舌下腺に発生した多形腺腫の一例

太田之博¹⁾・木村哲雄¹⁾・小牧誠史²⁾
原田丈司¹⁾・小林千恵¹⁾

A case of pleomorphic adenoma in the sublingual gland

OTA Yukihiro¹⁾・KIMURA Tetsuo¹⁾・KOMAKI Masashi²⁾
HARADA Takeshi¹⁾・KOBAYASI Chie¹⁾

Abstract: Pleomorphic adenoma is the most common tumor arising in the salivary glands. Most cases of pleomorphic adenoma occur in the parotid gland, followed by the submandibular gland and minor salivary gland. However, pleomorphic adenoma of the sublingual gland is quite rare. One study has reported that only 0.08 % of pleomorphic adenomas occur in the sublingual gland.

We present a case of pleomorphic adenoma in the sublingual gland. A 34-year-old Japanese woman had a swelling localized in the floor of the mouth. We surgically extirpated the tumor under general anesthesia. Pleomorphic adenoma was diagnosed on intraoperative frozen section examination. The tumor was encapsulated and isolated from the surrounding tissues, consistent with the preoperative MRI findings. As of 1 year 9 months after operation, there has been no evidence of recurrence.

Key words: pleomorphic adenoma (多形腺腫), salivary gland tumor (唾液腺腫瘍), sublingual gland (舌下腺)

緒 言

多形腺腫は唾液腺腫瘍のなかで最も発生頻度の高い良性腫瘍で、その発生率は全唾液腺腫瘍の約 60 % 程度といわれている¹⁾。その多くは耳下腺に発生し、ついで顎下腺、口蓋部小唾液腺での発生が多く、舌下腺での発生は極めてまれで 0.08 % との報告もある²⁾。

今回我々は、舌下腺に生じた多形腺腫を経験したので報告する。

症 例

患 者：34 歳，女性。

主 訴：右口底部腫瘍。

初 診：2007 年 11 月。

既往歴，家族歴：特記事項なし。

現病歴：2007 年 7 月頃から右側口底部に無痛性の腫瘍を認めたため、近病院歯科を受診し、精査，加療目的に当科へ紹介受診となった。

現 症：

口腔外所見：顔貌は左右対称，所属頸部リンパ節の腫脹および圧痛は認めなかった。

口腔内所見：右口底部に直径約 1.5cm の境界明瞭，可動性で弾性軟の腫瘍を認めた（写真 1）。自発痛や圧痛はなく右側ワルトン管開口部からの唾液の流出も良好であった。また，舌の運動障害や味覚，知覚異常も認めなかった。

臨床検査所見：異常所見なし。

MRI 所見：右側口底部に T1 強調画像にて低信号，T2 強調画像にて高信号を示す境界明瞭で内部は一部不均一な腫瘍を認めた。また造影 MRI 画像にて被膜様構造物の造影が認められた（写真 2A, B, C）。

臨床診断：右側舌下腺良性腫瘍。

処置および経過：2007 年 11 月 28 日全身麻酔下にて右側舌下腺腫瘍摘出術を行った。術中所見により，腫瘍はワルトン管との癒着を認めず，舌下腺内に存在しており腫瘍周囲の舌下腺を含めて摘出術を行った。術中迅速組織検査

¹⁾ 大阪警察病院歯科口腔外科
(主任：木村哲雄部長)

²⁾ 大阪大学大学院歯学研究科顎口腔病態制御学講座
(口腔外科学第一教室)
(主任：古郷幹彦教授)

¹⁾ Department of Dentistry, Oral and Maxillofacial Surgery,
Osaka Police Hospital (Chief: Dr. KIMURA Tetsuo)

²⁾ The First Department of Oral and Maxillofacial Surgery,
Osaka University, Graduate School of Dentistry (Chief:
Prof. KOGO Mikihiro)

受付日：2008 年 8 月 5 日

採択日：2009 年 7 月 28 日

にて多形腺腫との病理組織診断を得たため追加切除等を行わなかった。現在術後1年9か月が経過しているが再発なく、経過良好である。

摘出標本の肉眼的所見：摘出標本は15×13×11mm大、弾性軟、表面は平滑で被膜を有し舌下腺内に存在していた（写真3）。

病理組織学的所見：腫瘍は薄い線維性被膜で全周を被われており（写真4A）、被膜外への腫瘍細胞の進展は認められなかった（写真4B）。腫瘍は部分的に軟骨様成分を含み、アルシアンブルー染色陽性の粘液腫様の間質を多量に伴っていた（写真4C）。腫瘍細胞の大部分は類円形から紡錘形で、核の偏在傾向のある異型性の乏しい腫瘍性筋上皮細胞が豊富な、間質を伴う網状パターンの増殖を認める像から成り、小嚢胞の形成が認められた（写真4D）。また部分的には好酸性物質を腔内に認める導管上皮細胞と周囲の腫瘍

