症例報告

外傷を転機に発生した顎下部石灰化上皮腫の1例

鈴木 晋也 竹本 隆 石田 洋一*
稲本 浩 亀山 洋一郎**

抄録: 外傷を転機に発生した顎下部石灰化上皮腫の1例を報告する。患者は56歳男性で、転倒した際、杖にて右側顎下部を強打し、受傷後約1か月の時点で当科に来院した。初診時、右側顎下部の皮下硬結、軽度腫脹および圧痛を認めた。顎下部腫瘍を疑い、腫瘍摘出術を施行した。病理組織学的所見では島状に散在する上皮細胞を認め、上皮細胞には好塩基性細胞と好酸性の陰影細胞がみられた。免疫組織化学分析において陰影細胞に陽性所見を認め、石灰化上皮腫の確定診断を得た。

キーワード: 石灰化上皮腫, 外傷, 陰影細胞

緒言

石灰化上皮腫は毛母細胞類似の細胞から発生し、石灰沈着を特徴とする良性腫瘍で、上肢、顔面、頸部の皮下に好発することが知られている。しかし、外科ならびに皮膚科領域で扱われることが多く、口腔外科領域での報告は比較的少ない。今回われわれは外傷を転機に発生した顎下部石灰化上皮腫の1例を経験したのでその概要を報告する。

症例

患者: 56歳, 男性。

初診: 2000年12月26日。

主訴: 右側顎下部腫脹。

家族歴: 特記事項なし。

既往歴: パーキンソン病にて神経内科療養中。

現病歴: 2000年11月末頃に転倒した際、杖にて右側顎下部を強打し、その後より同部の腫脹を自覚した。症状改善を認めないため近在歯科を受診したところ、口腔外科での精査を勧められ、同医の紹介により多治見市民病院歯科口腔外科に来院した。

現症:

口腔外所見: 右側顎下部に小指頭大の皮下硬結、軽度腫脹および圧痛を認めるものの、病変部表面の皮膚は正常色であった。

口腔内所見: 特に異常は認めなかった。

X線所見: 回転パノラマX線写真においては病変部に石灰化を示す所見はみられなかった。CT写真においては右側顎下部皮下から広頸筋直下および顎下腺前方部にいたる内部不均一な high density area を認めた(写真1)。

臨床診断: 外傷による炎症性疾患、顎下部腫瘍の疑い

処置および経過: まずはじめに患者の現病歴を重要視し、外傷による炎症性疾患を疑い、抗菌薬による化学療法を施行した。しかし、症状の改善はみられず、皮膚の発赤、皮膚硬結部の増大傾向がみられた(写真2)。

そこで、炎症を合併した顎下部腫瘍と診断し、2001年2月26日、全身麻酔下に生検をかねた腫瘍全摘出術を施行した。術中所見として、顎下腺との癒着、連続性は認めなかったが、皮膚および周囲の皮下組織とは広範囲に癒着を認めたため、正常脂肪組織を含めて、発赤部皮膚とともに切除摘出した。術後経過は良好で、再発は認められていない。

摘出標本所見: 摘出標本の大きさは20×10×10mmで、硬さは弾性硬、表面は部分的に薄い線維性被膜で被われていた。また、断面は充実性で、灰白色を呈し、腫瘍中からは直径3mm大の石灰化物が認められた(写真3)。

病理組織学的所見: ヘマトキシリンエオジン染色脱灰標本では、上皮細胞間の石灰化物は消失し、そのあとには、無構造な物質が残存していた。上皮細胞は主として、核の消失した陰影細胞 (shadow cell) からなっており、その周囲には多数の異物巨細胞が認められた(写真4, 5)。

石灰化していない部分では、ヘマトキシリンに染まる細胞はまだ角化傾向を示さず、エオジンに染まっている細胞は角化傾向を示し、すでに核が消失して陰影細胞になっていた(写真6)。

多治見市民病院歯科口腔外科 (主任: 稲本 浩部長)

* 公立陶生病院歯科口腔外科 (主任: 神谷祐二部長)

** 愛知学院大学歯学部病理学講座 (主任: 亀山洋一郎教授)

〔受付: 2004年9月30日, 受理: 2004年11月10日〕

写真 1 CT 写真 (水平断)

右側顎下部皮下から広頸筋直下方向へ内部不均一な high density area を認める (矢印)。

写真 4 病理組織像 (H-E 染色, ×10)

脱灰標本において、上皮細胞間の石灰化物は消失し、無構造な物質の残存を認める。上皮細胞は主として、陰影細胞からなっている (矢印)。

写真 2 右側顎下部写真
皮膚の発赤を認める (矢印)。

写真 5 病理組織像 (H-E 染色, ×50)

