右側耳下部に発生した Calcifying epithelioma の1例

鈴木和彦・藤田浄秀・中島敏之・富川孝秀
三宅久実男・増田正樹・大谷隆俊

A case of calcifying epithelioma in the right subauricular region

Kazuhiko SUZUKI・Kiyohide FUJITA・Toshiyuki NAKASHIMA・Takahide TOMIKAWA
Kumio MIYAKE・Masaki MASUDA・Takatoshi OHTANI

緒 言

Calcifying epithelioma は、1880年、Malherbe¹⁾ の発表以来、おもに外科^{2~4)}、皮膚科領域^{5~12)}に多くの報告がみられるが、口腔外科領域^{13~15)}では比較的少ない。

今回、われわれは右側下顎枝後縁部付近に発生した Calcifying epithelioma の1例を経験したので報告する。

症 例

患者：12歳 女性。

初診：昭和52年3月■。

主訴：右側耳下部の腫瘍。

家族歴および既往歴：特記事項はない。

現病歴：昭和50年8月ごろより右側下顎枝後縁部付近に、拇指頭大の無痛性腫瘍に気づくも放置した。昭和51年4月ごろより表面が潰瘍状になり、某病院皮膚科を受診、腫瘍摘出術をうけたが、4か月後に再度腫瘍が出現し、徐々に増大したため某外科を受診したところ、悪性腫瘍の疑いで、昭和52年3月■、当科に紹介された。

現症：a) 全身所見。体格、栄養中等度で、ほかに特記すべき事項はない。b) 局所所見。右側下顎枝後縁部付近に約45×25×30mm大、半球状に隆起し、境界比較的明瞭、表面凹凸の腫瘍があり、色は赤紫色、硬さは軟骨様硬、表面皮膚とは癒着していたが、下部との癒着は認められなかった(写真1)。c) X線所見。軟線撮

写真1 初診時局所所見

影像にて、右側耳介下部に境界比較的明瞭な、小卵円形の腫瘍に一致した半透過像がみられ、内部に点状あるいは帽針頭大の不透過像が散在して認められた(写真2)。d) 臨床検査所見。血清生化学検査で、黄疸指数の軽度上昇が認められた以外は正常値内であった。そのほか、血液、尿検査、心電図にも異常所見は認められなかった。

臨床診断：右側下顎枝後縁部の腫瘍。

処置ならびに経過：3月■試験切除施行。病理組織診断は Calcifying epithelioma であった。4月■、GOF 全麻下に腫瘍辺縁より約5mm外側に皮切を加え、術後耳介の変位を予防するために、耳介の前後に皮切を延長し、Y字型の切除創として腫瘍を全摘出した。腫瘍は皮下組織中に局在していたが、一部、前回手術のためと思われる耳下腺浅葉被膜との癒着癒着を示してい

横浜市立大学医学部口腔外科学教室（主任：大谷隆俊教授）

Department of Oral Surgery, School of Medicine,
Yokohama City University(Chief: Prof. Takatoshi Ohtani)

受付日：昭和53年3月22日

写真 2 軟線撮影像

写真 4 術後

写真 3

左：摘出物所見

右：剖面所見

た(写真3)。術後経過は良好で、現在までに顔面神経麻痺および腫瘍の再発傾向は認められない(写真4)。

摘出物肉眼的所見：被膜におおわれた充実性の腫瘍で、断面は白黄色で、腫瘍内に散在性の石灰化物が認められた。

病理組織学的所見：円形あるいは楕円形の核を有し、原形質の乏しい塩基性細胞群と、核の明かでなく好酸

性、無定形な陰影細胞群よりなり、陰影細胞群あるいは間質内に不規則な石灰化像が認められた。また、陰影細胞群に接して周囲結合組織内に、特に異物巨細胞が認められた。しかし、2つの細胞群には骨形成または色素沈着は認められなかった(写真5)。

写真 5 病理組織所見
左：弱拡大 右：強拡大

考 察

Calcifying epithelioma は、真皮と皮下組織との間、あるいは皮下組織中に生じる骨様硬の良性腫瘍であり¹⁶⁾、部位の関係から外科、皮膚科領域の疾患として取り扱われ、口腔外科を受診することはまれである。

