Verruciform xanthoma の 1 例

菊地正明・飯塚芳夫・林進武
手島貞一*・岡辺治男**

A case of verruciform xanthoma

Masaaki KIKUCHI・Yoshio IIZUKA・Susumu HAYASHI
Teiichi TESHIMA*・Haruo OKABE**

緒言

Verruciform xanthoma は、1971年 Shafer¹⁾ によって初めて報告された口腔領域におけるきわめてまれな疾患である。
今回、われわれは上顎右側大臼歯部歯槽粘膜に発生した 1 例を経験したので報告する。

症例

患者： 61歳 男性。
初診：昭和52年 2 月 日。
主訴：上顎右側臼歯部の腫瘍。
家族歴：特記事項なし。
既往歴：9 歳時腎炎，41 歳時右下眼瞼の霰粒腫，58 歳時高血圧症に罹患した。
現病歴：昭和49年 2 月に 7| を慢性辺縁性歯周炎の急性発作により抜歯。昭和51年 1 月に 6| の残根を抜歯。その時点で同部歯肉に異常所見はなかった。最近，他医にて 7| 部歯槽粘膜上の小腫瘍を指摘され当科に来院したが，それまで自覚症状はなかった。

東北大学歯学部第 1 口腔外科学教室（主任：林進武教授）
* 東北大学歯学部第 2 口腔外科学教室（主任：手島貞一教授）
** 東北大学歯学部口腔病理学教室（主任：山本肇教授）
First Department of Oral Surgery, School of Dentistry, Tohoku University (Chief: Prof. Susumu Hayashi)
* Second Department of Oral Surgery, School of Dentistry, Tohoku University (Chief: Prof. Teiichi Teshima)
** Department of Oral Pathology, School of Dentistry, Tohoku University (Chief: Prof. Hajime Yamamoto)
受付日：昭和53年11月13日

表 1 臨床検査成績

血液一般検査	血清生化学的検査
WBC 6200/mm ³	総蛋白 7.8g/dl
RBC 469×10 ⁴ /mm ³	血清蛋白分画 (%)
Hb 14.6g/dl	Al 61.4, α ₁ 4.4, α ₂ 7.5
Ht 46.0%	β 9.2, γ 17.5
白血球百分比 (%)	血清尿素窒素 14mg/dl
M 5, L 28, E 5, B 0,	クレアチニン 0.9mg/dl
St 11, Seg 51	空腹時血糖 103mg/dl
Plat 25×10 ⁴ /mm ³	総コレステロール 160mg/dl
	中性脂肪 119mg/dl
尿検査	磷脂質 192mg/dl
糖定性 (－)	カイロミクロン (－)
蛋白定性 (－)	β リポ蛋白 正常
ウロビリノーゲン (－)	pre-β リポ蛋白 軽度増加
比重 1.011	α リポ蛋白 正常
	Ca5.0mEq/dl, Na141mEq/dl, K 4.5mEq/dl, Cl 102mEq/dl, P 2.2mg/dl
免疫血清検査	II 5, GOT 14, GPT 6,
RA (－)	ALP 6.7, LDH 317, ZTT 6.1, TTT 3.3
CRP (－)	
ASLO 50Todd	
Wa-R (－)	

現 症：
全身所見：体格中等度，栄養状態良好。顔貌は左右対称性で顔色は正常である。その他特記すべき異常はみられない。
口腔内局所所見：7| 部歯槽粘膜に 3 個のほぼ円形の比較的境界明瞭な，凹凸不整の疣贅状を呈する小腫瘍を認めた。表面は帯黄赤色で，無茎性である。大きさは 6| 部のものは直径約 6mm，7| 部は直径約 3mm と 4mm であり，3 個の腫瘍はそれぞれ独立していた（写真 1）。
硬度は弾性軟で，圧痛および自発痛はなく，易出血性ではなかった。
X線所見：7| 部の抜歯窩に相当して骨のわずかな透

写真 1~6

1. 局所所見：上顎右側大白歯部歯槽粘膜上の3個の腫瘤。なお、この写真はトルイジンブルー生体染色後の写真である。
2. 右上顎咬合型X線写真：76|部の抜歯窩に相当して骨のわずかな吸収像がみられる。
3. 摘出腫瘍の実体顕微鏡像：表面の凹凸不整が著明である。
4. 病理組織所見：実体顕微鏡像，H-E染色 10×，上皮の乳頭様増殖が一様の深さにみられる。
5. 病理組織所見：H-E染色 40×，固有層内に限局した泡沫細胞。
6. 病理組織所見：H-E染色 400×，xanthoma cell。

