

症例報告

副耳下腺に生じ、血管塞栓術後に切除した
非典型的な多形腺腫の一例池田 浩明¹⁾, 二瓶 多恵子¹⁾,
森 健太郎²⁾, 岩瀬 わかな¹⁾¹⁾横浜栄共済病院 形成外科²⁾横浜栄共済病院 脳神経外科

要旨: 副耳下腺は耳下腺本体から独立して咬筋上に存在する異所性唾液腺で、ここを発生母地とした耳下腺腫瘍を生じうる。

症例は76歳の男性で、初診から18年に亘り経過観察されていた左頬部皮下腫瘍の切除を行った。腫瘍はMRIではT1強調画像で低信号、T2強調画像では大部分が中等度で部分的に高信号を呈し、ダイナミック造影MRIでは早期濃染を認めたことから、血管奇形が強く疑われた。出血リスクを考慮して術前の血管塞栓術を実施したところ、腫瘍への血液流入はほぼ完全に遮断され、術中の出血や顔面神経の損傷を起こすことなく確実に全摘出することができた。一方で病理診断結果は血管奇形ではなく多形腺腫であり、発生部位から副耳下腺由来と考えられた。術後も特に顔面神経麻痺や腫瘍の再発なく経過している。

本症例は多形腺腫としては非典型的な画像所見を呈し、発生部位も特殊であった。血管奇形と考えて術前の血管塞栓術を実施したが、結果的にその有用性は高かったと考えている。副耳下腺の存在自体も広く周知されているとは言い難いが、頬部の皮下腫瘍を見た際には鑑別として副耳下腺由来の耳下腺腫瘍も鑑別として考えておく必要がある。

Key words: 副耳下腺 (accessory parotid gland), 多形腺腫 (pleomorphic adenoma), 血管塞栓術 (vascular embolization)

はじめに

副耳下腺は耳下腺本体から独立して存在する異所性唾液腺である。多くは咬筋筋膜上に存在し、ステノン管に流入する1本または複数の導管を有している。健康人の約21~32.1%に存在するとされる¹⁻⁴⁾。

今回、頬部の血管奇形を疑い血管塞栓術後に切除したところ、副耳下腺由来と思われる多形腺腫であった症例を経験したため若干の文献的考察を加えて報告する。

症例

患者: 76歳, 男性

主訴: 左頬部の皮下腫瘍

既往歴: 脂質異常症, 高尿酸血症, 緑内障

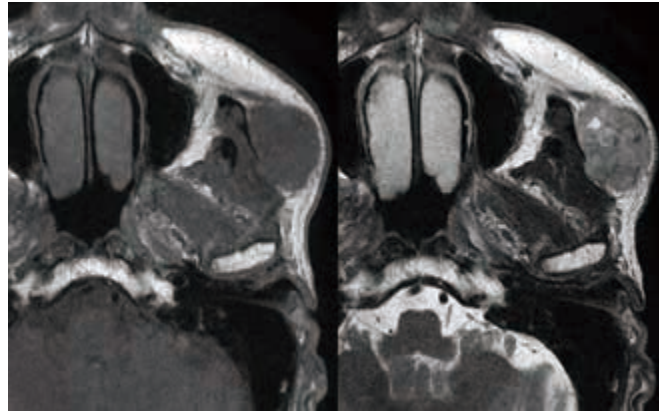
現病歴: 18年前に左頬部皮下腫瘍を主訴に当院耳鼻咽喉科を受診し、MRI所見などから咬筋上の血管奇形が疑われていた。無症状かつ、その時点では隆起も目立たなかったため本人が積極的な手術を希望せず経過観察していた。しかし、その後緩徐に増大し、隆起が目立つようになってきたため、本人希望で2023年6月に摘出術を施行する方針とした。

現症: 左耳前部に隆起を呈する45×40mmの弾性やや硬な皮下腫瘍を認めた。可動性は下床、皮膚側とも良好であった。圧痛などの自覚症状や顔面神経麻痺は認めなかった。

