

## 舌下腺に原発し超音波パワードプラー法が 診断に有効であった悪性リンパ腫の一例

東海林 理, 熊谷 章子\*, 杉山 芳樹\*, 武田 泰典\*\*, 小豆嶋 正典

岩手医科大学歯学部歯科放射線学講座

(主任: 小豆嶋 正典 教授)

\*岩手医科大学歯学部口腔外科学第二講座

(主任: 杉山 芳樹 教授)

\*\*岩手医科大学歯学部口腔病理学講座

(主任: 武田 泰典 教授)

(受付: 2009年2月12日)

(受理: 2009年3月19日)

**Abstract :** Malignant lymphoma is considered to be neoplasm of lymph node or lymphoid tissue. The head and neck region is favorite site of this tumor, but intraoral presentation of lymphomas is an uncommon occurrence, and sublingual gland is extremely rare site. We report here a case of malignant lymphoma in the sublingual space. Malignant lymphoma is difficult in a clinical finding, and it is difficult diagnosis. At first, we performed ultrasonography for this case, and suspected it was a tumor not a cyst because significant blood flow was detected as a power Doppler signal in this lesion. It is said to be malignant 80% of a tumor to occur in sublingual gland. For reasons mentioned above, we doubted this lesion with a malignant tumor. The histological diagnosis was diffuse large B-cell lymphoma in the sublingual gland. We confirmed usefulness of power Doppler to differentiate the mass revealed occurred in this region.

**Key words :** malignant lymphoma, sublingual gland, ultrasonography, power Doppler, diffuse large B-cell lymphoma

---

A Case of Malignant Lymphoma in the Sublingual Gland Evaluated by Power Doppler Ultrasonography

Satoru SHOJI, Akiko KUMAGAI\*, Yoshiki SUGIYAMA, Yasunori TAKEDA, Masanori SHOZUSHIMA

Department of Dental Radiology, School of Dentistry, Iwate Medical University

(Chief : Prof.Masanori Shozushima)

\*Second Department of Oral Surgery, School of Dentistry, Iwate Medical University

(Chief : Prof.Yoshiki Sugiyama)

\*\*Department of Oral Pathology, School of Dentistry, Iwate Medical University

(Chief : Prof.Yasunori Takeda)

Department of Dental Radiology, School of Dentistry, Iwate Medical University,

1-3-27 Chuodori, Morioka, 020-8505, Japan



## 緒 言

悪性リンパ腫はリンパ系組織に発生し増殖する悪性腫瘍であり、体内のあらゆる部位に発生する。頭頸部領域は悪性リンパ腫の好発部位の一つである<sup>1)</sup>。しかしその多くは頸部リンパ節ないし Waldeyer 輪に初発するとされ、顎口腔領域に発生する悪性リンパ腫は比較的少ない<sup>2)</sup>。唾液腺はその中でもまれな発生部位であり<sup>3)</sup>、特に舌下腺に発生した悪性リンパ腫についての症例報告は極めて少ない<sup>4-8)</sup>。

超音波検査法には A (Amplitude), B (Brightness), M (Motion) の3つのモードがある。そのうちBモードは反射波の強さを輝度変調し断層像として表現する手法で、超音波検査法の代名詞になっている。超音波検査は簡便でリアルタイムなスキャンが可能で、唾液腺疾患や頸部リンパ節疾患などの頭頸部領域の表在性腫瘍性病変の検査において有用なモダリティとされている<sup>9)</sup>。近年従来のBモードによる超音波断層画像の上に血流信号をマッピ

ングすることが可能なカラードプラもしくはパワードプラの機能をもつ装置が市販されており、頭頸部領域では口腔癌患者の頸部に検出された腫大リンパ節が良性反応性かあるいは転移性かの判定に用いられている<sup>10)</sup>。

