左耳前部に生じた石灰化上皮腫の症例

後藤 浩司・茂木 健司・武内 章浩・横山 康之
横 堀 守・芝 高志・松田 登

A case of calcifying epithelioma in the left preauricular region

Koji GOTO・Kenji MOGI・Akihiro TAKEUCHI・Yasuyuki YOKOYAMA
Mamoru YOKOBORI・Takashi SHIBA・Noboru MATSUDA

I. 緒 言

石灰化上皮腫 (calcifying epithelioma) は、1880 年 Malherbe¹⁾ がはじめて報告した、皮膚に生じる比較的発生頻度の少ない良性腫瘍の 1 つである。石灰化上皮腫は皮膚科からの報告²⁻⁷⁾ は多いが、口腔領域では少ない⁸⁻¹³⁾。今回、著者らは左耳前部に発生した石灰化上皮腫の 1 例を経験し、摘出物の走査電顕による観察および 2, 3 の物理化学的性状の検索も行ったので報告する。

II. 症 例

患 者：6 歳 男児。

初 診：昭和55年 4 月 ■ 日。

主 訴：左耳前部の腫瘍。

家族歴および既往歴：特記事項はない。

現病歴：昭和54年11月中旬頃より左耳前部に無痛性、可動性の腫瘍があるのに気づいたが、自覚症状がないため放置した。昭和55年2月頃より増大傾向を示したので気になり某歯科医院を受診したところ、当科を紹介され来院した。

現 症

全身所見：体格、栄養ともに良好で異常はみられない。

局所所見：左耳前部の皮膚に青紫色の腫脹が認められた (写真 1A)。触診により腫脹部皮膚の直下に、28×25×5 mm の境界明瞭な不整四角形の骨様の硬さの腫瘍を触れたが、圧痛はなかった。腫瘍の表面は皮膚とは軽度癒着しているように思われたが、底部での癒着はなく可動性で指でつまみあげられた (写真 1B)。なお、左側

写真 1 初診時、局所所見

A：左耳前部の青紫色の腫瘍を示す

B：腫瘍は可動性で指でつまみあげられる

の頬粘膜には異常所見はなかった。顎下リンパ節は触れなかった。また食事時に耳下腺部の腫脹や疼痛を生じることはなかった。

X線所見：単純撮影では特に異常所見は認められず、左側耳下腺造影では斑紋状像を示し、導管系の変化および造影像の欠落はなかった (写真 2A)。ゼロラジオグラフィでは、左耳下腺直上部に雀卵大の類円形の不透過像がみられたが、耳下腺との関連はないと思われた (写真 2B)。

臨床検査成績：末梢血検査、血清生化学検査成績には異常所見は認められなかった。

群馬大学医学部口腔外科学教室

(主任：松田 登教授)

Department of Oral Surgery, School of Medicine,
Gunma University (Chief: Prof. Noboru Matsuda)

受付日：昭和58年1月13日

写真 2 初診時, X線写真

A: 左側耳下腺造影像 (顔正面前後方向撮影)

B: セラジオグラフィー (矢印は類円形の不透過像を示す)

臨床診断: 左耳前部石灰化上皮腫の疑い.

処置および経過: 昭和55年5月■日試験切除を行ったところ, 病理組織学的にも石灰化上皮腫と診断されたので, 同年5月■日局所麻酔下に腫瘍摘出術を行った. 腫瘍は薄い被膜で被われ, 周囲との癒着はなく容易に摘出できた. 耳下腺との関連は認められなかった. 術後のセラジオグラフィーで腫瘍は完全に摘出されており (写真3), 治癒経過も良好であった. 写真4は術後2年3か月の所見であるが, 再発傾向は認められない.

摘出物所見: 腫瘍は薄い線維性被膜組織で被われ, 大きさは約 15×10 mm, 色は灰白色で, 一部に黒色の部分がみられた. 腫瘍は硬く, 断面は充実性で, 小顆粒状構造を有する石灰化物と考えられた (写真5).

病理組織学的所見: 皮下組織内に重層上皮の結節性増殖がみられるが (写真6A), 大部分は壊死に陥り ghost 化し, 陰影細胞として認められる (写真6B). また, 好塩基細胞の陰影細胞への移行像も認められた. 上皮細胞巢の周囲には, 異物型巨細胞が多数存在する (写真6B). 間質には, 小円形細胞や好中球の軽度の浸潤が認められる (写真6A). 扁平上皮細胞巢には, 軽度の石灰沈着が認められる (写真6B).