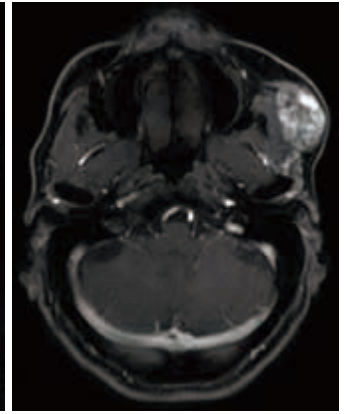
池田浩明, 横浜市栄区桂町132 (〒247-8581) 横浜栄共済病院 形成外科
(原稿受付 2024年1月26日/改訂原稿受付 2024年2月28日/受理 2024年3月5日)



写真1 術前



(a)



(b)

写真2 MRI画像

(a) 左: T1強調画像 右: T2強調画像 (b) ダイナミック造影MRI 腫瘍内部の早期濃染を認める

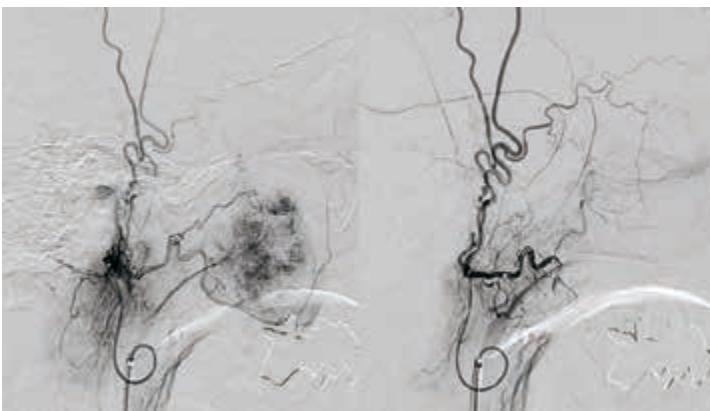
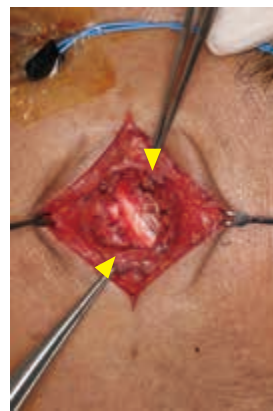
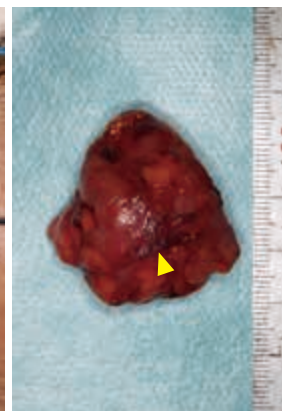


写真3 血管造影

左: 塞栓術前 右: 塞栓術後 腫瘍への血液流入はほぼ消失している



(a)



(b)

写真4 術中所見

(a) 腫瘍切除後 矢頭: 顔面神経頬骨枝および頬筋枝
(b) 摘出検体 矢頭: 栄養血管流入部

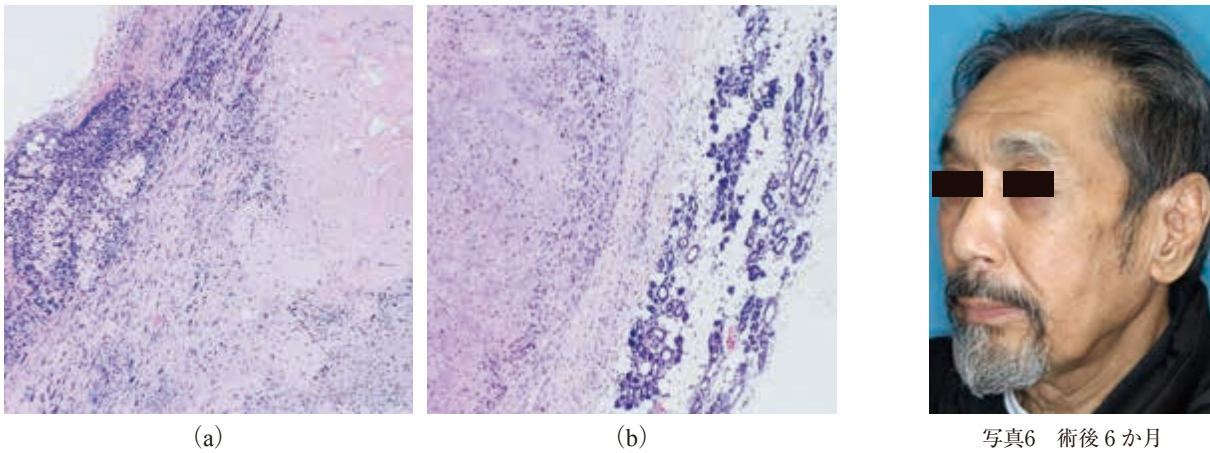
検査所見: 造影MRIで左頬部皮下, 咬筋上に37×24×34mmの境界明瞭な腫瘍性病変を認めた. 深度はSMAS下と考えられ, 内部はT1強調画像で均一な低信号, T2強調画像では大部分が中等度の信号強度で, 部分的に血管様のflow voidや高信号を呈する嚢胞状構造が見られた. ダイナミック造影MRIでは早期濃染し, 外頰動脈系を栄養血管に持つ多血性の腫瘍と考えられた. 信号パターンや内部の性状, 造影所見から血管奇形が疑われた.

