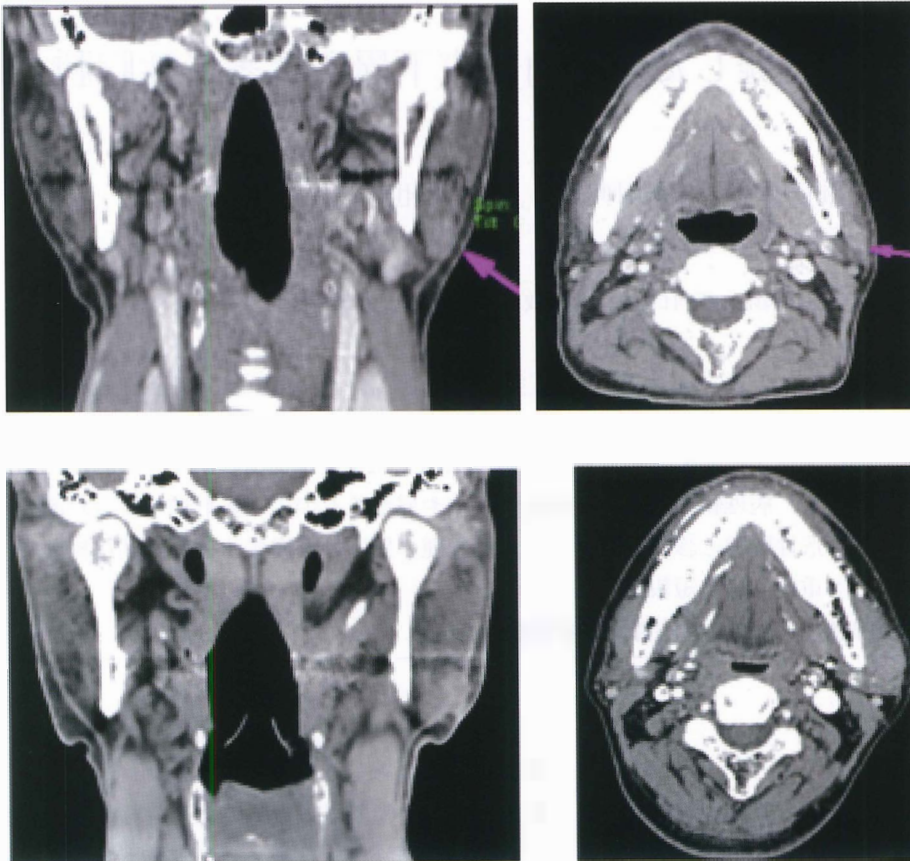


図1 CT画像  
 上段：10年前の所見  
 下段：今回の所見  
 いずれも耳下腺下極に位置した軟性腫瘍として描出されている。

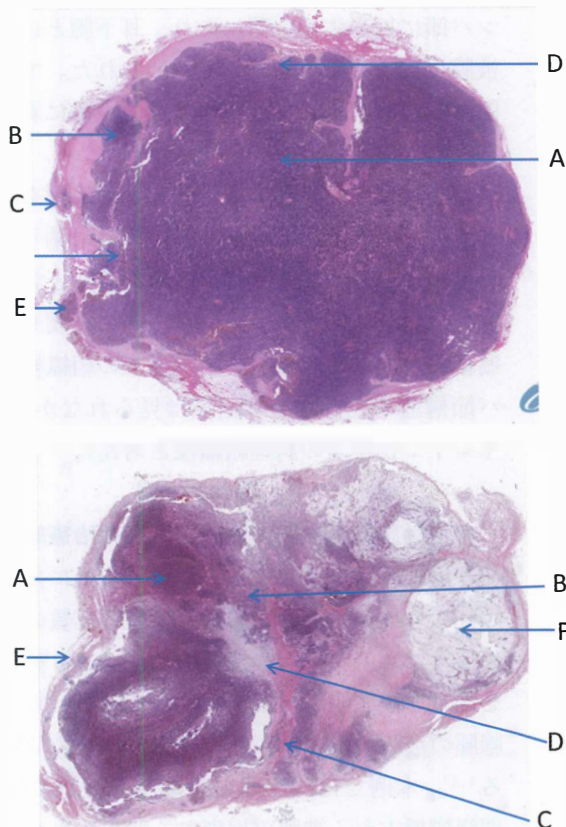


図2-1 病理組織像（HE染色）  
 上段：今回の摘除組織  
 下段：10年前の摘出組織  
 いずれも正常唾液腺組織は見られない。今回は被膜外の脂肪組織を含めて摘除されている。

- A：筋上皮の増殖像
- B：腺管様構造