走査電顕所見: 通法に従い走査電顕試料を作製し, 日本電子社製 JSM-U 3型走査電顕微鏡で腫瘍断面を観察した. 写真7Aの多孔質・海綿状のシワ構造物 (a) のなかに, 白い島状あるいは点状の構造物 (b) がところどころに散在している. 白い島状の構造物を拡大する

写真 3 術後, セラジオグラフィー (接線方向)

腫瘍の残存は認められない

と, なかにチューブの切り口状の構造がみられた (写真7B). ある部位の拡大像では, 複雑に入り組んだ膠原線維と思われる網状構造のなかに, 石灰化の結晶を思わせる約 0.5μ の小球状構造物が観察された (写真8).

X線回折による分析: 粉末X線回折計により, Ni フィルターを用い, スリット 1° , 0.31° で, 加速電圧30 kV, 10 mA, 800 cps でX線回折図形をとった. 角度 2θ が 1.0° から 50° までの回折像では, ハイドロキシアパタイト系結晶物質と思われる (写真9).

X線マイクロアナライザー所見: 走査電顕所見で白い島状にみえた部分について Ca, P の特性X線像を撮影し, その元素分布状態を調べた. 撮影条件は30 kV, 800

写真 4 術後，局所所見（術後2年3か月）

写真 5 摘出物所見

写真 6 病理組織像（H-E 染色）
（A：×35 B：×220）

写真 7 走査電顕像

写真 8 走査電顕像 ($\times 3,500$)

写真 9 X線回折像

写真 10 X線マイクロフナライザー所見

cps, Ni フィルターを入れ, スリット 1° , 0.31° で行った. 写真7の白い島状部分については, 写真10のように, Ca, P が密に集中しており, 石灰化の著しい構造物と思われた.

III. 考 察

石灰化上皮腫 (calcifying epithelioma) は, 比較的に少ない良性腫瘍で, 発生部位の関係からおもに皮膚科・外科領域の疾患として取り扱われているので, 口腔外科領域からの報告⁸⁻¹³⁾は少ない.

本腫瘍の発生由来および本態については, まだ十分解明されていないので, 種々の説がみられる. すなわち,

Malherbe ら¹⁾は脂腺または脂腺上皮が迷入し, 異常増殖したとし, Warvi ら¹⁴⁾, Castigliano ら¹⁵⁾は嚢腫であると報告しているが, Ch'in¹⁶⁾は基底細胞上皮腫と考えている. また, Fink¹⁷⁾, Côte¹⁸⁾, King¹⁹⁾は表皮嚢腫と基底細胞上皮腫の中間のものと想定している. 一方, Turhan ら²⁰⁾は石灰化上皮腫の腫瘍実質細胞のうち好塩基細胞は hair matrix cell に, 陰影細胞は未熟な hair cortex cell に相当し, 本腫瘍は毛髪形成の過程に出現する腫瘍であると考えた. さらに Lever ら²¹⁾は好塩基細胞を角化性毛母細胞へ分化する傾向を有する第一次上皮芽細胞とみなし, また好塩基細胞から陰影細胞への移行型がみられることより, 陰影細胞はより未熟で毛母基質細胞から由来すると考えた. そして, 今日では, 石灰

化上皮腫は毛の組織発生と関連する腫瘍と考えられており、Fobis³³⁾、Peterson³⁴⁾は、本腫瘍中には正常の毛に含まれるSH基やSS基が含まれると報告している。

本腫瘍の名称については、一般的には石灰化上皮腫(calcifying epithelioma)と呼ばれているが、epitheliomaが悪性のものを思わせることからFobis³³⁾はpilomatricoma、Hulett³⁴⁾はtrichomatricomaと呼ぶことを提唱している。その他、pilomatricomaの名称も付けられている。

本症の発生部位であるが、一般に顔面・頸部・上肢に多く、全体の80%は前述の部位に生じるといわれている。頭頸部における好発部位は、上眼瞼部、眉毛周部、耳前部、耳後部、頸部の毛のはえぎわ、胸鎖乳突筋の後縁に沿う部分であるので、耳前部に生じた本症例のように口腔外科を受診することが起こる。

臨床所見であるが、腫瘍は単発性で10~20歳台に好発し、表面は正常な皮膚で被われ良性の経過を示す。しかし、ときには黄白色、淡褐色、淡青色ないし淡赤色を呈し毛細血管の拡張を伴い、さらに水泡様変化や潰瘍形成がみられることもあるという。水泡形成は衣服などの摩擦によることが考えられている⁵⁻⁷⁾。本症例では一部が暗紫色を呈し、毛細血管の拡張も認められた。