経過: MRI所見から血管奇形を想定し, 腫瘍を全摘出しつつ顔面神経を温存することを目標として手術の方針とした. 局在がSMAS下と考えられたこと, MRIでは顔面神経が同定できなかったことから, 術中の出血を最小限に抑えて確実性を高めるために脳神経外科に術前日の栄養血管の塞栓術を依頼した. また, 術中にはNerve Integrity Monitoring (NIM) を使用し, 顔面神経を同定した状態で切除を進めていくこととした.

術前日の血管造影では外頰動脈からの造影で顔面横動脈が栄養血管として特定された. さらに選択的造影

で顔面横動脈から上下行枝が分枝し, 下行枝がメインの栄養血管となっていることが確認された. 下行枝, 上行枝の順に塞栓を行い, 最終的に腫瘍内への血液流入がほぼ消失したことを確認し終了した.

手術所見: 腫瘍の長軸に近づけつつRSTL (Relaxed skin tension line) に概ね沿うように直上に切開線を設定した. NIMの電極は眼輪筋外下方と口輪筋上縁外側に刺入した. 皮膚切開するとSMAS下に被膜に包まれ白色～黄色調が透見される腫瘍を認めた. 特に周囲との癒着はなく, 剥離を進めていくと, 腫瘍上下縁にそれぞれ顔面神経頬骨枝, 頬筋枝と思われる索状物を認めた. 神経刺激装置でそれぞれ眼輪筋と口輪筋に反応があることを確認し, 以降も適宜NIMを使用して神経損傷がないことを確認しながら腫瘍から剥離していった. 腫瘍の下縁付近では, 腫瘍内へ流入するやや黒色調になった血管を認め, 前日に塞栓された栄養血管と考えられた. これらは3-0絹糸で結紮処理した. 腫瘍裏面の被膜は咬筋筋膜と接していたが, 特に浸潤や癒着は見られず, 剥離は容易であった. 術中の出血はほぼなく,



(a)

(b)

写真5 病理組織像

(a) 筋上皮細胞が充実性に増殖している (b) 線維性被膜の外には唾液腺組織の取り巻きを認める

写真6 術後6か月

特に有害事象なく経過しており、
瘢痕も目立たない

ペンローズドレーンを挿入して閉創した。

病理検査所見：不完全な線維性被膜で囲まれ、周囲には唾液腺組織の取り巻きを認めた。内部には筋上皮細胞と考えられる細胞が充実性に増殖しており、辺縁に腺管構造が散見された。多少の核の大小不同はあるものの明らかな異形は認めなかった。免疫染色でも増生している多くの細胞がCK (AE1/3), Vimentin, p63, S-100, SMA陽性で筋上皮の性質を示した。間質浸潤を考える所見はなく、筋上皮細胞が主体の多形腺腫と診断した。発生が耳下腺からは離れた咬筋上であり、実際に術中所見的にも耳下腺と直接連続していなかったことから、副耳下腺由来であると考えられた。

術後経過：抜管後の時点で顔面神経麻痺は認めなかった。術後2日でペンローズドレーンを抜去し、術後3日で退院した。その後6か月経過時点でも顔面神経麻痺や唾液漏といった有害事象は認めていない。

