

術後17年経過し再発した鼻中隔多形腺腫症例

木村 光宏 原 央純 ト部 晋平

概 要：我々は、鼻中隔発生多形腺腫において、17年経過し再発を認めた症例を経験したので報告する。

25歳女性、左鼻出血を主訴に来院。腫瘍は鼻中隔より発生していた。CTでは $21 \times 12\text{mm}$ の腫瘍を認め、組織検査は多形腺腫の診断であった。腫瘍は内視鏡下に切除した。初回手術より17年後に腫瘍が再発し、CTでは最大径 $35 \times 27\text{mm}$ の多房性で、鼻中隔の骨破壊を伴う腫瘍であった。そのため、悪性転化の可能性もあり、外側鼻切開によるアプローチで腫瘍を摘出した。病理結果は、再発しやすいと考えられている、間質成分の豊富な多形腺腫であった。

索引用語：多形腺腫、鼻中隔、再発

A Case of pleomorphic adenoma of the nasal septum recurred 17 years after operation

Mitsuhiro KIMURA Yoshizumi HARA and Shinpei URABE

Abstract : We report a case of pleomorphic adenoma on the nasal septum that recurred after 17 years.

25-years-old female complained of left epistaxis. A tumor had arisen from the nasal septum. The CT scan showed a $21 \times 12\text{mm}$ soft tissue mass in the anterior left nasal cavity. The pathological diagnosis was a pleomorphic adenoma. We remove the tumor with endoscopic surgery. The tumor recurred 17 years after the initial operation. The tumor was multilocular with a maximum size of $35 \times 27\text{mm}$ and was accompanied by bone destruction of the nasal septum. Therefore, due to the possibility of malignancy, the tumor was removed by lateral rhinotomy. Pathological findings showed a tumor with abundant stromal components, which is considered to be prone to recurrence.

Key words : pleomorphic adenoma, nasal septum, recurrence

【はじめに】

鼻中隔を原発とする多形腺腫は比較的まれである。大唾液腺由来の腫瘍と比較すると鼻中隔由来の腫瘍の方が再発率は低い。

今回、鼻中隔発生多形腺腫において、17年経過し再発を認めた症例を経験したので報告する。

【症 例 提 示】

＜初回治療時経過＞

症例：25歳、女性

主訴：左鼻出血

現病歴：

X年9月左鼻出血あり、某病院耳鼻咽喉科を受診。鼻腔腫瘍指摘され、生検にて多形腺腫と診断されたが、妊娠中であり経過観察となる。

X+1年4月出産後、鼻腔腫瘍の摘出手術を希望され、当院耳鼻咽喉科へ紹介。同年5月に手術目的に入院。

既往歴：特記すべきことなし。

現症：

鼻中隔左側鼻腔面の前上方に表面平滑な径2cm大の丸い粘膜下腫瘍を認めた。そのほか腫瘍性病変は認めなかった。

画像所見：

CT所見（図1）

左鼻腔鼻中隔側前部に、22x12mm大の造影効果のない腫瘍を認めた。骨破壊は認められなかった。

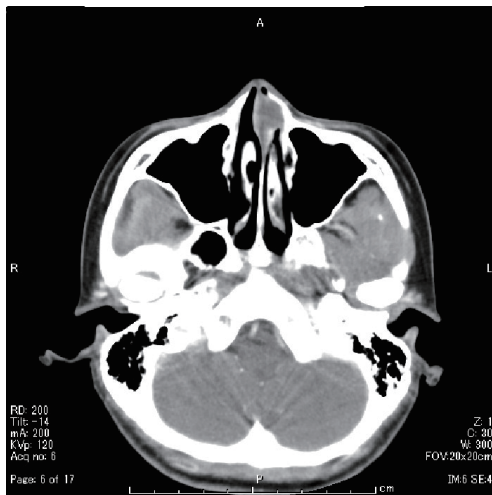


図1

初回治療時造影CT所見

鼻中隔前部に22x12mmの造影効果のない腫瘍を認めた。

手術所見：

全身麻酔下に鼻内視鏡を用いた経鼻腔アプローチにより手術を行った。腫瘍前端より粘膜切開，軟骨膜下に剥離施行し腫瘍を摘出。軟骨面の癒着なく，腫瘍被膜の明らかな損傷はなかった。

