上唇に発生した Poroid hidradenoma の 1 例

—本邦における報告例に関する文献的考察—

北村直也・富田理生・仙頭慎哉
濱田史人・吉澤泰昌・山本哲也

A case of poroid hidradenoma of the upper lip: a review of the literature on Japanese cases

KITAMURA Naoya · TOMITA Riki · SENTOU Shinya
HAMADA Fumito · YOSHIZAWA Yasumasa · YAMAMOTO Tetsuya

Abstract: Poroid hidradenoma is a relatively rare cutaneous adenexal tumor and a subtype of poromas derived from eccrine sweat ducts, with both solid and cystic components confined entirely to the dermis, with no connection to the epidermis. Most cases of this tumor arise in the extremities and trunk, and poroid hidradenoma occurring in the orofacial region has not been reported previously. We present a case of poroid hidradenoma arising in the upper lip and review the literature on Japanese cases. A 82-year-old woman was referred for treatment of a painless mass on the upper lip. Magnetic resonance imaging showed a ball-like mass measuring 18×12×12 mm in the upper lip. Histopathological examination of a biopsy specimen revealed a cutaneous adenexal benign tumor suspected to be a poroma, and the extirpated tumor was diagnosed to be a poroid hidradenoma. Although most cases of poroid hidradenoma have been treated by dermatologists or plastic surgeons, we should be aware that this tumor can arise in the oral region, especially the lip or cheek.

Key words: poroid hidradenoma (孔細胞汗腺腫), poroma (汗孔腫), cutaneous adenexal tumor (皮膚付属器腫瘍)

緒 言

皮膚付属器腫瘍は、由来する組織や細胞に基づいて毛包系腫瘍、脂腺系腫瘍、アポクリン系腫瘍およびエクリン系腫瘍の4つに大別されているが、病理組織学的には100種類近くに及ぶ^{1,2)}。

エクリン系腫瘍の1つである poroma (汗孔腫) は、1956年に Pinkus ら³⁾ によりエクリン汗管由来で表皮内に発生した皮膚付属器良性腫瘍として初めて報告された。1990年に Ackerman ら⁴⁾ はエクリン汗腺に由来する良性腫瘍を poromas あるいは poroid cell neoplasms と総称し、表皮との連続性や局在部位、形態から、hidroacanthoma simplex poroma (Smith-Coburn 型)⁵⁾、eccrine poroma (Pinkus 型)³⁾、dermal duct tumor (Winkelman-McLeod 型)⁶⁾ および poroid hidradenoma (Mayer 型)⁴⁾ の4つの亜型に分類した。Poroid

hidradenoma の多くは四肢や体幹に発生し、頭頸部領域での報告は散見されるものの、そのほとんどは頭皮に発生しており、口腔領域で生じたとする報告はない。

今回われわれは、上唇に発生した poroid hidradenoma の1例を経験したので、若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

患 者: 82歳, 女性.

初 診: 2013年12月.

主 訴: 上唇の腫瘍.

既往歴: 高血圧症, 胆管結石, 緑内障.

家族歴: 特記事項なし.

現病歴: 初診1年前に上唇正中部の腫瘍を自覚したが大きさに変化が認められないため放置していた。初診1週間前、近在歯科医院を義歯調整のため受診した際に相談したところ、当科での精査および加療を勧められ紹介により来科した。

現 症:

全身所見: 体格中等度, 栄養状態良好で, 全身的に異常

高知大学医学部歯科口腔外科学講座

(主任: 山本哲也教授)

Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Kochi Medical School, Kochi University (Chief: Prof. YAMAMOTO Tetsuya)

受付日: 2015年2月19日

採択日: 2015年11月24日

写真2 MR画像

A：T1強調像（水平断）

B：T2強調像（水平断）

C：ガドリニウム造影（水平断）

D：ガドリニウム造影（矢状断）

上唇内部にT1強調像で低信号、T2強調像で高信号を呈する類球形で境界明瞭な18×12×12mmの大きさの腫瘍が認められる。ガドリニウム造影で腫瘍内部が一部不均一に濃染されている。

は認められなかった。

口腔外所見；顔貌はほぼ左右対称で、人中部の皮下に20×15×15mm大の腫瘍が認められ（写真1A）。腫瘍は弾性やや硬で、可動性を有し、圧痛は認められなかった。腫瘍直上の皮膚はドーム状に隆起しているものの、色調は正常であった。

