

外耳道耳垢腺腫の1例

浅山 理恵* 有友 宏 上田 哲平
篠森 裕介

要 旨

外耳道に発生する腫瘍は稀であり、外来にて遭遇する頻度は総外来患者の0.05%といわれている¹⁾。また、外耳道は皮膚の一部であるため、あらゆる皮膚腫瘍が発生する可能性があり、さまざまな組織型の腫瘍が報告されている。なかんずく耳垢腺腫は外耳道の耳垢腺から発生する外耳道に特異的な良性腫瘍であり、多彩な組織所見を呈する。今回我々は、外耳道嚢胞と診断され、穿刺吸引処置を繰り返されていた症例に対して、外耳道嚢胞摘出術を行い、耳垢腺腫と診断された1例を経験したため報告する。

症 例

症 例：64歳，女性

主 訴：右難聴

現病歴：201X年右耳の耳閉感と難聴を主訴に近医耳鼻咽喉科を受診し、右外耳道嚢胞と診断された。穿刺吸引にて症状は改善するがその後徐々に悪化するため、半年に1回程度穿刺吸引処置を行っていた。穿刺時には茶色の漿液性貯留液を1～1.5 ml程度吸引されていた。一度手術を勧められ総合病院耳鼻咽喉科を紹介され受診したが、穿刺吸引処置のみで経過観察となった。再度手術を勧められ、201X+5年に当科を受診した。

既往歴：右下肢静脈血栓症，大腸ポリープ

家族歴：特記事項なし

初診時所見：右外耳道後壁に嚢胞状の腫瘍を認めた (Fig. 1A)。腫瘍を穿刺すると褐色の漿液を0.7 ml程度吸引できた (Fig. 1B)。腫瘍より深部は鼓

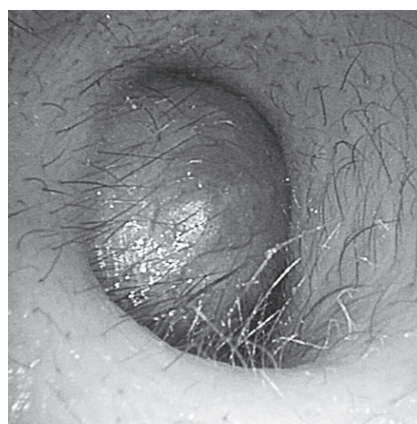


Fig. 1A 初診時所見
右外耳道後壁に嚢胞状の腫瘍を認めた。

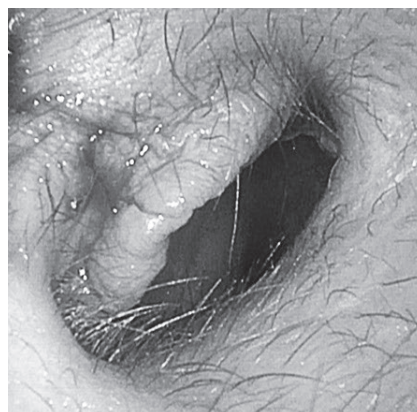


Fig. 1B 穿刺後
腫瘍を穿刺すると褐色の漿液を吸引できた。

*松山赤十字病院 耳鼻咽喉科

膜を含め異常を認めなかった (Fig. 1C). 顔面神経麻痺も認めなかった.

聴力検査: 右気導閾値 15 dB, 左気導閾値 6.25 dB (4分法平均) (Fig. 2). 2~8 kHz において右気導閾値上昇を認めた.

側頭骨 CT: 外耳道入口部に 2 cm 大の軟部腫瘤を認めた. 骨破壊像はなく, 乳突蜂巣の発育・含気は良好であった (Fig. 3).

頭部 MRI: 外耳道入口部に T1 強調画像で低信号, T2 強調画像で高信号の境界明瞭な腫瘤像を認め, 内部の信号は均一であった (Fig. 4).



Fig. 1C 鼓膜所見

腫瘤より深部は鼓膜を含め異常を認めなかった.