陰影細胞の周囲に多数の異物巨細胞を認める (矢印)
a: 陰影細胞 矢印 b: 異物巨細胞。

写真 3 摘出標本 (断面)
腫瘍中に石灰化物を認める (矢印)。

写真 6 病理組織像 (H-E 染色, ×50)

非石灰化部では、角化傾向を示していない好塩基性細胞を認める (矢印)。

写真 7 病理組織像（コンゴレッド染色 ×25）
陰影細胞が陽性に染色されている（矢印）。

写真 9 免疫組織化学染色像（サイトケラチン19 ×25）
陰影細胞および移行細胞層に陽性所見を認める（矢印）。

写真 8 病理組織像（チオフラビン T 染色 ×25）
陰影細胞が陽性に染色されている（矢印）。

写真 10 免疫組織化学染色像（インボルクリン ×25）
陰影細胞に陽性所見を認める（矢印）。

コンゴレッド染色，チオフラビン T 染色では，陰影細胞に陽性所見を認めた（写真 7, 8）。また，サイトケラチン 19，インボルクリンの免疫組織化学染色においても，陰影細胞に陽性所見を認めた（写真 9, 10）。

病理組織学的診断：石灰化上皮腫

考 察

石灰化上皮腫は，真皮と皮下組織の間，あるいは皮下組織中に生じる良性腫瘍¹⁾で，通常，単発性で若年者に多く，また比較的女性に多いとされている。

われわれが渉猟し得た本邦における口腔外科領域での報告は，耳周囲（耳前部，耳下部，耳下腺咬筋部，下顎角部，頬部を含む）32 例，頸部（本症例を含む）9 例，眉毛部 1 例，計 42 例あり²⁻⁹⁾，そのうち 20 歳代までが 24 例を占めていた。また男女比は 1 : 2.29 で女性に多い傾向がみられ

た。

本腫瘍の臨床症状は，定型的な例では正常皮膚に覆われ，骨様硬の皮下腫瘍として認められる。しかし，皮膚が自潰した症例¹⁰⁾や水疱形成のみられた症例¹¹⁾，本症例のように発赤のみられるものもあり，皮膚症状は多種多様である。

本腫瘍の発生原因の詳細は不明であるが，誘因として外傷との関連が過去に報告されている。Forbis ら¹²⁾は 228 例中 23 例に発生部位に外傷既往があったと述べており，山際ら¹³⁾は注射後に発生した 2 例，大塚ら¹⁴⁾は打撲に関連した 1 例を報告している。本症例においても打撲既往があったことから，その治癒過程で腫瘍性変化が生じたと推測された。また，近年，遺伝性疾患である筋緊張性ジストロフィーとの関連性も注目されている¹⁵⁻¹⁷⁾。金久ら¹⁵⁾によると筋緊張性ジストロフィーを合併した石灰化上皮腫症例は男性に多く，多発性であり，頭頸部に多いと報告して

いる。Harper¹⁶⁾は、石灰化上皮腫は筋緊張性ジストロフィーの pleiotropic effect であろうと推論している。自験例では筋緊張性ジストロフィーの合併はなかった。

病理組織学的特徴として、本腫瘍は、一般に陳旧性になるに従い陰影細胞の周囲に石灰化が多くみられるといわれる。また、周囲結合組織に異物反応として慢性炎症反応がみられ、異物巨細胞が出現する場合もある。本症例においては、腫瘍中に占める石灰化の割合が少なかったことから、発生後まもない腫瘍であることが推測された。また、多数の異物巨細胞を認めたことから慢性炎症を合併した腫瘍であることも裏付けられた。

免疫組織化学的所見では、角化マーカーであるサイトケラチン 19、インボルクリンに陽性反応を示し、当病変が上皮由来の角化性疾患であることが示唆された。

本腫瘍の石灰化沈着の機序についてはいまだ不明な点が多いが、一般に腫瘍実質細胞の壊死に伴う変化である⁹⁾といわれる。自験例では陰影細胞にコンゴレッド陽性、チオフラビン T 陽性所見を認めたことから、アミロイド様物質が石灰化前駆物質であったと考えられた。

本腫瘍と鑑別を要する疾患としては、粉瘤、リンパ節炎、唾液腺腫瘍、限局した膿瘍などが挙げられる。診断は、典型的な症例では臨床症状および X 線像より比較的容易といわれるが、自験例のように、X 線で石灰化物を認めない場合、発生部位が顎下部である場合には、診断に苦慮すると思われる。今後、顎下部腫瘍の診断にあたっては、筋緊張性ジストロフィー合併の有無を含め、石灰化上皮腫も念頭におくべきであると考えられた。