- C：扁平上皮様構造
- D：硝子様構造
- E：被膜内浸潤
- F：粘液腫様構造

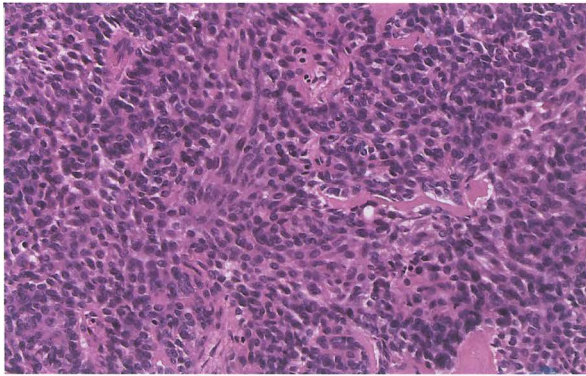


図 2 - 2  
図 2 Aの拡大像  
筋上皮の増殖像

上段：今回の組織  
下段：10年前の組織

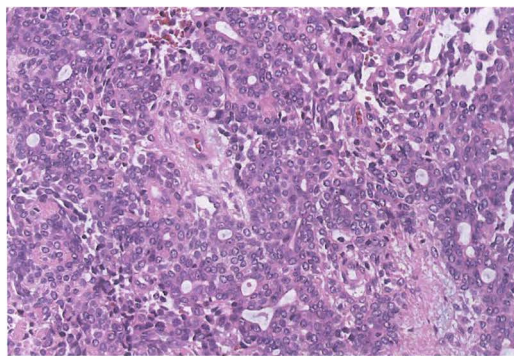
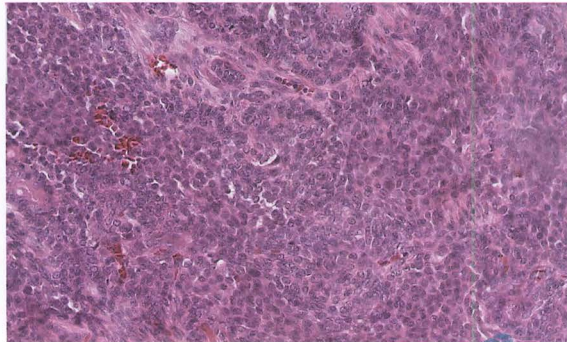
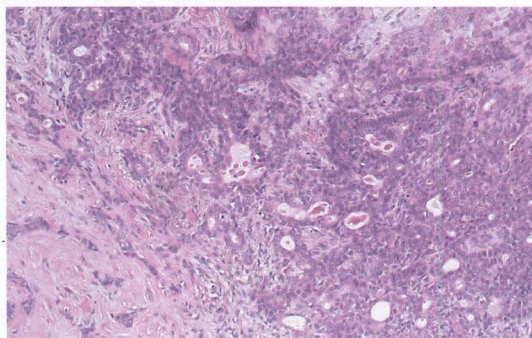


