

〔臨床〕

## 左舌下腺部に認めた腺様嚢胞癌の1症例

佐野友昭, 細川洋一郎, 奥村一彦\*,  
大西 隆, 金澤正昭\*, 金子昌幸

北海道医療大学歯学部歯科放射線学講座  
\*北海道医療大学歯学部歯科口腔外科学第一講座

(主任: 金子昌幸 教授)  
\*(主任: 金澤正昭 教授)

## A case of adenoid cystic carcinoma in the sublingual gland

Tomoaki SANO, Yoichiro HOSOKAWA, Kazuhiko OKUMURA\*,  
Takashi OHNISHI, Masaaki KANAZAWA\* and Masayuki KANEKO

Department of Dental Radiology, School of Dentistry,  
Health Sciences University of Hokkaido  
\*First Department of Oral Surgery, School of Dentistry,  
Health Sciences University of Hokkaido

(Chief Prof Masayuki KANEKO)  
\*(Chief Prof Masaaki KANAZAWA)

### Abstract

This reports a case of an adenoid cystic carcinoma in the left sublingual gland. We diagnosed in a 66-year old male at our institution because of palsy of the left side of the tongue. Examination showed a tumor mass involving the left and right genioglossus muscle and left digastric muscle as well as the left mandibular bone. There was also associated atrophy of the left submandibular gland.

A mandibular occlusal projection revealed compressive resorption of the bone. Lymph nodes in the submandibular and submental glands were enlarged to around 7mm in diameter. A CT scan revealed a small nodule (3mm diameter) in the left middle pulmonary lobe. Tumor scintigraphy indicated accumulation on the left floor of the oral cavity, while bone scintigraphy indicated accumulation on the left mandibular bone. However, a scintigraphy of the whole body showed no unusual findings.

---

受付: 平成11年11月1日

The patient was treated with a combination of surgery and radiation therapy at a dose of 50 Gy. The resected tissue and local lymph nodes were found to be tumor negative. However, continued observation of the small pulmonary is necessary.

**Key words** Adenoid cystic carcinoma, Radiotherapy, Image diagnosis

## 緒 言 症 例

唾液腺部に認める腺様嚢胞癌は唾液腺腫瘍中の38～50%を占める疾患で<sup>1,2)</sup>, 発生頻度としては大唾液腺原発のものより小唾液腺に発生するものが多く, 大唾液腺に発生したものは耳下腺や顎下腺に多い<sup>3-8)</sup>。本腫瘍の特徴としては長期の経過をたどり再発する確率が高く神経を好んで浸潤する傾向がある<sup>9)</sup>。予後は報告により差があるが5年生存率で38から72%, 10年生存率は26から53%である<sup>3,5,10)</sup>。また, 肺などへの遠隔転移を認める症例では生存率は3年未満が54%, 10年以上10%と低くなる<sup>11)</sup>。

画像検査はCTならびにMRI検査が腫瘍の進展状態や周囲組織との関係を把握するうえで有効である<sup>12-15)</sup>。また, <sup>99m</sup>Tc-MDP骨シンチグラフィ (以下, 骨シンチグラフィ) や<sup>6,7</sup>Ga腫瘍シンチグラフィ (以下, 腫瘍シンチグラフィ) は全身の骨や軟組織などへの遠隔転移病巣の検索に対して有効で, 特に, 骨シンチグラフィはX線検査に比較して骨代謝異常部に高感度に集積することが知られている<sup>16-18)</sup>。

治療は一般には手術による腫瘍切除が行われるが手術不能例に対しては放射線治療も行われる。また, 局所制御率が上がることから術後の放射線照射も施行される<sup>4-6,8,19)</sup>。

今回, 我々は左舌下腺部に発生した腺様嚢胞癌の1例を報告し, 画像検査所見ならびに治療法について過去の文献報告を用い考察した。なお, 治療は家族の事情により北海道大学歯科口腔外科で行われ, 摘出物の組織学的検索は同大学で行われたことをお断りしておく。

