小唾液腺に発生した乳頭状嚢腺腫の1例

林 誠一・遠藤盛孝・高橋徳昭
関戸幹夫・藤田浄秀・大谷隆俊

A case of papillary cystadenoma of the minor salivary gland

Seiichi HAYASHI・Moritaka ENDO・Noriaki TAKAHASHI
Mikio SEKIDO・Kiyohide FUJITA・Takatoshi OHTANI

結 言

乳頭状嚢腺腫は腺組織より発生する良性腫瘍で主として卵巣や甲状腺にみられるといわれるが、口腔領域では、まれである。口腔領域では耳下腺に多く、小唾液腺に発生した本腫瘍の報告は、諸外国では少数の報告を散見するが、本邦での報告は森本¹⁾、野田²⁾の報告があるにすぎない。

今回われわれは左臼後三角部に発生した本腫瘍の1例を経験したので報告する。

症 例

患 者： 41歳 女性。

初 診：昭和56年1月 日。

主 訴：左臼後三角部の腫瘍。

既往歴：特記事項なし。

現病歴：昭和54年10月 日左下智歯周囲炎にて某歯科にて左下顎智歯を抜歯し、その際左臼後三角部の腫瘍を指摘されるも無痛のため放置した。しかし55年12月 日夜、39°Cの発熱と咽頭痛があり、 日 病院内科を受診した。その際既往歴から歯性炎症による発熱と考えられ、同病院歯科に紹介された。歯科受診時、炎症症状はほとんどなく、左臼後三角部に拇指頭大の腫瘍を認め、生検の結果、乳頭状嚢腺腫と診断され、56年1月 日本学口腔外科に紹介された。

現 症：体格中等度、栄養状態良好、その他特記事項なし。

口腔外所見：顔貌左右対称、顔色良好、その他特記事項なし。

口腔内所見：開口障害なく、左下顎臼後三角部から軟口蓋部にかけて18×12×8 mm大の2つの結節様の腫瘍が存在し、弾性やや軟、境界は比較的明瞭で骨との癒着はないが、粘膜との癒着が認められた。腫瘍の後1/2舌側に米粒大の粘膜欠損があり、ゾンデが約3 mm入り、同部より無色透明、粘稠な液が排出されていた(写真1)。

X線所見：同部の骨に異常はなかった。

諸検査所見：末血、生化、尿等では異常所見を認めなかった。

臨床診断：小唾液腺腫瘍。

写真1 初診時口腔内所見

写真2 摘出後口腔内所見(5か月後)

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56年7月15日

写真3-A 摘出物

写真3-B 摘出物断面
大小種々の嚢胞が認められる。

写真4 病理組織像 (H-E染色, 低倍)

写真5 病理組織像 (H-E染色, 高倍)
写真4の一部拡大。

処置および経過：昭和56年1月■日入院，1月■日GOF麻酔下に腫瘍摘出術を施行した。腫瘍の辺縁から約5mm離れた部位に骨に達するまで切開を加え，健康組織を含み腫瘍を一塊として摘出した。腫瘍の底面は骨に接しており，同部の骨は肉眼的には正常であったが，念のため骨バーにて骨を一層削除した。

術後の経過は良好で56年2月■日退院，現在まで再発は認めない（写真2）。

摘出物所見：摘出物は大きさ21×14×10mmで表面淡黄色を呈し，その中央に一部粘膜の欠損がみられた（写真3-A）。断面は大小数個の嚢胞腔がみられ，粘性の分泌物に満たされていた（写真3-B）。

病理組織学的所見：腫瘍は大小嚢胞腔に拡張した腔を囲む上皮の増殖から成り，腔内には粘液物質を含んでお

り，上皮の乳頭状増殖を示す部分もある。上皮は基本的に円柱状をなし，部位によっては多数の粘液細胞を認める。細胞学的悪性像は認められない。間質は少量の腺組織から成る。腫瘍は被覆粘膜上皮（口腔粘膜上皮）と一部で連絡しており，また基底側では粘液腺組織と直接接している。その他の部では被膜の形成はみられないが周囲との境界は明らかである（写真4～6）。PAS染色，ムチカルミン染色ではそれぞれ陽性であった。