口腔内所見；上唇ほぼ正中の粘膜下に20×15×15mm大で、可動性を有する腫瘍が認められた（写真1B）。表面粘膜の色は正常であった。

画像所見；MR画像では、上唇内部にT1強調像で低信号、T2強調像で高信号を呈する類球形で境界明瞭な18×12mmの腫瘍が認められた（写真2A, B）。ガドリニウム造影で腫瘍内部は一部不均一に濃染された（写真2C, D）。

臨床診断；上唇腫瘍（唾液腺腫瘍の疑い）。

処置および経過；2014年1月、口腔粘膜側より生検を行った。腫瘍直上の口唇粘膜に約1.5cmの横切開を加え、口輪筋を鈍的に剥離し、病変の一部を採取した。その際、腫瘍と口輪筋との癒着は認めず、腫瘍内部には淡血性の液体

が含まれていた。病理組織学的には多房性の囊胞様の腔を形成し、小型で均一な円形の核をもつporoid cellや、管腔を形成する好酸性のcuticular cellが認められたことから皮膚付属器良性腫瘍であるporoma（汗孔腫）と診断された。そこで、同年2月に摘出術を施行した。生検時同様、口腔粘膜側よりアプローチした。生検時の切開線を用いて、腫瘍直上の口唇粘膜に約2cmの横切開を加え鈍的に剥離を進めた。口輪筋を視認できたところで同筋束を鈍的に押し広げて口輪筋の表層に至ると、上唇の皮下に小指頭大の腫瘍が認められた。同腫瘍は周囲組織とは癒着しておらず、口輪筋および上唇表皮から剥離して摘出し、創は縫合閉鎖した。現在、術後1年2か月が経過しているが、腫瘍の再発は認められない。

摘出標本所見；摘出した病変の大きさは18×10×10mm大の類球形で、表面は平滑で褐色を呈していた（写真3）。

病理組織学的所見；病変は皮膚との連続性のない単房性の囊胞状で、充実性部分は認められず、内面は菲薄化した上皮に覆われていた（写真4A）。囊胞様壁の一部には主に

写真 1 初診時の口腔外および口腔内写真

- A: 人中部の皮下に $20 \times 15 \times 15\text{mm}$ 大の腫瘍が認められる。腫瘍は弾性やや硬で、可動性を有し、圧痛は認められない。腫瘍直上の皮膚はドーム状に隆起しているものの、色調は正常である。
- B: 上唇ほぼ正中の粘膜下に $20 \times 15 \times 15\text{mm}$ 大で、可動性を有する腫瘍を認める。表面粘膜の色は正常である。

写真 3 摘出標本写真

摘出した病変の大きさは $18 \times 10 \times 10\text{mm}$ で、表面は平滑で褐色を呈している。

写真 4 生検標本の病理組織像 (H-E 染色)

- A: 弱拡大像 ($\times 10$)
- B: A の点線枠内の中拡大像 ($\times 100$)
- C: B の点線枠内の強拡大像 ($\times 400$)

検体は嚢胞様の腔を形成し、内面は菲薄化した上皮に覆われている。嚢胞様壁の一部には主に小型で均一な円形の核をもつ poroid cell (白矢印) で構成された充実性結節があり、管腔を形成する好酸性の cuticular cell (黒矢印) が認められる。

小型で均一な円形の核をもつ poroid cell で構成された充実性結節があり、管腔を形成する好酸性の cuticular cell が認められた (写真 4B)。尚、病変が真皮内に局限し、嚢胞様を呈していたことから Poroid hidradenoma と診断した。

