頬部に発生した多形性腺腫の1例

宇沢俊一・白川正順*・伊介昭弘・田辺晴康
鎮目正美**・藍沢茂雄**

A Case of pleomorphic adenoma in cheek

Shunichi UZAWA・Masayori SHIRAKAWA*・Akihiro IKAI・Haruyasu TANABE
Masami SHIZUME**・Shigeo AIZAWA**

緒 言

多形性腺腫（いわゆる混合腫瘍）は多彩な組織像を特徴とし、組織起源について種々論議のすえ、現在では管系上皮由来が一般に支持されている。

本腫瘍は大唾液腺に圧倒的に多く発生し、なかでも耳下腺に多発する。小唾液腺では口蓋部に最も多く、口唇がこれにつぎ、頬部に発生するものはまれとされている。

今回、わたくしたちは頬部小唾液腺に発現した多形性腺腫の1例に遭遇したので、臨床的ならびに文献的考察を加え報告する。

症 例

患 者：■■■■ 26歳 女性。

初 診：昭和51年9月■■日。

主 訴：左側頬部腫脹。

既往歴・家族歴：特記すべき事項なし。

現病歴：約3年前より左側頬部に腫瘤状の膨隆を自覚したが、疼痛を自覚しないため放置した。しかし、その後、腫瘍が漸時増大傾向を示したため不安となり昭和51

写真1 初診時顔貌所見

写真2 初診時口腔内所見

東京慈恵会医科大学歯科学教室

（主任：田辺晴康教授）

* 町田市市民病院口腔外科

（主任：白川正順医長）

** 東京慈恵会医科大学病理学教室

（主任：藍沢茂雄教授）

Department of Dentistry, The Jikei University
School of Medicine (Chief: Prof. Haruyasu
Tanabe)

* Department of Oral Surgery, Machida City
Hospital (Chief: Dr. Masayori Shirakawa)

** Department of Pathology, The Jikei University
School of Medicine (Chief: Prof. Shigeo
Aizawa)

受付日：昭和58年7月25日

年9月■■日、当科に来院した。

現 症：体格、栄養はともに中等度であったが顔色はすぐれず、やや憔悴気味であった。顔貌はやや左右非対称性で、左側頬部に軽度の膨隆を認めた(写真1)。

口腔内所見：腫瘍は左側耳下腺開口部直上5mmの所

写真 3 耳下腺造影像 (正面)

写真 5 摘出物全体像

写真 4 術中写真

写真 6 摘出物断面像

に位置し、表面は正常粘膜色であった。触診により腫瘤の大きさはクルミ大、硬さは弾性硬で、周囲組織との癒着はなく可動性であった (写真2)。

X線学的所見：左側耳下腺造影を施行したが、耳下腺との関連性は認められず頰部小唾液腺に由来する腫瘍と考えられた (写真3)。

臨床診断：左側頰部腫瘍。

処置および経過：左側頰部腫瘍の臨床診断のもとに昭和51年18月日入院、10月■日 GOF 全身麻酔下にて口腔内より腫瘍摘出術を行った。

腫瘍は硬いカプセルで被覆され、剝離および摘出も容易であったが、一部結合組織と癒着が認められた。腫瘍は厚い被膜で被われ、一塊として摘出されたため閉鎖創にし手術を終了した (写真4)。

術後経過は翌日、軽度の下頰部腫脹と微熱を認めた

が、その後はきわめて順調で術後1週間で退院、5年10か月経過した現在、再発もなく経過良好である。

摘出物肉眼所見：摘出物の大きさは42×23×25mmで不正球形を呈し表面は滑沢な淡黄白色ないし乳白色を呈した充実性の実質より構成されていた (写真5, 6)。

病理組織学的所見：腫瘍は線維性被膜により被覆され、被膜内浸潤は認められなかった。腫瘍は多彩な組織成分より構成されていたが、その主成分は分化した上皮で、ところにより腺腔を形成し、内腔には好酸性の構造物を容れ、ときに角化物を貯留させていた。腺腔外側は筋上皮成分により取り囲まれ、さらにその外方には粘液腫様成分が不規則に介在していた。以上により本腫瘍は多形性腺腫と診断された (写真7)。

写真 7 病理組織像 (H-E, $\times 10$)