写真1 初診時口腔内写真
右口底部に直径約1.5cmの境界明瞭、可動性で弾性軟の腫瘤を認めた。

性筋上皮細胞の配列からなる二相構造も認められた（写真4E）。

病理組織学的診断：多形腺腫。

考 察

多形腺腫は全唾液腺腫瘍のなかで最も発現頻度が高い良性腫瘍とされており、その発生率は Armed Forces Institute of Pathology (AFIP)²⁾ は49.0%、坂下ら³⁾ は54.5%、山田ら⁴⁾ は57.1%と報告している。好発部位は耳下腺が最も多く、舌下腺での発生は非常にまれとされている。また、AFIPは12859例の唾液腺腫瘍のうち舌下腺腫瘍は47例(0.4%)で、このうち多形腺腫は10例(0.08%)であり、33例(70%)が悪性腫瘍であった²⁾とも報告している（表1）。本邦における多形腺腫の舌下腺での発生率は井上ら⁵⁾ が102例中1例(0.98%)、坂下ら³⁾ が170例中1例(0.6%)、白川ら⁶⁾ が191例中2例(1.0%)と報告している（表2）。

当科において過去17年間に経験した唾液腺腫瘍68例のうち舌下腺に発生した腫瘍は6例でそのうち多形腺腫は本症例の1例のみであり、その他5例はすべて悪性腫瘍であった（表3）。これはAFIPあるいは本邦での報告例と類似した結果であった。

このように舌下腺腫瘍は、発生頻度が非常に低いにもかかわらず、発現した腫瘍が悪性腫瘍である可能性が非常に高いということが考察される。

唾液腺腫瘍の画像診断としては超音波検査、唾液腺造影、CT、MRI、核医学などが行われているが、最近の画像診断機器の精度向上により超音波、MRIを第一選択として診断を進めていると報告されている⁷⁾。今回は舌下腺腫瘍であ

写真2 MRI画像

- A：T1強調画像にて低信号を示し、内部が一部不均一な境界明瞭な腫瘤を認めた。
- B：T2強調画像にて高信号を示す境界明瞭な腫瘤を認めた。
- C：造影MRI画像にて被膜が造影されていた。

写真3 摘出標本写真
15 × 13 × 11mm 大，弾性軟，表面は平滑で舌下腺内に存在していた。

り解剖学的に超音波検査が困難であったため，MRI による画像診断を行った。池田ら⁸⁾はMRIを撮影し，かつ手術的治療が施行され，病理組織学的診断が下された唾液腺腫瘍105例を検討した結果，辺縁整であり，内部信号不均一を示し，T1強調像で低信号，T2強調像で高信号を示す場合，多形腺腫と診断する必要条件であると報告している。本症例では池田らの必要条件を満たしており，舌下腺良性腫瘍のなかでも多形腺腫の可能性が高いと臨床診断をした。

多形腺腫は周囲組織との境界が比較的明瞭で線維性被膜を有し，癒着も軽度であることから外科的に摘出することが有効な手段とされている⁹⁾。しかし，線維性被膜の外に小結節をつくる可能性や，線維性被膜による被包が不完全なことがあり，可及的に周囲健常組織を含めて摘出する必要性も報告されている¹⁰⁾。本症例では術中迅速組織診断にて多形腺腫との病理組織学的診断を得たため，腫瘍周囲の舌下腺を含めた摘出術を行った。

現在術後1年9か月が経過しており，再発なく経過良好であるが，数十年の経過を経て再発した報告^{10, 11)}や10年経過の後再発し悪性化した報告¹²⁾もあることから今後も注意深く経過観察を行う必要があると考えている。

写真4 病理組織像

- A, B：腫瘍は薄い線維性被膜に全周を被われており，被膜外への腫瘍細胞の進展は認められない（H-E染色 A×10, B×100）。
- C：腫瘍は部分的に軟骨様成分を含み，アルシアンブルー染色陽性の粘液腫様の間質を多量に伴っている（アルシアンブルー染色 ×200）。
- D, E：腫瘍細胞の大部分は類円形から紡錘形の核偏在傾向のある異型性の乏しい腫瘍性筋上皮細胞が豊富な間質を伴う網状パターン増殖する像から成り，小嚢胞の形成が認められる。また部分的に好酸性物質を腔内に認める導管上皮細胞と周囲の腫瘍性筋上皮細胞の配列からなる二相構造も認められる（H-E染色 D×100, E×400）。