処置については一般に摘出で十分とされているが、本症は皮膚付属器官の毛母細胞由来といわれているので、自験例のように皮膚と癒着している場合には、皮膚も含めて切除摘出する必要があると考えられた。

本論文の要旨は、第44回日本口腔科学会中部地方分会（平成13年9月29日）にて発表した。

文 献

- 1) 北村包彦編：臨床皮膚科全書 4. 第1版，金原出版，東京：79，1969.
- 2) 倉地洋一，坂巻秀明，真鍋真一，他：頬部に発生した石灰化上皮腫の1例．日口外誌 35：2176-2182，1989.
- 3) 鎌倉慎治，佐藤隆吉，藤田 靖，他：右側耳介下部に発生した石灰化上皮腫の1例．日口外誌 37：1002-1006，1991.
- 4) 長谷川秀行，松崎佳子：左頬部石灰化上皮腫の1例．日口外誌 38：699-700，1992.
- 5) 高野美貴子，富永和宏，古澤博久，他：耳下腺咬筋部に発生した石灰化上皮腫の2例．日口外誌 39：1356-1358，1993.
- 6) 塚本剛一，佐々木朗，村松智弘：急速に増大した耳下腺咬筋部石灰化上皮腫の1例．日口外誌 40：215-217，1994.
- 7) 谷口誠治，新美 敦，平松善之，他：下顎角部皮下組織に発生した石灰化上皮腫の2例．日口外誌 40：1299-1301，1994.
- 8) 西村則彦，飯田征二，竹田宗弘，他：耳介周囲に発生した石灰化上皮腫の2例．日口外誌 42：693-695，1996.
- 9) Yoshimura Y, Obara S, Mikami T: Calcifying epithelioma (pilomatrixoma) of the head and neck: analysis of 37 cases. Br J Oral Maxillofac Surg 35: 429-432, 1997.
- 10) 新妻 寛，秋山まりこ：石灰化上皮腫．皮膚科の臨床 8：206-212，1966.
- 11) 中村絹代：水疱様外観を呈した石灰化表皮腫．臨皮 29：947-950，1975.
- 12) Forbis R and Helwig EB: Pilomatrixoma (Calcifying epithelioma). Arch Dermatol 83: 606-618, 1961.
- 13) 山際裕史，吉村 平：皮膚石灰化上皮腫．外科 42：272-275，1980.
- 14) 大塚 寿，塩谷信幸：Calcifying epithelioma の臨床像について．形成外科 16：447-452，1961.
- 15) 金久禎秀，小野哲也：多発性石灰化上皮腫を合併した筋緊張性ジストロフィーの1例，症例報告と文献的考察．広島医学 43：1795-1798，1990.
- 16) Harper PS: Calcifying epithelioma of Malherbe. Association with myotonic muscular dystrophy. Arch Dermatol 106: 41-44, 1972.
- 17) Geh JL, Moss AL: Multiple pilomatrixomata and myotonic dystrophy. Br J Plastic Surg 52: 143-145, 1999.

別冊請求先：鈴木晋也 〒489-8642 愛知県瀬戸市西追分町 160
公立陶生病院歯科口腔外科

A Case of Calcifying Epithelioma due to Traumatic Injury in the Submandibular Region

Shinya SUZUKI, Takashi TAKEMOTO, Yoichi ISHIDA*,
Hiroshi INAMOTO, and Yoichiro KAMEYAMA**

*Department of Oral and Maxillofacial Surgery,
Tajimi Municipal Hospital
(Chief : Dr. Hiroshi INAMOTO)*

**Department of Oral and Maxillofacial Surgery,
Tosei General Hospital
(Chief : Dr. Yuji KAMIYA)*

***Department of Pathology, School of Dentistry,
Aichi-Gakuin University
(Chief : Prof. Yoichiro KAMEYAMA)*

J. Jpn. Oral Muc. Membr., 10 : 36~40, 2004

Abstract : A case of calcifying epithelioma in the submandibular region, caused by traumatic injury, is presented. A 56-year-old man was referred to our department about one month after bruising his right submandibular region with his stick. The lesion with subcutaneous induration was swollen and produced oppressive pain. We were confident that the lesion was a tumor, which was excised. Histopathologically, it was composed of nests or masses of shadow cells and basophilic cells.

Immunohistochemical analysis showed a positive reaction in shadow cells. The histopathological diagnosis was calcifying epithelioma.

Key words : calcifying epithelioma, traumatic injury, shadow cell

Reprint requests to Shinya SUZUKI, Department of Dentistry, Oral and Maxillofacial Surgery, Tajimi Municipal Hospital, 3-43, Maehata-cho, Tajimi-city, Gifu 507-8511, Japan.

[Received September 30, 2003 : Accepted November 10, 2004]