今回われわれは、診断に際して超音波パワードプラ法が有効であった舌下腺原発と思われる悪性リンパ腫の一例を経験したので報告する。

## 症 例

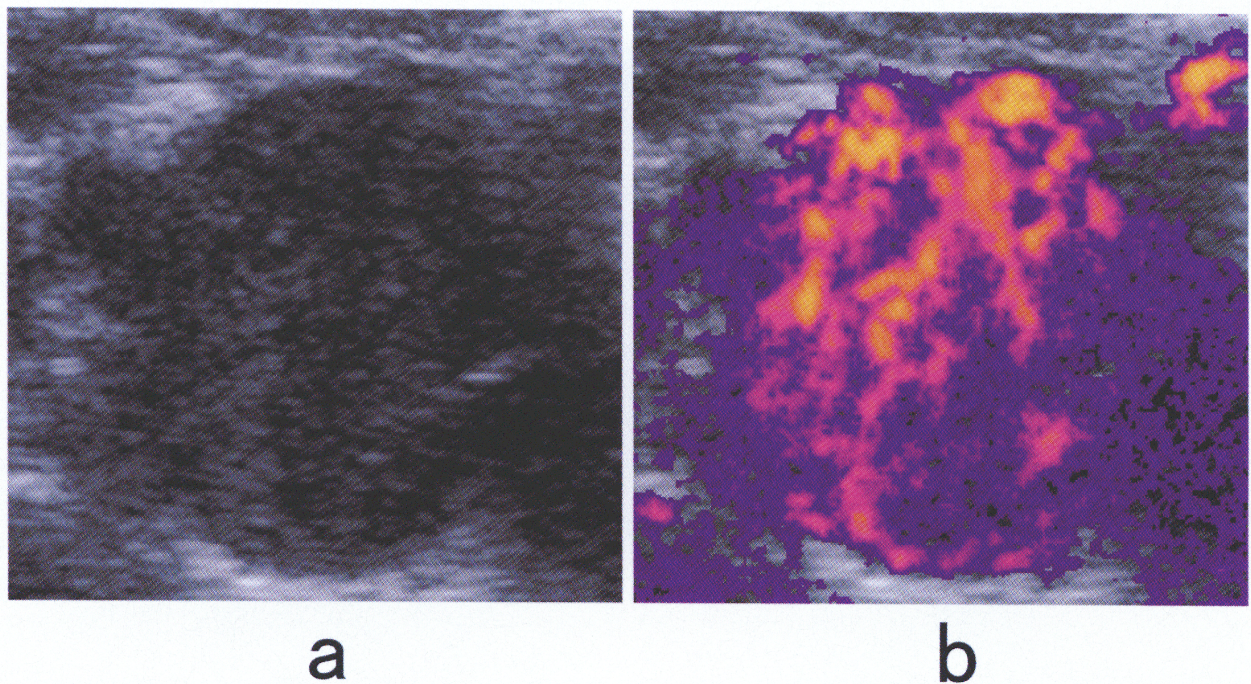
患者：72歳，女性。

初診：2007年4月7日。

主訴：口底部左側における増殖性の無痛性腫瘍。既往歴：幼少時に腎臓病（詳細不明），30歳時に卵巣嚢腫。

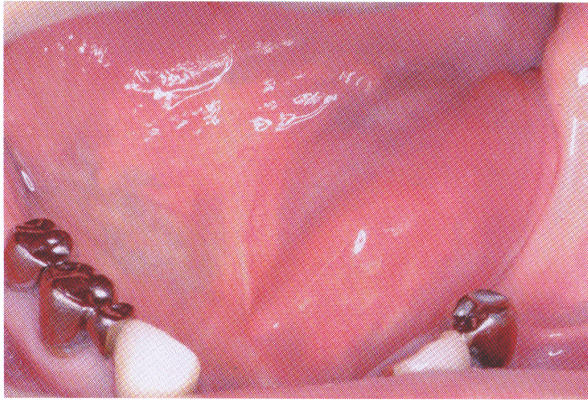
家族歴：特記事項なし。

現病歴：2007年3月頃より口腔底の腫脹と下顎義歯の不適合を自覚した。その後腫脹が増大傾向を認めたために近歯科医院を受診したところ，大学病院受診を勧められ，同年4月7日岩手医科大学附属病院歯科医療センター口腔外科



**Fig. 2.** Coronal B-mode ultrasound showed solid well-defined hypoechoic mass in the left side of the sublingual space (a). Power Doppler ultrasound showed chaotic intralesional blood flow (b).