**患 者**: 66歳男性, 平成10年5月頃より左側舌のしびれ感を自覚する。その後, 内科ならびに耳鼻科にて軟膏の処方を受けるも症状軽快せず, しびれの範囲, 程度が増大してきたため近医歯科を受診し北海道医療大学付属病院を紹介される。

**既往歴**: 平成10年5月から糖尿病にて現在も治療継続中である。

**現病歴**: 平成10年5月に左舌のしびれを自覚し, 徐々にその範囲は舌全体に広がる。その後, 通院中の内科を受診し口内炎の薬をと付するも効果なく, 耳鼻科を受診するも異常なしといわれ放置した。同年11月末, 左下顎第1, 第2小臼歯破折のため近医歯科受診したときに舌の症状についても相談したところ, 本学を紹介される。同年11月下旬本学でCT, 骨ならびに腫瘍シンチグラフィ検査を施行するも, 同年12月中旬, 家族の事情で北海道大学歯学部付属病院へ転院する。

**現 症**: 左下顎犬歯部から臼歯部にかけて舌下ヒダに沿った弾性硬の軽度の腫脹を認め表面は凹凸不整で潰瘍形成を認める。また一部舌側骨膜との癒着, 被覆粘膜の毛細血管拡張ならびに発赤を認める。味覚異常, 舌運動障害, 左舌下小丘からの唾液に異常は認めなかった。

**画像所見**: 画像検査は口内法X線検査, CT検査, そしてシンチグラフィ検査を施行した。

1) 口内法X線検査: 咬合法写真では左側小臼歯部舌側に皮質骨の圧迫性の吸収を認めた (Fig 1)。

2) CT検査：造影CTによる軸面断層像では下顎舌側の左側前歯から小臼歯部にかけて周囲が増強された異常軟部陰影を認めた。同軟部陰影は両側のオトガイ舌筋と左側顎二腹筋の前腹を含んでおり隣接する皮質骨への浸潤を認め、左顎下腺の萎縮を認めた(Fig. 2)。また、左側顎下部と正中やや右側よりのオトガイ下部に直

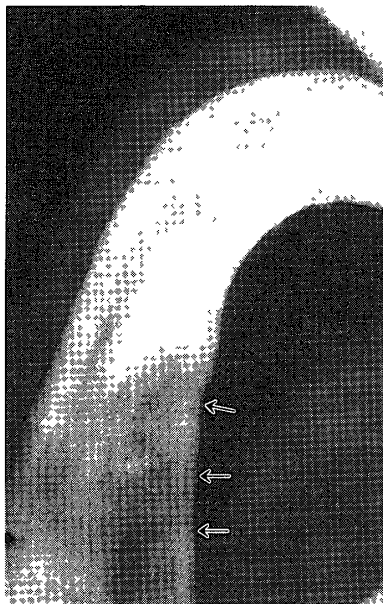


Fig 1  
Mandibular occlusal radiograph showing cortical bone absorption (arrow)

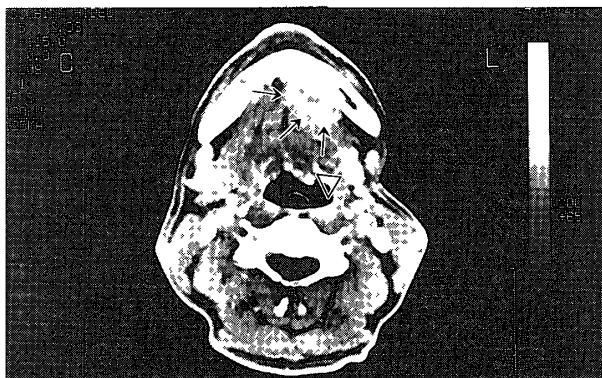


Fig 2  
Axial contrast-enhanced CT image through the mandible at soft tissue setting shows tumor mass (arrow) involving the left and right genioglossus muscle and adjacent left digastric muscle as well as the left mandible bone  
The atrophy of the left submandibular gland is associated with this tumor (arrowhead)