病理所見：

境界明瞭な腫瘍で，いわゆる間質と上皮の混合腫瘍である多形腺腫で，悪性所見を認めなかった。

約10ヶ月間外来経過観察し，再発徴候認めず，かかりつけ医へ紹介となる。

<再発時経過>

主訴：左頬部腫脹

現病歴：

X + 18年8月頃から左頬部腫脹出現。同年11月にかかりつけ歯科受診し，精査加療目的に当院歯科口腔外科へ紹介。MRIで精査したところ，鼻腔腫瘍指摘され（頬部は咬筋の左右差によるもので病的所見なし）当科紹介。外来にて生検したところ，多形腺腫の再発と診断。X + 18年3月手術目的に入院。

現症：

鼻腔内視鏡では，左鼻腔鼻中隔側に表面平滑で多房性の柔らかい腫瘍を認めた。右鼻腔は視診上異常を認めなかった（図2）。

画像所見：

CT所見（図3）

左側鼻腔から正中を越えて右側鼻腔に達する27 × 22 × 35mmの境界明瞭な腫瘍を認め，鼻中隔の骨は吸収されていた。鼻中隔の前方（X年に腫瘍がみられた部位と同部位）にも17 × 10mmの腫瘍が認められた。

MRI所見（図4）

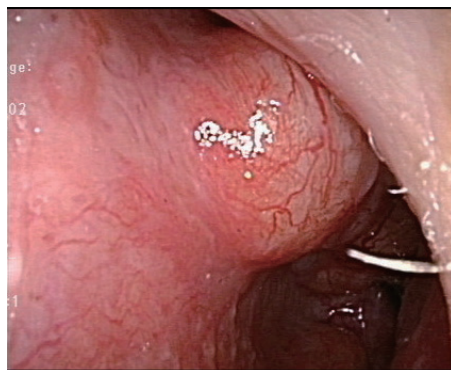


図2 a)

左鼻腔内視鏡所見

a) 鼻腔前方，b) 鼻腔後方

左鼻中隔前方から後方に認めた多房性・表面smoothな腫瘍。

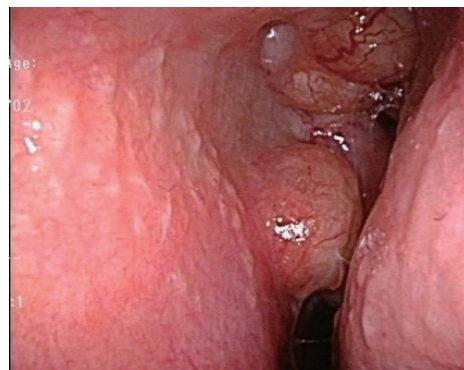


図2 b)