図 2 - 3  
図 2 Bの拡大像  
腺管様構造を示す。

上段：今回の組織  
下段：10年前の組織





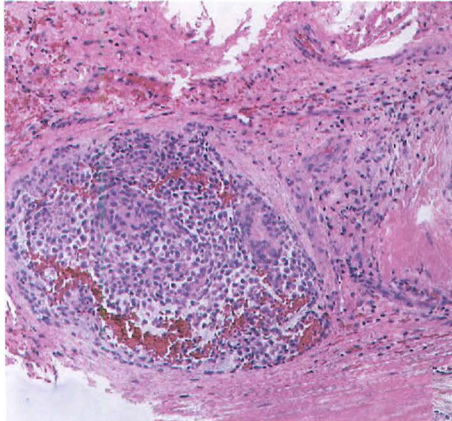


図 2 - 4  
図 2 C の拡大像  
扁平上皮様構造を示す。

上段：今回の組織  
下段：10年前の組織

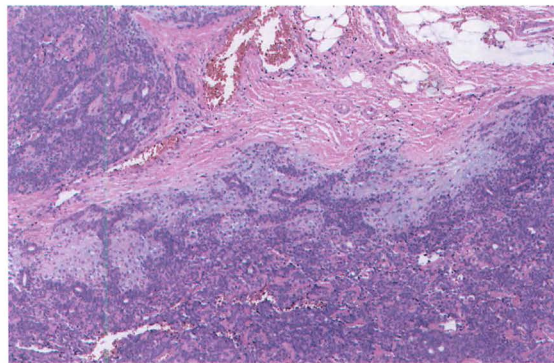
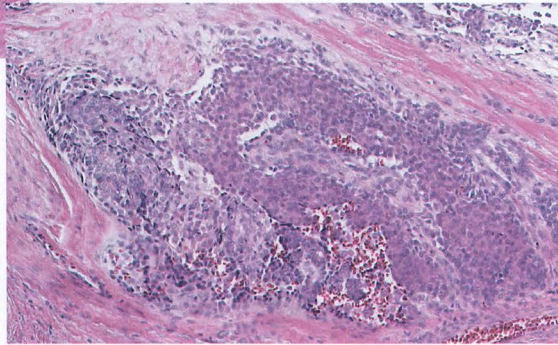
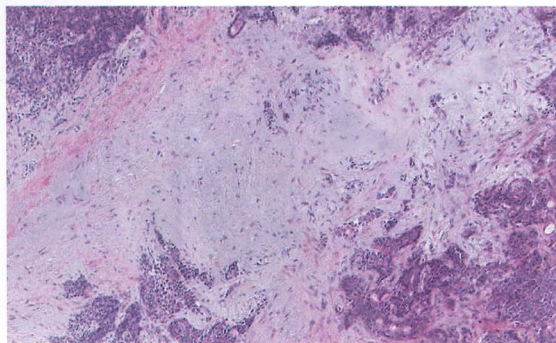