径約7mmの内部が均一に増強した円形のリンパ節を認めた (Fig 3-a, b)。

3) シンチグラフィ検査：腫瘍シンチグラフィでは下顎正中中部に肉眼的所見と一致した部位にび慢性の集積を認めた(Fig 4-a)。骨シンチグラフィでは下顎左側犬歯から小臼歯部にかけて強い集積を認めた(Fig 4-b)。腫瘍、骨シンチグラフィとも全身像では異常集積は認めなかった。

4) 胸部単純CT写真：左側中肺野背側の胸膜部に直径約3mmの円形の結節を認めた (Fig 5)。

臨床診断：左舌下腺部腫瘍

経過：治療は原発腫瘍の切除、頸部郭清術、腹直筋皮弁再建術を施行した。摘出腫瘍の病理

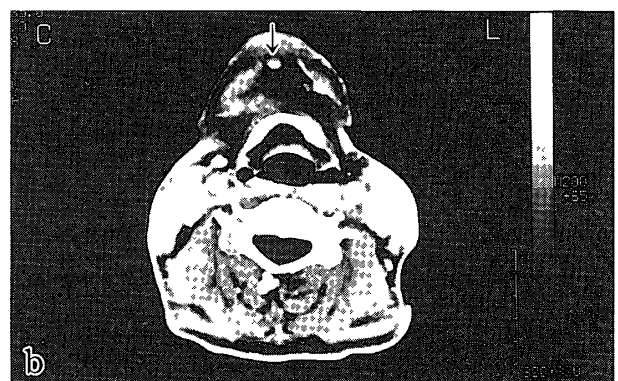


Fig 3  
Contrast-enhanced CT scan shows abnormal lymph nodes (7mm diameter)  
CT scan shows an enlarged, homogeneous enhanced round lymph node (arrow)  
a Submandibular lymph node  
b Submental lymph node

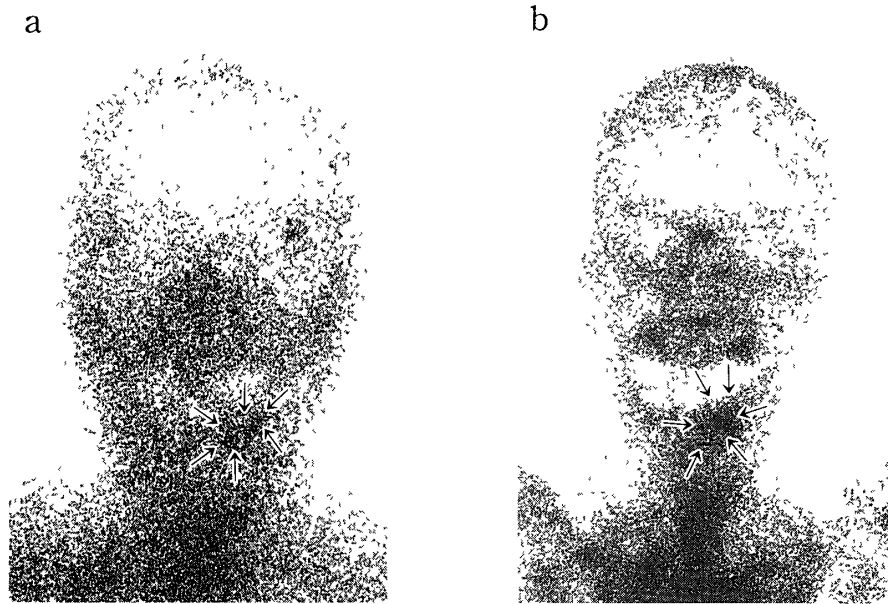


Fig 4  
Gamma camera scintigram of anterior plane  
a Tumor scan indicated accumulation at the floor of the oral cavity  
b Bone scan indicated accumulation at the left mandibular jaw

