1 歳児の口蓋垂先端に生じた停滞型粘液嚢胞の 1 例

太田 嘉幸¹⁾・永川 賢治¹⁾・榊井 敦史¹⁾
増田 光亮¹⁾・鵜澤 成一²⁾

A case of a mucous retention cyst arising in the uvula tip of a one-year-old boy

OTA Yoshiyuki¹⁾・EGAWA Kenji¹⁾・MASUI Atsushi¹⁾
MASUDA Kosuke¹⁾・UZAWA Narikazu²⁾

Abstract: Mucous cyst is caused by flow disturbances of saliva. The most frequent site is the lower lip, and cases involving the uvula are very rare. We describe a case of a mucous retention cyst on the uvula tip. A one-year-old boy was referred to the hospital because of a mass on the uvula tip. The mass measured 5 mm in diameter and was located on the right side on the uvula tip. Under a clinical diagnosis of a benign tumor, it was surgically enucleated. The mass was beneath mucous membrane and enucleated from the surrounding tissue. Histopathologically, the cystic lesion was lined by squamous epithelium, and a few minor salivary glands existed around the cyst. The diagnosis was a mucous retention cyst.

Key words: mucous retention cyst (停滞型粘液嚢胞), uvula (口蓋垂), infant (乳幼児)

緒 言

粘液嚢胞は唾液の流出障害により発生する嚢胞であり、発生部位としては下唇が最も多く、口底、舌下面、頬粘膜にも認められる^{1,2)}。その多くは外力を受けやすい部位に生じるが、口蓋垂に発生した報告は非常にまれである。

今回われわれは、1 歳児の口蓋垂に生じた停滞型粘液嚢胞の 1 例を経験したので報告する。

症 例

患 者：1 歳 1 か月、男児。
初 診：2017 年 12 月。
主 訴：口蓋垂の白色腫瘤。
既往歴：特記事項なし。

現病歴：初診 1 か月前に、発熱にて精査目的に受診した小児科で口蓋垂の腫瘤を指摘された。その後、腫瘤の増大を認めたために精査目的に当科受診となった。

現 症：

全身所見：身長 75 cm、体重 9.6 kg。発熱なし、栄養状態良好。

口腔内所見：口蓋垂先端に直径 5 mm 程度の白色球状の腫瘤を認めた。口蓋垂基部軟口蓋には異常所見を認めなかった。

検査所見：血液検査、胸部 X 線写真において特記すべき異常所見はなかった。

臨床診断：口蓋垂良性腫瘍。

処置および経過：経口摂取の障害などの症状はなく、経過観察を行っていたが、徐々に腫瘤が増大してきたため、母親が手術による摘出を希望した。初診 2 週後に全身麻酔下で摘出術を施行した。腫瘤は粘膜下に存在しており、境界が明瞭であった(写真 1)。表面粘膜に切開を加え周囲組織より剥離し摘出した。腫瘤と周囲組織との癒着は認められず、創は吸収糸で縫縮した。摘出標本は直径 5 mm 大の球形で、白色弾性軟であった(写真 2)。現在、術後 1 年が経過しているが、口蓋垂の形態に異常はなく、再発は認められていない。

病理組織学的所見：重層扁平上皮の裏装を伴う嚢胞性病

¹⁾ 市立伊丹病院歯科口腔外科
(主任：太田嘉幸主任部長)

²⁾ 大阪大学大学院歯学研究科顎口腔病態制御学講座
口腔外科学第二教室
(主任：鵜澤成一教授)

¹⁾ Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Itami City Hospital (Chief: Dr. OTA Yoshiyuki)

²⁾ Department of Oral and Maxillofacial Surgery II, Osaka University Graduate School of Dentistry (Chief: Prof. UZAWA Narikazu)

受付日：2019 年 6 月 11 日

採択日：2019 年 9 月 24 日

写真1 術前の口腔内写真
口蓋垂先端に白色の腫瘤を認める。

写真2 摘出標本写真
直径5 mm 大で表面平滑な類球形、弾性軟の腫瘤であった。

変で、内腔には粘液様物質と剥脱し変性した細胞が貯留していた。小唾液腺を囊胞上皮直下の結合組織内にわずかに認めた(写真3)。

病理組織学的診断：停滞型粘液囊胞。

考 察

粘液囊胞は唾液の流出障害により発生する囊胞であり、口腔領域に発生する軟組織囊胞のなかでは最も多くみられる。発生部位としては下唇に多く、次いで口底、舌、頬粘膜にもみられ、口蓋や臼後部にもまれに発生するが、本症例のように口蓋垂に発生した粘液囊胞はきわめてまれである¹⁻³⁾。粘液囊胞は、5歳以下の症例では下唇での発生が多く、とくに1歳児における粘液囊胞のほとんどは下唇に発生しており、乳前歯による誤咬が原因と考えられている⁴⁾。われわれが渉猟し得た限りでは、本邦における乳幼児の口蓋垂に発生した粘液囊胞の報告は1例⁵⁾のみで、口

