口蓋に発生した嚢胞腺腫の1例

中 埜 秀 史¹⁾・鈴木 晶 子¹⁾・内 藤 慶 子¹⁾
久保田 崇²⁾・木 村 功³⁾・内 藤 克 美¹⁾

A case of cystadenoma of the palate

NAKANO Hideshi¹⁾・SUZUKI Shoko¹⁾・NAITO Keiko¹⁾
KUBOTA Takashi²⁾・KIMURA Isao³⁾・NAITO Katsumi¹⁾

Abstract: Cystadenoma is a benign salivary gland tumor derived from glandular tissue. It occurs mainly in the ovary and occasionally in the testis and thyroid gland. We report a case of cystadenoma arising in the hard palate of a 40-year-old woman who presented with a swelling in the left side of the palate. The lesion was an elastic soft tumor measuring 20 × 20 mm with a clear border. The clinical diagnosis was a benign salivary gland tumor, and the tumor was resected under general anesthesia. The histopathological diagnosis was cystadenoma. There was no recurrence 1 year after the operation.

Key words: cystadenoma (嚢胞腺腫), benign salivary gland tumor (唾液腺良性腫瘍), glandular system (腺組織), hard palate (硬口蓋)

緒 言

嚢胞腺腫は嚢胞形成が増殖の主体をなす良性腫瘍で、その頻度は全唾液腺腫瘍の1%以下と少ない^{1,2)}。今回われわれは口蓋に発生した嚢胞腺腫の1例を経験したので、概要とともに若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

患 者：40歳，女性。

初 診：2010年1月初旬。

主 訴：口蓋部腫瘍。

既往歴：特記事項なし。

現病歴：明らかな自覚症状は認めなかったが、某歯科医より口蓋部腫瘍の指摘を受け、当科を紹介受診した。

現 症：

全身所見：体格は中程度で、特記すべき異常は認めなかった。

口腔外所見：顔貌左右対称で、所属リンパ節の腫大は認めなかった。

口腔内所見：左側口蓋部に弾性軟で小指頭大の半球状腫瘍を認めた。周囲組織との境界は比較的明瞭で、被覆粘膜は正常粘膜色を呈していた(写真1)。

画像検査所見：CTの軟組織モードでは、左側口蓋部に周囲組織と同程度のCT値を示す腫瘍状病変を認めた。硬組織モードでは、腫瘍状病変周囲の口蓋骨に明らかな骨破壊像は認めなかった(写真2)。

臨床検査所見：生化学を含む血液一般検査および尿検査にて異常値は認めなかった。

臨床診断：口蓋部唾液腺良性腫瘍。

処置および経過：口蓋部唾液腺良性腫瘍の臨床診断で、2010年2月に全身麻酔下にて腫瘍切除術を施行した。腫瘍に隣接する被覆粘膜ならびに骨膜は切除側に付して腫瘍を一塊として切除した。なお、腫瘍直下の骨膜は口蓋骨から剥離は容易であった。腫瘍切除に伴う露出骨面に対しては真皮欠損用グラフト(ペルナック®)を貼付し、縫合により固定した。現在術後1年を経過しているが、再発は認めない。

切除標本所見：切除標本は直径約20mm大の弾性軟の球状腫瘍で、色調は暗赤色を呈していた。断面では腫瘍内部に嚢胞腔を認め、茶褐色粘性内容液が充満していた(写真3)。

病理組織学的所見：H-E染色では、切除した腫瘍は多房性の嚢胞構造を呈していた。嚢胞内腔には立方状上皮で裏

¹⁾ 浜松医療センター歯科口腔外科 (主任：内藤克美科長)

²⁾ 三菱京都病院歯科口腔外科 (主任：久保田崇医長)

³⁾ 公立南丹病院歯科口腔外科 (主任：中井道明部長)

¹⁾ Departments of Oral and Maxillofacial Surgery, Hamamatsu Medical Center (Chief: NAITO Katsumi)

²⁾ Departments of Oral and Maxillofacial Surgery, Mitsubishi Kyoto Hospital (Chief: KUBOTA Takashi)