考 察

副耳下腺腫瘍は耳下腺腫瘍のうち1~7.7%と稀であるが^{5,6)}、悪性の頻度が高く、耳下腺本体では15-25%であるのに対し、副耳下腺では26-52%と報告されている^{4,7)}。多形腺腫は唾液腺腫瘍の中で最も発生頻度の高い腫瘍であり、本邦における臨床的検討では副耳下腺腫瘍のうちでも44.6%と最多であったことが報告されている⁷⁾。良性腫瘍に分類されるが、被膜を損傷した場合などに播種を起こして高率に再発しうることや、稀に悪性化することが知られている。

一般的には多形腺腫はMRIにおいてT1強調画像で低信号、T2強調画像で高信号を呈する境界明瞭な腫瘤性病変として描出される⁸⁾。また、内部血流が少ないのが特徴とされ⁹⁾、ダイナミック造影MRIでは漸増・漸減する信号増強効果を認める。一方で、細胞成分に富む性質のもの

ではT2強調画像での信号強度の低下や造影MRIでの信号増強効果の増大を認めることがあり、そのようなケースでは画像診断が困難となる^{9,10)}。本症例ではT1強調画像では均一な低信号だが、T2強調画像では大部分が中等度の信号強度で、部分的に血管様のflow voidや高信号を呈する嚢胞状構造が見られた。また、ダイナミック造影MRIで早期濃染を認めていた。これらの所見から、読影では血管奇形の診断であり、我々もこの時点で副耳下腺腫瘍を第一に疑ってはいなかった。病理所見で筋上皮細胞が大部分を占めていたことを踏まえて振り返ると、非典型的な画像所見を呈したことも頷けるが、術前の画像診断の段階で多形腺腫と診断することは困難であった。多形腺腫でも時にこのような多血性のものが生じうことは留意しておくべきと考える。

診断を絞り込むために次なる選択肢として挙がるのは穿刺吸引細胞診(Fine Needle Aspiration Cytology: FNAC)や部分生検である。本邦における副耳下腺腫瘍に対するFNACの実施率は33%との報告もあり⁷⁾あまり高くはないが、術前診断や良悪性の鑑別においては重要な情報となりうる。本症例においてもFNACを行っていれば確定診断まで至らずとも唾液腺腫瘍の術前診断が得られ、発生部位から副耳下腺腫瘍と予測し、それに基づいて切除方法を検討できた可能性はあったと思われる。一方、耳下腺腫瘍の場合は組織型が多彩で、かつ腫瘍を構成する細胞も多様であるため、FNACだけでは診断確定のみならず、良悪性の判別も容易ではないとされる⁹⁾。実際、FNACで良性と診断された副耳下腺腫瘍のうち19%が病理組織検査では悪性であったという報告もある⁷⁾。また、穿刺により被膜を損傷するため腫瘍の性質によっては播種リスクを伴い、特に穿刺部位に血腫を形成すると播種細胞が新規病巣を作りやすいとも言われている⁹⁾。したがって、本症例のような血管奇形が鑑別の筆頭に挙がるほど血流が豊富な腫瘍に対してFNACを行うことは、通常以

上にリスクを伴うと考える。もし実施するのであれば、エコーガイド下に安全性の高いと思われる部位に穿刺することを前提に、実施後の出血の制御を確実にできる環境を整えておく必要があるだろう。部分生検であれば採取される組織量が増えるため確定診断の可能性は上がるが、こちらについても多血性腫瘍の場合には実施にあたって十分な検討と準備が必要である。本症例は境界明瞭で浸潤を示唆する所見がなく、初診から18年の経過で緩徐に増大していたことなどから、悪性が積極的に疑われる状況ではなかった。そのため、種々のリスクを考慮してFNACや部分生検は実施せず、被膜を損傷しないことを念頭に摘出術を施行することとした。

術前に副耳下腺腫瘍と診断された腫瘍切除に際しては、耳下腺本体と同様に耳前部からのS状切開で顔面神経を中枢側から補足しながらアプローチすることが多く、直上切開はそれ自体が顔面神経損傷のリスクになるとも言われる^{4,7)}。他に、耳鼻咽喉科などでは口腔内や耳前部切開から内視鏡を用いてアプローチした報告もあるが¹¹⁻¹⁴⁾、当科では馴染みがなく、現実的な選択肢とはなり得ないのが実情である。本症例は副耳下腺腫瘍の術前診断がついてはいたわけではないが、血管塞栓術後とはいえ流入血管の処理や、場合によっては本格的な止血操作が必要になる可能性もあったため、前提として腫瘍前縁まで完全に直視下に置くことが必要と考えていた。その一方で、腫瘍前縁は耳珠と鼻翼を結んだラインの鼻翼寄り1/3程の位置まで及んでおり、隆起も目立っていた。腫瘍の局在の観点で耳前部切開も候補には挙がっていたが、そこから腫瘍前縁まで到達するためには下顎方向に大きく切開を延長して広範な剥離を加えることになり、瘢痕も問題になると考えられた。その結果、NIMによって顔面神経の安全性を担保しつつ直上切開からアプローチすることを選択した。