**Fig. 1.** Intra-oral examination showed a painless skin-colored with clear boundaries mass on the left side to midline of the oral floor. That was elastic and hard.

第二診療室を受診した。

現症：

全身所見：体格はやや痩せ型，栄養状態は良好。

口腔内所見：口底部左側正中から後方に向かい  $30 \times 10\text{mm}$  大の弾性硬，境界明瞭な腫瘍が認められた。表面は平滑で正常粘膜色を呈していた (Fig. 1.)。

超音波検査所見：超音波検査は初診時に施行された。B モードでは，舌下隙左側に  $26.1 \times 25.7\text{mm}$  の境界明瞭，内部性状均一な類円形の低エコー

腫瘍が認められた (Fig. 2.a)。パワードプラモードでは，腫瘍内部に不規則で著明な血流信号が検出された (Fig. 2.b)。

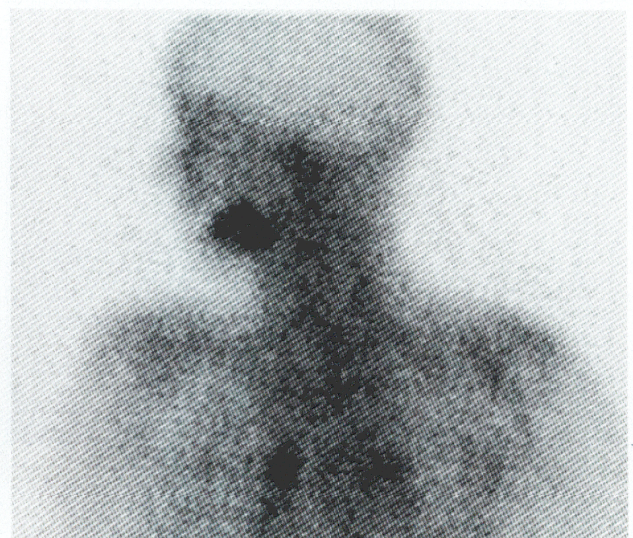
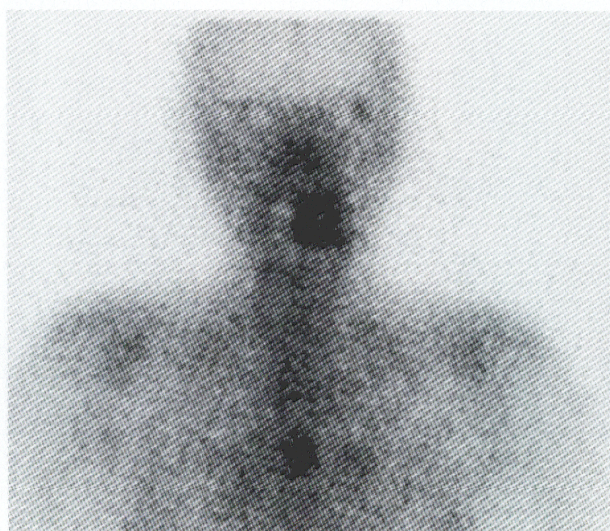
腫瘍シンチグラフィ所見：左側下顔面部に口腔底から口腔内に突出する，腫瘍に一致すると思われる異常集積が認められた (Fig. 3.)。

造影 CT 所見：左側舌下隙  $40 \times 20\text{mm}$  の造影を伴った腫瘍性病変を認めた。腫瘍は前方部で正中を越えて進展し，病変の圧迫により気道の変形が見られた (Fig. 4.a)。また類円形で直径  $10\text{mm}$  の左側レベル Ib リンパ節が認められた。内部に壊死を疑う低濃度領域を伴っており，転移性リンパ節と診断した (Fig. 4.b)。

病理組織学的所見：明瞭な核小体を有した大型のリンパ組織がびまん性単調な増生を示し，有糸分裂も散見された (Fig. 5.)。免疫染色では CD20, CD79a が陽性で，diffuse large B-cell lymphoma と診断された。