考 察

唾液腺腫瘍のなかで、多形性腺腫はもっとも発生頻度が高く、Bauer¹⁾らは70%，石川²⁾らは60～65%，Shafer³⁾らは59%，白川⁴⁾は68%を報告している。白川⁴⁾は唾液腺良性腫瘍中においても多形性腺腫が89.7%と非常に高い頻度を示すと述べている。一般に多形性腺腫の大部分は大唾液腺由来で、小唾液腺における発生頻度は比較的低く、唾液腺腫瘍の10～20%といわれている⁵⁾。小唾液腺における好発部位は口蓋がほとんどで、他の小唾液腺から発生することは比較的小さい。特に頬部小唾液腺由来のものはまれである。諸報告をみても Bhaskar⁶⁾ら181例中11例(6.1%)、Hendrick⁷⁾44例中6例(3.6%)、Lanjuk⁸⁾240例中15例(6.2%)、Frable⁹⁾45例中6例(13.3%)、また、本邦の報告では、勝沼ら¹⁰⁾21例中2例(9.5%)、茂木ら¹¹⁾66例中5例(7.6%)、藤林ら¹²⁾97例中10例(10.3%)、西嶋ら¹³⁾35例中1例(2.9%)、岡本ら¹⁴⁾34例中2例(5.9%)、森本ら¹⁵⁾57例中5例(8.8%)、斉藤ら¹⁶⁾19例中2例(10.5%)、白川⁴⁾は158例中6例(3.8%)でいずれの報告でもその発生頻度は少ないとされている。その他の報告についてはわたくしたちの渉猟した範囲では、いずれも症例報告をみるにすぎず¹⁷⁻²⁷⁾本症例がまれなことを物語っている。

本腫瘍の発生年齢は石川ら²⁾によれば、20～50歳代に、Bauer¹⁾は20～40歳、Bergman²⁸⁾は40～60歳代に多いとしている。白川⁴⁾は20歳代が最も多く、次いで30歳代、40歳代の順であったとし、他の唾液腺腫瘍に比べ幅広い年齢分布を有していると述べている。また、文献的にみた平均年齢は、Epkerら²⁹⁾41歳、Spiroら³⁰⁾48歳、Chaudhryら⁵⁾48.5歳、Crockerら³¹⁾24歳、Lunaら³²⁾は50歳を報告している。本邦では玉生³³⁾43歳、藤林²⁾ら44.6歳、森本ら¹⁵⁾41.8歳、白川⁴⁾39.4歳で中年層に多く、腺リンパ腫などに比較するとはるかに若い年代に好発するといえる。

性比について文献的に考察すると Lunaら³²⁾、茂木ら¹¹⁾は性別に差はみられなかったと述べている。一方 Willis³⁴⁾は1:2、玉生³³⁾は1:1.7、白川⁴⁾は1:1.5の割合でいずれも女性に多かったと報告している。

来院までの期間について西嶋¹³⁾、Hendrick⁷⁾は両者とも約5年の長期にわたる期間放置されていたものが多いと述べている。一方、白川⁴⁾は1～2年以内が最も多かったとしているが、これは地域差、発生部位ならびに患者の病識程度によっても異なると思われる。本症例は3年という比較的長い期間放置されたものであった。大きさについて玉生³³⁾は多形性腺腫28例中雀卵大5例、鳩卵大17例、鶏卵大5例、鶯卵大1例を、Lunaら³²⁾によると1.0～9.0 cmまでの種々の大きさに分けられたと述べている。また、石川ら²⁾は一般に鳩卵大位のものが多くみられたと記載している。期間と大きさとの関係について検索した白川⁴⁾は、来院までの期間は概して長く1～2年を要し、50 mm以内の大きさのものが70%以上を占めていると述べている。さらに、本腫瘍は3年以内では増大する傾向があるが、それ以上になると長期間同大を保つものが多く、10年以上の症例でも必ずしも腫瘍は増大していないことから、その経過年数がその大きさを左右しない、と続けている。

本腫瘍を組織構造の面から考察すると、その組織像は多彩な像を呈し、同一腫瘍でも部位により像が異なる。上皮成分と間葉成分との割合は種々で、上皮細胞は腺管状、充実性、円柱腫状、ときに腺房状の胞巣をつくり、間質部には粘液腫様および軟骨様組織あるいは線維化、硝子化がみられごくまれに骨組織の形成をみる。白川⁴⁾はその組織成分の比率により、本腫瘍の組織型を次の三型に分類している。

- 1) 粘液腫様成分優勢型(間質型)
predominantly myxoid pattern
- 2) 上皮成分優勢型(腺腫型)
predominantly epithelial pattern
- 3) 筋上皮成分優勢型(充実型)
predominantly myoepithelial pattern