病理組織学的診断: Poroid hidradenoma (孔細胞汗腺腫)。

表1 本邦にて報告された Poroid hidradenoma 症例

No. 著者	報告年	年齢 / 性別	発症部位				腫瘍径 (mm)	臨床形態	治療	受診科
			頭部	顔面	体幹	四肢				
1 Ichioka S, et al ⁹⁾	1993	61 M			○		30	ドーム状	全摘	形成外科
2 黒須 ら ¹⁰⁾	1993	72 M			○		13	有茎性	全摘	皮膚科
3 徳橋 ら ¹¹⁾	1994	36 F	○				爪甲大	ドーム状	全摘	皮膚科
4 Misago N, et al ¹²⁾	1995	61 F				○	22	ドーム状	全摘	皮膚科
5 小西 ら ¹³⁾	1996	17 M				○	5	ドーム状	全摘	皮膚科
6 神尾 ら ¹⁴⁾	1996	67 F	○				25	有茎性	全摘	脳神経外科
7 小笠原 ら ¹⁵⁾	1997	89 F				○	13	ドーム状	全摘	皮膚科
8 高橋 ら ¹⁶⁾	1998	54 M	○				17	球状, 有茎性	全摘	皮膚科
9 星田 ら ¹⁷⁾	1998	77 F				○	27	ドーム状	全摘	不明 (著者: 病理所属)
10 梁取 ら ¹⁸⁾	1999	60 M				○	26	ドーム状	全摘	皮膚科
11 津田 ら ¹⁹⁾	1999	74 M				○	13	ドーム状	全摘	皮膚科
12 渡邊 ら ²⁰⁾	1999	56 F			○		10	ドーム状	全摘	皮膚科
13 窪田 ら ²¹⁾	1999	63 F				○	35	ドーム状	全摘	皮膚科
14 中野 ら ²²⁾	2000	66 M			○		40	ドーム状	全摘	形成外科
15 江石 ら ²³⁾	2000	64 F				○	24	ドーム状	全摘	皮膚科
16 Tsujino Y, et al ²⁴⁾	2001	41 M		○: 頬			5	ドーム状	全摘	皮膚科
17 新谷 ら ²⁵⁾	2002	91 F				○	40	ドーム状	全摘	皮膚科
18 横関 ら ²⁶⁾	2003	48 M			○		30	ドーム状	全摘	皮膚科
19 日野 ら ²⁷⁾	2004	48 M			○		10	ドーム状	全摘	皮膚科
20 朴 ら ²⁸⁾	2005	31 F		○: 耳前部			4	ドーム状	全摘	皮膚科
21 八町 ら ²⁹⁾	2007	18 F				○	13	ドーム状	全摘	皮膚科
22 田中 ら ³⁰⁾	2007	60歳代 / F	○				30	ドーム状, 一部潰瘍化	全摘	皮膚科
23 Ueno T, et al ³¹⁾	2007	34 M				○	21	ドーム状	全摘	皮膚科
24 早乙女 ら ³²⁾	2008	86 F				○	13	ドーム状	全摘	皮膚科
25 窪田 ら ³³⁾	2012	63 F				○	26	球状, 有茎性	全摘	整形外科
26 自験例	2015	82 F		○: 口唇			15	ドーム状	全摘	歯科口腔外科

M: 男性, F: 女性. 平均年齢 = 58.4 ± 20.5 歳 (症例 22 は除く). 男性: 女性 = 11: 15.

平均腫瘍径 = 20.3 ± 10.6mm (症例 3 は除く). 症例 9 は 8 年前に摘出を受けた既往のある再発症例.

四肢: 13 例, 体幹: 6 例, 頭部: 4 例, 顔面: 3 例.

考 察

Poroma (汗孔腫) は, 1956 年に Pinkus ら³⁾ によりエクリン汗管由来で表皮内に発生した皮膚付属器良性腫瘍として初めて報告された. 1990 年に Ackerman ら⁴⁾ はエクリン汗腺に由来する良性腫瘍に poroid hidradenoma を加えて, poromas あるいは poroid cell neoplasms と総称し, 表皮との連続性や局在部位, 形態から, 以下の 4 つの亜型に分類した.

- ① Hidroacanthoma simplex poroma (Smith-Coburn 型): 腫瘍塊が表皮内に限局して増殖する腫瘍⁵⁾.
- ② Eccrine poroma (Pinkus 型): 腫瘍塊が表皮から連続性に真皮にかけて増殖する腫瘍³⁾.
- ③ Dermal duct tumor (Winkelman-McLeod 型): 表皮との連続性はなく, 真皮内に限局する嚢腫形成のない充実性の腫瘍⁶⁾.

- ④ Poroid hidradenoma (Mayer 型): 真皮内に限局する嚢腫様構造を呈する腫瘍⁴⁾.

Poroma のなかでは eccrine poroma が代表的で, これは足底・手掌に好発すると言われている. しかし, これら 4 つの亜型は同一病変内に混在することも多く, 伊藤ら^{7,8)} は poroid cell neoplasms の 421 例 (単独型: 270 例, 混在型: 151 例) を検討している. それによると poroid cell neoplasms は皮膚腫瘍全体の 1.0% に相当し, 単独型の poroid hidradenoma は 66/421 例 (15.7%) を占めていた. それら 66 例の罹患部位の内訳は, 頭頸部 26 例 (40.0%), 四肢 26 例 (40.0%), 体幹 11 例 (16.7%), 不明 3 例とされているものの, 頭頸部領域の詳細は記載されていなかった.