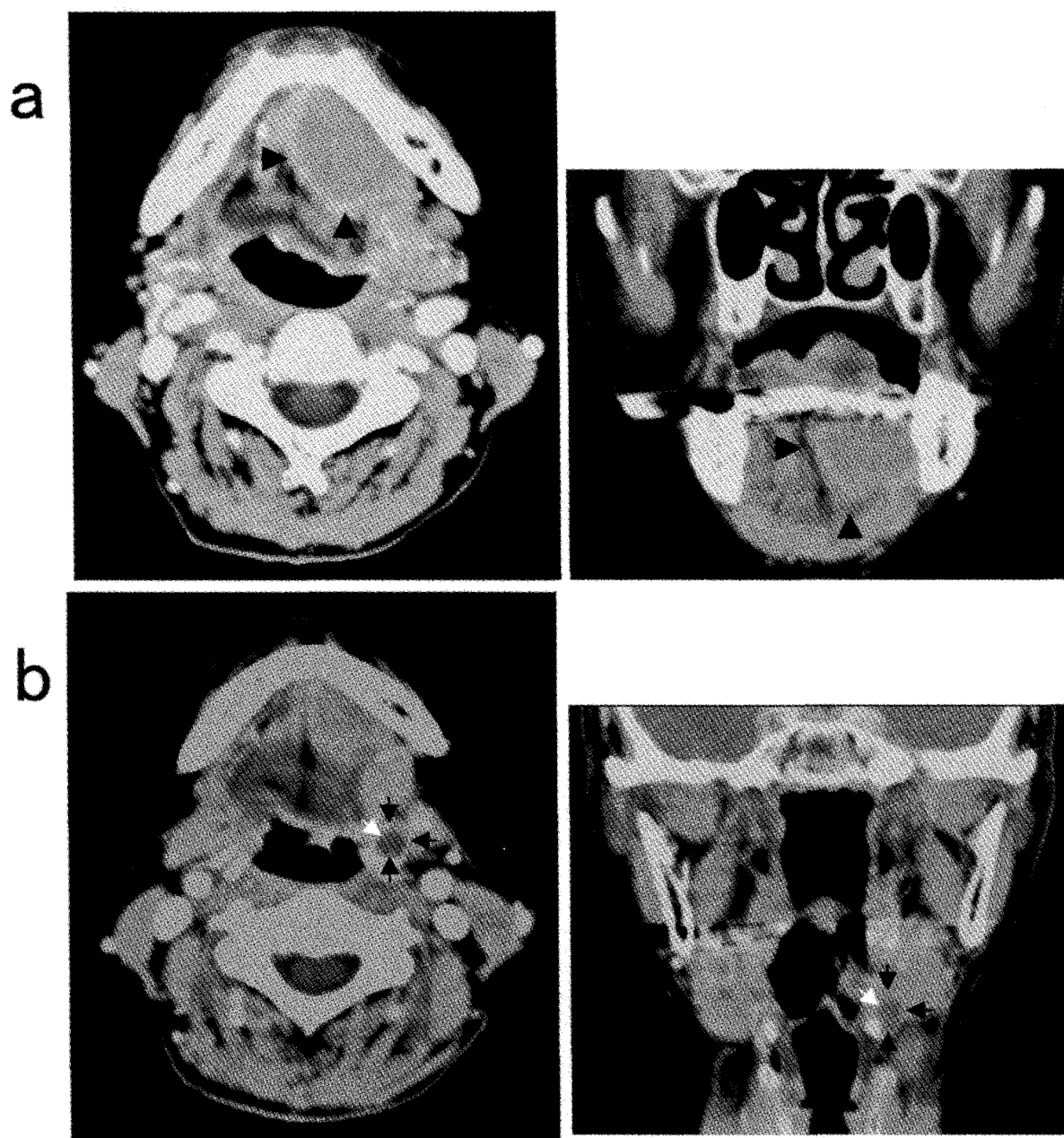
## 考 察

悪性リンパ腫とはリンパ球が腫瘍化した疾患でありリンパ球が到達できるすべての臓器・組織に発生する。その発生母体から節性悪性リンパ腫と節外性悪性リンパ腫に，組織学的には



**Fig. 3.**  $^{67}\text{Ga}$ -citrate scintigraphy showed marked accumulation in the left lower face that accorded in lesion.





