

顎下部に発生した滑膜肉腫の1例

坂田 千恵 木下 俊文 神納 敏夫
足立 憲 木下富美子 小川 敏英

鳥取大学医学部病態解析医学講座医用放射線学分野

A Case of Synovial Sarcoma in the Submandibular Region

Chie Sakata, Toshibumi Kinoshita,
Toshio Kaminou, Akira Adachi,
Fumiko Kinoshita, and Toshihide Ogawa

Synovial sarcomas are a less common cervical tumor in young patients. We report a 23-year-old man with synovial sarcoma in the submandibular region. T2-weighted MR images demonstrated a mixed-intensity tumor attached to the submandibular gland. T1-weighted MR images revealed a focal area with mildly increased signal intensity, indicating intratumoral hemorrhage. MR images were also useful for visualization of tumor extension. Synovial sarcoma should be considered in the differential diagnosis of well-defined inhomogeneous tumors adjacent to the submandibular gland in young adults.

Research Code No.: 504

Key words: Synovial sarcoma, Submandibular region, CT, MR

Received Jan. 6, 2005; revision accepted Mar. 5, 2005

Division of Radiology, Department of Pathophysiological and Therapeutic Science, Faculty of Medicine, Tottori University

別刷請求先

〒683-8504 米子市西町36-1

鳥取大学医学部病態解析医学講座医用放射線学分野

坂田 千恵

はじめに

滑膜肉腫は若年成人の関節近傍に好発する悪性腫瘍であり、頭頸部領域にも発生を認める。5年生存率40%以下と予後不良の疾患であり、早期の的確な診断及び治療が重要となる¹⁾。今回われわれは顎下部に発生した滑膜肉腫の1例を経験したので、そのMRI、CT所見について報告する。

症 例

症例：23歳，男性

主訴：右顎下部腫瘍触知，嚥下時違和感

現病歴：右顎下部に圧痛を伴う弾性硬，可動性不良の腫瘍を自覚し，精査加療目的にて当院耳鼻科入院となった。

既往歴・家族歴：特記事項なし。

血液生化学所見：特記事項なし。

MRIにて右顎下部に28mm大の境界明瞭な腫瘍を認めた。T2強調像にて中等度信号を主体とし，一部，高信号と低信号の混在する不均一な信号強度を呈していた(Fig. 1A)。T1強調像では腫瘍は中等度信号を示し，内部に淡い高信号域を認めた(Fig. 1B)。造影T1強調像では中等度の増強効果を示しており，T1強調像にて淡い高信号を示した部位には造影効果を認めなかった(Fig. 1C)。矢状断造影T1強調像にて腫瘍は右顎下腺背側に隣接して認められたが，境界は保たれており，顎下腺由来ではないと考えられた(Fig. 1D)。腫瘍は，舌骨大角，舌骨甲状間膜，甲状軟骨右側板に広く接し，右梨状窩の咽頭壁に隣接していた。明らかな骨破壊や軟骨浸潤は認めなかった。周囲組織との境界は比較的明瞭で，隣接する頸動脈鞘や胸鎖乳突筋，椎前筋への浸潤は認めなかった。

単純CTにて，腫瘍は筋肉より低吸収を示し，一部に石灰化様の点状の高吸収域や，T1強調像にて高信号を示した部位に一致する淡い高吸収域が認められた(Fig. 2)。

以上の所見より，顎下腺外より発生した小唾液腺由来の多形腺腫を疑い，摘出術が施行された。摘出された腫瘍は境界明瞭な多結節状の充実性で，一部，嚢胞状の成分が見られた。周囲との強い癒着はなかったが，舌骨，甲状軟

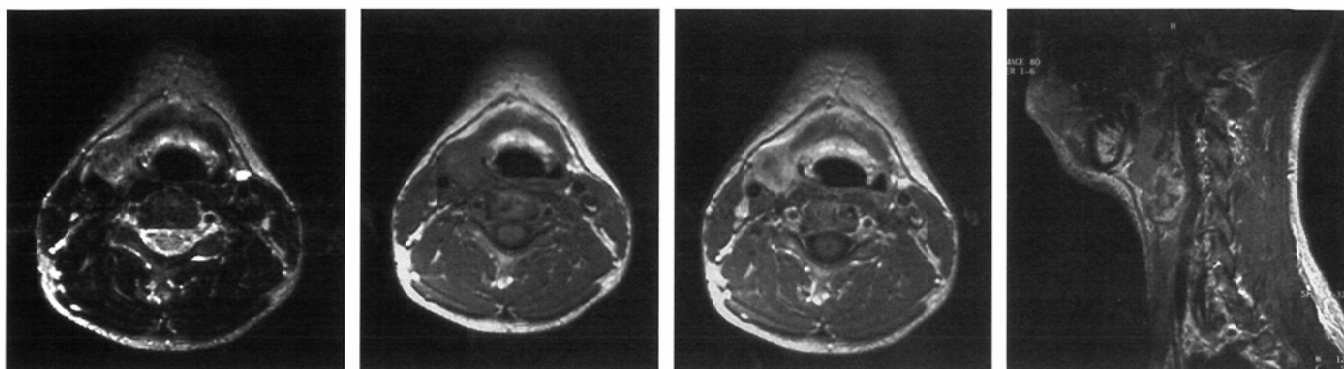


Fig. 1 MR imaging of the neck.