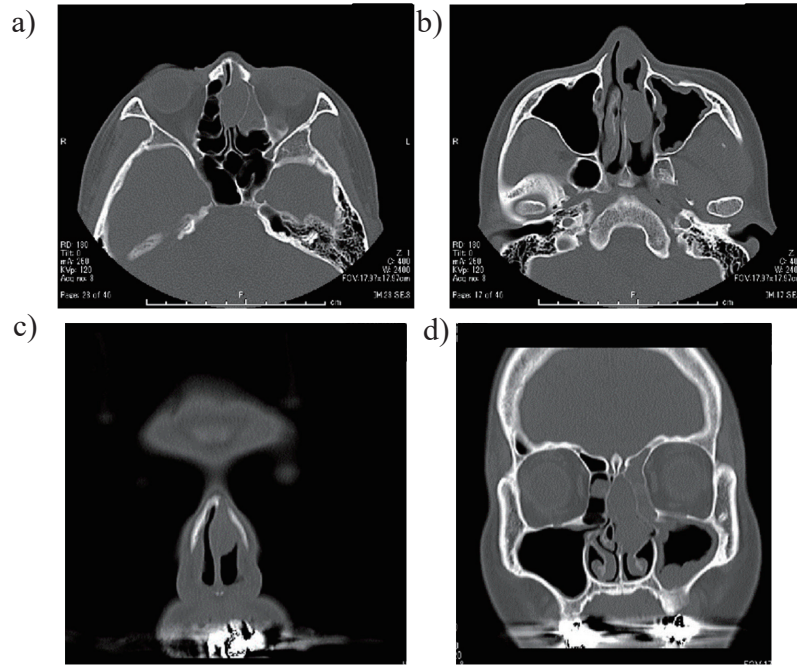


図3

再発時の単純CT所見：

a), b) は軸断面, c), d) は冠状断

左鼻中隔に腫瘍. 鼻中隔骨の吸収を伴い右側鼻腔へ進展. 鼻中隔の前方にも腫瘍あり.

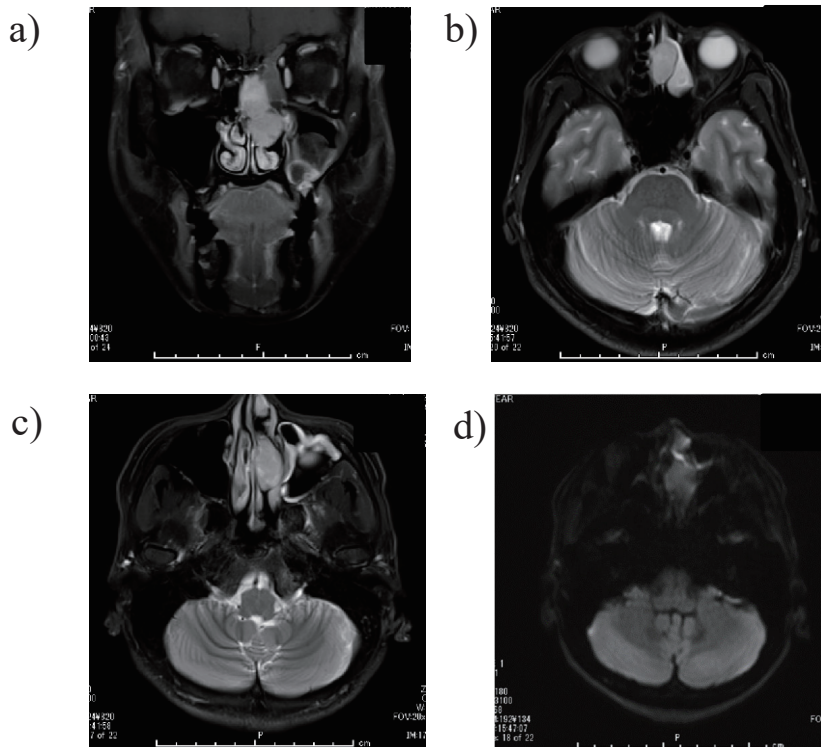


図4

MRI所見：

a), b), c) T2強調画像

d) 拡散強調画像

左篩骨から中鼻道にT2強調画像で軽度高信号構造の充実性腫瘍あり.
鼻中隔骨破壊を伴い右鼻腔へ突出. 拡散強調画像ではADC値の低下あり.
頭蓋底や眼窩側壁の骨破壊なし.