写真3 摘出標本の病理組織像

- A: 全周にわたり上皮裏層を認める (H-E 染色 ×20)。
- B: 囊胞腔内に粘液を認める (Alcian Blue-PAS 染色 ×20)。
- C: 重層扁平上皮裏層を認める (H-E 染色 ×200)。
- D: 囊胞上皮直下の結合組織内に小唾液腺組織を認める (H-E 染色 ×200)。

表1 乳幼児における口蓋垂および口蓋垂周囲の粘液嚢胞

報告年	報告者	年齢	性別	部位	大きさ (mm)	組織型	原因
1996	高田ら ⁵⁾	3 か月	男児	口蓋垂鼻腔側	6	停滞型	先天的な呼吸上皮の迷入
2002	山川ら ⁶⁾	4 か月	女児	軟口蓋	5	停滞型	不明
2008	二宮ら ⁷⁾	1歳7か月	男児	軟口蓋	10×8	停滞型	後天性の可能性が高い
2019	本症例	1歳1か月	男児	口蓋垂先端	5	停滞型	不明

蓋垂基部の軟口蓋に発生した粘液嚢胞の報告は2例^{6,7)}のみであった(表1)。

粘液嚢胞は、病理組織学的に内面を上皮で覆われた明瞭な嚢胞壁を認める停滞型と上皮裏装を認めない溢出型に分けられ、その大半は溢出型である¹⁾。停滞型の症例はきわめて少なく、石田⁸⁾が291例中4例(1.4%)、重松ら⁹⁾が184例中3例(1.6%)であったと報告している。停滞型の成因については、異物または炎症による導管の閉塞に伴って生じると考えられてきた²⁾。しかしながら大久保ら¹⁰⁾は、①導管の拡張にしては嚢胞が大きいこと、②杯細胞や線毛上皮が存在すること、③導管の閉塞を認めないこと、④導管と嚢胞の連続性が認められないことから、導管閉塞以外の要因を示唆している。また黒豆¹¹⁾は、嚢胞上皮層内に豊富な粘液杯細胞や Oncocyte 様細胞が観察されるものでは、これらの細胞の増殖と分泌が嚢胞形成に関与しているように思われる、と考察している。いずれにしても、現在のところ停滞型粘液嚢胞の成因に関する統一した見解は得られていない。

停滞型粘液嚢胞の年齢分布は、中高齢者に多いと報告されている^{9,11)}。一方で、先天性と考えられる粘液嚢胞では停滞型が多い。発生部位は、先天性粘液嚢胞と考えられる症例では下唇での発生が比較的多く、本邦において口底での報告もみられた。報告例が少なく明確ではないが、発生原因は先天的要因や導管上皮の形態的、機能的要因が挙げられている^{12,13)}。1歳以下の口蓋や口蓋垂および咽頭に生じた嚢胞性病変を先天性と考え、その原因を外胚葉組織の遺残や迷入と考察している文献も散見される^{13~17)}。本症例では、先天性とするには発見時期が比較的遅い。しかしながら、母親などには発見され難いと想定され、詳細な発生時期は不明である。先天性とするならば、清水ら¹⁴⁾が軟口蓋裂部に生じた嚢胞について考察しているように、正中口蓋嚢胞の発症要因となる上皮迷入がさらに後方に進んだ結果とも考えられるが、その嚢胞壁は多列線毛円柱上皮と重層扁平上皮で構成されていることが特徴的と述べている。高田ら⁵⁾も口蓋垂の粘液嚢胞に関する報告のなかで、偽重層の円柱あるいは線毛円柱上皮および扁平上皮で被覆

されていたと述べたうえで、口蓋垂の咽頭側を上咽頭の一部と考え、先天性の saccular cyst に近い嚢胞ではないかと考察している。本症例では、病理組織学的に粘液杯細胞や Oncocyte 様細胞、外胚葉組織の遺残や線毛上皮の所見を得ることができず、これらの報告とは一致しなかった。本症例の病理組織学的な特徴としては、粘液嚢胞周囲に唾液腺組織が少なかったことが挙げられる。これより、小唾液腺発生の過程で何らかの異常が生じたとも考えられるが推測の域を出ない。

口蓋垂に発生する鑑別すべき疾患として、類皮嚢胞、類表皮嚢胞が挙げられる^{18~20)}。さらに、粘液嚢胞は小唾液腺腫瘍との鑑別も必要である²⁾。本邦における口蓋垂に発生する良性腫瘍としては乳頭腫が最も多く、線維腫、多形腺腫、顆粒細胞腫、脂肪腫、血管腫などが挙げられる。口蓋垂先端と比較して、口蓋垂と軟口蓋の移行部は筋肉や神経、脈管、小唾液腺が豊富であり、腫瘍発生の報告が散見されるが、口蓋垂の先端に発生した腫瘍の報告は、渉猟した限りでは多形腺腫のみであった^{21,22)}。