A: Axial T2-weighted image shows a well-defined mixed-intensity tumor in the right submandibular region.

B: Axial T1-weighted image shows an isointensity tumor with mildly high signal in the central area.

C, D: Axial and sagittal postcontrast T1-weighted images show heterogeneous enhancement within the tumor posterior to the right submandibular gland.

骨、咽頭筋に接し、甲状軟骨上角に軽度の癒着が見られた。

病理組織所見にて、HE染色では立方形的上皮性細胞が充実性増殖もしくは腺管様構造を成して配列し、その間を縫うように紡錘形細胞が索状に配列していた(Fig. 3)。免疫組織化学的染色にて、上皮性細胞は上皮系マーカーであるkeratin, EMA (epithelial membrane antigen)が陽性、紡錘形細胞は間葉系マーカーであるvimentinが陽性であった。両者の混在する特徴的な所見から、二相型滑膜肉腫と診断された。

術後放射線療法54Gyが施行され、3年以上経過した現在、再発や転移を認めていない。

考 察

滑膜肉腫は、あらゆる年齢層に起こりうるが、15～35歳に好発し男女比は3:2と男性にやや多く見られる²⁾。全肉腫の7～10%を占め、このうち頭頸部領域での発生は3%程度とされる¹⁾。約85%は下肢、特に膝関節周囲に発生するが、後腹膜、腹壁の他、頭頸部領域では、咽頭、傍咽頭間隙、扁桃、鼻腔、副鼻腔、眼窩、側頭下窩、椎前部間隙等にも発生する^{1)~4)}。顎下部の発生例も報告されているが、その画像所見についての記載は少ない⁵⁾。

滑膜肉腫は、関節面、腱、腱鞘、筋膜等の既存の滑膜組織から発生することは稀で、その近傍に存在する分化能力を持つ未分化な間葉系細胞が悪性転化を起こし、滑膜芽細胞化したものと考えられている^{1), 2), 4)}。このため、関節腔内での発症はほとんど認められない。頭頸部領域では下咽頭が好発部位とされ、これは下咽頭周囲に豊富な滑膜組織が存在することに関連すると考えられている^{1), 2), 6)}。本症例で腫瘍が観察された顎下部から、舌骨、舌骨甲状間膜、甲状軟骨にかけての領域には舌骨下包が存在しており、滑膜肉腫が発生しうると考えられる。MRIは顎下腺由来の腫瘍でないことを示し、腫瘍の局在や進展範囲を把握するうえで有用であった。

頭頸部滑膜肉腫の画像所見については、いくつか報告さ

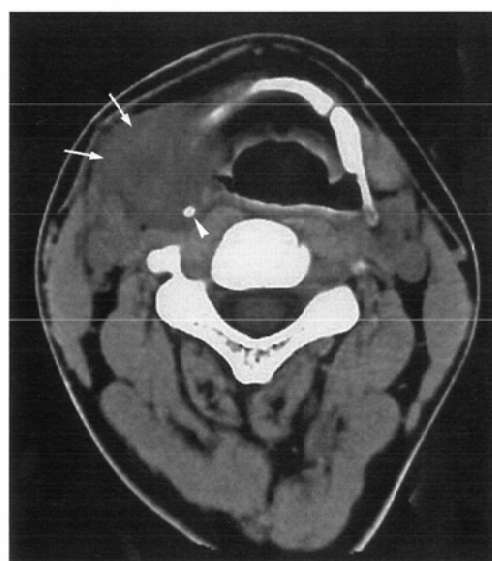


Fig. 2 CT.

Unenhanced CT demonstrates focal areas of slightly high attenuation (arrows), whereas major portions of the tumor show lower attenuation compared to the surrounding muscular structures. Punctate calcification (arrowhead) is noted within the tumor.

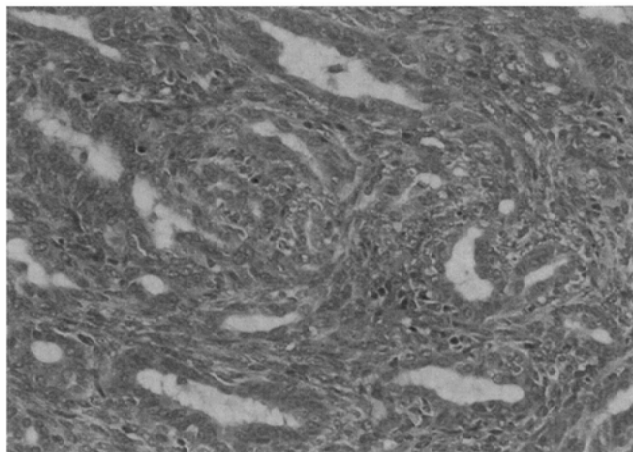


Fig. 3 Microscopic examination.

