頬部軟組織内に大きな結石様石灰化物の形成をきたした1例

谷 和俊^{1,3)}・西村 泰一¹⁾・藤盛 真樹²⁾
岡田 益彦³⁾・松本 章³⁾・松田 光悦³⁾

A case of a large calculus in buccal soft tissue

TANI Kazutoshi^{1,3)}・NISHIMURA Taiichi¹⁾・FUJIMORI Masaki²⁾
OKADA Masuhiko³⁾・MATSUMOTO Akira³⁾・MATSUDA Mitsuyoshi³⁾

Abstract: We report a case of a large calculus in buccal soft tissue. The patient was a 71-year-old woman. She was referred to our hospital by a dental clinic because of a hard mass in the right buccal mucosa. On the basis of the computed tomographic, magnetic resonance imaging, and sialographic findings, an ectopic calculus in the buccal mucosa was diagnosed. Extirpation of the calculus and its capsule was performed through an intraoral approach with the patient under general anesthesia. Histopathological examination revealed that the calculus was similar to a phlebolith. There has been no evidence of recurrence after the operation.

Key words: calculus (結石様石灰化物), phlebolith (静脈石), buccal soft tissue (頬部軟組織)

緒 言

顎顔面領域に形成される結石様石灰化物としては、唾石が最も多く、その他に静脈石や石灰化上皮腫、リンパ節の石灰化などがある。しかし、これらの疾患以外に顎顔面領域に結石様石灰化物を認めたという報告はまれである^{1~3)}。今回われわれは、頬部軟組織内に大きな結石様石灰化物の形成をきたした1例を経験したので、その概要を報告する。

症 例

患 者: 71歳、女性。

初 診: 2011年3月。

主 訴: 右側頬粘膜下の腫瘍。

既往歴: 特記事項なし。

家族歴: 特記事項なし。

現病歴: 10年前より右側頬粘膜下の腫瘍に気付くも疼痛がないため放置していた。しかし次第に、腫瘍と義歯が接触するようになり、2011年3月に、義歯の調整を目的に近医歯科を受診したところ、右側頬粘膜下の腫瘍を指摘され、精査、加療依頼で当科を紹介され受診した。

現 症:

全身状態: 体格は中等度で、栄養状態は良好であった。

口腔外所見: 顔貌は左右対称で、頬部や顎下部に腫脹は認められなかった。

口腔内所見: 右側頬粘膜は、表面正常であり軽度の膨隆を認めた(写真1)。触診で頬粘膜下に周囲組織に対して可動性のある20mm大の骨様硬の腫瘍を触知した。ステノン管とワルトン管開口部からの唾液の流出、性状に異常は認められなかった。

画像所見:

X線所見: パノラマX線写真にて右側下顎枝前縁部に境界明瞭な直径20mm大の楕円形の不透過像を認めた(写真2)。

CT写真: 右側頬粘膜下に長径25mm、短径15mmの楕円形の腫瘍を認めた。また腫瘍周囲に血管は近接していなかった(写真3)。

MRI写真: 腫瘍はT1、T2強調像において、低信号域と無信号域が混在していた。また腫瘍周囲にT1強調像で低

¹⁾ 市立旭川病院歯科口腔外科
(主任: 西村泰一 部長)

²⁾ 医療法人徳洲会帯広徳洲会病院
(主任: 藤盛真樹 医長)

³⁾ 旭川医科大学歯科口腔外科学講座
(主任: 松田光悦 教授)

¹⁾ Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Asahikawa City Hospital (Chief: Dr. NISHIMURA Taiichi)

²⁾ Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Obihiro Tokushukai Hospital (Chief: Dr. FUJIMORI Masaki)

³⁾ Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Asahikawa Medical College (Chief: Prof. MATSUDA Mitsuyoshi)