149例中、上皮成分優勢型(腺腫型)がもっとも多く83例、次いで粘液腫様成分優勢型(間質型)39例、筋上皮成分優勢型(充実型)27例であったと述べているが、しかし必ずしもこの三型に属するとは限らず、これらの混合型も当然認められると述べている。わたくしたちの症例はその組織構成成分から上皮成分優勢型に属するものと考えられた。

本腫瘍の治療法は外科手術(単純剥出)が主体であり、再発は比較的小さいとされているが、被膜が薄くまた一部癒着が認められるような症例では剥出の際、十分に注意しないと腫瘍の一部を取り残すことがある。また、しばしば腫瘍の被膜外に小結節(daughter nodule)を形成することがあり、この小結節が残遺しやすく再発

の要因ともなっている。

再発に関する報告をみると玉生³⁸⁾は29例中2例(7%)、白川⁴⁾は149例中11例(7.3%)、Frazell³⁾は症例の1/3、Frale⁹⁾は治療後2年から12年間の観察で42例中2例に、Vellis⁴²⁾は19%の再発率であったとし、論文で組織像が再発に関係することが指摘されている。組織像からは細胞成分の多い充実型に再発が多いとする Foote and Frazell³⁸⁾に対して、近年では Batsakis³⁷⁾、Naeim³⁸⁾、白川⁴⁾はいずれも細胞成分の少ない粘液腫様間質を持つものに多いということで意見が一致している。無論、一般的に再発の要因となるものは多くの報告にもあるように不完全な手術式にあることは論を待たない。本腫瘍が多分葉の外形をとり、特に被膜の一部に eruption (Thackeray and Lucas³⁹⁾)を起こすことが多く、被膜ぎりぎりに摘出することはこの突出部を残置させることになりかねない。そのため周囲組織を含めた切除法が示唆される。幸いに、本症例はきわめて硬いカプセルで被覆され腫瘍も実質成分が多く、一塊として剔出し得、組織学的にも再発傾向の低いとされている組織型に属するものであった。多形性腺腫の悪性変化について従来より種々論議されているが、藤林⁴²⁾は悪性化をきたした2例を報告し、川島⁴⁰⁾は28%にも達すると述べている。Batsakis³⁷⁾、太田⁴¹⁾は悪性化の様式について分類を行っているが、分類基準が諸家の報告により異なるため悪性化の頻度はかなりの幅が持たれている。いずれにしても本腫瘍はその性格から長期観察が必要である。本症例は5年8か月経過した現在再発もなく順調であるが、以上のことから今後さらに長期の観察が必要であると思われる。

結 語

わたくしたちは、26歳女性の頰部小唾液腺に発現した多形性腺腫の1例を経験したので、その概要を報告するとともに文献的に考察を加えた。

本論文の要旨は、第123回日本口腔外科学会関東地方会で報告した。

引 用 文 献

- 1) Bauer, W.H., et al.: Classification of glandular tumors of salivary glands. Arch Path 55 :328 1953.
- 2) 石川梧朗, 他: 口腔病理学Ⅱ. 改裝版, 永末書店, 京都, 1066 1970.
- 3) Shafer, W.G., et al.: A Textbook of Oral Pathology. ed 3, Saunders Co, Philadelphia 212 1974.
- 4) 白川正順: 唾液腺腫瘍の臨床病理学的研究. 慈