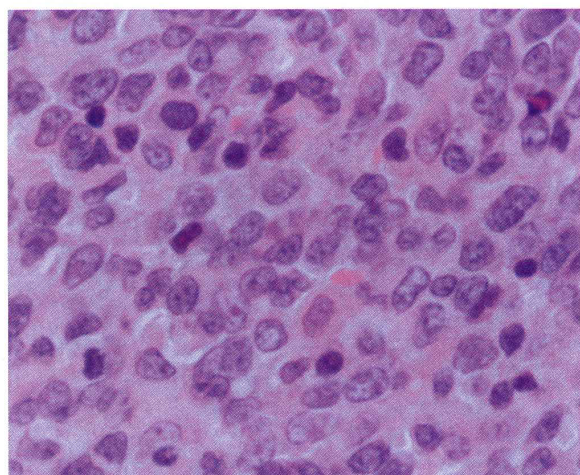
**Fig. 4.** Enhanced axial and coronal CT image

- a. 40mm × 20mm lesion had a smooth margin and round form and enhanced homogenously in the left sublingual space.
- b. 10mm diametered level Ib lymphnode (black arrows) with intranodal low density (white arrows).

Hodgkin リンパ腫と非 Hodgkin リンパ腫に分けるのが通例である。悪性リンパ腫は頭頸部領域に好発するが、頸部リンパ節または Waldyer 輪に原発するものが多く<sup>2)</sup>、唾液腺に発生するものはまれである。吉野<sup>1)</sup>は過去 15 年間に見られた頭頸部悪性リンパ腫について統計的に分析したところ、唾液腺に発生したものは 1564

例中 36 例（約 2%）であったと報告している。唾液腺に原発する悪性リンパ腫の 80% は耳下腺に、20% は顎下腺に発生し、舌下腺に発生することは極めてまれであるとされている<sup>3)</sup>。Table 1 に 1981 年から 2007 年の間に発表された唾液腺に発生した悪性リンパ腫についての報告をまとめた。その中で舌下腺に発生した症例





**Fig. 5.** Histopathological findings showed large lymphocytes with mitotic figures (x400). The immunohistochemical revealed that was atypical cells were positive for CD20 and CD79a. The histological diagnosis was diffuse large B-cell lymphoma in the sublingual gland.

は4例のみが記載されているにすぎず、今回われわれが報告した症例が稀少なものであることがわかる。

唾液腺腫瘍の良・悪性の判定には造影 CT, MRI が有用である。しかし CT, MRI は検査にかかる費用が高く、造影を行う際には食止めなどの事前の準備が必要なため初診時に行う検査としては適さない。超音波診断法は安価で簡便に表在性腫瘍性病変の検出ができる。唾液腺腫瘍においても極めて高い診断能を有するため first choice の検査法である<sup>9)</sup>。唾液腺原発の節外性悪性リンパ腫の超音波断層像の特徴として境界が明瞭あるいは一部不明瞭で内部は中～低エコーを示すとされる<sup>12)</sup>。炎症を伴った嚢胞性病変ではその特徴である被圧縮性が失われ、超音波検査では腫瘍との鑑別が困難なことがある。今回の症例においても超音波検査で検出された腫瘍は、境界明瞭、弾性硬で内部は均一な低エコーを示しており悪性腫瘍を疑う所見は認

Author	Parotid	Submandibular	Sublingual	Minor
Lachard <sup>5)</sup> (1981)			1	
Schmid <sup>15)</sup> (1982)	21	4		
Takita <sup>6)</sup> (1982)			1	
Hjorth <sup>16)</sup> (1986)	4	1		
Gleeson <sup>7)</sup> (1986)	21	5	1	3
Shinkhani <sup>17)</sup> (1987)	4	1		
Schwarz-Arad <sup>8)</sup> (1987)		1	1	
Cavicchi <sup>18)</sup> (1995)	27	1		
Wolvius <sup>19)</sup> (1996)	14	5		
Shi <sup>20)</sup> (2001)	17	15		
Nakamura <sup>21)</sup> (2006)	2	4		
Kojima <sup>22)</sup> (2007)	22	5		3