図 2 - 5  
図 2 D の拡大像  
硝子様構造を示す。今回はその割合が減少しているが痕跡が認められる。

上段：今回の組織  
下段：10年前の組織



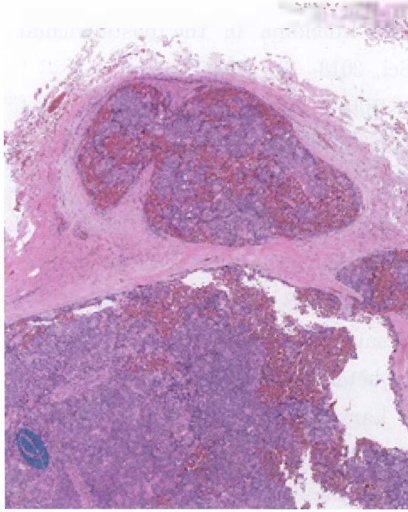


図 2 - 6  
図 2 E の拡大像  
被膜内浸潤を示す。今回は被膜内で腫瘍結節の形成が見られた。

上段：今回の組織  
下段：10年前の組織

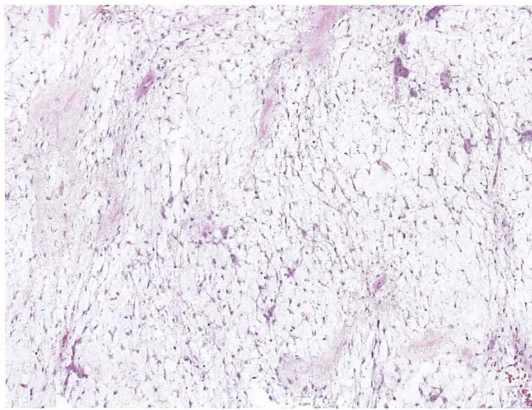
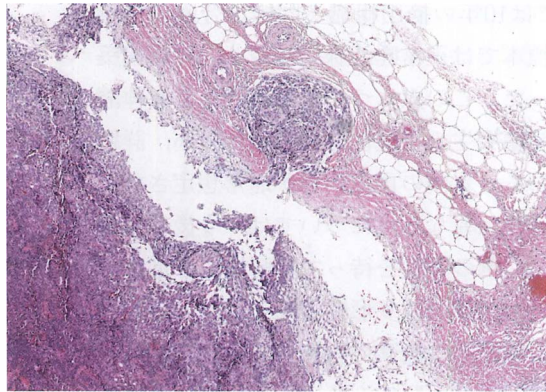


図 2 - 7  
図 2 F の拡大像 粘液腫様構造  
今回の摘除組織では認めがたい。

ていた<sup>6</sup>。しかし、術前の臨床診断がリンパ上皮性嚢胞またはリンパ節炎であり被膜上で剥離し摘出されていたため、今思い起こせば顕微鏡レベルでの被膜の損傷を起こしていた可能性は否定できない。今回は全身麻酔下で慎重に脂肪周囲組織を含めて摘除を行い、病理組織標本上でも被膜外側の脂肪組織が含まれていた

ことにより、多形性腺腫により即した手術所見と思われた。しかし、多形性腺腫は本質的には良性であるものの、上述した如く被膜内浸潤を有するため長期経過後の再発例や悪性化する例、時には極めて稀ではあるが遠隔転移例が最近でも報告されており<sup>7</sup>、その生物学的性質<sup>1</sup>は看過できない。そのため本例においても異所性多形性腺腫の再発例として記録し考察しておくことが重要であると考え今回短報として報告した。

本報告の特徴は同一病態で再発したものの、病理組織学的に多形像の割合が減少、筋上皮主体の増殖像に変化しており、被膜内浸潤・被膜内結節も目立っていた(図 2-6)。過去多くの論文のなかで本腫瘍の構成組織と予後との関係(腫瘍実質における細胞密度や粘液様組織の占める割合等)が論じられていたが、組織像のみの視点からの予後評価は難しいと考えられる<sup>1</sup>。本例における病理組織像の変化が生物学的性質としてどのような意味をもつものなのかは不明であるが、いずれにせよ今後も再発や悪性化したの再発への注意が長期にわたって必要と考えられた。

#### 異所性多形性腺腫の組織由来と予後について

異所性唾液腺腫瘍の由来については胎生期の鰓器官

の上皮性分の遺残に求める説<sup>8</sup>やリンパ節への唾液腺組織の迷入説<sup>9</sup>があり、頸部リンパ節内の唾液腺組織の混在による唾液腺腫瘍発生の可能性が知られている<sup>10</sup>が、未だ詳細については解明されていない。また、本例が10年前の手術時の播種による再発とすると多形性腺腫特有の手術周辺部での多発性再発の様態<sup>1,2</sup>をとるはずであるが、10年前と同一部位・同一病態で単発しており、本例の再発病態については疑問が残る。異所性多形性腺腫では病理組織学的に正常唾液腺組織が含まれていれば腫瘍発生の学的に議論を展開しやすい<sup>4</sup>が、本例では10年の摘出組織と同様に今回の摘除組織にも診断標本では正常唾液腺組織やリンパ節構築は見られなかった。この点については遺残化した唾液腺組織からの腫瘍発生の可能性も考えられるが、詳細は全く不明である。本例の再発病態が通常想定される多形性腺腫のもととは異なる点については、今後の経過を観察しながら症例の蓄積を待って随時検討を進めなければならないが、異所性多形性腺腫そのものの報告が乏しく、かつ短期間の観察で報告される傾向がみられるため<sup>3,4,5,6</sup>慎重な評価が必要と思われる。大唾液腺や小唾液腺に発生する多形性腺腫とは異なった臨床的特徴を有する可能性も念頭に置く必要があると思われる。