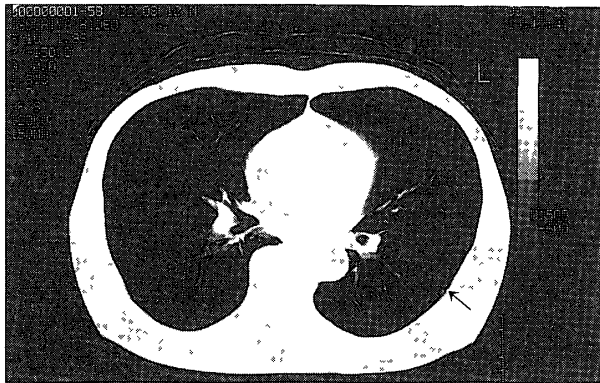


Fig 5  
Axial CT scan shows the small nodule (3mm diameter) in the left middle pulmonary lobe (arrow)

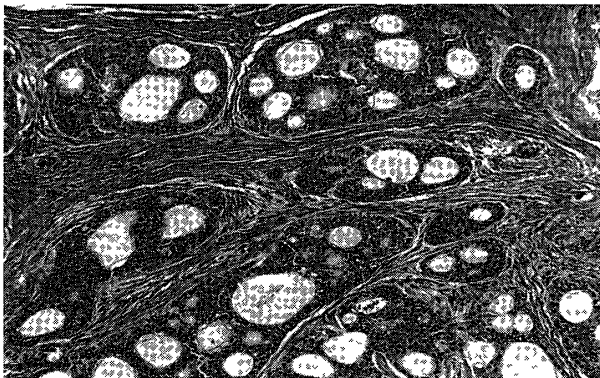


Fig 6  
Low power view showing the classical cribriform pattern of ACC

組織診断は典型的なcribriform typeを示す腺様嚢胞癌であった(Fig 6)。切除組織断端ならびに郭清部リンパ節は組織学的に腫瘍ネガティブであった。手術後3週間後に50Gy(20回)の<sup>60</sup>Co放射線照射を行った。経過は良好で肺野の結節は術後検査でサイズの増大などの変化は認めていない。

## 考 察

今回、我々が経験した左舌下腺部に発生した腺様嚢胞癌の1例について画像検査法ならびに治療法について考察する。

I 画像検査：本症例では初診時の画像検査は単純X線検査、CT検査、シンチグラフィ検査が施行された。一般にCTは腫瘍の進展範囲や周囲組織との関係を知るのに有用で<sup>13,14)</sup>、MRIでは腫瘍の進展範囲のみならず神経への浸潤を示した場合の検索にも有効であるとされている<sup>5,12)</sup>。本例では造影CTにより腫瘍の周囲筋肉と顎骨への浸潤、原発部に起因すると思われる顎下腺の萎縮の確認が可能であった(Fig 2)。骨シンチグラフィは顎骨浸潤を示す扁平上皮癌

に対しての検索に有効であるとする報告がなされているが<sup>8,16,17)</sup>、本症例においても顎骨への強い集積を認めた(Fig 4-b)。この集積は肉眼的に腫瘍と顎骨との癒着を認めた部位に一致しており骨シンチグラフィの有用性を認めた。Suei<sup>20)</sup>らは腺様嚢胞癌の顎骨浸潤例に対してX線所見と組織学的所見とを比較検討し、cribriform patternを示すものは骨表面に局限する平滑な浸潤(minimal change type)を示すと報告した。本例の咬合法写真においても一見良性疾患を思わせる像を認め、腫瘍が被膜に包まれ圧迫性に浸潤していると考えられた(Fig 1)。