Photomicrograph of the resected specimen shows classic biphasic synovial sarcoma with glandular structures surrounded by spindle cells (Hematoxylin-eosin; original magnification, $\times 200$).

れているが、通常、充実成分主体の境界明瞭な腫瘍で、周囲への浸潤傾向に乏しい^{1), 2), 6), 7)}。MRIではT1強調像にて中等度信号、T2強調像にて様々な信号強度を示し、造影T1強調像にて中等度の増強効果を呈する¹⁾。内部は出血によるfluid-fluid levelの形成、嚢胞形成、隔壁構造、石灰化等を反映し、不均一な信号強度を示す^{1), 4), 5), 7)}。CTでも境界明瞭な腫瘍で、中央部に壊死と考えられる低吸収域を含み、辺縁部に石灰化を伴う実質を認めることがある⁵⁾。石灰化は頭頸部以外に発生する滑膜肉腫と同様に、約30%の症例に認められ、予後良好な指標とされる^{1), 2), 4), 6), 7)}。小円形で不規則な分布を示すものや、ときに腫瘍全体を占拠し広範に広がる石灰化も報告されている^{1), 2), 5)}。

本症例のT1強調像にて認められた高信号域はCTでの淡い低吸収域に一致し、腫瘍内出血を反映するものと考えられた。また、CTでは石灰化と考える点状低吸収域が確認された。比較的境界明瞭な腫瘍で、出血、石灰化を含む不均一な像を示していたことから、典型的な画像所見を呈していたと思われる。一般に、T2強調像での信号強度は細胞密度

を反映するとされるが、今回、T2強調像にて中等度の信号強度を主体としていたことは、紡錘形細胞が密に索状配列する組織像を反映していたと考えられる^{6), 7)}。

顎下腺近傍に発生する腫瘍の鑑別として、最も頻度の高いものはリンパ節由来の病変であり、転移性リンパ節や悪性リンパ腫等が考えられる。石灰化を有する場合、甲状腺癌の転移と鑑別を要することもある。その他、間葉系腫瘍として、良性腫瘍では神経鞘腫、小唾液腺由来の多形腺腫、悪性腫瘍では横紋筋肉腫、平滑筋肉腫、線維肉腫、脂肪肉腫、血管内皮腫等が挙げられる^{3), 8)}。多形腺腫は、通常T2強調像にて高信号を示し、悪性転化し細胞密度が高くなるにつれ中等度信号を示すとされるが、嚢胞変性や石灰化を来すこともあり、滑膜肉腫と類似した所見を示す⁶⁾。

画像診断のみでの確定診断は困難であるが、MRI、CTにて若年者の顎下部、滑膜組織近傍に境界明瞭、内部不均一な腫瘍の所見を認めた場合、浸潤傾向を欠くことから良性腫瘍であると確定せずに、滑膜肉腫も鑑別診断に考慮する必要があると考えられる。

文 献

- 1) Rangheard A, Vanel D, Viala J, et al: Synovial sarcomas of the head and neck: CT and MR imaging findings of eight patients. *AJNR Am J Neuroradiol* 22: 851-857, 2001
- 2) Sigal R, Chancelier MD, Lubinski B, et al: Synovial sarcomas of the head and neck: CT and MR findings. *AJNR Am J Neuroradiol* 13: 1459-1462, 1992
- 3) Pai S, Chinoy RF, Pradhan SA, et al: Head and neck synovial sarcomas. *J Surg Oncol* 54: 82-86, 1993
- 4) 増田行広, 甲能直幸, 松村優子, 他: 副咽頭間隙に発生した滑膜肉腫例. *耳鼻臨床* 11: 959-965, 2000
- 5) Robinson DL, Destian S, Hinton DR, et al: Synovial sarcoma of the head and neck: radiographic findings with a review of the literature. *Am J Otolaryngol* 15: 46-53, 1994
- 6) Hirsch RJ, Yousem DM, Loevner LA, et al: Synovial sarcomas of the head and neck: MR findings. *AJR Am J Roentgenol* 169: 185-188, 1997
- 7) Park JK, Ham SY, Hwang JC, et al: Synovial sarcomas of the head and neck: a case of predominantly cystic mass. *AJNR Am J Neuroradiol* 25: 1103-1105, 2004
- 8) Almeyda R, Kothari P, Chau H, et al: Submandibular neurilemmoma: a diagnostic dilemma. *J Laryngol Otol* 118: 156-158, 2004