軟口蓋にみられたリンパ上皮性嚢胞の1例

大枝直樹・三村 保・田中 勉・椎原 保

A lymphoepithelial cyst of the soft palate: Report of a case

Naoki OHEDA・Tamotsu MIMURA・Tsutomu TANAKA・Tamotsu SHIHARA

緒 言

リンパ上皮性嚢胞 (lymphoepithelial cyst)¹⁾ は比較的稀な疾患であり、口腔粘膜直下に限局性、無痛性腫瘍として生じる。発育は緩慢で無症状に経過し、小豆大になって気付かれることが多い。摘出後の再発はない^{1,2)}。

組織学的には鰓嚢胞(branchial cyst)³⁾に類似するが、その発生機序についてはいまだ定説をみない。本疾患のほとんどは口腔底、舌などに発生し^{1,2,4-12)} 口蓋咽頭弓に生じた報告例はない。

今回、われわれは軟口蓋(口蓋咽頭弓)に生じたリンパ上皮性嚢胞と思われる1例を経験したので、その概要を報告して先人の症例に加えるとともに若干の文献的考察を行った。

症 例

患 者: 45歳 女性。

初 診: 昭和56年4月■日。

主 訴: 右側軟口蓋部の腫瘍形成。

既往歴・家族歴: 特記すべき事項なし。

現病歴: 2か月前に右側軟口蓋部のえんどう大の腫瘍に気づいた。無症状なので放置していたが、腫瘍の消退がみられないため精査を希望して来院した。

現 症: 右側軟口蓋(口蓋咽頭弓)の中央部後縁寄りにえんどう大、可動性の黄色腫瘍を認める。硬さは弾性軟で圧痛なく、周囲組織の硬結も認められない。表面粘膜は平滑で腫瘍と周囲組織との境界は明瞭である(写真1)。

臨床検査所見・レントゲン所見: HBs 抗原陽性以外、異常所見は認められない。

写真1 口腔内所見

右側口蓋咽頭弓にえんどう大の腫瘍を認める。

写真2 術後2か月の口腔内所見

再発なく瘢痕の形成も認められない。

臨床診断: 脂肪腫。

治療および経過: 昭和56年6月■日、全麻下に粘膜を切開し腫瘍を摘出した。一部に粘膜との癒着を思わせる部位があった。腫瘍の下端は口蓋扁桃に近接していたが連続性はなかった。口蓋扁桃には急性炎症症状は認めなかったが、小膿栓をとところどころに認めた。術後診断としては、口蓋扁桃膿栓形成とした。術後の経過は良好で現在まで再発は認められない(写真2)。

摘出物所見: 摘出物は大きさ5×4×4mm、弾性軟、薄い壁を有する嚢胞状で黄白色の泥状内容物を認めた。

鹿児島大学歯学部第2口腔外科学講座(主任: 三村保教授)

The Second Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Kagoshima University, School of dentistry (Chief: Prof. Tamotsu Mimura)

受付日: 昭和56年7月31日

写真3 摘出物所見
嚢胞壁および泥状内容物

写真4 摘出嚢胞の切片標本
嚢胞内面は重層扁平上皮でおおわれ周辺にリンパ性組織が認められる(×40).

写真5 嚢胞壁にみられる胚中心をもつリンパ濾胞(×100)

(写真3).

病理組織学的所見：摘出物はホルマリン固定後，通法に従いパラフィン包埋し，H-E 染色を施して観察した。組織学的には，内面を重層扁平上皮が被う嚢胞で，上皮は錯角化を呈し釘脚はみられない。上皮下にはリンパ性組織が嚢胞のほぼ全周にわたってみられ（写真4），リンパ濾胞の形成とともに胚中心がみられた（写真5）。

粘膜上皮と嚢胞内面を被う上皮との移行を思わせる像はみられなかった。以上の病理組織学的所見より，リンパ上皮性嚢胞と診断した。

考 察

口腔粘膜にみられるリンパ上皮性嚢胞は，臨床的には口腔粘膜上皮直下に存在する2～3mm 径から15mm 径の無痛性腫瘤としてみられ，その内腔に黄白色の泥状ないしチーズ様の内容物を含んでいる。

