

# 左頰巨大多形性腺瘤—病例報告

陳裕豐 陳中和 張朝翔 楊家福

高雄醫學大學附設中和紀念醫院口腔顎面外科

## 摘 要

根據研究，多形性腺瘤為最常見的良性腫瘤，主要好發於大唾液腺，多呈現為多葉型腫瘤，以40~50歲較常見，有女性較多之傾向。文獻報告指出，原發位置在小唾液腺者約佔10%，其中又以腭部、唇部居多，頰部之多形性腺瘤相當罕見。這類病人在發病時多無明顯症狀，主要症狀為臉部不對稱，此類腫瘤是呈現出無痛感及緩慢生長，因而病人容易忽略病情。組織學上由於多樣的組織分化，又通稱為混合瘤。回顧文獻，目前主要的治療方式仍為手術切除腫瘤及其包膜為主。

本篇病例報告提出一巨大罕見的案例，發生於54歲的台灣男性。根據病人自述此腫瘤持續約10年之久，因為疼痛及異物感加重至本科求診，在電腦斷層下測量約7公分×6.1公分×6.5公分之一巨大腫瘤，位於少見的左頰間隙、左側顳下間隙及左側下顎翼狀間隙。由於此病例之多形性腺瘤生長位置罕見，且延伸至顳下間隙區域，我們成功將此巨大腫瘤，經由口內方式做一摘除，術後追蹤至今並無復發，故提出報告。

**關鍵詞：**多形性腺瘤，混合瘤，小唾液腺腫瘤。

## 前 言

多形性腺瘤(pleomorphic adenoma)為口腔中最常見的唾液腺良性腫瘤，好發於主要唾液腺以及軟腭的小唾液腺，早在1874年，Minsin<sup>(1)</sup>就提出“混合瘤”(mixed tumor)這一名詞，來形容腫瘤組織分化複雜的情形。根據美國軍事病理協會(AFIP)統計了6880個多形性腺瘤的病例，其中有5115個病例發生於大唾液腺，其中63.4%為雙側腮腺，9.5%為顎下腺，其餘發生於小唾液腺中約佔25.6%，較易發生的位置為腭部(約佔10.3%)。小唾液腺多形性腺瘤中，約有

40%~70%發生在上顎腭部，上唇約18%，頰部約11%。腫瘤亦可生長於唾液腺管側、側咽壁或是腮腺的深部葉等較少發生的區域。

我們提出此一例位於左頰間隙(buccal space)、左側顳下間隙(infratemporal space)及左側下顎翼狀間隙(pterygomandibular space)之多形性腺瘤。據病人自述，此腫瘤持續約10年之久，由於無痛感，因此病人長期忽略並任其生長，才生長至如此大之範圍。就可搜尋的英文文獻中，僅有一例生長至顳下間隙之多形性腺瘤被報告<sup>(2)</sup>，本例由於罕見且巨大，因此提出報告並做相關討論。

## 病例報告

病患為54歲的台灣男性，因為左頰持續的腫脹及近日有較明顯的間歇性疼痛而至本科求診。根據病人自述，10年前病人就察覺此腫塊存在，雖然曾經於7年前及4年前至其他醫院尋求協助，並且接受電腦斷層的拍攝，不過由於無痛及病人的忽略，因此並未接受進一步處理。

臨床上口外檢查，發現左頰有一明顯的腫脹，表面的皮膚並未和底下的腫瘤有沾黏的情況。張口度約為37 mm。觸摸腫塊呈現多葉狀的凸起，質地彈性至硬，在頸部方面也無淋巴結腫大的情況。口內檢查(如圖一)，腫瘤附著之黏膜外觀完整，沒有潰瘍及瘻管，不過有因病灶造成的黏膜突起。除此之外，在舌頭、口底、硬腭及軟腭神經學及臨床檢查也都正常。在顏面神經學的檢查，做大笑運動時發現有較微弱的情形，可能是因為巨大腫瘤壓迫的關係。

電腦斷層檢查下發現病灶呈現均勻且些微的顯影性，合併有一些鈣化性物質存在。整個固態狀腫瘤似乎呈現被厚包膜(capsule)所包覆的情形，位於左側的頰側間隙、顛下間隙、翼狀下顎間隙之中，和鄰近的腮腺也是分離的情形，並且對於上顎竇之後壁及側壁及顴骨之內側壁都有壓迫現象。在手術前安排電腦斷層下測量為約7 cm × 6.1 cm × 6.5 cm之一巨大腫塊，而對照其先前的核磁共振造影(約4年前所拍攝)，其測量起來的大小約4.95 cm × 3.8 cm × 5 cm。而在7年前所拍攝的電腦斷層3.9 cm × 3 cm × 4.1 cm，此一難得的影像資料，可以做為七年內之良性腫瘤生長速度的變化參考。(圖二 A、B、C)

