

SHORT REPORT

両側肺転移をきたした軟口蓋多形腺腫の1手術例

濱田賢一・江口圭介・枝浪元紀・菊池勇次・猪股研太・別宮絵美真・小野滋司・浅原史卓・瀧川 穰・和田徳昭・長谷川博俊・松井淳一・大金 寛・野村武史・佐々木文三・河合繁夫・廣島健三

A Surgical Case of Bilateral Pulmonary Metastasizing Pleomorphic Adenoma of the Soft Palate

Kenichi Hamada<sup>1</sup>; Keisuke Eguchi<sup>1</sup>; Motonori Edanami<sup>1</sup>; Yuji Kikuchi<sup>1</sup>; Kenta Inomata<sup>1</sup>; Emima Bekku<sup>1</sup>; Shigeshi Ono<sup>1</sup>; Fumitaka Asahara<sup>1</sup>; Yutaka Takigawa<sup>1</sup>; Noriaki Wada<sup>1</sup>; Hirotooshi Hasegawa<sup>1</sup>; Junichi Matsui<sup>1</sup>; Satoru Ogane<sup>2</sup>; Takeshi Nomura<sup>2</sup>; Aya Sasaki<sup>3</sup>; Shigeo Kawai<sup>4</sup>; Kenzo Hiroshima<sup>5</sup>

<sup>1</sup>Department of Surgery, <sup>2</sup>Oral Cancer Center, <sup>3</sup>Department of Pathology and Laboratory Medicine, Tokyo Dental College Ichikawa General Hospital, Japan; <sup>4</sup>Department of Diagnostic Pathology, Tochigi Medical Center Shimotsuga, Japan; <sup>5</sup>Department of Pathology, Tokyo Women's Medical University Yachiyo Medical Center, Japan (Adviser of Pathological Findings).

(JLCC. 2022;62:67-68)

KEY WORDS — Metastasizing pleomorphic adenoma, Soft palate pleomorphic adenoma, Metastatic lung tumor, Video-assisted thoracic surgery

Corresponding author: Keisuke Eguchi.

要旨 — 転移性多形腺腫はまれな腫瘍であり、小唾液腺多形腺腫の肺転移の報告例は少ない。今回、我々は軟口蓋多形腺腫の両側肺転移の1手術例を経験したので報告

する。

索引用語 — 転移性多形腺腫、軟口蓋多形腺腫、転移性肺腫瘍、胸腔鏡下手術

症例：70歳代、女性。主訴：両側肺結節。既往歴：橋本病。

現病歴：当院口腔がんセンターで軟口蓋多形腺腫を切除し、12年後に局所再発巣を切除した。再発時の胸部CTで右肺下葉に長径0.6cmの充実性結節を認め、経過観察とした。5年後、左肺下葉に長径1.1cmの新たな充実性結節が出現した。その後3年間で右肺下葉結節が1.3cm、左肺下葉結節が2.7cmまで増大したため、外科を受診した。

画像所見：胸部単純CTで、右肺下葉と左肺下葉に辺縁が比較的明瞭な不整形の充実性結節を認めた (Figure 1A)。

治療経過：診断・治療目的に、胸腔鏡下左下葉部分切除と右下葉部分切除を二期的に施行した。

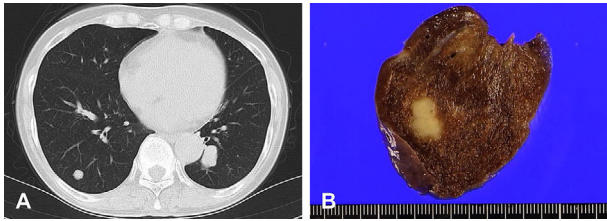
摘出標本肉眼所見：両切除病変は同様の所見を示したため、右下葉の切除検体を提示する。境界明瞭な灰白色

の分葉状腫瘍で、内部は比較的均一であった (Figure 1B)。

病理組織所見：腫瘍内にTTF-1陽性の肺胞構造を認め、既存の肺胞が破壊されずに残存していた。腫瘍は部位により多彩な像を示し、明瞭な二相性を有する腺管構造 (Figure 2A)、粘液様間質を背景に短紡錘形細胞、形質細胞様細胞が充実性に増殖する領域を認め (Figure 2B)、後者が優勢であった。類軟骨成分は認めなかった。腺管の表面の細胞はAE1/AE3陽性 (Figure 2C)、CK7陽性、基底側の細胞はS100陽性 (Figure 2D)、p63陽性、SOX10陽性で、上皮と筋上皮からなる腺管であった。短紡錘形細胞、形質細胞様細胞はAE1/AE3弱陽性、S100陽性であった。Ki-67 indexは10%であった。全体として細胞密度は高く、核の軽度腫大はあるものの、核分裂像や壊死、異型度の高い細胞が増殖する所見は認めなかった。初発の軟口蓋多形腺腫の標本を確認することはでき

東京歯科大学市川総合病院<sup>1</sup>外科、<sup>2</sup>口腔がんセンター、<sup>3</sup>臨床検査科；<sup>4</sup>とちぎメディカルセンターしもつが病理診断科；<sup>5</sup>東京女子医科大学八千代医療センター病理診断科 (病理アドバイザー)。

論文責任者：江口圭介。  
※第190回日本肺癌学会関東支部会推薦症例 (令和3年7月3日日本肺癌学会関東支部会)。



**Figure 1.** Computed tomography showed 1.3- and 2.7-cm solid nodules in the right and left lower lobes, respectively (A). The examination of a resected specimen of the right lower lobe revealed a well-circumscribed, lobulated tumor (B).