表1 Armed Forces Institute of Pathology (AFIP) における多形腺腫の部位別発生率および全唾液腺腫瘍の部位別発生率

	耳下腺	顎下腺	舌下腺	小唾液腺	総数
多形腺腫	4359 (69%)	657 (10%)	10 (0.16%)	1277 (20%)	6303
その他の良性腫瘍	1207	68	4	444	1723
良性腫瘍総数	5566	725	14	1721	8026
悪性腫瘍	2656 (32%)	510 (41%)	33 (70%)	1634 (48%)	4833
良性腫瘍，悪性腫瘍の総数	8222	1235	47	3355	12859

悪性腫瘍の割合(%)は各部位での全唾液腺腫瘍における悪性腫瘍の割合を示す。

表2 本邦における多形腺腫の大唾液腺での部位別発生率

	耳下腺	顎下腺	舌下腺
白川ら (1984) ⁶⁾	114	75	2
坂下ら (1991) ³⁾	128	41	1
内山ら (1995) ¹³⁾	10	10	0
鈴木ら (2006) ⁹⁾	30	14	3
P. Gonzalezら (2007) ¹⁴⁾	14	12	1
山田ら (2006) ⁴⁾	8	2	0
川野ら (2006) ¹⁵⁾	27	9	0
井上ら (2008) ⁵⁾	76	25	1

表3 大阪警察病院歯科口腔外科の全唾液腺腫瘍の部位別発生率 (1991～2007年)

	耳下腺	顎下腺	舌下腺	小唾液腺	総数
多形腺腫	10	4	1	9	24
その他の 良性腫瘍	9	1	0	3	13
良性腫瘍 総数	19	5	1	12	37
悪性腫瘍	5 (21%)	8 (62%)	5 (83%)	13 (52%)	31
総数	24	13	6	25	68

悪性腫瘍の割合 (%) は各部位での全唾液腺腫瘍における悪性腫瘍の割合を示す。

結 語

今回舌下腺に発生した多形腺腫を経験したので若干の文献的考察を加えて報告した。

謝辞

稿を終えるにあたり、病理組織学的に貴重なお指導およびご教示を頂きました大阪警察病院臨床病理科部長、辻本正彦先生に厚く御礼申し上げます。

本論文の要旨は第 39 回日本口腔外科学会近畿地方会 (平成 20 年 6 月, 神戸市) において発表した。

引 用 文 献

- 1) Evan, R.W. and Cruickshank, A.H.: Epithelial Tumors of the Salivary Glands. W.B. Saunders Company, Philadelphia, 1970, p58-76.
- 2) Gary, L. Ellis, Paul, L. Auclair.: Surgical Pathology of the Salivary Glands. Vol 25. W.B. Saunders Company, Philadelphia, 1991, p135-164.
- 3) 坂下英明, 宮田 勝, 他: 唾液腺腫瘍 411 例の病理組織学的検討. 日口誌 2: 284-301 1991.
- 4) 山田慎一, 松尾長光, 他: 唾液腺腫瘍の臨床統計的検討. 日口誌 1: 42-49 2006.
- 5) 井上庸夫, 江口智徳, 他: 大唾液腺腫瘍 198 例の臨床検討. 耳鼻臨床 101: 107-113 2008.
- 6) 白川正順, 藍沢茂雄: 唾液腺腫瘍の臨床病理学的研究—多形性腺腫の組織型と予後との関係を中心にして. 歯科ジャーナル 19: 95-104 1984.
- 7) 小島和行, 服部睦行, 他: 唾液腺病変が疑われたときの画像診断の進め方. INNERVISION 22: 54-57 2007.
- 8) 池田耕土, 岩井 大, 他: 耳下腺多形腺腫の MRI. 耳鼻臨床 89: 479-484 1996.
- 9) 鈴木美保, 道 泰之, 他: 多形性腺腫 104 例の臨床的検討. 口科誌 55: 34-41 2006.
- 10) 川村 康, 高井克憲, 他: 頬粘膜に再発を繰り返した多形性腺腫の 1 例. 日口外誌 33: 432-436 1987.
- 11) Shigematsu, H., Okada, N., et al.: Recurrent myoepithelioma 24 years after removal of a pleomorphic adenoma in the palate. J Oral Diag/Oral Med 19: 187-192 2006.
- 12) 矢郷 香, 朝波惣一郎, 他: 唾液腺腫瘍 56 例の臨床・病理組織学的検討. 口科誌 56: 356-366 2007.
- 13) 内山秀樹, 杉原一正, 他: 多形性腺腫の臨床統計的観察. 口科誌 44: 257-260 1995.
- 14) P. Gonzales, A., Tanaka, A., et al.: Clinicopathological study of epithelial salivary gland neoplasms: retrospective review of 156 cases. J Meikai Dent Med 36: 135-143 2007.
- 15) 川野真太郎, 大部一成, 他: 唾液腺腫瘍 151 例の臨床統計的検討. 日口外誌 52: 393-400 2006.