本腫瘍の組織由来については種々の見解があるが、1880年 Malherbe¹⁾ は未分化の脂腺あるいは汗腺から発生した腫瘍と考えた。その後、1935年 Sutton ら¹⁷⁾ は脂腺上皮の迷芽より発生した腫瘍と考えた。また、1936年 Côté¹⁸⁾ は表皮性嚢腫と基底細胞上皮腫との中間型の腫瘍によるものとし、1942年 Muehlon¹⁹⁾ は基底細胞上皮腫で細胞が分化する代わりに変性したものとしている。今日では、1942年 Turhan および Krainer²⁰⁾ 以来、毛母細胞に由来するものといわれている。その後、Lever²¹⁾、Forbis⁵⁾、久保²²⁾、丸山¹⁰⁾ らもこれに賛同している。Lever²¹⁾、Highman および Ogden²³⁾ らは好塩基性細胞は毛母細胞に類似の機能を有し、成熟度がそれより低いので毛を作らずに毛細胞（陰影細胞）の不規則な集塊を作ったと考えた。また、陰影細胞群には石灰化が必ずしも認められるわけではなく、悪性の所見もないことから、Forbis⁵⁾ は本症に対して Pilomatrixoma の名称を提唱している。

本症は、一般に単発性で20歳前後の女性に多く、老年者、幼児発生例は比較的まれといわれているが、Kleener²⁴⁾ は72歳、大塚らは87歳の高齢者症例を、王ら⁷⁾ は7か月、Kleener²⁴⁾ は10か月の幼児症例を報告している。発生についてはほとんどが単発性であるが、まれに多発性の報告がある。Moehlenbeck¹⁹⁾ は170症例中6例に、渡辺²⁵⁾ は顔面、右肘、左膝窩、右下腿と離れた各部位に1個ずつ計4個の多発症例を報告している。われわれの症例は12歳、女性で、単発性であった。

発生部位は、ほとんどが上肢、顔面、頸部に多く、

Forbis⁵⁾ らは225例中、上肢35%、顔面21%、頸部13%、大塚ら³⁾ は122例中、上肢21%、顔面32%、頸部29%と報告している。また、顔面および頸部における好発部位は上眼瞼部、眉毛周囲部、耳前・耳後部、項部の毛のはえぎわ、胸鎖乳突筋の後縁に沿う部分に多いといわれている。われわれの症例は右側下顎枝後縁部付近であった。

局所所見としては、多くは正常皮膚におおわれ、皮膚面よりやや突出した可動性の境界明瞭な骨様硬の腫瘍であり、われわれの症例では表面凹凸のある赤紫色、軟骨様硬で皮膚より半球状に隆起していた。

病理組織学的所見として、本腫瘍を構成する細胞は通常2種類で、大形、円形または楕円形の塩基性核を有し、原形質の乏しい好塩基性細胞と、核は明らかでなく、わずかに好酸性に染まり、細胞境界鮮明な陰影細胞よりなっている。特に発生まもない幼若な腫瘍では好塩基性細胞が豊富であるが、陳旧性のものは減少し、陰影細胞が増加し、両者の間に移行型の細胞をみることもある²⁶⁾。この2つの細胞群のうち、陰影細胞群に石灰化が認められるが、必発の所見ではなく、Lever²¹⁾ らは15例中5例、Forbis⁵⁾ は228例中36例に石灰化が認められなかったと報告している。また、本腫瘍細胞中あるいは周囲間質中にメラニン顆粒が存在することもある。陳旧性腫瘍では、ごくまれに骨形成が認められる。腫瘍塊周囲結合組織には異物反応として異物巨細胞を含む細胞浸潤をみることもある。われわれの症例では、好塩基性細胞群より陰影細胞群が比較的多く存在し、陰影細胞群あるいは間質中に不規則な石灰化が認められた。また、陰影細胞群に接して異物巨細胞が認められた。

本症と鑑別を要する疾患は、基底細胞腫の結節型、潰瘍型である。基底細胞腫は、本症の好塩基性細胞に類似し、陰影細胞の存在が確定診断となることがある。また、口腔外科領域の疾患として、顎骨内部あるいは歯肉部に発生する石灰化歯原性嚢胞と組織学的に類似性が認められるが、本質的に腫瘍ではなく嚢胞性疾患で、本症