口蓋垂先端に発生した腫瘍性病変の治療法については、悪性を疑う所見がなければ確定診断と治療を兼ねて完全摘出が基本となるものと考え、本症例では良性腫瘍として摘出を行い、良好な結果が得られた。なお、非常にまれではあるが、本症例のように口蓋垂に粘液嚢胞が生じることがあり鑑別診断の1つとして考慮すべきであると考えている。

結 語

今回われわれは、口蓋垂先端に生じた停滞型粘液嚢胞の1例を経験したので若干の文献的考察を加え報告した。

謝辞

稿を終えるにあたり、病理組織学的検索をしていただいた当院病理診断科の宋 美紗先生に深謝申し上げます。

本論文の要旨は第63回(公社)日本口腔外科学会総会・学術大会(2018年11月、千葉)で発表した。

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) 上山吉哉:軟組織の嚢胞. 白砂兼光, 古郷幹彦 編集; 口腔外科学. 第3版, 医歯薬出版, 東京, 2012, 311-316頁.
- 2) 大家 清, 小川郁子, 他:唾液腺腫瘍. 高木 實 監修; 口腔病理アトラス. 第2版, 文光堂, 東京, 2002, 277-278頁.
- 3) Chi AC, Lambert PR, et al : Oral mucocèles : clinico-pathologic review of 1,824 cases, including unusual variants. J Oral Maxillofac Surg 69: 1086-1093, 2011.
- 4) 吉川文弘, 榊井今日子, 他:乳歯列期の小児に発症した粘液嚢胞の臨床的特徴. 日口粘膜誌 2: 32-35, 1996.
- 5) 高田 訓, 中江次郎, 他:乳児口蓋垂に見られた先天性粘液貯留嚢胞の1例. 日口外誌 42: 445-447, 1996.
- 6) 山川摩利子, 川口辰彦:乳児の軟口蓋に生じた粘液貯留嚢胞の1例. 小児歯誌 42: 304, 2002.
- 7) 二宮史浩, 恒吉隆奥, 他:1歳児の軟口蓋に発生した粘液貯留嚢胞の1例. 小児口外 18: 21-24, 2008.
- 8) 石田 恵:口腔粘液嚢胞の臨床的ならびに組織学的研究. 口腔病会誌 47: 447-464, 1980.
- 9) 重松久夫, 江田 哲, 他:粘液嚢胞の臨床病理学的検討. 口科誌 45: 258-262, 1996.
- 10) 大久保章朗, 松井竜太郎, 他:硬口蓋に発生した貯留型粘液嚢胞の1例. 日口外誌 42: 1224-1226, 1996.
- 11) 黒豆照雄:口腔粘液嚢胞の臨床病理学的研究. 日口外誌 29: 393-403, 1983.
- 12) 寺坂修治, 橋本 堅, 他:下唇に発生した先天性粘液嚢胞の1例. 日口外誌 47: 692-694, 2001.
- 13) Shapira M and Akrish S : Mucocèles of the oral cavity in neonates and infants – report of a case and literature review. Pediatric dermatology 31: 55-58, 2014.
- 14) 清水正嗣, 松本有史, 他:口蓋裂女児の口蓋垂先端に発生した先天性嚢胞の一例. 小児口外 4: 104-107, 1994.
- 15) 田坂康之:上咽頭嚢胞について. 耳鼻と臨 40: 109-113, 1994.
- 16) 高田 訓, 中江次郎, 他:乳児口蓋垂に見られた先天性粘液貯留嚢胞の1例. 日口外誌 42: 445-447, 1996.
- 17) 辻 龍雄, 早津良和, 他:乳児の咽頭部に発生した先天性粘液貯留嚢胞の1例. 小児口外 7: 46-48, 1997.
- 18) 武富晶子, 杉本忠雄, 他:上唇に発現した類皮嚢胞の1例. 日口外誌 37: 1191-1192, 1991.
- 19) 中島 健, 喜久田利弘, 他:口蓋垂に発現した類皮嚢胞の1例. 日口外誌 37: 1868-1869, 1991.
- 20) 藤村義秀, 前田顕之, 他:小児の口蓋垂に二房性に発生した類表皮嚢胞の1例. 日口外誌 44: 217-219, 1998.
- 21) 水城春美, 柳沢繁孝, 他:口蓋垂先端に発生した多形腺腫の1例. 日口外誌 30: 1840-1843, 1984.
- 22) 横山正人, 仙波哲雄, 他:口蓋垂腫瘍における過長口蓋垂の検討. 耳鼻臨床 85: 1625-1629, 1992.