³⁾ Departments of Oral and Maxillofacial Surgery, Nantan General Hospital (Chief: NAKAI Michiaki)

受付日：2011年1月24日

採択日：2012年1月24日

写真1 初診時口腔内写真
左側口蓋部に半球状腫瘍を認めた。

写真3 切除標本写真
切除標本は直径約20mm大の弾性硬な球状腫瘍で、内部に粘性内容物が貯留していた。

写真2 CT写真
A: 硬組織モードでは、腫瘍状病変(矢印)に接する口蓋骨の欠損を疑う骨破壊像は認めなかった。
B: 軟組織モードでは、左側口蓋部に周囲組織と同程度のCT値を示す腫瘍状病変(矢印)を認めた。

写真4 病理組織像(H-E染色, ×40)
多房性囊胞を呈し、囊胞内部には粘液の貯留を認めた。

層されており、一部で上皮細胞の乳頭状増殖を認めた。囊胞周囲は被膜様の比較的均一な線維結合組織の層により被包されていた。細胞異型は明らかでなく、隣接する腺房細胞の萎縮や消失は認めなかった。また、炎症性細胞の浸潤も認めなかった(写真4, 5)。免疫染色では重層に増殖している上皮細胞層にてCK7はびまん性に陽性を示し(写真6), p63は基底層の一部で陽性を示し(写真7), α -SMAにおいては弱いながらもp63と同様に陽性を示した。なお、Ki67 labeling index 値は7%であった(写真8)。また、囊胞腔内の粘液はムチンカルミン染色陽性であった(写真9)。

病理組織学的診断：囊胞腺腫。

写真5 病理組織像(H-E染色, ×400)
囊胞内腔は立方状上皮により裏層されており、一部で上皮細胞の乳頭状増殖を認めた。

写真6 病理組織像 (CK7 染色, $\times 200$)
嚢胞内腔の裏層上皮にてびまん性の陽性反応を示した。

写真8 病理組織像 (Ki-67 染色, $\times 200$)
腫瘍部ではほとんど染色を認めなかった。

写真7 病理組織像 (p63 染色, $\times 200$)
嚢胞内腔の裏層上皮にて基底層の一部のみ陽性反応を示した。

写真9 病理組織像 (ムチンカルミン染色, $\times 40$)
嚢胞内腔で陽性反応を示した。

考 察

嚢胞腺腫は腺組織由来の良性腫瘍であり¹⁾、卵巣に好発する^{3,4)}。女性に好発し、好発年齢は50歳代と報告されている^{2,5)}。顎口腔領域では耳下腺に好発し⁶⁾、小唾液腺良性腫瘍における本腫瘍の発生頻度は7%と少ない⁵⁾。小唾液腺に由来する本腫瘍の報告例は1941年のSkorpilらの報告⁷⁾を初めとして1999年まで藤代ら⁸⁾により39例が報告されている。それ以降でわれわれが渉猟しえた本邦における報告例は自験例を含めて10例であった(表1)。WHOの報告⁵⁾によると小唾液腺における本腫瘍の発生部位は、口唇(30%)・頬粘膜(23%)・口蓋(20%)・その他(26%)であった。本症例の発生部位、年齢および性別については、過去の報告例における好発部位や好発年齢および性差と概

ね合致していた。

嚢胞腺腫は1991年のWHO分類では嚢腺腫として病理組織学的な特徴より乳頭状嚢腺腫と粘液性嚢腺腫に亜型分類されていたが^{9,10)}、2005年の分類で亜型分類は削除され良性上皮性腫瘍の一つとして分類されている⁵⁾。分類では唾液腺腫瘍は多くの腫瘍型に分類されており、また各々の唾液腺腫瘍においても複雑な組織像を呈するため診断に苦慮する場合も少なくない。本症例では腫瘍内に複数の著しく拡張した嚢胞状の腺管が集簇して認められ、腔を裏装する立方状上皮は乳頭状に腔内に突出している部分が散見され、これらの所見は嚢胞腺腫として矛盾しないと考えた。また、免疫組織化学的には単層上皮細胞のマーカーであるCK7が陽性で、筋上皮細胞のマーカーであるp63、 α -SMA