過像がみられた（写真2）。

臨床検査所見：血中リポ蛋白検査で pre- β -Lipoprotein にわずかな増加がみられたが，その他の血液一般，免疫血清，尿，血清生化学検査所見に異常はなかった（表1）。

血圧は176/70mmHgであった。

臨床的診断：乳頭腫の疑い。

手術所見：局所麻酔下にて腫瘍摘出術を施行した。その際，6|部と7|部の2か所に分けて歯槽骨に至るまで切開を加えたが，露出した歯槽骨には異常所見は認められなかった。

表 2 Verruciform xanthoma の報告例

報 告 者	人 種	年 齢	性	部 位	大 き さ	色 調	表面の性状	茎の有無
Shafer (1971) ¹⁾	白 人	27~67 平均50	M 7	歯肉, 齒槽粘膜	直径 2~15mm	正常ないし 赤色 時に青白色	疣 状	無茎性 ないし 有茎性
			F 8	口 蓋 口腔底 口 唇 下顎歯肉頰移行部				
Miller & Elzay (1973) ²⁾	白 人	46	M	6 部唇側歯肉				
	"	47	M	5 部舌側歯肉				
	"	43	F	134 間唇側歯肉			乳頭状	
	"	55	F	17 部舌側歯肉				
	"	80	F	下顎前歯部齒槽粘膜		白色	カリフラワー状	無茎性
	"	29	F	145 間唇側歯肉			疣 状	
Zegarelli, et al. (1974) ³⁾	白 人	18	M	167 間舌側歯肉	15×20mm	赤 色	顆粒状	
	"	31	M	156 間舌側歯肉	7×10mm	灰 色	乳頭状	
	白 人	29	M	6 部舌側歯肉	10×10mm	赤 色	疣 状	
Cobb, et al. (1976) ⁵⁾	白 人	21	M	65 部舌側歯肉	10×20mm	黄色ないし 赤色	顆粒状	
Graff, et al. (1978) ⁷⁾	黒 人	37	F	5 部歯肉~頰粘膜	15×40mm	灰褐色	乳頭状	
自 験 例	黄色人種	61	M	76 部齒槽粘膜	直径 4, 3, 6mm	帶黄赤色	疣 状	無茎性
備 考	27 例 中	18~80	M14	27例中歯肉および齒槽	最小: 直径 2 mm			
	白人25例	F13	F13	粘膜 21例	最大: 15×40mm

■写真 7 病理組織所見：xanthoma cell の電顕像。
2,400×, LV：空胞。

摘出物：

実体顕微鏡所見：表面は凹凸不整が著明である（写真 3）。

病理組織学的所見：表面に著明な角化を伴った重層扁平上皮の乳頭様増殖が一様の深さにみられる（写真 4, 5）。上皮細胞に異型性は認められない。乳頭様増殖の下方に局限して多数の明るい大型の細胞の集束が認められるが、クロマチンに富む小型の核が比較的中央に位置するものが多く、H-E 染色で細胞質は明るく、エオジンの色を軽くにとって細かい顆粒状にみえる（写真 6）。この細胞はその形態から xanthoma cell と考えられる。なお、Touton giant cell は認められなかった。

電顕所見：パラフィン包埋の材料から得られた電顕写真は、泡沫細胞の中央におおむね類円形の核が、さらにその真中に 1 個の核小体がみられる。また豊富な細胞質の中は多数の空胞で満たされており、xanthoma cell の所見と考えられる。

病理組織学的診断：verruciform xanthoma。

経過：術後経過は良好で、1 年 9 か月後の現在再発は認められない。

考 察

本疾患は 1971 年 Shafer¹⁾ によって初めて 15 例が報告され、次いで Miller と Elzay²⁾ が 1973 年に 6 例、Zagarelli ら^{3,4)} が 1974 年に 2 例および 1975 年に追加 1 例の計 3 例、Cobb ら⁵⁾ が 1976 年に 1 例、Graff ら⁷⁾ が