病理組織学的診断：乳頭状囊腺腫。

考 察

乳頭状囊腺腫は卵巣，甲状腺，唾液腺などの腺組織より発生するまれな腫瘍で，口腔領域においては唾液腺よ

写真6 病理組織像 (H-E染色, 中倍)
大小の囊胞腔を認められる部分を示す。

り発生する。唾液腺ではおもに耳下腺にみられ、ときに顎下腺あるいは小唾液腺にも発生し、小唾液腺では軟口蓋に多いといわれている³⁾。

小唾液腺に発生した本腫瘍は極めてまれであり、欧米の文献では、1941年 Skorpil⁴⁾の最初の報告以後、われわれの調べた範囲では現在までに17例の報告があるにすぎなかった(表1)。本邦では1977年、森本ら¹⁾が小唾液腺腫瘍の臨床統計的観察のなかで硬口蓋に発生した本腫瘍の1例を記載している。さらに1979年、野田ら²⁾が一部に本腫瘍所見を含んだ腺癌の報告をしている。

欧米の17例⁵⁻¹⁷⁾の報告を部位別にみると、表1のごとく、口蓋部7例、頬粘膜部7例、下唇部、舌下面部、扁桃部がそれぞれ1例ずつであった。

本腫瘍は一般に成人、特に中年以後にみられるが、性差は明らかでない³⁾。われわれの症例は41歳女性であった。

本腫瘍は Anderson¹⁸⁾によれば、発育のゆるやかな弾力性のある柔らかい不規則な形をした結節より成るとしている。われわれの症例では弾性軟の結節様腫瘤であった。組織学的には腺上皮が種々の形の広い管腔を囲んで増殖し、腔内へ乳頭状の突出を示すときには単に囊腺腫の像を呈するものもある。上皮は一層または多層で、内層のものは円柱状ないしは立方形をなし、囊胞状に著しく拡大した腔壁では扁平化をきたす。上皮のなかには明細胞や粘液細胞あるいはオンコサイト様の細胞の存在するものもある³⁾。Warthin 腫瘍に組織像が類似しているが、リンパ組織の増殖のないことで区別される^{11,18)}。

発生由来については、Wilson ら¹⁰⁾、Evans ら²⁰⁾は唾

表1 欧米における小唾液腺より発生した乳頭状囊腺腫

報告者	年次	年齢	性別	部位
1 Skorpil	1941	78	M	扁桃部
2 Skorpil	1941	28	M	口蓋部
3 Stout	1946	50	F	舌下面部
4 Hobock	1949	45	F	口蓋部
5 Castigliano et al.	1954	52	F	口蓋部
6 Vellios et al.	1955	—	—	口蓋部
7 Brooks et al.	1956	31	M	口蓋部
8 Brooks et al.	1956	63	M	口蓋部
9 Chaudhry et al.	1958	64	M	頬粘膜部
10 Collins	1958	74	F	頬粘膜部
11 Bernier et al.	1958	—	M	頬粘膜部
12 Bernier et al.	1958	53	F	頬粘膜部
13 Parnes	1966	53	M	頬粘膜部
14 Goldman	1967	58	F	口蓋部
15 Akin et al.	1973	53	M	下唇部
16 Wilson et al.	1974	77	M	頬粘膜部
17 Kerpel et al.	1978	72	F	頬粘膜部

平均年齢：56.7歳 (28~78歳)

男性：9、女性：7

液腺の導管上皮の増生に起因するとしているのに対して、Bauer and Bauer²¹⁾、Calhoun ら²²⁾、Goldman¹⁴⁾、Crocker ら²³⁾は唾液腺の導管細胞から発生した真の新生物であると報告している。