との鑑別は容易である²⁷⁾。

本症の治療としては単純剔出で十分で、再発はほとんどないといわれている。本症例は某病院皮膚科にて摘出、4か月後に再発しているが、当科で摘出後は、現在までに再発は全く認められない。

結 語

われわれは12歳女性の右側下顎枝後縁部付近に発生した Calcifying epithelioma の1例を経験したので報告する。

本論文の要旨は昭和52年10月23日第22回日本口腔外科学会総会において発表した。

文 献

- 1) Malherbe, A., Chenantais, J.: Note sur l'épithéliome calcifié des glandes sébacées. Bull Soc anat de Paris 5: 169 1880. 2) より引用。
- 2) 谷村 弘: 石灰化表皮腫 (Malherbe) について。外科 29: 977 1967.
- 3) 大塚 寿, 他: Calcifying epithelioma の臨床像について。形成外科 16: 447 1973.
- 4) 上原栄之輔, 他: 小児表在性腫瘍性疾患の統計的観察——とくに石灰化上皮腫について——。小児・外科・内科 8: 1277 1976.
- 5) Forbis, R., et al.: Pilomatrixoma (calcifying epithelioma). Arch Derma 83: 606 1961.
- 6) Peterson, W.C., et al.: Calcifying epithelioma of Malherbe. Arch Derma 90: 404 1964.
- 7) 王 鈞軍, 他: Pilomatrixoma——幼児に発生した2例——。皮膚科の臨床 8: 137 1966.
- 8) 新妻 寛, 他: 石灰化表皮腫。皮膚科の臨床 8: 206 1966.
- 9) 桜井克彦, 他: 石灰化上皮腫の1例。皮膚科の臨床 8: 603 1966.
- 10) 丸山雄造, 他: 石灰化上皮腫 (Malherbe) の18例。皮膚科の臨床 9: 729 1967.
- 11) Wong, W.K., et al.: Eruptive, multicentric Pilomatrixoma (calcifying epithelioma). Arch Derm 106: 76 1972.
- 12) Mochlenbeck, F.W.: Pilomatrixoma (calcifying epithelioma). Arch Derm 108: 532 1973.
- 13) 青木良枝, 他: 石灰化上皮腫の1例。東女医大誌 35: 270 1965.
- 14) 小宮山一雄, 他: 石灰化表皮腫の臨床病理学的検討。口科誌 24: 170 1975.
- 15) 浅田洗一, 他: 顎下・上頸部に発生した Calcifying epithelioma の1例。日口外誌 5: 729 1977.
- 16) 北村包彦編: 臨床皮膚科全書 4. 第1版, 金原出版, 東京, 1969, 79頁。
- 17) Sutton, R.L., et al.: Calcifying epithelioma. Arch Derm Symp 31: 48 1935.
- 18) Côté, F.H.: Benign calcified epithelioma of the skin. J Path Bact 43: 575 1936.
- 19) Muehlon, W.F.: Zur Kenntnis des Malherbéschen Epitheliome. Schweiz Ztschr Path Bakt 5: 53 1942.
- 20) Turhan, B., Krainer, L.: Bemerkungen über die sogenannten verkalkenden Epitheliome der Haut und ihre Genese. Dermatologica 85: 73 1942.
- 21) Lever, W.F., et al.: Calcifying epithelioma of Malherbe. Arch of Derm Syph 59: 506 1949.
- 22) 久保 緑: 石灰化上皮腫——その組織由来に関する考察——。臨床皮膚科 27: 645 1973.
- 23) Highman, B., et al.: Calcified epithelioma. Arch Path 37: 169 1944.
- 24) Kleener, J.: Pilomatrixoma (epithelioma calcificans Malherbe) Acta Ophth 51: 692 1973.
- 25) 渡辺 昭: 石灰化表皮腫。皮性病誌 46: 178 1939.
- 26) Lever, F., et al.: Histopathology of the Skin V. ed 15, Lippincott Co., Philadelphia, 1975, p 518.
- 27) 石川梧朗編: 口腔病理学Ⅱ。永末書店, 東京, 1971, 849頁。