CTでオトガイ部ならびに顎下部に直径約7mmの内部が均一に増強した円形のリンパ節を認めた(Fig. 3-a,b)。頸部リンパ節転移の検出に対するCT, MRI, そして超音波による診断能を評価した報告では、一般にCTとMRIは描出能は同等であり超音波は一番診断能が高いとされている<sup>21-25)</sup>。造影CTでは直径が10mm以上で辺縁増強像(ring like enhancement)を示す頭頸部リンパ節は典型的な転移リンパ節と判断するのが一般的である。本例のCT画像では明らかな転移リンパ節とは判定できず反応性の腫大と考えられた。同時に行った超音波検査では装置の分解能が低くCTより有効な情報は得られなかった。切除したリンパ節の組織検査では全て腫瘍陰性であったが、高分解能の超音波装置などによる検査法を加え総合的に評価すべきであると考えられる<sup>26,27)</sup>。

肺野のCTでは左側中肺野背側に小結節を認め遠隔転移が疑われた(Fig 5)。肺野に認める小結節としては良性中膜皮腫<sup>28)</sup>などとの鑑別が必要となるが、CTでは孤立性肺結節の質的診断能は有用とはいえない<sup>29,30)</sup>。従って、初診時に胸膜鏡よる生検などの診断能の高い検査<sup>31-32)</sup>を追加し病変を明らかにする必要があると考えられる。CTは結節病変に対する大きさの変化の

判定には有効であるので<sup>33)</sup>、本例では肺の小結節陰影の正体が明らかでないので術後の定期的な経過観察を行う必要性を認めた。

II 治療法：腺様嚢胞癌の治療法は手術による腫瘍切除、術後の放射線照射との併用、放射線照射単独などが行われる。治療法の選択においては予後が重要な因子であるのはいうまでもない。腺様嚢胞癌の予後は腫瘍の組織タイプ別に関係していることが報告されており、cribriform typeやtubular typeを示すものはsolid typeに比べて予後が良好な傾向にある<sup>7,10)</sup>。また、大唾液腺と小唾液腺の予後では前者の方が良いとされている<sup>9)</sup>。一方、治療法も予後に影響を与え手術単独と術後の放射線照射との併用の間で生存率に差があり、併用が有効であるという報告<sup>10)</sup>と差がないとする報告<sup>3,6)</sup>に分かれる。しかし、腫瘍の局所制御率に関しては術後の放射線治療の併用が有効であることは明白である<sup>3-6,8,10,19,30)</sup>。照射線量は局所制御率に影響を与え、特に腫瘍切除断端が組織学的に腫瘍ポジティブの場合には総線量60Gy以上の照射が有効であるとされる<sup>4,8,34)</sup>。基本的に70Gy以上の高線量では治療効果は高くなるが<sup>19)</sup>、同時に骨髄炎などの放射線障害の発生頻度も高くなるので<sup>35,36)</sup>、線量は必要最小限で行わなければならないことは言うまでもない。Hosokawaら<sup>37)</sup>は唾液腺部に発生した粘表皮癌への放射線治療について検討し、腫瘍切除断端が腫瘍ネガティブの場合は総線量の大小で局所制御率に有意差はないが腫瘍ポジティブでは55Gyを境に有意差を認めたと報告した。従って、術後の放射線照射の有無と照射線量の大小が悪性唾液腺腫瘍の局所制御に対して大きな影響を与えらる。本例では切除組織の断端は腫瘍ネガティブであったので、術後の放射線照射は総線量を50Gyとし20回分割照射が施行された。

以上述べた放射線治療に使われた線源のほとんどはガンマ線などの電磁放射線である。近年、

中性子などの粒子線が腺様嚢胞癌などの唾液腺腫瘍に対する局所制御に有効であるとする報告<sup>38-42)</sup>があるが, 本邦では粒子線治療のできる施設はほとんどないのが現状である。

## 結 語

- 1 左舌下腺に発生した腺様嚢胞癌の1例を経験した。
- 2 所属リンパ節部に直径7mmの腫大したリンパ節を認めたが, 組織学的検索では腫瘍ネガティブであった。
- 3 肺野に小結節を認め転移の可能性を否定できなかったが胸膜鏡などによる生検の追加検査の必要性を認めた。
- 4 摘出組織辺縁は腫瘍ネガティブで術後の放射線照射は50Gyとした。