表1 小唾液腺由来の嚢腺腫報告例(2001~2010年):10例

No	報告者	年	性別	年齢	部位
1	Fukuda, et al. ¹⁶⁾	2001	F	82	口蓋
2	Matsuzaka, et al. ¹⁷⁾	2003	M	35	口唇
3	舩生田ら ¹⁸⁾	2004	M	50	口底
4	君ら ¹⁹⁾	2005	F	37	口唇
5	北尾ら ²⁰⁾	2005	F	66	歯肉
6	丹下ら ⁹⁾	2005	F	65	口蓋
7	Toida, et al. ²¹⁾	2005	—	—	口唇
8	Takahashi, et al. ²²⁾	2008	M	43	歯肉
9	Kusafuka, et al. ²³⁾	2008	M	51	口蓋
10	自験例	2010	F	40	口蓋

は腫瘍構成成分の上皮部分ではほとんど染色されず、本症例が筋上皮系細胞由来ではなく導管由来の腫瘍細胞から構成されているものと考えられた。また、嚢胞腔内に貯留する粘液もムチンカルミン染色にて陽性反応を認めたため、これらの結果から免疫組織学的にみても嚢胞腺腫と考えられた。病理組織学的に本疾患と鑑別診断の上で問題となる疾患としてはワルチン腫瘍・嚢胞腺癌・粘表皮癌・停滞型粘液嚢胞などがあげられる^{8,11)}。過去に乳頭状嚢腺腫は、ワルチン腫瘍のうち拡張した嚢胞状の形態を呈し、リンパ組織が乏しい状態のものは乳頭状嚢腺腫と組織学的に類似するとの報告がある^{12,13,14)}。今回の症例でも嚢胞状の構造が著しく、一部にリンパ組織が認められたが、腫瘍細胞にはオンコサイト様の上皮は全く認められず、ワルチン腫瘍は否定された。また、上皮細胞には細胞学的異型や核分裂像などの所見も認められず、さらに Ki67 labeling index 値も7%と低く嚢胞腺癌の可能性はないと考えられた。本症例の上皮細胞には明らかな粘液細胞や扁平上皮様の細胞は認められず、粘表皮癌を示唆する所見は認められなかった。さらに、腫瘍組織は多房性の構造を呈しており停滞型粘液嚢胞の組織構造とは明らかに異なるものであった。

本疾患の治療法としては切除が推奨され、再発や悪性転化はまれと言われている¹⁵⁾。最近10年間の報告例をみてもすべての症例で切除されており予後は良好である^{9,16~23)}。病変の大きさとしては、比較的小さい腫瘍径の報告例が多く、ほとんどの報告例で初回治療として切除生検を兼ねて切除されていた^{9,16~23)}。生検により術前に診断が得られた報告例²⁴⁾もあるが、術前診断が、単形性腺腫²²⁾や低分化型腺癌¹⁸⁾など術後診断とは異なっていた報告例も散見された。これは唾液腺腫瘍自体が多彩な組織像を呈するために、一部切除生検による術前診断が容易でないことが考えられた。また、嚢胞腺腫においても細胞異型を呈して悪性化するとの文献^{9,10)}も存在するため、切除に際しては被覆

粘膜および骨膜も腫瘍に付けて切除する事が望ましいと考えられ、本症例でも切除により良好な経過が得られた。

謝辞

本症例の病理所見ならびに本発表に対して多大なる御助言を頂きました広島大学医歯薬学総合研究科口腔顎顔面病理病態学研究室 高田 隆教授ならびに広島大学病院口腔検査センター 小川郁子診療准教授に深謝致します。