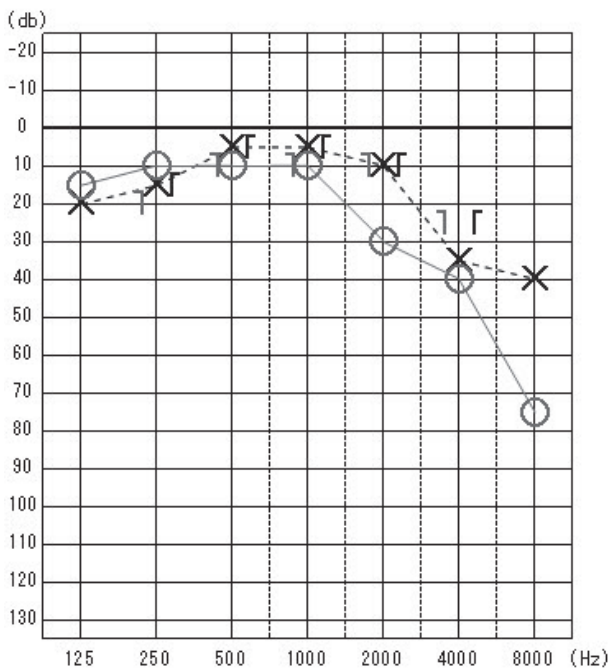


Fig. 2 聴力検査 (嚢胞穿刺前)

2~8 kHz において右気導閾値上昇を認めた.

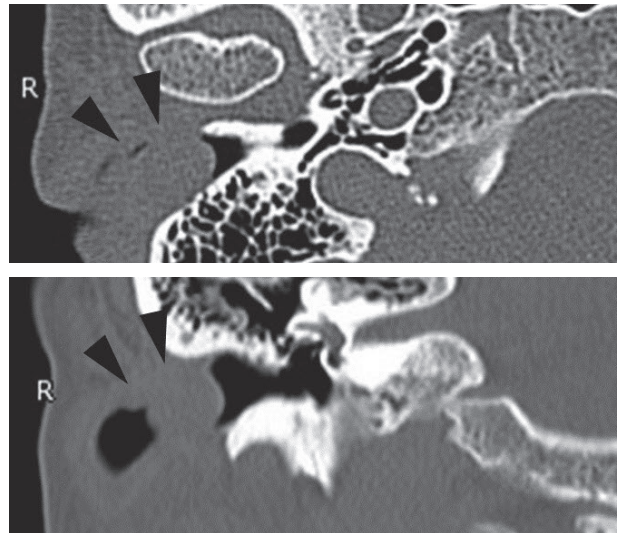


Fig. 3 側頭骨 CT

(上: 軸位断, 下: 冠状断, 矢頭: 腫瘤)
外耳道入口部に 2 cm 大の軟部腫瘤を認めた.

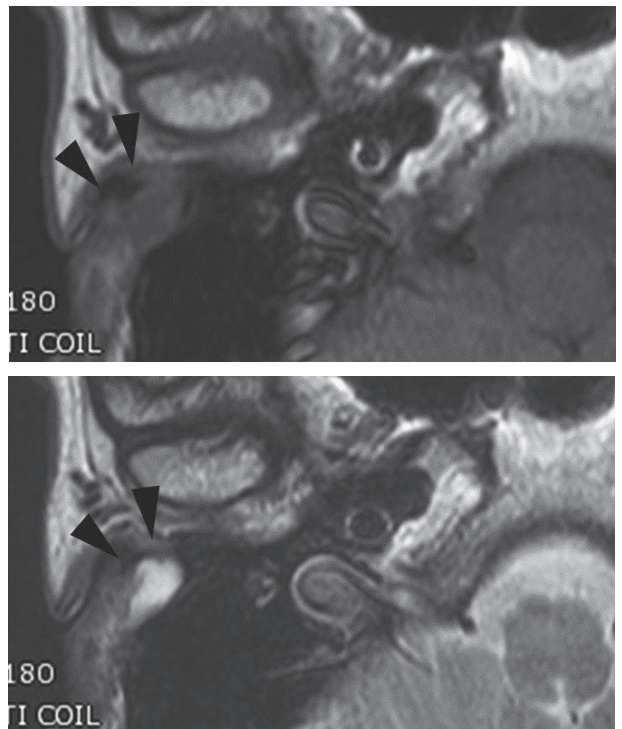


Fig. 4 頭部 MRI

(軸位断 上: T1 強調像, 下: T2 強調像, 矢頭: 腫瘤)
外耳道入口部に T1 強調画像で低信号, T2 強調画像で高信号の境界明瞭な腫瘤像を認めた.