粘液腫，脂肪腫，線維腫，乳頭腫，慢性膿瘍，肥厚リンパ組織などが臨床診断としてくだされることが多

く^{2,9,12)}，本症例でも脂肪腫と臨床診断をつけている。

口腔粘膜に発生したリンパ上皮性嚢胞の報告例で渉猟し得たものを表1に示した。発生部位は口腔底（66例）がもっとも多く，ついで舌（24例），軟口蓋（4例），下顎前庭（2例），下顎後臼歯部（1例），口蓋舌弓（3例）である。性別では，男性64例，女性36例であり，やや男性に多い。発現年齢は7歳から81歳にまで及び平均年齢は35歳，来院までの期間は1か月から10年に亘っている。本嚢胞は，ほとんどの場合無症状に経過し，あまり大きくなることがないため口腔診査の際，たまたま見つかることが多い。本症例では軟口蓋に生じたため，嚥下時の異和感を訴えていた。

本嚢胞の組織像は通常，釘脚を持たない重層扁平上皮（まれに goblet cells を含む偽多列円柱上皮）に被覆された嚢胞内面と，その周囲にリンパ性組織がみられることを特徴とする¹⁾。被覆上皮は部分的に錯角化を呈することが多いが，軟口蓋に発生した症例では，粘液細胞を含むものも報告されている¹²⁾。

嚢胞腔内には核を有する剝離上皮細胞，多形核および単核白血球などの炎症細胞，無形的好酸性物質，ケラチン物質などがみられる。リンパ性組織は被覆上皮直下にみられ，嚢胞全体を取り囲むことが多くその中にリンパ濾胞やリンパ洞の形成がみられる。胚中心を持ち，これらが喰作用を示すもの，胚中心を持たずリンパ球の浸潤だけのみられるものもある^{1,2,10,12)}。本症例においても，これら諸家の述べる組織像と類似しており，病理組織学的ならびに臨床的な立場から，リンパ上皮性嚢胞と診断するのが適当であると考えられた。

口腔粘膜にみられるリンパ上皮性嚢胞の成り立ちに関しては十分明らかではないが，現在2つの考え方がある。その1つは，Knapp¹³⁾による閉塞説（obstruction theory）で，口腔にはワルダイエル環（Waldeyer's ring）以外にも，軟口蓋，口腔底，舌下面などに腺窩（crypt）を有するリンパ性組織すなわち扁桃が存在し，その腺窩

表 1 口腔粘膜に発生したリンパ上皮性嚢胞の報告例

発表者名 (年次)	年 齢 (歳)	性 別	発生部位 (例数)	大 き さ (mm)
Gold (1962)	32	♂	口 腔 底	不 明
Calman (1963)	40	♂	口 腔 底	10×6×4
Vickers (1963)	30	♂	口 腔 底	4×3×3
Bhaskar (1966)	15~65 (平均: 36.4)	♂ (17) ♀ (7)	口 腔 底 (15) 舌<側 方 (8) 口 蓋 舌 弓 (1)	3×3×2 15×15 (平均: 9.4)
Young (1967)	42	♂	口 腔 底	5×5×3
Doyle (1970)	48	♀	口 腔 底	不 明
Acevedo (1971)	21~46 (平均: 27.6)	♂ (9)	口 腔 底 (9)	3×2×2 8×4×2
Giunta (1973)	7~65 (平均: 32)	♂ (9) ♀ (12)	口 腔 底 (17) 軟 口 蓋 (2) 下 顎 前 庭 (1) 後 臼 歯 部 (1)	2×3 15×15 (平均: 6.0)
長谷川 (1974)	19 27	♂ ♀	口 腔 底 舌 下 面	5
杉 原 (1977)	41	♀	舌 下 面	6×5×5
Buchner (1980)	14~81 (平均: 39.8)	♂ (23) ♀ (15)	口 腔 底 (19) 舌<腹 側 (7) 後 側 方 (7) 下 顎 前 庭 (1) 口 蓋 舌 弓 (2) 軟 口 蓋 (2)	1×10 (平均: 5.4)
著 者 (1981)	45	♀	軟口蓋 (口蓋咽頭弓)	5×4×4