受付日: 2012年5月28日

採択日: 2013年1月29日

信号, T2 強調像では高信号域を示す境界明瞭な液状物の存在が確認された (写真 4)。

耳下腺造影 X 線写真: リピオドールにて造影したところ, 右側耳下腺導管は明瞭に造影され, 導管の分枝や造影剤の漏洩等はみられなかった。また, 造影時造影剤の病変部への流出は認められなかった (写真 5)。

術前診断: 頬部軟組織内に形成された異所性石灰化物。

処置および経過: 2011 年 4 月, 全身麻酔下にて口腔内より腫瘤および, その周囲の被膜の摘出術を施行した。手術は腫瘤直上の頬粘膜に切開を加えて, 被膜まで鈍的に周囲組織の剥離を慎重に進めたが, 被膜は薄く一部が破綻

していた (写真 6)。被膜と周囲組織との間に癒着を認めなかったため, 腫瘤と被膜を可及的に一塊として摘出した。また創部には, 明らかな流入血管も認められなかった。切開創はナイロン糸で閉鎖縫合した。現在, 術後 1 年 6 か月経過しているが, 経過は良好で再発は認めていない。

摘出標本所見: 腫瘤は, 表面粗造な黄白色の石灰化様硬固物であり, 大きさは $25 \times 15 \times 9$ mm であった。被膜は, 乳白色の半透明な薄い膜であった (写真 7)。

腫瘤の成分分析結果: 赤外分光分析装置 (VIR9500 型, 日本分光 (株), 東京) を用いて成分分析を行った結果, 95% 以上がリン酸カルシウムであった。

病理組織学的所見: 腫瘤は, 同心円状の層板状構造であり, 層板内に細菌層は存在せず無菌性のものであった (写真 8)。また被膜として採取した検体は, 一層の扁平化した線維性結合組織で構成されていた (写真 9)。

考 察

頬部軟組織内に形成される結石様石灰化物として, 唾石症, 静脈石, 石灰化上皮腫, リンパ節の石灰化などが挙げられる⁴⁾。本症例では, 頬粘膜内の腫瘤は骨様硬であり, MRI 写真で腫瘤周囲に液状物が存在したことから, 当初, 唾石や血管腫内に形成された静脈石を疑った。血管腫は血管組織が増生した非上皮性の良性腫瘍であり, 口腔領域では, 頬部, 舌, 口唇に好発し^{5, 6)}, 静脈石を伴うことがある⁷⁾。しかし本症例では, 造影 CT 写真でも腫瘤周囲に血管を認めなかったことから, 血管腫を積極的に疑う所見に

写真 2 初診時のパノラマ X 線写真
右側下顎枝前縁部に境界明瞭な直径 20mm 大の不透過像 (矢印) を認めた。

写真 3 初診時の CT 写真
A: 単純 CT 写真において右側頬粘膜内に長径 25mm 大の腫瘤 (矢印) を認めた。
B: 3DCT 写真では, 腫瘤周囲 (矢印) に血管の近接は認めなかった。

写真4 初診時のMR写真

A：水平断 T1 強調像 B：水平断 T2 強調像 C：冠状断 T2 強調像

腫瘍（矢印）は T1, T2 強調像にて、低信号域と無信号域が混在していた。また腫瘍周囲に T1 強調像にて低信号域、T2 強調像にて高信号域を示す液状物の存在を確認した。

写真5 耳下腺造影 X 線写真

造影剤により耳下腺導管は明瞭に造影され、導管の分枝や造影剤の漏洩等はみられなかった。

乏しく、静脈石の可能性は低いと思われた。唾石は唾液腺の導管内および腺体内に結石の生じる疾患で、顎下腺に最も多く、まれに小唾液腺に発生することもある^{8,9)}。頬部に発生する唾石として、耳下腺導管内唾石、副耳下腺内唾石、頬粘膜小唾液腺唾石が考えられたが、腫瘍は耳下腺導管の走行に沿った細長い形状ではなく上下的に楕円形状で