我們安排病人在門診局部麻醉下接受細針細胞抽取檢查，病理鏡檢下只有疏鬆的黏液樣質(myxoid tissue)及一些纖維組織。由於腫瘤生長時期久且無快速增大的情形，且病人不願意再次接受切片手術，因此在無惡性腫瘤之

發現及疑慮，安排進一步手術切除治療。手術經由口內方式操作，由於腫瘤被一厚的纖維包膜包覆著，因此沿著此包膜平面將腫瘤作一剝離，並切除部分黏膜組織，以一完整塊狀將腫瘤摘除，也成功的保留下史坦生氏管(stenson's duct)。臨床觀察下發現為一灰白相間，呈現多葉狀的腫瘤，其外則披覆著一厚的纖維包膜。(圖三、四)

術後病人恢復狀況良好，術後張口度增加至40 mm，也無唾液腺管阻塞之情形(圖五)，於門診中接受定期追蹤，目前門診追蹤約達一年並無腫瘤復發之跡象。

病理檢查確認此為一多形性腺瘤。顯微鏡檢下發現整個腫瘤都被一增厚且緻密的纖維包膜組織包覆。腫瘤內部由數個腫瘤小島(tumor island)形成，在高倍鏡下僅有少量的管狀組織，並無明顯唾液腺體組織，故推測其來源應為小唾液腺引起，除此之外有纖維軟骨質及骨化的物質形成，更符合多樣性分化之現象(如圖六)。

## 討論

生長在小唾液腺的多形性腺瘤並無特別明顯好發的年紀，但以40~50歲較常見，且有女性較多之傾向，約是1.4：1。這類腫瘤呈現出無痛感及緩慢生長，因而在發病時多無明顯症狀，病人容易因此而忽略病情。

根據統計，多形性腺瘤是所有唾液腺腫瘤中最常見的，佔所有良性唾液腺腫瘤的90%左右。除主要唾液腺外，美國軍事病理協會AFIP統計在1227個多形性腺瘤，上腭部約58%，嘴唇佔24%，頰部佔10%，舌頭佔1%，及其他部位約佔7%。回顧過去研究，小唾液腺腫瘤發生率約佔所有唾液腺腫瘤的5%~16%，而小唾液腺之多形性腺瘤則約佔所有唾液腺多形性腺瘤中10%。

目前已報導過的文獻中目前僅有一例為多形性腺瘤生長至顛下間隙之病例，本例為發生在頰部至顛下間隙之小唾液腺來源之多形性腺



圖一 口腔內部黏膜完整，口內相對應位置受腫瘤壓迫產生突起  
左頰明顯脹大，臨床上初估範圍測量約8 cm × 6 cm。



左圖 CT(約七年前)



中圖 MRI(約四年前)

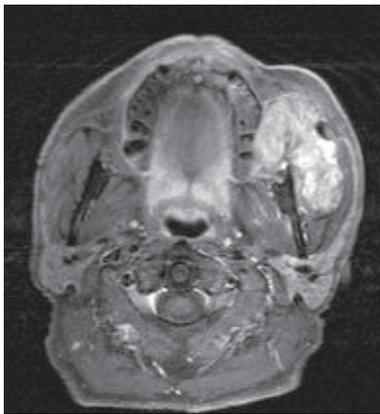


右圖 CT(術前)

Fig. (二A) 矢狀切面的影像比較：可以明顯發現腫瘤變大的情形，並且有明顯將上顎竇的側壁壓迫痕跡。



左圖 CT(約七年前)



中圖 MRI(約四年前)



右圖 CT(術前)

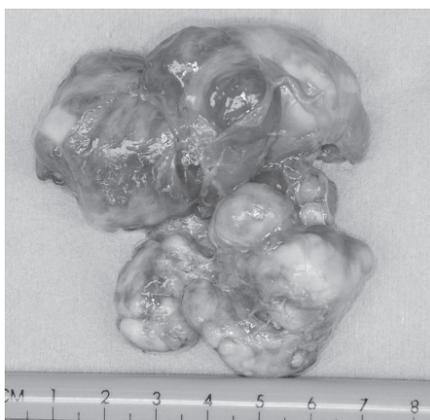
Fig. (二B) 水平切面的影像比較：多葉性的腫瘤明顯變大，且有一包膜包覆。腫瘤中也發現有鈣化物質存在。