## 文 献

1. 鶴田至宏, 佐藤武男, 宮原 裕, 他 唾液腺腫瘍92例の臨床統計, 日耳鼻, **89** 724-730, 1986.
2. 小川祐三, 長谷川清, 吉岡千尋, 他 唾液腺腫瘍108例の臨床病理学的検討, 阪大歯科雑誌, **26** 381-388, 1981.
3. Sur RK, Donde B, Levin V, Pacella J, et al Adenoid cystic carcinoma of the salivary glands A review of 10 years, Laryngoscope, **107** 1276-1280, 1997.
4. Garden AS, Weber R S, Morrison WH, et al The influence of positive margins and nerve invasion in adenoid cystic carcinoma of the head and neck treated with surgery and radiation, I J Radiation Oncology, **32** 619-626, 1995.
5. Hosokawa Y, Ohmori K, Kaneko M, Yamazaki M, et al Analysis of adenoid cystic carcinoma treated by radiotherapy, Oral Surg Oral Med Oral Pathol, **74** 251-255, 1992.
6. Simpson JR, Thawley SE, Matsuba HM Adenoid cystic salivary gland carcinoma Treatment with irradiation and surgery, Radiology, **151** 509-512, 1984.
7. Perizin KH, Gullane P, Clairmont AC Adenoid cystic carcinomas arising in salivary glands,

- Cancer, **42** 265-282, 1978.
8. 堀内淳一, 奥山武雄, 松原 升, 鈴木宗治 頭頸部腺様嚢胞癌の放射線治療, 日医放会誌, **37** 229-237, 1977.
9. Conley J and Dingman DL Adenoid cystic carcinoma in the head and neck (cylndroma), Arch Otolaryngol, **100** 81-90, 1992.
10. 梅野博仁, 宮嶋義己, 森 一功, 他 頭頸部腺様嚢胞癌54例の臨床統計, 日耳鼻, **100** 1442-1449, 1997.
11. Spiro RH Distant metastasis in adenoid cystic carcinoma of salivary origin, Am J Surg, **174** 495-498, 1997.
12. Caldemeyer KS, Mathews VP, Right PD, et al Imaging features and clinical significance of perineural spread or extension of head and neck tumors, Radiographics, **18** 97-110, 1998.
13. Kurabayashi T, Ida M, Yoshino N, et al Differential diagnosis of tumor of the minor salivary glands of the palate by computed tomography, Dent Radiol, **26** 16-21, 1997.
14. Iudin LA, Luginov NV, Kondrashin SA Computed tomography in the diagnosis of salivary gland neoplasms, Vestn Rent Radiol, **3** 23-26, 1997.
15. Sigal R, Monnet O, Baere T, et al Adenoid cystic carcinoma of the head and neck Evaluation with MR imaging and clinical-pathologic correlation in 27 patients, Radiology, **96** 95-101, 1992.
16. Higashi K, Wakao H, Ikuta H, et al Bone scintigraphy in detection of bone invasion by oral carcinoma, Ann Nucl Med, **10** 57-61, 1996.
17. Soderholm A L, Lindqvist C, Hietanen J, et al Bone scanning for evaluating mandibular bone extension of oral squamous cell carcinoma, J Oral Maxillofac Surg, **48** 252-257, 1990.
18. Luyk NH, Laird EE, Ward-Booth P, et al The use of radionuclide bone scintigraphy to determine local spread of oral squamous cell carcinoma to mandible, J Maxillofac Surg, **14** 93-98, 1986.
19. Kreitner KF, Collo D, Zapf S, et al Adenoid cystic carcinomas of the head and neck Results of treatment with high-dosage radiotherapy, Laryngol Rhinol Otol, **67** 426-430, 1988.