**Table. 1.** Reported Lymphomas Arising in Salivary Gland (1981-2007)



められず、嚢胞性病変と類似したエコー像を呈していた。近年血流の検出が可能なカラードブラやパワードブラが搭載された超音波装置が市販され、医療現場で広く使用されている。超音波ドプラ法とは、超音波を利用して血流動態、血流速度をBモード画像上に色のついたマッピングで表現する手法で、色の付いた領域の広さで血流が生じた領域を示す。パワードブラはカラードブラよりも細かい血管を走行の欠損なく映像化できる。われわれもパワードブラを頭頸部領域の疾患の検査に日常多用している。本症例においてもパワードブラを使用して精査を行ったところ、病変内部に不規則で著明な血流信号が検出された。腫瘍は嚢胞と異なり、内部に血管を新生させる性質を持ち正常組織よりも血流の亢進が認められる。今回の症例において、パワードブラにより内部に血流が確認されたことから嚢胞の可能性は否定され腫瘍性であると確定した。舌下腺には唾液腺由来のあらゆる腫瘍が発生するが、その80%は悪性腫瘍であるとされている<sup>13)</sup>。以上の理由より本疾患は舌下腺由来の悪性腫瘍である可能性が高いと考えた。画像検査後、生検を施行したところ病理組織学的にはdiffuse large B-cell lymphomaであった。節外性悪性リンパ腫は上皮-リンパ系(mucosa associated lymphoid tissue, MALT)が原発となる。舌下部でMALTが存在するのは舌下腺のみであるため、本疾患は舌下腺原発の悪性リンパ腫と診断され、われわれが超音波画像から下した判断は正しかった。今回の結果より舌下腺の腫瘍性病変に対して嚢胞と腫瘍の判別に迷った場合、パワードブラによる血流の検出が診断に有用で、腫瘍であると判定した場合、悪性を疑う必要があることが示唆された。

古川は<sup>14)</sup>節性悪性リンパ腫は超音波画像で多数の著明な腫大リンパ節が折り重なる特徴的像を示し、パワードブラでは門部の血流は保たれていると報告している。しかし節外性悪性リンパ腫の血流の特徴についての検討を行った研究報告は見られない。稀少であり困難であると思われるが、今後は唾液腺に原発する節外性悪性

リンパ腫の腫瘍内部に検出される血流形態をパワードブラを用いて調べその特徴について検討したい。

## 結 語

今回われわれは舌下腺に原発した悪性リンパ腫で超音波パワードブラ法が診断に有効であった一例を経験したので報告した。

本論文の要旨は第7回アジア口腔顔面放射線会議・第13回日本歯科放射線学会臨床画像大会(2008年11月22日、奈良)で発表した。

## 文 献

- 1) Desai, P.B., Meher-Homji D.R., and Paymaster J.C.: Malignant lymphomas a clinical study of 800 Indian patients, *Cancer*, 18: 25-33, 1965.
- 2) 戸塚靖則, 富田喜内: 顎, 口腔領域に生じた悪性リンパ腫の14症例について, *日口外誌*, 25, 631-643, 1979.
- 3) 黒崎喜久: 悪性リンパ腫 up date 4. 部位別画像診断 リンパ節以外の頭頸部, *臨床放射線*, 46: 1168-1173, 2001.
- 4) Tillman, H.H., Malignant lymphomas involving the oral cavity and surrounding structures, *Oral Surg.*, 19, 60-72, 1965.
- 5) Lachard, J., Carcassonnet, Y., Venault, M. B., Horshowski, M. N., Rakotobe, P. and Le Retraite, M. G.: Primary lymphoma of the sublingual gland. A case report, *Rev. Stomatol. Chir. maxillofac*, 82: 3-6, 1981.
- 6) 滝田正亮, 菅原利夫, 川本知雄, 平山実, 町谷卓男, 墨哲郎, 林毅, 作田正義: 舌下腺に原発した悪性リンパ腫の1症例, *阪大歯学雑誌*, 30: 365-373, 1985.
- 7) Gleeson, M.J., Bennett, M.H., and Cawson, R.A.: Lymphomas of salivary glands, *Cancer*, 58: 699-704, 1986.
- 8) Schwartz-Arad, D., Azaz, B. and Shteter, A. : Malignant lymphoma arising in the submandibular and sublingual salivary glands: Report of cases, *J. Oral Maxillofac. Surg.*, 45: 795-799, 1987.
- 9) 三輪邦弘, 湯浅賢治, 米津康一, 神田重信, 樋口勝規, 篠原正徳: 唾液腺腫瘍に対する超音波診断法の診断精度, *口科誌*, 44: 240-244, 1995.
- 10) 東海林理, 白倉義之, 小豆嶋正典, 坂巻公男: 超音波パワードブラ法を用いた転移性頸部リンパ節の血流の評価, *歯科放射線*, 38: 250-257, 1998.
- 11) 吉野正: 悪性リンパ腫の病理診断: WHOの分類と頭頸部悪性リンパ腫の特徴, *頭頸部癌*, 30: 340-346, 2004.
- 12) Yasumoto, M., Yoshimura, R., Sunaba, K. and