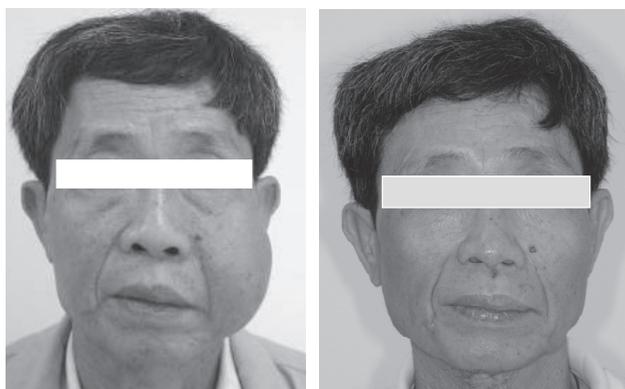
Fig. (二C) 腫瘤呈現多葉狀並且壓迫顴骨骨壁內側及上顎竇側壁導致吸收。



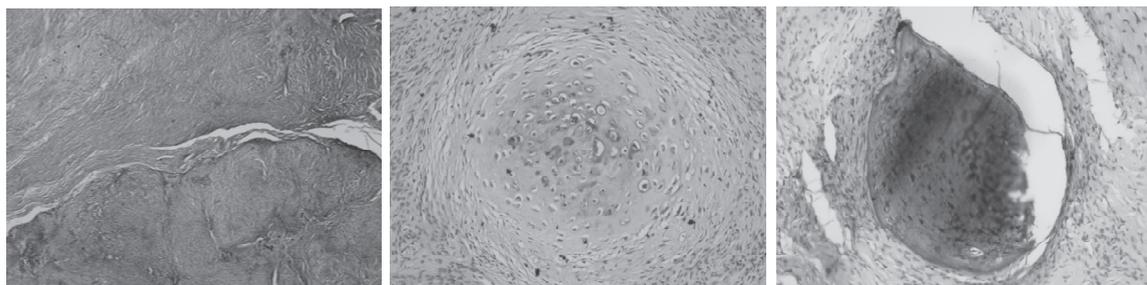
圖三 手術中之臨床照片：經由口內方式將巨大腫瘤完整摘除。



圖四 術後腫瘤標本：大小約為6.5 cm × 7.5 cm，被一完整之纖維包膜所包覆，腫瘤呈現灰白相間的外觀。



圖五 手術前及手術後5個月之臨床照片比較。



圖六(A) 腫瘤被一厚的纖維包膜包覆，有數個腫瘤小島且腫瘤內有分化的軟骨及骨化組織(HE×40)

圖六(B) 高倍鏡下的軟骨組織 (HE×100)

圖六(C) 高倍鏡下腫瘤內的骨化組織 (HE×100)

瘤，為較罕見之病例。

根據Johnson等學者做的統計顯示，顛下間隙中的腫瘤常見為鼻咽癌、年輕型的血管纖維瘤(juvenile angiofibroma)、腺樣囊樣細胞癌(adenoid cystic carcinoma)，但罕有混合瘤出現。在無確診的術前病理報告參考，鑑別診斷的判斷就更加重要，由於腫瘤存在時間久遠，無快速增大或臨近器官的破壞，因此在初步排除其為惡性腫瘤的可能後，進行手術。

在組織型態學上，多形性腺瘤是由表皮細胞和肌皮細胞(myoepithelium)所形成的類結締組織所構成。腫瘤基質中肌皮細胞佔大部分，由於分化呈現紛歧而多樣的形態，1874年Minsén提出“混合瘤”一詞為，其可以分化成黏液樣質(myxoid)或是軟骨質(chondroid)，或是這些基質都混合在同一腫瘤中，而當中較少腫瘤基質分化成為骨化(osseous)成分，在本病例當中也有出現。

一般要將在顛下間隙的腫瘤手術移除，會將顴骨做骨切開手術以利手術進行。然而在此病例中，由於腫瘤被一增厚的包膜所覆蓋，所以我們嘗試先經由口內做一切線進入的方法，可以沿著腫瘤的外包膜將腫瘤做一完整剝離切除，因此捨棄從口外另做一切線，經由口內手術的方式也可以將顏面神經傷害的機率減到最低。

根據Patey和Thackray等人於1958年的研究指出，多形性腺瘤容易有下列的組織特性：1. 有多葉生長的腫瘤且容易剝離的特性，2. 不完整的假性胞膜(pseudocapsule)，即為一厚薄不均、甚至不完整的纖維組織。由於腫瘤組織的特性，因此容易在手術摘除的過程中遺留殘存組織，形成日後復發病灶。由於有假性胞膜及多葉生長腫瘤的特性，目前的學者大多主張做包含腫瘤本身及周圍部分組織的切除，以減少復發的機會，如腮腺病灶可做淺葉或是全腮腺切除。Waldron<sup>(11)</sup>和Chaudhry<sup>(12)</sup>等學者做過較大量的病例統計與文獻回顧後，認為不論何種手術方法，其復發的情形並不常見，大約只佔