本腫瘍の発生頻度は Chaudhry¹⁹⁾らによれば、小唾液腺由来の良性腫瘍43例中3例 (6.9%)、森本らは57例中1例 (1.7%) であった。

再発については Skorpil⁴⁾は本腫瘍が局所破壊性に増殖し、再発しやすい傾向があり、生物学的に悪性の潜在能を有するものとみなしており、欧米で報告された17例中3例に再発が認められた。

本例は経過良好で、再発は現在認められない。

結 語

41歳、女性の左下顎臼後三角部に発生した小唾液腺由来の乳頭状囊腺腫の1例を経験したので、その概要を報告し若干の文献的考察を加え報告した。

稿を終えるにあたり、病理組織学的診断をしていただいた東京医科歯科大学歯学部口腔病理学教室石川梧朗教授に深く感謝いたします。

なお本論文の要旨は昭和56年6月20日第120回日本口腔外科学会関東地方会 (東京女子医大) にて報告した。

引用文献

- 1) 森本忠三, 他: 小唾液腺腫瘍の臨床統計的観察. 日口外誌 23: 6 1974.
- 2) 野田三重子, 他: Papillary cystadenoma より Carcinoma へ推移したと思われる1症例の形態的検討. 口科誌 28: 4 1974.
- 3) 石川梧朗, 秋吉正豊: 口腔病理学Ⅱ. 永末書店, 京都, 1970, 1064頁.
- 4) Skorpil, F.: Über des Cystadeüoma papillare der grossen und kleinen Speicheldrüsen. Frankfurt Ztschr Path 55: 39 1941.
- 5) Stout, A.P.: Tumor seminar. Texas State J Med 91: 567 1946.
- 6) Hoboek, A.: Intraoral mucous and salivary gland mixed tumors. Acta Radiol 32: 229 1949.
- 7) Castigliano, S.G., et al.: Intraductal papilloma of the hard palate. OS OM OP 7: 232 1954.
- 8) Vellios, F., et al.: The natural history of tumors peculiar to the salivary glands. Am J Clin Path 25: 147 1955.
- 9) Brooks, H.W., et al.: Papillary cystadenoma of the palate. OS OM OP 9: 1047 1956.
- 10) Chaudhry, A.P., et al.: Papillary cystadenoma of minor salivary gland origin, report of case. Oral Surg 13: 452 1960.
- 11) Collins, E.M.: Papillary cystadenoma of the accessory salivary gland. Am J Surg 96: 749 1958.
- 12) Bernier, J.L.: Lymphoepithelial lesions of salivary glands. Cancer 11: 1156 1958.
- 13) Parnes, E.I.: Papillary cystadenoma. OS OM OP 21: 782 1966.
- 14) Goldman, R.L.: Melanogenic papillary cystadenoma of the soft palate. Am J Clin Path 48: 49 1967.
- 15) Akin, R.K.: Papillary cystadenoma of the lower lip, report of a case. J Oral Surgery 31: 858 1973.
- 16) Wilson, D.F., et al.: Papillary cystadenoma of ectopic minor salivary gland origin. Oral Surg 36: 915 1974.
- 17) Kerpel, S.M.: The papillary cystadenoma of minor salivary gland origin. Oral Surg 46: 820 1978.
- 18) Anderson, W.A.D.: Pathology. ed 3, St Louis, 1957, p 740.
- 19) Chaudhry, A.P.: Intraoral minor salivary gland tumors, an analysis of 1,414 cases. OS OM OP 14: 10 1961.
- 20) Evans, R.W., et al.: Epithelial Tumors of the Salivary gland. W.B. Saunders Co, Philadelphia, 1970, p 38.
- 21) Bauer, W.H. and Bauer, J.D.: Classification of glandular tumors of salivary glands, study of 143 cases. Arch Pathol 55: 328 1958.
- 22) Calhoun, N.R., et al.: Mixed tumor of the palate, report of a case. J Oral Surg 15: 159 1957.
- 23) Crocker, D.J., et al.: Intraoral minor salivary gland tumors, report of cases. Oral Surg 29: 60 1970.