手術に際しては出血のリスクを少しでも下げするため、術前に脳外科に栄養血管の塞栓術を依頼した。先述の通り、典型的な多形腺腫は血流が少ないため、血管塞栓術が必要になる腫瘍ではない。本邦で多形腺腫の摘出前に血管塞栓術を施行した報告はいずれも画像検査で多血性腫瘍が疑われたか、生検や外的刺激で大量出血を来すなどした多形腺腫としては非典型的な症例であり、全切除前の血管塞栓術の有用性を述べている¹⁵⁻¹⁹⁾。被膜を有する皮下腫瘍切除においては、被膜を損傷せずに全摘出することが基本であり、さらに耳前部や頬部では顔面神経の温存も重要なポイントとなる。そのためにも、極力出血を抑えて良好な視野を確保・維持することは不可欠である。今回、塞栓術後の血管造影では腫瘍内への血流はほぼ完全に遮断されており、実際に手術中も出血なく腫瘍を摘出することができた。このことが確実な操作に大きく寄与したと感じており、血管塞栓術の有用性は極めて

高かったと考えている。外来でもエコーのカラードプラモードを用いれば腫瘍内の大まかな血流の程度は非侵襲的かつ即座に判断が可能である。明らかな多血性腫瘍に対してはダイナミック造影CT・MRIを実施し、早期濃染等の所見を認める場合、状況が許せば術前に塞栓術を実施する意義は大きいと考える。

ただ、本例は腫瘍がごく小さい段階から当院を受診しフォローされていたため精査を行い、それをもとに血管塞栓術まで実施することができたが、多くは皮膚科や形成外科のクリニックを受診することが予想される。耳鼻咽喉科以外の科にはまだ副耳下腺の存在や、そこを母地とした耳下腺腫瘍が発生しうることが広く周知されているとは言いがたく、サイズが小さい場合には単に頬部の皮下腫瘍として十分な評価をせずに局所麻酔下に手術や生検に臨んでしまう可能性は十分に考えられる。頬部に生じた腫瘍については副耳下腺腫瘍も鑑別として考慮すべきで、悪性腫瘍の可能性や、良性であっても播種や出血のリスクを伴うことを肝に銘じておく必要がある。

文 献

- 1) Frommer J: The human accessory parotid gland: its incidence, nature, and significance. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol*, **43**(5): 671-676, 1977.
- 2) Polayes IM, Rankow RM: Cysts, masses, and tumors of the accessory parotid gland. *Plast Reconstr Surg*, **64**(1): 17-23, 1979.
- 3) Toh H, Kodama J, Fukuda J, Rittman B, Mackenzie I: Incidence and histology of human accessory parotid glands. *Anat Rec*, **236**(3): 586-590, 1993.
- 4) Pasick LJ, Tong JY, Benito DA, Thakkar P, Goodman JF, Joshi AS: Surgical management and outcomes of accessory parotid gland neoplasms: A systematic review. *Am J Otolaryngol*, **41**(5): 1026-1030, 2020.
- 5) Johnson FE, Spiro RH: Tumors arising in accessory parotid tissue. *Am J Surg*, **138**(4): 576-578, 1979.
- 6) Perzik SL, White IL: Surgical management of preauricular tumors of the accessory parotid apparatus. *Am J Surg*, **112**(4): 498-503, 1966.
- 7) 井口広義, 和田匡史, 山本秀文, 他: 副耳下腺腫瘍の臨床的検討. *日本耳鼻咽喉科学会会報*, **116**(12): 1300-1307, 2013.
- 8) 今野昭義, 沼田 勉: 耳下腺腫瘍の画像診断. *日本耳鼻咽喉科学会会報*, **100**(9): 952-955, 1997.
- 9) 古川まどか, 藤田芳史, 古川政樹: 耳下腺腫瘍の超音波診断および超音波ガイド下穿刺吸引細胞診. *口腔・咽喉科*, **22**(1): 73-78, 2009.
- 10) Kato H, Kawaguchi M, Ando T, Mizuta K, Aoki M,