左篩骨から中鼻道を占拠するT2強調画像で軽度高信号構造の充実性腫瘍を認めた。鼻中隔骨破壊を伴い右鼻腔へ突出あり。拡散強調画像では、ADC (apparent diffusion coefficient) 値の低下を認めた。頭蓋底や眼窩側壁の骨破壊は認めなかった。前頭洞・上顎洞には副鼻腔炎を認めた。

手術所見（図5）：

全身麻酔下で、外側鼻切開術と鼻内内視鏡手術を併用して行った。

左眉毛下方から鼻翼外側に切開線をデザインし、切開骨膜下に剥離し、鼻骨・上顎骨前頭突起を露出。鼻

骨を除去し、鼻骨外側で鼻粘膜切開して鼻腔内に侵入して、鼻中隔側に腫瘍を確認した。鼻骨頂点まで骨を除去し腫瘍を明視下に置き、腫瘍前方より鼻中隔軟骨膜下剥離を進めた。腫瘍深部の軟骨は浸潤によるびらんを認め、軟骨とともに腫瘍摘出が必要と判断した。対側鼻腔に侵入し、前方から切除を進めた。天蓋の状態が明視下におけなかったため、前方で腫瘍を減量後、内視鏡に切り替え、腫瘍上方の剥離を進めた。腫瘍は癒着なく篩骨正中板、篩骨天蓋の剥離可能で、腫瘍に接する嗅神経を確認するも、剥離困難であり嗅神経を合併切除した。腫瘍の後方の鼻中隔を電気メスで切離し、腫瘍を摘出した。前頭・篩骨洞には粘性貯留

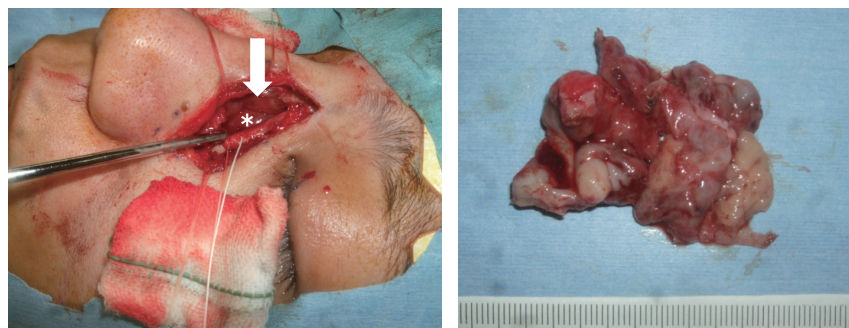


図5

術中所見：

- a) 外側鼻切開による術中所見。*印は腫瘍、矢印は鼻中隔
b) 摘出標本

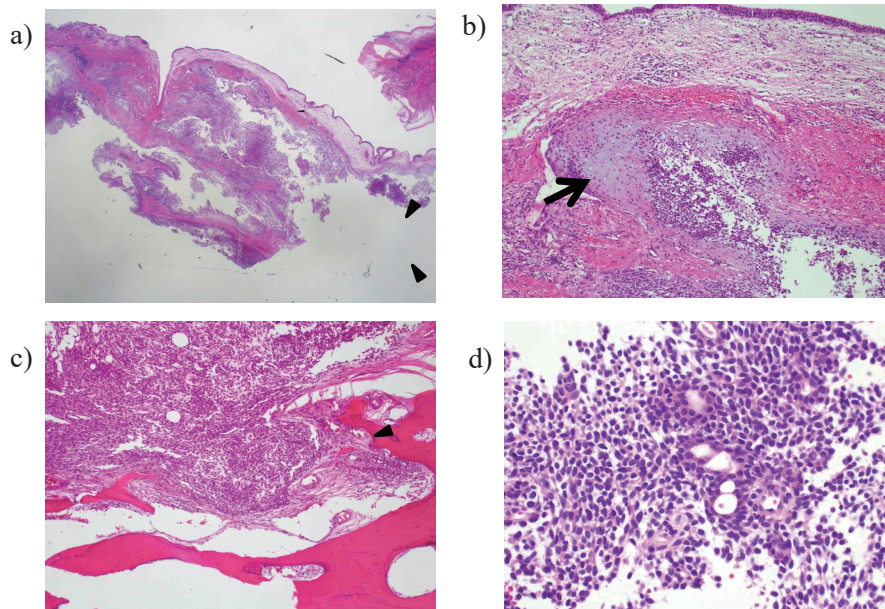


図6

- a) 多列線毛円柱上皮に覆われた腫瘍性病変 (×12.5)
b) 粘液様間質成分 (矢印) が豊富な腫瘍性病変成分 (×40)
c) 鼻中隔軟骨を一部巻き込む腫瘍性病変を認めた (矢頭) (×100)
d) 管腔を取り巻くように筋上皮由来紡錘形細胞が目立つ (×400)