あり、耳下腺造影 X 線写真でも、耳下腺導管から離れた部位に存在していた。また腫瘍は CT 写真で咬筋内側に位置し、副耳下腺が存在するとされる咬筋上¹⁰⁾とは解剖学的位置が異なっていた。小唾液腺唾石については、小唾液腺の唾液分泌量からこのような巨大な石灰化沈着は起こりづらく、仮に大きさが増したとしても、小唾液腺は粘膜下数 mm に存在するため、唾石は圧力のかからない口腔側の粘膜を破って排出されることが一般的であり、深部の筋組織側に向かって大きくなることは考え難かった。石灰化上皮腫は、毛嚢分化過程における毛芽、毛母機能の障害から発生する良性の皮下腫瘍^{11,12)}で、上肢、顔面、頸部に好発する。臨床症状は初期には皮下の硬い腫瘍であるが、次第に石灰化のため軟骨様から骨様硬を呈するようになるといわれている²⁾。本症例では、腫瘍は石灰化上皮腫が生じるとされる真皮下部から皮膚脂肪組織中ではなく、粘膜下に存在していた。またリンパ節の石灰化は、萎縮、変性したリンパ組織内に石灰化が沈着することにより生じるが、そのほとんどが異栄養性の石灰化沈着で、悪性腫瘍や結核による炎症性のものが報告されている^{13,14)}。患者には、悪性腫瘍や結核の既往はなく、臨床および画像所見より、術前診断は、頬粘膜内に形成された異所性石灰化物とした。

手術は口腔内より行い、頬粘膜を切開し被膜を露出させたところ、被膜の一部はすでに破綻した状態であった。被膜と周囲組織との間に癒着はなく、周囲に小唾液腺様組織や血管腫様組織、またステノン管に続く導管らしきものは認められなかった。腫瘍と被膜を可及的に一塊として摘出し、創部に流入血管がないことを確認してから、閉鎖縫合

写真1 初診時の口腔内写真

右側頬粘膜の表面は正常であり軽度の膨隆（矢印）を認めた。

写真6 術中写真

腫瘍は薄い被膜に覆われていた。

写真7 摘出標本写真

A：腫瘍は表面粗造な黄白色の石灰化硬固物であり、大きさは $25 \times 15 \times 9$ mm であった。

B：腫瘍を覆っていた被膜は、乳白色の半透明な膜であった。

写真8 病理組織写真（腫瘍）

腫瘍断面は細菌層の存在しない無菌性の層板状構造であった（H-E 染色 $\times 20$ ）。

写真9 病理組織写真（被膜）

線維性成分から構成された壁を有する組織であった（H-E 染色 $\times 20$ ）。

した。

腫瘍は病理組織学に無菌性の同心円状の層板状構造であり、被膜は炎症所見のない線維性組織であった。唾石の場合も同心円状の層板状構造を示すが、層板内に細菌層が混在するため¹⁵⁾、本症例とは異なるものであった。加えて被膜には導管を示す単層円柱上皮や粘液囊胞壁を示す線維化傾向の肉芽組織は観察されなかった。石灰化上皮腫は、層状構造を示さず核の消失、細胞質の好酸性変性、表皮性細胞の保存を特徴とする細胞 (shadow cell) により鑑別が可能であるが^{16, 17)}、腫瘍にそのような所見はみられなかった。またリンパ節の石灰化も、多くは比較的大きな不整形、不均一な濃度をもった石灰化物である¹³⁾とされているが、腫瘍の病理組織像や腫瘍周囲にリンパ組織は存在しないことから除外された。腫瘍は病理組織学的に静脈石¹⁸⁾にも類似していたが、腫瘍周囲に血管腫様組織は認められず、被膜も線維性組織だけで構成されており、静脈や細動脈が存在しなかったことから、静脈石の診断にはいたらなかった。