- Matsuo M: Pleomorphic adenoma of salivary glands: common and uncommon CT and MR imaging features. *Jpn J Radiol*, **36**(8): 463–471, 2018.
- 11) Lenzi R, Matteucci J, Muscatello L: Endoscopic transoral approach to accessory parotid gland. *Auris Nasus Larynx*, **49**(3): 511–514, 2022.
- 12) Li B, Zhang L, Zhao Z, Shen G, Wang X. Minimally invasive endoscopic resection of benign tumours of the accessory parotid gland: an updated approach. *Br J Oral Maxillofac Surg*, **51**(4): 342–346, 2013.
- 13) Zhang DM, Wang YY, Liang QX, Song F, Chen WL, Zhang B: Endoscopic-Assisted Resection of Benign Tumors of the Accessory Parotid Gland. *J Oral Maxillofac Surg*, **73**(8): 1499–1504, 2015.
- 14) Hasegawa K, Sukegawa S, Ono S, et al.: Endoscopic-assisted resection of pleomorphic adenoma in the accessory parotid gland. *J Med Invest*, **68**(3.4): 376–380, 2021.
- 15) 山本浩孝, 堀 龍介, 児嶋 剛, 他: 両側副咽頭間隙多形腺腫例. *耳鼻咽喉科臨床*, **111**(11): 753–758, 2018.
- 16) 山田浩二, 愛場庸雅, 久保武志, 他: 上咽頭多形腺腫例. *耳鼻咽喉科臨床*, **98**(6): 453–457, 2005.
- 17) 木下幹雄, 尾崎 峰, 平野浩一, 波利井清紀: 潰瘍形成部より大量出血を来たした軟口蓋多形性腺腫の1例. *形成外科*, **51**(2): 211–215, 2008.
- 18) 西山明慶, 木村卓爾, 小林清司, 他: 口蓋に発生した巨大な多形性腺腫の1例. *岡山歯学会雑誌*, **6**(1): 107–111, 1987.
- 19) 古賀正章, 副島 渉, 嘉村壽人, 他: 軟口蓋部に発生した大きな多形性腺腫の1例. *日本口腔外科学会雑誌*, **33**(7): 1430–1435, 1987.

Abstract

ATYPICAL PLEOMORPHIC ADENOMA ARISING FROM THE ACCESSORY PAROTID GLAND AND RESECTED AFTER VASCULAR EMBOLIZATION: A CASE REPORT

Hiroaki IKEDA¹⁾, Taeko NIHEI¹⁾,
Kentarō MORI²⁾, Wakana IWASE¹⁾

¹⁾*Department of Plastic and Reconstructive Surgery, Yokohama Sakae Kyosai Hospital*

²⁾*Department of Neurosurgery, Yokohama Sakae Kyosai Hospital*

An accessory parotid gland is an ectopic salivary gland located on the masseter muscle, independent of the parotid gland itself, that can give rise to parotid gland tumors. The patient was a 76-year-old man who underwent resection of a left buccal subcutaneous tumor that had been followed for 18 years from the first visit. The tumor showed hypointensity on T1-weighted imaging and mostly intermediate and partial hyperintensity on T2-weighted imaging. On dynamic contrast-enhanced magnetic resonance imaging (MRI), the tumor showed enhancement in the early phase. From these findings, a vascular malformation was strongly suspected. Considering the risk of intraoperative bleeding, preoperative vascular embolization was performed, and the blood flow was almost completely blocked. As a result, total resection was achieved without intraoperative bleeding or facial nerve damage. At 6 months postoperatively, the patient had no facial nerve palsy or tumor recurrence. The pathological diagnosis was not a vascular malformation, but a pleomorphic adenoma, which was thought to have originated from an accessory parotid gland. In this case, the tumor showed atypical imaging findings and arose at an unusual site as a pleomorphic adenoma. Preoperative vascular embolization was performed because it was thought to be a vascular malformation, and we believe that this was highly effective. Although the presence of accessory parotid glands is not widely known, when we see a buccal subcutaneous tumor, parotid gland tumors should be considered in the differential diagnosis.