20. Suet Y, Tanimoto K, Taguchi A, et al : Radiographic evaluation of bone invasion of adenoid cystic carcinoma in the oral and maxillofacial region, *J Oral Maxillofac Surg*, **52** 821-826, 1994.
21. Steinkamp HJ, Hosten N, Richter C, et al Enlarged cervical lymph nodes at helical CT, *Radiology*, **191** : 795-798, 1994.
22. Vassallo P, Wernecke K, Roos Nikolaus Differentiation of benign from malignant superficial lymphadenopathy The role of high-resolution US, *Radiology*, **983** 215-220, 1992.
23. 古川正樹, 金子まどか, 持松いづみ, 他 : 頭頸部悪性腫瘍における頸部リンパ節転移の診断—超音波断層法とX線CTとの比較—, *日耳鼻*, **94** : 577-586, 1991.
24. Hajek PC, Salomonowitz E, Kumpan W, et al Lymph nodes the Neck evaluation with US, *Radiology*, **158** : 739-742, 1986.
25. Curtin HD, Ishwaran H, Mancuso A, et al, *Radiology*, **207** 123-130, 1983.
26. 古川正樹 . 頸部リンパ節転移の超音波診断—有用性と問題点について, *耳喉頭頸*, **67** : 483-491, 1995.
27. 押味和夫 リンパ節腫脹の鑑別, 診断と治療, **81** 1880-1885, 1993.
28. Dedric CG, Mcloud TC, Shepard JO, et al, *Am J Rad*, 275-280, 1985.
29. 渡辺秀幸 : 孤立性肺結節のCT診断, *日本医放会*, **50** 1321-1334, 1990.
30. Huston J, Muhn JR Solitary pulmonary nodules Evaluation with a CT reference phantom, *Radiology*, **170** : 653-656, 1989.
31. Boutin C, Ray F Thoracoscopy in pleural malignant mesothelioma a prospective study of 188 consecutive patients Part 1 Diagnosis, *Cancer*, **72** : 389-393, 1993.
32. Edmondstone WM Investigation of pleural effusion comparison between fiberoptic thoracoscopy, needle biopsy and cytology, *Respir Med*, **84** 23-26, 1990.
33. Yankelevitz DF, Gupta R, Zhao B, et al Small plunomary nodules Evaluation with repeat CT-Preliminary experience, *Radiology*, **212** : 561-566, 1999.
34. Garden AS, Weber RS, Morrison WH, et al The influence of positive margins and nerve invasion in adenoid cystic carcinoma of the head and neck treated with surgery and radiation, *Int J Radiation*, **32** : 619-626, 1995.
35. Niewald M, Barbie O, Schnabel K, et al Risk factors and dose-effect relationship for osteoradiationecrosis after hyperfractionated and conventionally fractionated radiotherapy for oral cancer, *Br J Radiol*, **69** 847-851, 1996.
36. Levendag PC, Visch LL, Driver N, A simple device to protect against osteoradionecrosis induced by interstitial irradiation, *J Prosthet Dent*, **63** 665-670, 1990.
37. Hosokawa Y, Shirato H, Kagei K, et al, Role of radiotherapy for mucoepidermoid carcinoma of salivary gland, *Oral Oncology*, **35** : 105-111, 1999.
38. Potter R, Prott FJ, Mick O, et al, Results of fast neutron therapy of adenoid cystic carcinoma of the salivary gland, *Strahlenther Onkol*, **175** : 65-68, 1999.
39. Krull A, Schwarz R, Engenhardt R, et al, European results in neutron therapy of malignant salivary gland tumors, **83** : 125-129, 1996.
40. Douglas JG, Laramore GE, Austin SM, et al, Neutron radiotherapy for adenoid cystic carcinoma of minor salivary glands, *Int J Radiat Oncol Bio Phys*, **36** : 87-93, 1996.
41. Krull A, Schwarz R, Heyer D, et al, result of neutron therapy in recurrent malignant salivary gland tumors in the head and neck area, *Strahlenther Onkol*, **171** 265-271, 1995.
42. Laramore GE, Krall JM, Griffin TW, et al, Neutron versus photon irradiation for unresectable salivary gland tumors Final report of an RTOG-MRC randomized clinical trial, **27** : 235-240, 1993.