一方, 本邦にて報告された poroid hidradenoma 症例について過去の文献を検索^{9~33)} したところ, われわれが渉猟し得た限りでは表 1 の如く, 自験例も含め 26 例が確

認できた。それらについて内訳をみると、性別は男性 11 例 (42.3%)、女性 15 例 (57.7%) で女性がやや多く、伊藤ら^{7,8)}の報告 (男性 25/66 例: 37.9%, 女性 40/66 例: 60.6%, 不明 1 例) と近似しており、平均年齢も 58.4 ± 20.5 歳で、伊藤ら^{7,8)}の報告にある 58.2 ± 16.0 歳とほぼ同等であった。発症部位に関しては、四肢が 26 例中 13 例 (50.0%) と最も多く、次いで、体幹が 6 例 (26.1%)、頭部が 4 例 (15.4%) と続き、顔面領域はわずかに 3 例 (11.6%) であった。顔面に発生した poroid hidradenoma 3 例の内訳は、頬部、耳前部、口唇 (自験例) がそれぞれ 1 例ずつで、口腔領域での発症はきわめてまれであると考えられた。

治療は全例で摘出術が行われており、表皮を含めて全摘している症例がほとんどであったが、一部の症例では菲薄化した表皮のみを腫瘍に付与して切除した症例も認められた。自験例では、口唇皮膚、口輪筋および口腔粘膜と腫瘍とは癒着しておらず容易に剥離可能で、腫瘍のみを摘出した。再発の有無に関しては、症例 9 が 8 年前に全摘を受けた既往のある再発例との記載があったが、それ以外の症例では再発を来したとの記載はなく、全摘できていれば経過は良好であると考えられる。Poroid hidradenoma は皮膚付属器良性腫瘍のなかでも表皮との連続性がなく、真皮内に限局する腫瘍であることから、自験例のように口唇などの術後の審美性が要求される領域に発生した場合には、口唇粘膜側からアプローチして皮膚や粘膜を温存することを検討するべきであると思われる。

口唇に認められる腫瘍性病変として頻度の高いものに唾液腺腫瘍が挙げられるが、自験例の初診時においても、多形腺腫などを疑い画像検査を施行した。腫瘍は MR 画像 T1 強調像で低信号、T2 強調像で高信号を呈し、類球形で境界明瞭、ガドリニウム造影で腫瘍内部が一部不均一に濃染されていたことから多形腺腫が候補に挙げられた。一般的に多形腺腫の MR 画像は T2 強調像で不均一な高信号を呈することが多いものの、腫瘍の大きさが比較的小さい場合、自験例の T2 強調像のように均一な高信号を示すこともまれではない。画像検査後に行った生検の結果で皮膚付属器良性腫瘍である poroma (汗孔腫) と診断されたため、MR 画像を再確認してみると、確かに腫瘍は皮膚と接しているようにみえており、生検時の所見として腫瘍は口輪筋の皮膚側に位置していたことを考え合わせると、皮膚由来の腫瘍性疾患も念頭に置くべきであったと思われる。

Poroma の多くは、表皮から真皮に発生する充実性の腫瘍であることから皮膚科や形成外科で治療され、われわれが渉猟し得た限りでは、海外の報告も含め口腔外科領域からの報告は自験例以外には見当たらなかった。しかし、今回経験した poroid hidradenoma のように表皮との連続性がなく、真皮内に限局した皮膚付属器腫瘍は、口腔領域、

とくに口唇や頬部に発生する腫瘍の 1 つとしてわれわれも認識しておく必要があると思われた。

結 語

今回われわれは、上唇に発生した Poroid hidradenoma の 1 例を経験したので、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、本腫瘍の診断に関して御教授を賜りました本院病理診断部の弘井 誠先生に深謝致します。