- 恵医誌 95: 1 1980.
- 5) Chaudhry, A.P., et al.: Intraoral minor salivary gland tumors. An analysis of 1414 cases. OS OM OP 14: 1194 1961.
- 6) Bhaskar, S.N., et al.: Tumors of the minor salivary glands. A study of twenty-three cases. OS OM OP 8: 1278 1955.
- 7) Hendrick, J.W.: The treatment of tumors of minor salivary glands. Surg Gynecol Obstet 118: 101 1964.
- 8) Lanjuk, S.W.: Die Behandlung Epithelialen Neoplasmen der Speicheldrüsen. Dtsch Stomat 18: 82 1968.
- 9) Frable, et al.: Tumors of minor salivary glands. A report of 73 cases. Cancer 25: 932 1970.
- 10) 勝沼 靖, 他: 良性小唾液腺混合腫瘍について, 当科における過去10年間の統計的観察. 日口外誌 15: 271 1969.
- 11) 茂木克俊, 他: 頰部小唾液腺に原発した良性多形性腺腫の5例. 口科誌 19: 222 1970.
- 12) 藤林孝司, 他: 小唾液腺腫瘍の臨床的研究. 口科誌 21: 901 1972.
- 13) 西嶋克己, 他: わが教室における唾液腺腫瘍の臨床統計的観察. 日口外誌 19: 348 1973.
- 14) 岡本次郎, 他: 多形性腺腫の臨床病理学的研究. 日口外誌 23: 193 1977.
- 15) 森本忠三, 他: 小唾液腺腫瘍の臨床統計的観察. 日口外誌 23: 864 1977.
- 16) 斎藤利夫, 他: 唾液腺腫瘍の臨床統計的観察. 口科誌 26: 154 1977.
- 17) 白川正順, 他: 多形性腺腫の4例. 日口外誌 24: 1338 1978.
- 18) 高橋庄二郎, 他: 頰粘膜下に発生した混合腫瘍の1例. 歯科学報 51: 173 1951.
- 19) 川平 淳, 他: 頰部に発生した巨大な多形性腺腫の1例. 日本歯科評論 312: 1195 1968.
- 20) 玉井健三, 他: 頰部小唾液腺に原発した良性多形性腺腫の1例. 日口外誌 19: 81 1973.
- 21) 時田 優, 他: 頰粘膜に発生した多形性腺腫の2例. 歯見歯学 2: 43 1976.
- 22) 豊田裕介, 他: 頰部多形性腺腫の1例. 城西大紀要 6: 425 1977.
- 23) 加藤乃蔭, 他: 右側頰部小唾液腺に原発した多形性腺腫の1症例. 校成医誌 2: 50 1977.
- 24) 深谷忠芳, 他: 頰部に発生した多形性腺腫の2例. 日口外誌 25: 313 1979.
- 25) 吉田 亨, 他: 頰粘膜下に発生した多形性腺腫の1症例. 口科誌 22: 250 1973.
- 26) 坂元晴彦, 他: 頰部に発生した多形性腺腫の1例. 日口外誌 28: 306 1982.
- 27) 高木澄雄, 他: 頰部に発生した多形性腺腫の1例. 日口外誌 28: 306 1982.
- 28) Bergman, F.: Tumors of the minor salivary glands. A report of 46 cases. Cancer 23: 538

- 1969.
- 29) Epker, B.N., et al.: Clinical, histopathologic, and surgical aspects of intraoral minor salivary gland tumors. review of 90 cases. *J Oral Surg* 27: 792 1969.
 - 30) Spiro, R.H., et al.: Tumors of the minor salivary origin. A clinicopathologic study of 492 cases. *Cancer* 31: 117 1973.
 - 31) Crocker, D.J., et al.: Intraoral minor salivary gland tumors. Report of thirty-eight cases. *Oral Surg* 29: 60 1970.
 - 32) Luna, M.A., et al.: Minor salivary gland tumors of the oral cavity. A review of sixty-eight cases. *OS OM OP* 25: 71 1968.
 - 33) 玉生みい: 唾液腺腫瘍の臨床的研究——特に小口腔腺腫瘍について. *日口外誌* 5: 2 1959.
 - 34) Willis, R.A.: *Pathology of Tumors*, ed 1, Butterworth and Co, London, 320 1948.
 - 35) Frazell, F.K.: Clinical aspects of tumors of the major salivary glands. *Cancer* 7: 639 1954.
 - 36) Foote, F.W. and Frazell, E.L.: Tumors of the major salivary glands. *Cancer* 6: 1065 1953.
 - 37) Batsakis, J.G., Regezi, J.A. and Bloch, D.: The pathology of head and neck tumors. Salivary gland, Part 3. *Head Neck Surg* 1: 263 1979.
 - 38) Nacim, F., Forsberg, M.I. and Waisman, J.: Mixed tumors of the salivary glands. *Arch Patho Lab Med* 100: 271 1976.
 - 39) Thackray, A.C., and Lucas, R.B.: Tumors of the major salivary glands. Washington, D.C., A.F. I.P. 1974.
 - 40) 川島健吉, 他: 唾液腺, 現代外科学大系. 第27巻, 中山書店, 東京, 1970.
 - 41) 太田邦夫: 唾液腺腫瘍について (形態学的問題を中心に). *臨床病理* 3: 201 1955.
 - 42) Vellios, P., et al.: Tumors of the intraoral accessory salivary glands. *Surg Gynecol Obstet* 108: 450 1959.