1978 年に 1 例の計 26 例が報告されているにすぎない、われわれが文献を渉猟し得た範囲では、本邦ではまだ報告されていないようである。自験例を含めて文献的に全 27 例を統括すると表 2 のようになる。すなわち、人種別では白人 25 例¹⁻⁵⁾ (92.6%)、黒人 1 例⁷⁾ (3.7%)、黄色人種 1 例 (3.7%) で、白人に圧倒的に多く報告されている。また、年齢別では 18~80 歳と成人以上にみられ、性別では男性 14 例 (51.9%) 対女性 13 例 (48.1%) とほとんど同率である。発生部位は、歯肉および歯槽粘膜が 21 例 (77.8%) と最も多く、口蓋、口底部が各 2 例 (7.4%) ずつ、口唇、歯肉頬移行部が各 1 例 (3.7%) ずつである。数に関して自験例のごとく同一患者で 3 個と多発性にみられた報告はほかにない。腫瘍の大きさは記載のないものもあるが、最小で直径 2mm¹⁾、最大で 1.5 cm×4cm⁷⁾ である。色調は多様で、赤色ないし正常色を呈するものが多く、表面は疣状、乳頭状などと表現されるように凹凸不整である。また無茎性も有茎性もある。X線学的に腫瘍部の骨には異常所見はない。また、臨床検査所見にもほとんど異常を認めず、特に脂質代謝異常は報告されていない。本症例においても、血清脂質中 pre-β-Lipoprotein (VLDL) にわずかな増加がみられた他は正常であるため、全身代謝異常性黄色腫症にみられるものとは異なっている。病理組織学的には、本症例はすでに報告されたものとほぼ同一であり、Keratin あるいは parakeratin で覆われた疣贅状の表面と、上皮の深さの乳頭様増殖があり、その固有層内に局限して大きな明るい foam cell あるいは xanthoma cell がみられることで特徴づけられる。これらの細胞は juvenile xanthogranuloma に生ずるものと同一である⁸⁾ が、juvenile xanthogranuloma にみられるような Touton giant cell⁶⁾ は verruciform xanthoma にはみられない。病因論としては、全身に系統的に発生する histiocytosis X などとは異なり、単に局所の異常により本病変が発生するものと思われる。このことは他の全身所見がみられないことや、臨床検査結果からも明らかである。しかし Shafer¹⁾ の症例中 1 例に糖尿病患者の存在したことが Miller ら²⁾ によって報告されているが、自験例も含めて他の報告ではみられないため本疾患と糖尿病性黄色腫症との関係はきわめて薄いと思われる。腫瘍表面が疣状を呈することについては Zagarelli ら⁴⁾ は電顕所見から、何らかの原因によって剝離した上皮が上皮内に取り込まれ、脂質の形成を伴う変性をきたし、それにより空胞細胞化したものが多数蓄積し、2 次的に表面が疣状化するのではと述べている。いずれにせよ腫瘍表面の疣状化と空胞細胞との間には密接な関係があると思われるが、どちらが先行するかについては不明である。

本病変は、外科的に切除されれば予後は良好で、再発および悪性化がみられない良性的腫瘍である。

結 語

同一患者で多発性に発現した verruciform xanthoma の1例を経験したので報告した。

本邦での報告としては第1例である。

本論文の要旨は第9回みちのく歯学会（昭和52年9月，山形）において発表した。

引 用 文 献

- 1) Shafer, W.G.: Verruciform xanthoma. Oral Surg 31: 784 1971.
- 2) Miller, A.S. and Elzay, R.P.: Verruciform Xanthoma of the Gingiva: Report of Six Cases. J Periodont 44: 103 1973.
- 3) Zegarelli, D.J., Zegarelli-Schmidt, E.C., and Zegarelli, E.V.: Verruciform xanthoma: A clinical, light microscopic, and electron microscopic study of two cases. Oral Surg 38: 725 1974.
- 4) Zegarelli, D.J., Zegarelli-Schmidt, E.C., and Zegarelli, E.V.: Verruciform xanthoma: Further light and electron microscopic studies, with the addition of a third case. Oral Surg 40: 246 1975.
- 5) Cobb, C.M., Holt, R., and Denys, F.R.: Ultrastructural features of the verruciform xanthoma. J Oral Path 5: 42 1976.
- 6) Kjaerheim, Å., and Stokke, T.: Juvenile xanthogranuloma of the oral cavity: An electron microscopic study. Oral Surg 38: 414 1974.
- 7) Graff, S.G., Burk, J.L., and McKean, T.W.: Verruciform xanthoma: First case reported in a black person. Oral Surg 45: 762 1978.