5%~6%。對照我們的病例，在顯微鏡檢下腫瘤都被一相當厚且完整的組織包膜所包圍著，而切除的邊緣也無殘存的腫瘤存在。

本病例因腫瘤巨大，考慮術後重建及美觀性，以及腫瘤組織學的特性，在腫瘤前緣做一口內切線將腫瘤周圍做一完整剝離切除，門診定期追蹤達一年，目前尚無復發之跡象，臨床上於頰部或至顛下間隙之生長緩慢腫瘤，可以將多形性腺瘤列為鑑別診斷之考量，目前多形性腺瘤的治療方式仍是以手術切除為主，定期回診追蹤，也是確保治療成功的關鍵。

### 參考文獻

1. Minsén H. U ber gemischte Geschwulste der Parotis. Diss Gottingen 1874: 381-4.
2. Jeyanthi K, Karthikeyan R, Sherlin HJ, et al. Pleomorphic adenoma in the infratemporal space: the first case report. *Head and Neck pathology* 2007; 1: 173-7.
3. Ellis GL, Auclair PL. Atlas of tumor pathology, Tumors of the salivary glands. Armed Forces Institute of Pathology: Washington, DC. 1996: 155-75, 353-5.
4. Eveson JW, Cawson RA. Salivary gland tumors: A review of 2410 cases with particular reference to histological types, site, age and sex distribution. *J Pathol* 1985; 146-51.
5. Waldron CA. Mixed tumor (pleomorphic adenoma) and myoepithelioma. In: Ellis GL, Auclair PL, Gnepp DR, eds. *Surgical Pathology of the salivary glands*, Philadelphia: WB Saunders, 1991; 165-86.
6. Frable WJ, Elzay RP. Tumors of minor salivary glands: a report of 73 cases. *Cancer* 1970; 25: 932-41.
7. Smith JF. Tumors of minor salivary glands. *Oral Surg* 1962; 15: 594-602.

8. Bardwil JM, Reynolds CT, Ibanez ML, Luna MA. Report of one hundred tumors of the minor salivary glands. *Am J Surg* 1966; 112: 493-7.
9. Luna MA, Stimson PG, Bardwil JM. Minor salivary gland tumors of the oral cavity: a review of sixty-eight case. *Oral Surg* 1968; 25: 71-86.
10. Ranger D, Thackray AC, Lucas RB. Mucous gland tumor. *Br J Cancer* 1956; 10: 1-16.
11. Waldron CA, El-Mofty SK, Gnepp DR. Tumors of the intraoral minor salivary glands: a demographic and histologic study of 426 cases. *Oral Surg Med Oral Pathol* 1988; 66: 323-33.
12. Chaudhary AP, Vickers RA, Gorlin RJ. Intraoral minor salivary gland tumors. *J Oral Surg* 1961; 14: 1194-226.
13. Johnsn AT, Maran AG. Extra-cranial tumors of the infratemporal fossa. *J Laryngol Otol* 1982; 96: 1017-26.
14. Barnes L, Eveson JW, Reichart P, et al. World Health Organization Classification of Tumors: Pathology and Genetics of Head and Neck Tumors. Lyon, France: IARC Press; 2005: 254-58.
15. Prades JM, Timoshenko A, Merzougui N, Martin A. Cadaveric study of combined transmandibular and trans-zygomatic approach to the infratemporal fossa. *Surg Radiol Anat* 2003; 25: 180-7.

## A Rare Case of Huge Pleomorphic Adenoma— Case Report

Yu-Feng Chen, Chung-Ho Chen, Chao-Hsiang Chang, Chia-Fu Yang

Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Chun-Ho Memorial Hospital,  
Kaohsiung Medical University, Kaohsiung, Taiwan, R.O.C.

### Abstract

Pleomorphic adenoma is the most common benign neoplasm among all salivary gland tumors. Its presentation in the fourth decade of life is common, and slight female predominance. The palate is the most commonly involved site, they usually presented as a painless, slow-growing mass that is firm and lobulated on palpation.

This case report presented a rare case of huge pleomorphic adenoma of 54 year old Taiwanese male patient. According to this patient's statement, the mass was persisted for 10 years, For the painless lesion and the patient in compliance, he ignored it and denied any treatment.

Computed tomography scan showed the mass was measured in 7 cm × 6.1 cm × 6.5 cm, it was located at buccal space, ptergomandibular space, and extended to infratemporal space. We had the change of digital image for 7 years period, it was precious data that we could understand the progressive speed for the benign mass. The tumor was huge and rare, also extended to the infratemporal space. We successfully excise the tumor via intra-oral approach.

**Key words:** Pleomorphic adenomas, Mixed tumor, Small salivary gland tumor.

Received: March 08, 2010

Accepted: June 10, 2010

Reprint requests to: Dr. Chung-Ho Chen, Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Chun-Ho Memorial Hospital, Kaohsiung medical university, Kaohsiung, Taiwan, R.O.C.