- Shibuya, H.: Sonographic appearances of malignant lymphoma of the salivary glands, *J. Clin. Ultrasound*, 29: 491-498, 2001.
- 13) Harnsberger, H. R., Davidson, H. C., Wiggins, R. H., Macdonald, A. J., Hudgins, P. A., Glastonbury, C. M., Michel, M. A. Cure, J. K., Swartz, J. and Branstetter IV, B.: Diagnostic imaging head and neck -Part III Suprahyoid & infra hyoid neck Section 4: Oral cavity, Amirsys Co., Salt Lake City, pp4-49, 2004.
- 14) 古川まどか: マルチモダリティによる Head & Neck Imaging 2007 [臨床編] 日常臨床における戦略と選択 X. 頸部骨軟部組織・リンパ節 2 頸部リンパ節疾患における画像診断-超音波検査の現況, 今後の展望とエラストグラフィの有用性-, *INNERVISION*, 22: 69-74, 2007.
- 15) Schmid, U., Helbron, D., and Lennert, K., Primary malignant lymphomas localized in salivary glands, *Histopathology*, 6: 673-687, 1982.
- 16) Hjorth, L., Dommerby, H., Kruse, S. and Nielsen, A.: Primary Malignant lymphoma of the salivary glands, *Tumori*, 72: 491-497, 1986.
- 17) Shikhani, A., Samara, M., Allam, C., Salem, P. and Lenhard, R.: Primary lymphoma in the salivary glands: Report of five cases and review of the literature, *Laryngoscope*, 97: 1438-1442, 1987.
- 18) Cavicchi, O., Tesel, F., Sorrenti, G., Pari, M., Ciuffolotti, R., Denaro, G., Modugno, G.C. and Rinaldi Ceroni, A., Non-Hodgkin lymphomas of the salivary gland: Analysis of prognostic factors in 28 cases, *Acta Otorhinolarygol. Ital.*, 15: 368-374, 1995.
- 19) Wolvius, E. B., van der Volk, P., van der Wal, J. E., van Diest, P. J., Huijgens, P. C., van der Waal, I. and Snow, G. B., Primary Non-Hodgkin's lymphoma of the salivary glands. An analysis of 22 cases, *J. Oral Pathol. Med.*, 25: 177-181, 1996.
- 20) Shi, Q., Zhang, T., Xue, Q., Fan, K., Sun, G., Yan, X., Shou, B. and Yu, B., Clinicopathologic study of mucosa-associated lymphoid tissue lymphoma of the salivary gland, *Chin. Med. J.*, 114: 44-7, 2001.
- 21) Nakamura, S., Ichimura, K., Sato, Y., Nakamura, S., Nakamine, H., Inagaki, H., Sadahira, Y., Ohshima, K., Sakurada, S., Kondo, E., Yanai, H., Ohara, N. and Yoshino, T.: Follicular lymphoma frequently originates in the salivary gland, *Pathol. Int.*, 26: 576-583, 2006.
- 22) Kojima, M., Shimizu, K., Nishikawa, M., Tamaki, Y., Ito, H., Tsukamoto, N. and Masakawa, N.: Primary salivary gland lymphoma among Japanese: A clinicopathological study of 30 cases, *Leuk. Lymphoma*, 48: 1793-1798, 2007.