ただ血管腫においては自然消失することもあり、海綿状血管腫は退縮により60～70%が自然吸収されると言われている^{19, 20)}。本症例では、患者が10年前に病変を自覚したということは、それよりかなり以前に前駆病変があったものと考えられ、静脈石を伴っていた血管腫が長い年月を経て徐々に自然消失し、静脈の外腔だけが線維性組織として残存し腫瘍を被包していた可能性も考えられる。以上より、確証はないが、頬部軟組織内に形成された結石様石灰化物は、頬部軟組織内の血管腫に伴って形成された静脈石である可能性が高いと考えられた。

現在、術後1年6か月経過しているが、腫瘍の再発等は認めず経過は良好である。しかし本症例の腫瘍は、成因が不明であるため、今後も長期にわたる慎重な経過観察が必要と思われる。

結 語

今回われわれは、頬部軟組織内に大きな結石様石灰化物の形成をきたした1例を経験したので、若干の考察を加えてその概要を報告した。

本論文の要旨は、第56回日本口腔外科学会総会(2011年10月、大阪)において発表した。

引用文献

- 1) 長谷川秀行, 白川正順, 他: 頬粘膜部に発生した結石様石灰化物の1例とその文献的考察. 日口外誌 33: 194-199, 1987.
- 2) 高野美貴子, 富永和宏, 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.
- 3) 陶山一隆, 柳本惣市, 他: 両側顎下およびオトガイ下部にみられたリンパ節石灰化の1例. 日口外誌 46: 448-450, 2000.
- 4) 小松久高, 若狭 亨, 他: 頭頸部における軟組織内石灰化病変のX線学的観察. 歯科放射線 32: 67-73, 1992.
- 5) Lucas RB: Pathology of tumours of the Oral tissues, 3rd ed; Churchill livingstone, Edinburgh, 1976, p210-212.
- 6) Barnes L: Surgical pathology of the head and neck; Marcel, New York, 1985, p729-732.
- 7) 林 升, 小野 啓, 他: 咬筋深部内血管腫の1例. 口腔腫瘍 4: 81-87, 1992.
- 8) Rauch S and Gorlin RJ: Thomas Oral Pathology, 6th ed; Mosby, ST Louis, 1970, p997-1003.
- 9) 武田祥子, 川口哲司, 他: 唾石症に関する臨床的研究. 日口外誌 40: 155-160, 1994.
- 10) Polayes IM and Rankow RM: Cysts, masses, and tumors of the accessory parotid gland. Plast Reconstr Surg 64: 17-23, 1979.
- 11) Forbis R and Helwing EB: Pilomatrixoma (calcifying epithelioma). Arch Dermatol 83: 606-618, 1961.
- 12) 新妻 寛, 秋山まり子, 他: 石灰化表皮種. 皮膚臨床 8: 206-212, 1966.
- 13) 中島和敏, 小松正隆, 他: 石灰化が著名な結核性顎下リンパ節炎の1症例. 口科誌 33: 628-633, 1984.
- 14) 大塚 亨, 木下鞠彦, 他: 頸部リンパ節転移巣に石灰化を認めた舌癌の1例. 日口外誌 36: 2586-2590, 1990.
- 15) 武田泰典, 田中久男, 他: 要説 口腔病変の組織診断. 永末書店, 東京, 1994, 144頁.
- 16) 土田みね子, 鳥山 稔, 他: 耳下腺およびその周辺の石灰化を伴う病変について. 耳喉頭頸 57: 159-162, 1985.
- 17) Lever WF and S-Lever G: Pilomatricoma.; Histopathology of the skin, 7th ed; JB Lippincott Co., Philadelphia, 1990, p587-589.
- 18) 石川梧朗, 秋吉正登: 口腔病理学Ⅱ. 改訂3版, 永松書店, 京都, 1986, 425-433頁.
- 19) 草間 悟: 臨床腫瘍学. 第1版, 南江堂, 東京, 1982, 1036-1038頁.
- 20) 大浦武彦: 血管腫について. 日形会誌 17: 393-404, 1974.