液を認めた。

出血：100ml

病理所見（図6）：

多列線毛円柱上皮下間質に筋上皮由来紡錘形細胞成分が目立つ腫瘍の増生を認め、再発性多形腺腫であった。粘液腫様間質成分が比較的豊富な腫瘍であり、骨組織を巻き込む腫瘍の増生（偽足様所見）を認め、この部分の被膜は確認できず欠損していた。悪性所見は認めなかった。

術後懸念された外鼻の変形認めず、術後約5年再発なく経過している。

【考 察】

多形腺腫は頭頸部領域においては、耳下腺・顎下腺などの大唾液腺組織を中心に発生する良性腫瘍である。そのほか、口腔や口唇などの小唾液腺組織からも発生することもあるが、鼻腔に発生することは稀であり、岸野ら¹⁾は、耳下腺原発が74.6%、顎下腺原発が20.6%に対して鼻腔原発は1.6%と報告している。

鼻腔に発生する多形腺腫の発生母地は鼻腺であり、鼻腔内における鼻腺の分布は鼻中隔、鼻甲介、篩骨洞、前頭洞、蝶形洞の順に多く²⁾、鼻腔内発生の多形腺腫は鼻中隔に最も多く見られると考えられている。

鼻腔内の多形腺腫は、一般的に再発率は低いと考えられている。高橋らの報告³⁾では、耳下腺多形腺腫の再発率が9.2%に対し、Hasegawaらの報告⁴⁾では、鼻腔内多形腺腫で2.4%であった。また、鼻腔内多形腺腫は、鼻閉や鼻出血など症状が現れ、腫瘍が小さいうちに早期に発見できること、手術切除の際に耳下腺のように腫瘍近傍に重要組織がなく、近年の内視鏡下鼻副鼻腔手術における技術の発展とともに、しっかり安全域を確保して腫瘍を完全に摘出することが可能になったことも再発率が低い要因の一つとも考えられている⁵⁾。また、組織学的な差も関連していると考えられている。多形腺腫の被膜は、厚さや密度が一様ではない線維性組織で、しばしば断裂や欠損、腫瘍細胞の浸潤、偽足、衛星病変などを伴う不完全な被膜構造のため、播種を来しやすいと考えられている。多形腺腫には上皮成分の多いcellular typeと間質成分の多いmyxoid typeに分かれ、myxoid typeは9割に不完全な

被膜所見を認め、cellular typeと比較して、被膜の欠損、偽足／衛星病変の形成が有意に多いという結果であった⁶⁾。鼻腔発生する多形腺腫は大唾液腺原発と比較して上皮成分が多く、間質成分の割合が少ないと考えられている¹⁾。

治療は、手術による完全摘出が第一選択になる。前述の通り多形腺腫は不完全な被膜を形成することから、遺残再発の予防のためには、正常組織をつけて一塊切除が推奨される。術式は鼻内、鼻外両者とも選択肢となる。過去の報告では、鼻内手術は56%、鼻外手術は35%であった⁷⁾。鼻外手術が選択される症例は、30mm以上の比較的大きな腫瘍であったが、最近の内視鏡手術の手術手技向上より、30mm以上の症例でも鼻内手術により一塊に腫瘍摘出可能であった症例も散見される⁸⁾。ただ、多形腺腫には、悪性転化症例があり、諸家の報告では耳下腺より鼻腔では少ないとされているが、鼻腔発生約80例のうち4例に悪性転化が認められ⁹⁾、確実に腫瘍を摘出する術式選択が重要であると考ええる。