本論文に関して、開示すべき利益相反状態はない。

引 用 文 献

- 1) Philip EL, Gunter B, et al : World Health Organization Classification of Tumours, Pathology and Genetics of Skin Tumours. IARC Press, Lyon, 2006, p121-164.
- 2) 清水道生 : 皮膚付属器腫瘍. 病理と臨床 29: 9-15, 2011.
- 3) Goldman P, Pinkus H, et al : Eccrine poroma; Tumors exhibiting features of the epidermal sweat duct unit. AMA Arch Dermatol 74: 511-521, 1956.
- 4) Abenzo P, Ackerman AB, et al : Poromas. In Neoplasms with Eccrine Differentiation. Lea and Febiger, Philadelphia, 113-185, 1990.
- 5) Smith JLS, Coburn JG, et al : Hidroacanthoma simplex: An assessment of a selected group of intraepidermal basal cell epitheliomata and of their malignant homologues. Br J Dermatol 68: 400-418, 1956.
- 6) Winkelmann RK and McLeod W : The dermal duct tumor. Arch Dermatol 94: 50-55, 1966.
- 7) 伊藤慶悟, 安齋眞一, 他 : Poroid cell neoplasms 421 例の臨床病理学的検討. 一第 1 報 : 4 組織亜型. 日皮会誌 118: 2429-2434, 2008.
- 8) 伊藤慶悟, 安齋眞一, 他 : Poroid cell neoplasms 421 例の臨床病理学的検討. 一第 2 報 : 臨床的データ. 日皮会誌 118: 2429-2434, 2008.
- 9) Ichioka S and Yamada A : A case of cystic dermal duct tumor corresponding to poroid hidradenoma. J Dermatol 20: 554-557, 1993.
- 10) 黒須まゆみ, 清島真理子, 他 : Poroid Hidradenoma. 西日皮膚 55: 445-449, 1993.
- 11) 徳橋 至, 森田昌士, 他 : Poroid Hidradenoma の 1 例. 臨皮 48: 613-615, 1994.
- 12) Misago N and Kohda H : A single lesion demonstrating features of eccrine poroma and poroid hidradenoma. J Dermatol 22: 773-779, 1995.
- 13) 小西玲子, 辻 厚子, 他 : Poroid Hidradenoma — 1 例と Dermal duct tumor 本邦報告例の検討 —. 皮膚 38: 356-362, 1996.
- 14) 神尾多喜浩, 須古修二, 他 : 頭部皮膚に発生し、汗孔腫類似の組織像を呈した poroid hidradenoma の 1 例. 癌の臨床 42: 823-826, 1996.

- 15) 小笠原里香, 三浦健太郎, 他: Poroid hidradenoma (Abenzo & Ackerman) の 1 例と当教室で経験した "Poroma" 41 例の再検討. 皮膚 39: 307-310, 1997.
- 16) 高橋千歳, 大西誉光, 他: Poroid Hidradenoma の 1 例 — ケラチン発現の免疫組織化学的検討 —. 皮膚臨床 40: 1383-1386, 1998.
- 17) 星田義彦, 花井 淳: Poroid Hidradenoma の 1 例. 岡山外科病理雑誌 35: 44-45, 1998.
- 18) 梁取明彦, 山蔭明生, 他: Poroid Hidradenoma の 1 例. 皮膚臨床 41: 819-821, 1999.
- 19) 津田毅彦, 梅林芳弘: Poroid Hidradenoma. 西日皮膚 61: 642-644, 1999.
- 20) 渡邊昌彦, 角田孝彦, 他: 汗腺系腫瘍の 3 例. 山形済生館医誌 24: 110-114, 1999.
- 21) 窪田正昭, 岡本彩子, 他: Poroid hidradenoma — 1 例報告と疾患概念 —. 皮膚 41: 675-678, 1999.
- 22) 中野峰生, 新井栄一, 他: Poroid Hidradenoma の 1 例. 皮膚臨床 42: 218-219, 2000.
- 23) 江石久美子, 遠藤幸紀, 他: Poroid Hidradenoma の 1 例. 皮膚臨床 42: 625-627, 2000.
- 24) Tsujino Y and Dekio S: Poroid hidradenoma: Report of a patient in whom the tumor simulated a pyogenic granuloma. Shimane J Med Sci 19: 37-39, 2001.
- 25) 新谷洋一, 森田明理, 他: Poroid Hidradenoma の 1 例. 臨皮 56: 1006-1007, 2002.
- 26) 横関真由美, 菅原弘士, 他: Nodular Hidradenoma の 2 例 — Poroid Hidradenoma と Apocrine Hidradenoma —. 皮膚の科学 2: 197-200, 2003.
- 27) 日野孝之, 籠浦正順, 他: Poroid Hidradenoma の 1 例. 皮膚臨床 46: 371-373, 2004.
- 28) 朴 順華, 新藤季佐, 他: Poroid Hidradenoma — 顔面に紅色結節として発症した症例について —. 皮膚の科学 4: 142-145, 2005.
- 29) 八町祐宏, 宮寄 敦: Poroid Hidradenoma の 1 例. 皮膚臨床 49: 110-111, 2007.
- 30) 田中 了, 藤原愉高, 他: 臨床的に悪性を疑った poroid hidradenoma の 1 例. Skin Cancer 22: 105-110, 2007.
- 31) Ueno T, Mitsuishi T, et al: Poroid hidradenoma: A case report with review of Japanese published work. J Dermatol 34: 495-497, 2007.
- 32) 早乙女敦子, 福田英嗣, 他: poroid hidradenoma. 皮膚病診療 30: 1007-1010, 2008.
- 33) 窪田大輔, 窪田 誠, 他: 母趾に発生した poroid hidradenoma の 1 例. 関東整災誌 43: 21-24, 2012,