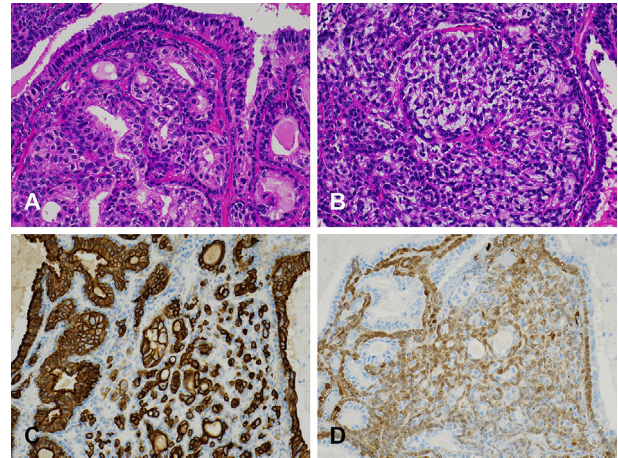
なかったが、局所再発腫瘍と類似した組織像であり、転移性多形腺腫と診断した。鑑別診断として上皮筋上皮癌の肺転移があげられたが、上皮筋上皮癌の筋上皮成分は主に淡明な細胞質を有する筋上皮細胞からなる点が、本症例とは異なった。

術後経過：肺切除の1年後に左側頭筋転移を切除し、その1年6ヶ月後に腰部皮膚転移を切除した。2年後、右大腿骨内顆転移に対して人工膝関節置換術を施行した。左側頭筋転移は局所再発し、頭蓋骨浸潤をきたした。肺切除後3年11ヶ月、外来で経過観察中である。

考察：多形腺腫は、全唾液腺腫瘍の60%、唾液腺良性腫瘍の80%を占める、最も頻度の高い良性腫瘍である。組織学的に上皮成分と筋上皮・間質成分が混在するのが特徴で、腺管上皮、腫瘍性筋上皮細胞、粘液に富む間質基質などが種々の比率で入り混じり増殖する。

転移性多形腺腫は、多形腺腫に相当する良性の組織像を呈するにも関わらず遠隔転移をきたすまれな腫瘍で、1942～2014年の間に81例が報告されている。<sup>1</sup> 原発腫瘍の部位は、耳下腺が最も多く(74.1%)、口蓋の小唾液腺を原発とするものは6.2%である。<sup>2</sup> 転移臓器は骨が多く(29.5%)、肺(27.4%)、頸部リンパ節(17.9%)と続き、死亡率は18%と報告されている。<sup>2</sup> 大半の症例で局所再発の既往があり、原発腫瘍切除から転移発見までの期間は3～52年に及ぶ。<sup>1</sup>

転移性多形腺腫を良性腫瘍と悪性腫瘍のどちらに分類するかは議論がある。WHO分類2005年版には唾液腺の悪性上皮性腫瘍として記載されていたが、WHO分類第4版(2017年版)には細胞像が良性相当であるとの理由で良性腫瘍として多形腺腫の項目に記載され、予後も一般的に良好であると記載されている。<sup>1</sup> 一方で、AFIP腫瘍・非腫瘍病理学アトラス第5シリーズ(2021年発行)には低悪性度の唾液腺癌として記載されている。<sup>2</sup> 転移の機序には諸説あり、①全ての多形腺腫が極めて低い



**Figure 2.** Biphasic tubular and glandular structures (A). Spindled and plasmacytoid cells proliferating in the myxoid stroma (B). The cells in the inner part of the tubular and glandular structures were positive for AE1/AE3 (C), and the cells in the outer part were positive for S100 (D).

悪性度を潜在的に有している、②手術操作により多形腺腫が静脈内へ侵入する、③組織学的な表現型の変化はないが、多形腺腫に遺伝子異常が発生し低悪性度の癌腫となっている、④多形腺腫と形態的に重複する別の腫瘍である、などが考えられている。<sup>2</sup>

本症例は、経過観察の結果、肺転移病変が左右1個ずつに留まったため、切除した。転移病変の切除は、化学療法、放射線治療よりも有意に生存期間を延長すると報告されており、<sup>3</sup> 他に有効な治療法が確立されていないことから、積極的に検討すべき治療選択肢と考えられた。

本論文内容に関連する著者の利益相反：なし

## REFERENCES

- Bell D, Bullerdiek J, Gnepp DR, Schwartz MR, Stenman G, Triantafyllou A. Pleomorphic adenoma. In: El-Naggar AK, Chan JKC, Grandis JR, Tanaka T, Sloatweg PJ, eds. *WHO Classification of Head and Neck Tumours*. 4th ed. Lyon: IARC; 2017:185-186.
- Bishop JA, Thompson LDR, Wakely PE, Weinreb I. Metastasizing mixed tumor. In: Bishop JA, Thompson LDR, Wakely PE, Weinreb I, eds. *Tumor of the Salivary Glands, Fascicle 5, Fifth series, AFIP Atlases of Tumor and Non-Tumor Pathology*. Virginia: American Registry of Pathology; 2021:536-543.
- Nouraei SAR, Ferguson MS, Clarke PM, Sandison A, Sandhu GS, Michaels L, et al. Metastasizing pleomorphic salivary adenoma. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg*. 2006; 132:788-793.