本症例では、初回手術は22mm、再発時は35mmと17mmの多房性腫瘍性病変を認めた。初回手術時は、鼻中隔に基部を認め、鼻内手術にて、全周性に安全域を確保できる部位に腫瘍を認めたことから、浸潤を認めず、軟骨膜下に被膜損傷なく一塊に腫瘍を摘出した。再発した原因は不明であるが、myxoid typeの腫瘍であり再発しやすい性状であったことに加え、再発時の摘出標本組織では、軟骨に侵入する偽足形成様所見や被膜の欠損を認めた。そのため、軟骨膜を超えた腫瘍細胞の残存が疑われた。これらの要因が、再発に影響した可能性が考えられた。再発時の術式選択は、多房性であること、鼻中隔骨吸収されていることなどより悪性の可能性を考慮する必要があった。また、前方は鼻翼後方にあり、上方は天蓋付近まで腫瘍が広がっていたこともあり、できるだけ安全域をとれるように、鼻外切開が必要と考えた。外側鼻切開アプローチより鼻中隔前方から腫瘍に切り込まないように鼻中隔軟骨・対側鼻中隔粘膜と一緒に腫瘍を切除し、天蓋付近・後方の肉眼では確認しにくい部位は内視鏡を併用して腫瘍を摘出した。なお、広範囲切除により、外鼻変形を来す可能性について患者に説明し、形成外科のバックアップの元、手術を施行した。

現在再手術後より5年経過するが、再発は認めてい

ない。しかし、17年後に再発が見つかった本症例や諸家の報告¹⁾でも10年以上経過してから再発した症例の報告がある。本症例は特に、やむを得ず部分切除を行い腫瘍摘出したため、播種による再々発が危惧される。今後も、継続的に外来で経過を観察する必要があると考える。

【ま と め】

鼻腔由来多形腺腫は、再発率が低いと考えられているが、今回の症例のように、間質成分が多く、被膜の欠損・偽足形成を認めることもあり、切除範囲が不十分な場合は再発する可能性があることを留意した術式選択を行うべきである。また、長期間を経て再発を来すこともあり、術後しばらくは厳重に経過観察すべきであると考えられた。

【参 考 文 献】

- 1) 岸野明洋, 鳴原俊太郎, 山中弘明, 他: 鼻腔に発生した多形腺腫例, 耳鼻臨床, 2016年; 109(9): 621-627
- 2) 坂口雄介, 森脇宏人, 高畑善臣, 他: 鼻中隔粘膜より発生した多形腺腫の2例, 耳展, 2016年; 59(6): 291-297
- 3) 高橋光明, 熊井恵美, 上戸敏彦, 他: 耳下腺多形腺腫再発症例の臨床病理学的検討, 日耳鼻, 1991年; 94(4): 489-494
- 4) Hasegawa M, Ishikawa N, Takahashi K: Surgical approach to tumors arising from the posterior two thirds of the nasal septum. ORL, 1987 49: 157-162
- 5) 阿久津誠, 金谷洋明, 柏木隆志, 他: 鼻中隔を原発とした多形腺腫の1例, 耳展, 2019年; 62(3): 121-127
- 6) 中谷宏章, 福島 慶, 竹内 薫: 耳下腺多形腺腫の細胞播種リスク, 頭頸部外科, 2020年; 30(3): 333-337
- 7) 谷亜希子, 多田晴宏, 横山秀二, 他: 鼻腔多形腺腫の1例, 頭頸部外科, 2008年; 18(2): 143-150
- 8) 宮村洸輔, 大村和宏, 森 恵莉, 他: 内視鏡下に一塊に切除しえた鼻中隔多形腺腫の1例, 耳展, 2020年; 63(5): 228-234
- 9) 林 寿光, 加藤雅也: 鼻腔より生じた多形腺腫症例, 日鼻誌, 2003年; 42(1): 18-22