本論文の要旨は第55回日本口腔外科学会総会(2010年10月、千葉市)において発表した。

引用文献

- 1) 向井 清, 真鍋俊明: 外科病理学. 第4版, 文光堂, 東京, 2006, 171-172頁.
- 2) 日本唾液腺学会: 唾液腺腫瘍アトラス. 金原出版, 東京, 2005, 78-80頁.
- 3) Vinay Kumar, Abul K Abbas, et al: Robbins and Cotran Pathologic Basis of Disease. 8th ed, Elsevier Co, Philadelphia, 2004, p260-261.
- 4) Walter Standritter, William B Wartman, et al: Color Atlas & Textbook of Tissue and Cellular Pathology. 4th ed, Year Book Medical Publishers Co, Chicago, 1973, p241.
- 5) Barnes L, Everson JW, et al: World Health Organization Classification of Tumors, Pathology and Genetics of the Head and Neck Tumours. IAR Press Lyon, 2005, p210, 273-274.
- 6) 石川梧朗 監修: 口腔病理学Ⅱ改訂版, 永末書店, 京都, 1990, 735-736頁.
- 7) Skorpil F: Über das Cystadenoma papillare der grossen und Kleinen Speicheldrüsen. Frankfurt Ztschr Path 55: 39-59, 1941.
- 8) 藤代秀一, 安藤智博, 他: 臼後部に発生した乳頭状嚢腺腫の1例. 日口外誌 48: 628-631, 2002.
- 9) 丹下和久, 福田幸太, 他: 口蓋部に発生した粘液性嚢腺腫の1例. 日口外誌 52: 73-76, 2006.
- 10) Seifert G, Brocheriou C, et al: Histological Typing of Salivary Gland Tumours. 2nd Ed, Springer-Verlag,

- Berlin, 1991, p17-66.
- 11) Matsuzaka K, Kokubo E, et al : Papillary cystadenoma arising from the upper lip: A case report. Tokyo dent. Coll 44: 213-216, 2003.
 - 12) William G Shafer, Maynard K Hine, et al : A Textbook Oral Pathology. 3rd ED, W.B. Saunders Co, Philadelphia, 1974, p217-218.
 - 13) Lim CS, Collins AP, et al : Papillary cystadenoma of a minor salivary gland: report of a case involving cytological analysis and review of the literature. Oral Surg Oral Med Oral Pathol 105: 28-33, 2008.
 - 14) Mark DR, Lester DR, et al : Papillary cystadenoma lymphomatosum (Warthin tumor). Ear, Nose & Throat Journal 82: 920-922, 2003.
 - 15) Bruce M Wenig and Clara S Heffess : Atlas of Head and Neck Pathology. 2nd ED, W.B. Saunders Co, China, 2008, p605-606.
 - 16) Fukuda M, Miyata M, et al : Papillary cystadenoma of the hard palate: A case report. Oral Med Pathol 6: 103-108, 2001.
 - 17) Matsuzaka K, Kokubo E, et al : Papillary cystadenoma arising from the upper lip: A case report. Tokyo dent Coll 44: 213-216, 2003.
 - 18) 筋生田整治, 吉田俊一, 他 : 口底に発生した乳頭状嚢腺腫の1例 (抄). 日口外誌 50: 707, 2004.
 - 19) 君 賢司, 片桐史子, 他 : 上唇に発生した発症初期の乳頭状嚢腺腫1例 (抄). 口科誌 54: 564, 2005.
 - 20) 北尾綾乃, 初瀬川千晶, 他 : 臼後部に発生した cystadenoma の1例 (抄). 日口外誌 51: 637, 2005.
 - 21) Toida M, Shimokawa K, et al : Intraoral minor salivary gland tumors: a clinicopathological study of 82 cases. J Oral Maxillofac Surg 34: 528-532, 2005.
 - 22) Takahashi Y, Kawano K, et al : Cystadenoma arising from the retromolar region: A case report. Oral Sci Int 5: 61-64, 2008.
 - 23) Kusafuka K, Ueno T, et al : Cystadenoma of the palate: immunohistochemistry of mucins. Pathology International 58: 524-528, 2008.
 - 24) 石井宏昭, 笠原英生, 他 : 口蓋に発生した乳頭状嚢腺腫の1例. 日口外誌 42: 855-857, 1996.