### 結 語

10年の経過を経て同一病態で再発した下顎部皮下異所性多形性腺腫の1例を提示し、病理組織像を対比させ現象面から報告した。

本論文に関して、開示すべき利益相反状態はない。

### 参 考 文 献

1. Lucas R: Salivary gland tumours: Pathology of tumours of the oral tissues 4th ed. Churchill Livingstone, Edinburgh, London, Melbourne and New York. 1984, pp297-353
2. Regezi JA and Sciubba J: Salivary gland diseases; Oral Pathology Clinical-pathologic correlation. WB Saunders Co, Philadelphia, 1993, pp239-302
3. Chang CF, Wang CW: Pleomorphic adenoma of ectopic salivary gland tissue in the upper neck. Head Neck Cancer Res, 2016: 1:2
4. Macchia R L, Stefanelli S, Lenoir V, et al: Pleomorphic adenoma originating from heterotopic salivary tissue of the upper neck: A diagnostic pitfall. Case Rep Otolaryngol, 2017: 2017: 5767396. doi: 10.1155/

2017/5767396

5. Hsu H-A, Kuo F-C, Haia Y-J: Heterotopic pleomorphic adenoma in the postauricular area. J Dent Sci, 2018. 13: 289-291
6. 本田麻美, 瀧田正亮, 西川典良, 他: 下顎角部に発生した異所性唾液腺腫瘍の1例. 中津年報, 2012. 23: 200-204
7. Laxague F, Barreto MK, Cormack L M, et al: Hepatic metastasis of a pleomorphic adenoma. Case Medicina (B Aires), 2019. 79: 64-66
8. Pesavento G and Ferlito A: Benign mixed tumour of heterotopic salivary gland tissue in upper neck. J Laryngol Otol, 1976. 90: 577-584
9. Youngs, L. A. and Scofield, H. H.: Heterotopic salivary gland in the lower neck. Arch Pathol, 1967. 83: 550-556
10. 篠原正徳, 左坐春喜, 嶋田 誠, 他: ヒトリンパ節内混在唾液腺組織の病理組織学的検索. 日口外誌, 1989. 35: 2460-2471

## Recurrent ectopic subcutaneous pleomorphic adenoma in near mandibular angle developing 10 years after extirpation

Masaaki Takita<sup>1</sup>, Noriyoshi Nishikawa<sup>1</sup>, Shinya Takahashi<sup>1</sup>,  
Hiroyuki Kyomoto<sup>1</sup>, Gou Sakai<sup>2</sup>, Hideo Senzaki<sup>3</sup>

Department of Dentistry and Oral Surgery<sup>1</sup>, Radiology<sup>2</sup> and Pathology<sup>3</sup>, Saiseikai Nakatsu Hospital, Osaka

Case reports of ectopic pleomorphic adenoma are rare and recurrent cases are even rare.

The patient, a 66-year-old man, had undergone extirpation 10 years previously and had histopathologically confirmed capsulated pleomorphic adenoma. This time, the same palpable tumor (both location and size) developed, and he underwent surgery under general anesthesia. Histopathology revealed well-delineated pleomorphic adenoma with small tumor nodules in the capsule, showing no salivary gland in the tissue (the same as 10 years previously). On the other hand, compared with previous histopathological findings, pleomorphic elements decreased and the myoepithelial element became predominant. Further cases should be examined to assess the microscopic appearance of ectopic pleomorphic adenoma and its clinical behavior.