治療経過: 難治性の嚢胞であり, 腫瘍の可能性も否定できなかったため, 診断と治療目的で 201X + 6年8月右外耳道嚢胞摘出術を施行した. 嚢胞は軟骨部外耳道から骨部外耳道にかけて存在した. 右耳後部切開にて外耳道皮膚を剝離挙上し, 皮下から嚢

胞へアプローチした。皮膚が嚢胞と癒着し剝離困難であったため、嚢胞辺縁で正常皮膚を切断し、嚢胞を耳後部へ引き抜いて摘出した。皮膚欠損は外耳道半周程度であったため側頭筋膜を皮膚欠損部に移植して骨面を被覆し、手術を終了した。摘出標本は、径約1 cm 大の弾性軟の腫瘤であった (Fig. 5)。

病理所見：長径約1 cm の嚢胞性病変であり、組織学的には腺の増生であった。結節部には小型のアポクリン型の腺が密に増生し、腺の一部が高度に拡張して嚢胞性病変を形成していた。腺上皮には断頭分泌像もみられた。また、筋上皮による2層性も保たれており、耳垢腺腫と診断された。悪性を示唆する所見は認められなかった (Fig. 6)。

術後経過：創部の経過は良好で、術後5日目に退院した。術後11ヶ月の時点では、再発なくまた外耳道狭窄を生ずることなく経過している。

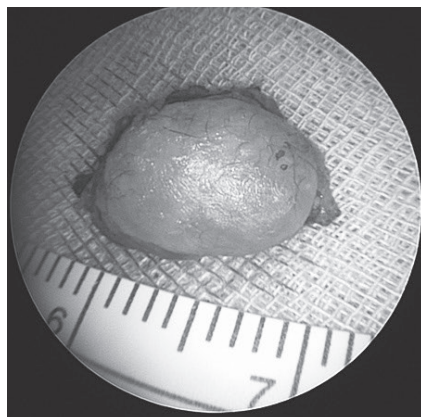


Fig. 5 摘出標本

約1 cm 大の弾性軟の腫瘤。外耳道皮膚が腫瘤表面を覆っている。

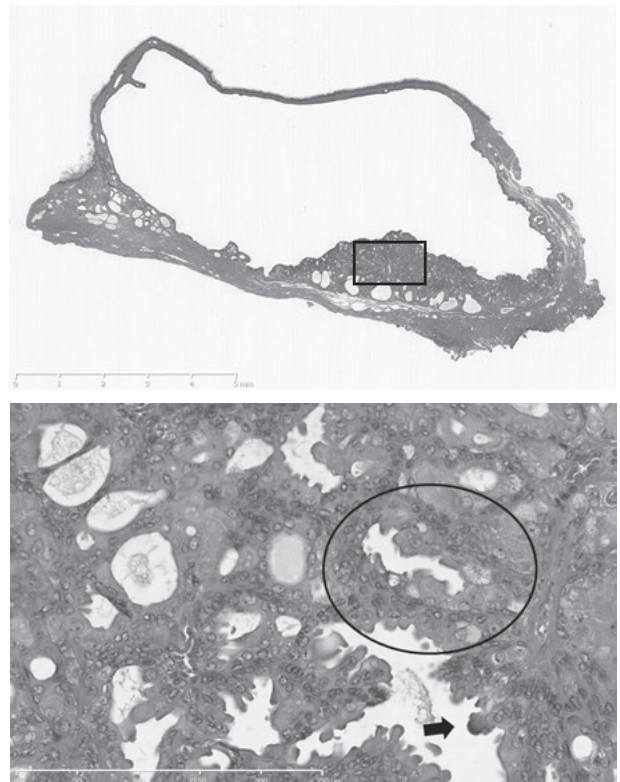


Fig. 6 病理所見(上：全体像、下：□部分の拡大画像、○：2層性、矢印：断頭分泌像)
長径約1 cm の嚢胞性病変。腺上皮には断頭分泌像もみられた。また、筋上皮による2層性も保たれていた。

考 察

外耳道の腺組織は軟骨部には皮脂腺と耳垢腺が多数存在し、骨部には後上壁の一部に少数の耳垢腺が存在する²⁾。耳垢腺はアポクリン腺の一種であり、皮脂腺とともに耳垢を形成し外耳道内の免疫に関与している³⁾。耳垢腺由来の外耳道腫瘍は種々の名称で呼ばれていたが1972年 Wetli ら⁴⁾により整理され、1) adenoma, 2) adenocarcinoma, 3) adenoid cystic carcinoma, 4) mixed tumor (pleomorphic adenoma) の4型に分類された。この分類は多くの

Table 1 Ceruminous gland neoplasms

Benign ceruminous adenomas	Ceruminous adenoma
	Ceruminous pleomorphic adenoma
	Ceruminous syringocystadenoma papilliferum
Malignant ceruminous adenocarcinomas	Ceruminous adenocarcinoma
	Ceruminous adenoid cystic carcinoma
	Ceruminous mucoepidermoid carcinoma