が閉塞し結果として化膿性物質、剝離細胞あるいはケラチン等の累積によって大きくなり嚢胞化するという考え方である。

組織像では粘膜上皮と嚢胞上皮の移行（口腔と嚢胞腔との連続性）がみられ、このことはリンパ上皮性嚢胞は真の嚢胞ではなく偽嚢胞であり肥大した扁桃組織に相当するものであると、彼は述べている。最近、Buchner¹²⁾らは、口腔粘膜に発生したリンパ上皮性嚢胞と上皮で被覆された腺窩を持つ肥大リンパ性組織を比較し、非常に拡大された腺窩を持つ肥大リンパ性組織がリンパ上皮性嚢胞に相当する、と推察し、Knapp の腺窩閉塞説を支持している。

しかしながら、口腔粘膜上皮と嚢胞上皮との間に、いかなる連絡あるいは連続性をも見い出せなかった事実から Bhaskar^{1,3)} は、嚢胞形成におけるもう1つの説、迷入説 (enclavement theory) を述べている。Bhaskar に

よると、胎生期に口腔粘膜のリンパ性組織へ異所性の腺上皮が迷入し、それが嚢胞変性を受けリンパ上皮性嚢胞になる。このことは、いわゆる腮嚢胞が生じると同様の機序である。Vickers⁶⁾らは、実験的にこのことを証明し、この説を支持している。

本症例では、口蓋扁桃に接する位置に生じ口蓋扁桃の腺窩の一部が閉鎖され肥大したかの観を呈していたが、口蓋扁桃との連続性は認められなかった。粘膜上皮との移行については、発生部位が軟口蓋後縁であり、上皮を含めての切除が術後鼻咽腔閉鎖機能障害を惹起する可能性を考慮して粘膜を剝離し嚢胞のみを摘出するよう試みたが、一部に口腔粘膜との癒着を認めた。

しかし組織学的に嚢胞腔と口腔粘膜との連続性を証明することはできず、本症例がいずれの機序によって成立したかを決定することは不可能であった。

結 語

われわれは、45歳の女性で軟口蓋（口蓋咽頭弓）に発生したリンパ上皮性嚢胞（lymphoepithelial cyst）の1例を経験し、若干の文献的考察を加え、その概要を報告し、先人の症例に加えた。

稿を終えるにあたり、ご協力、ご教示いただいた本学口腔病理学講座諸氏に深甚の謝意を表します。

本論文の要旨は、昭和56年9月12日第39回日本口腔外科学会九州地方部会（鹿児島）で発表した。

引 用 文 献

- 1) Bhaskar, S.N.: Lymphoepithelial cysts of the oral cavity: Report of twenty-four cases. *Oral Surg* 21: 120 1966.
- 2) Giunta, J., et al.: Lymphoepithelial cysts of the oral mucosa. *Oral Surg* 35: 77 1973.
- 3) Bhaskar, S.N., et al.: Histogenesis of branchial cysts: A report of 468 cases. *Amer J Path* 35: 407 1959.
- 4) Gold, C.: Branchial cleft cyst located in the

floor of the mouth: Report of a case. *Oral Surg* 15: 1118 1962.

- 5) Calman, H.I.: Sublingual branchiogenic cyst: Report of a case. *Oral Surg* 16: 333 1963.
- 6) Vickers, R.A., et al.: Lymphoepithelial lesions of the oral cavity: Report of four cases. *Oral Surg* 16: 1214 1963.
- 7) Young, W.G., et al.: A lymphoepithelial cyst of the oral cavity: Report of a case. *Oral Surg* 23: 62 1967.
- 8) Doyle, J.L., et al.: Benign lymphoid lesions of the oral mucosa: Preliminary classification. *Oral Surg* 29: 31 1970.
- 9) Acevedo, A., et al.: Lymphoepithelial cysts of the oral cavity: Report of nine cases. *Oral Surg* 31: 632 1971.
- 10) 長谷川 清, 他: 口腔粘膜にみられたリンパ上皮性嚢胞の二症例について. *阪大歯学誌* 20: 59 1975.
- 11) 杉原一正, 他: 舌下面にみられたリンパ上皮性嚢胞の1例. *日口外誌* 23: 643 1977.
- 12) Buchner, A., et al.: Lymphoepithelial cysts of the oral cavity: A clinicopathologic study of thirty-eight cases. *Oral Surg* 50: 441 1980.
- 13) Knapp, M.J.: Oral tonsils: Location, distribution, and histology. *Oral Surg* 29: 155 1970.