文献で用いられてきたが、現在は WHO 分類第 4 版 (2017) で **Table 1** のように分類されている⁵⁾。なお外耳道の腺組織由来の腫瘍は大部分が耳垢腺由来であり、皮脂腺由来のものはきわめてまれである⁶⁾。

耳垢腺腫は直径 1～4 cm の境界明瞭な腫瘤を形成する良性腫瘍で、40-50 代に多い。自験例は女性であったが、男性優位⁷⁾と報告されている。外耳道良性腫瘍の中では色素性母斑、骨腫に次いで多い⁸⁾が、外耳道腫瘍は稀な疾患で、明確な発生頻度は定かではない。症状は無症状、もしくは腫瘤による閉塞程度により伝音難聴、耳痛、耳漏などが認められるが、自発痛を伴う場合や出血を伴う場合には悪性腫瘍の鑑別を考慮する必要がある。発生部位は、耳垢腺が多い軟骨部がほとんどであるが、骨部も報告⁹⁾されている。自験例では骨部に一部かかっていたものの大部分は軟骨部にあり、軟骨部発生と考えられた。

腫瘍の性状は表面平滑な軟らかい腫瘤とされるが、まれに疣贅状の硬い腫瘤もある³⁾。耳垢腺由来の腺腫は他の部位の apocrine hidradenoma と同様に嚢胞状または乳頭状の変化がみられ⁴⁾¹⁰⁾、自験例も嚢胞状であった。外耳道の腫瘤形成性病変のうち、嚢胞を形成するものとしては皮様嚢胞、粉瘤腫、貯留嚢胞、混合腫瘍が報告されている¹¹⁾。自験例では貯留液が漿液性であったことから腫瘍が疑われた。経過からは良性腫瘍が疑われたが、耳垢腺に由来する腫瘍の報告は悪性のものも多い。悪性の場合には予後不良であり、再発転移の報告も多い¹²⁾ため、嚢胞を形成する可能性のある粘表皮癌等も考慮する必要があった。神経障害の症状や画像検査での骨破壊像等が見られれば悪性腫瘍を疑うことは容易ではあるが、耳垢腺由来の腫瘍は良性悪性を問わず、臨床的所見が類似していることが多い。診断は病理組織学的に行われる。また、良性悪性いずれも組織学的特徴が重なる部分が多く、少量の生検組織では正確な診断に至らない場合があるため、周囲の正常組織をつけてできるだけ大きく組織をとる必要がある³⁾¹³⁾。自験例では周囲正常皮膚を含め一塊として摘出できたため、診断は速やかに行うことができた。耳垢腺腫の病理学的な特徴¹⁴⁾として、腫瘍内に正常な耳垢腺と同様の 2 層性上皮細胞がみられ、内側に

は oxyphilic columnar layer 外側に myoepithelial layer が存在すること、腺腔内に断頭分泌像がみられること、がある。断頭分泌像とは、アポクリン腺分化に特異な所見の 1 つであり、正常アポクリン腺分泌部にもみられ、分泌細胞の上極から管腔内へ細胞質が突出するような所見である。自験例でもこれらの所見を確認し診断に至った。

治療は完全摘出につきるが、診断のためにも周囲正常組織を含める事がすすめられる。自験例では円周方向の皮膚欠損が半周程度であったため筋膜でカバーし特に問題はなかったが、皮膚欠損が大きい場合は術後外耳道狭窄を生ずる恐れがあり、植皮や有茎皮弁を考慮する必要がある¹⁵⁾。耳垢腺腫の再発例は、Johnstone らの報告¹⁶⁾があるのみで、予後は良好であると考えられる。

耳垢腺由来の腫瘍は組織学的な多様性が高く、細胞診や少量の生検組織では組織型や良性・悪性の鑑別が困難なことが多い¹³⁾。自験例も難治性の嚢胞であり、悪性の可能性も否定できなかったため完全摘出を行い、良好な経過を得られた。漿液性貯留液をとまなう外耳道腫瘍は腫瘍の可能性が高く、嚢胞に対して、安易に吸引処置の治療を行うのではなく、診断の目的にも外科的治療を行うことが重要だと考えた。

文 献

- 1) 榎谷治彦ほか：外耳道良性腫瘍 10 例について。耳喉 **58** : 285-289, 1986.
- 2) Anson B. J. and Donaldson J. A.: Surgical anatomy of the temporal bone. Saunders, Philadelphia, 3rd ed., 280-281, 1981.
- 3) Nagarajan P.: Ceruminous Neoplasms of the Ear. Head Neck Pathology, **12**: 350-361, 2018.
- 4) Wetli C. V. *et al.*: Tumors of ceruminous glands. Cancer **29**: 1169-1178, 1972.
- 5) Adel K. El-Naggar *et al.*: WHO Classification of Head and Neck Tumours. International Agency for Research on Cancer, France, 4th ed., 263-265, 2017.
- 6) El Demellawy D. *et al.*: Sebaceoma of the External Ear Canal: An Unusual Location. Case Report and Review of the Literature. Journal of Cutaneous Pathology **35**: 963-966, 2008.
- 7) Thompson L. D. *et al.*: Ceruminous adenomas: a clinicopathologic study of 41 cases with a review of the

- literature. *Am J Surg Pathol.* **28**: 308-318, 2004.
- 8) 内田利男, 高川直樹: 外耳道良性腫瘍3症例-263例の検討-. *耳喉頭頸* **60**: 753-756, 1988.
- 9) 田淵圭作ほか: 骨部外耳道 Ceruminous adenoma の1例. *耳鼻臨床* **79**: 225-231, 1986.
- 10) Mehregan A.H.: Apocrine cystadenoma. *Arch Dermatol* **90**: 274-279, 1964.
- 11) 金子 寛ほか: 外耳道良性腫瘍11例, 並に本邦に於けるその統計的観察. *北関東医学* **18**: 257-274, 1968.
- 12) Crain N. *et al.*: Ceruminous Gland Carcinomas: A Clinicopathologic and Immunophenotypic Study of 17 Cases. *Head Neck Pathol.* **3**: 1-17, 2009.
- 13) 大谷 巖: 外耳道良性腫瘍の診断と治療. *JOHNS* **14**: 1080-1085, 1998.
- 14) 寺嶋正治, 宮国泰明: 耳垢腺腫の2例-Ceruminous adenoma および apocrine hidrocystoma-. *耳鼻と臨床* **34**: 972-977, 1988.
- 15) 假谷 伸ほか: 外耳道扁平上皮癌との鑑別が困難であった外耳道耳垢腺腫の1例. *Otol Jpn* **22**: 36-39, 2012.
- 16) Johnstone J.M. *et al.*: Five cases of hidradenoma of the external auditory meatus: so-called ceruminoma. *J Pathol Bacteriol* **73**: 421-427, 1957.

A case of ceruminous adenoma in the external ear canal

Rie ASAYAMA*, Hiroshi ARITOMO, Teppei KAMINOTA and Yusuke SHINOMORI

*Department of Otolaryngology, Matsuyama Red Cross Hospital

Tumors are rare in the external auditory canal. As any skin tumor can occur in the external auditory canal, various histological types of tumor have been reported. Ceruminous adenoma is a benign tumor specific to the external auditory canal that arises from the ceruminous glands of the external auditory canal and has a variety of histological findings. In this study, we report a case of ceruminous adenoma, which had been repeatedly aspirated in the outpatient clinic as an external auditory canal cyst.

We present a case of a 64-year-old woman. In 201X, she was seen by a local doctor of otolaryngology for ear closure and hearing loss in her right ear. She was diagnosed with a right external auditory canal cyst. Her symptoms improved with puncture and aspiration but then gradually worsened. She needed treatment of a puncture and aspiration once every 6 months. At the time of puncture, about 1 to 1.5 mL of brown serous effusion was aspirated. She was referred to a general hospital otolaryngology department for surgery, but she did not undergo surgery. So, she was followed up with only a puncture and aspiration. She was recommended surgery again and visited our hospital with a complaint of right hearing loss in 201X+5. At the first medical examination, a cystic mass was found on the posterior wall of the right external auditory canal. As the cyst was refractory and the possibility of malignant tumor could not be ruled out, a right external auditory canal cystectomy was performed in August 201X+6. Pathological diagnosis was ceruminous adenoma. There were no findings suggesting malignancy.

The glandular tissue of the external ear canal has numerous sebaceous and ceruminous glands in the cartilaginous portion. Ceruminous glands, which are a type of apocrine gland located primarily in the external auditory canal, and sebaceous glands form the cerumen, and are related to the immunity of the external ear canal.

The ceruminous adenoma is a benign tumor arising from ceruminous gland in the external auditory canal and has various histological findings. Pathological diagnosis is difficult with partial, small fragmented specimens. Therefore, excisional biopsy with unaffected tissue rim is necessary. The treatment is complete surgical excision with negative margin. Complete excision should have a good prognosis without recurrence.

It is important to manage external auditory canal cysts surgically for diagnosis and treatment, instead of treating them with a puncture and aspiration.