腫瘍の大きさは、米粒大から小児手拳大までいろいろであるが、多くは小指頭大で発見される。自験例では拇指頭大であり、比較的大きい症例と思われる。男女間での発生頻度の差はなく、また悪性化をきたす症例はない。

本症の診断に関しては、確定診断は組織学的所見によっている。組織像の特徴は、原則として好塩基細胞と陰影細胞の2種類の細胞からなっている。そのうち好塩基細胞は大型で円形ないし楕円形の核を持ち、好塩基性を示す。一方、陰影細胞はH-E染色でわずかに好酸性に染まり、核はまったく染まらない。新しい腫瘍では好塩基細胞が豊富に存在するが、陳旧化するにつれて陰影細胞が多くみられるようになる。また、ある部分では両細胞の移行型とみなされる移行細胞をみることがある^{4,22,25,26)}。

本症例では、好塩基細胞・陰影細胞・移行細胞のすべてが存在し、さらに石灰化もみられ、やや陳旧化した像を示す症例と考えられる。

著者らは摘出物について走査電顕像、ならびに2,3の物理化学的性状について検討を加えたが、この種の報告は唾石、静脈石に比較して少ない。Hashimoto²⁷⁾は、本腫瘍細胞の分化、角化過程を電顕的に観察し、好塩基細胞から陰影細胞への移行層において、形質膜の菲薄化ないし消失、線維内セメント物質(γ -ケラチン)と結合した電子密度の高い α -ケラチンの肥厚した束が豊富にみられ、またCaの沈着線は、 α -ケラチン線維

のまわりに顆粒状あるいは線維状の結晶としてみられると報告している。堂原¹⁸⁾は走査電顕像において、一見、平坦にみえる腫瘍細胞の表面は、索状ないし網目状を呈し、ある部位においては複雑に入り組んだ線維性の網状構造のなかに、大小さまざまな顆粒状沈着物が認められたと述べている。この所見は、著者らの膠原線維を思わせる網状構造のなかに石灰化の結晶を思わせる小球状構造物を観察した成績と一致するものであり、前述のHashimoto²⁷⁾の透過電顕像の所見にも類似しているように思われた。

青木²⁸⁾は、石灰化上皮腫の成分をX線回折曲線ディフラクトメーターを利用して検査し、歯石および唾石にみられるハイドロキシアパタイトと同一の所見を得たと述べており、自験例のX線マイクロアナライザーの結果と一致した。川村²⁹⁾は石灰化上皮腫の1例について化学分析を行い、磷酸塩、炭酸塩、Ca、Mgを検出しており、これらの報告もまた成績の項で述べた石灰化物はCa、Pを主とするハイドロオキシアパタイトである所見を支持する資料となった。走査電顕ならびに物理化学的性状に関する著者らの所見は、1症例について検索したものであり、今後さらに検討を要すると考える。

石灰化上皮腫と鑑別すべき疾患には、粉瘤・基底細胞上皮腫があげられるが、本症は一度経験すると臨床像から比較的正しい診断をつけやすく、少なくとも疑いを持つことのできる疾患であるが、確定するためには、さらに好塩基細胞や陰影細胞の有無により組織の上から区別される。本症例では耳前部に生じたので耳下腺唾石症との鑑別を要した。耳下腺唾石との区別のためX線造影法が行われるが、本症例で用いられたゼロラジオグラフィは両者の鑑別に有力な情報を提供した。

本症の処置は摘出で十分であり、再発はほとんどないといわれている。本症例でも腫瘍のみの摘出処置で、2年を経過するが再発は認められない。

IV. 結 語

6歳の男児の耳前部に発生した石灰化上皮腫の1例を経験した。本腫瘍は比較的少ない腫瘍であるが、顔面、頸部に発症することが知られており、口腔外科医が念頭に置かねばならない疾患の1つであると考えて報告した。

本論文の要旨は、昭和56年第26回日本口腔外科学会総会で報告した。

走査電顕および物理化学的性状の検討にさいしてご指導、ご協力をいただいた東京医科歯科大学附属医用器材研究所加藤一男教授、東京医科歯科大学第1保存学講座高津寿夫講師に感謝する。

引用文献

- 1) Malherbe, A., et al.: Note sur l'épithéliome calcifié des glandes sébacées. *Prog Med Paris* 8: 826 1880. 22) より引用.
- 2) 白岩照男: 石灰化表皮腫について. *臨皮* 25: 869 1971.
- 3) 久保 徹: 石灰化上皮腫. その組織由来に関する考察. *臨皮* 27: 645 1973.
- 4) 平林 修, 他: Calcifying epithelioma(Malherbe). *皮膚* 15: 147 1973.
- 5) 中村絹代: 水疱様外観を呈した石灰化表皮腫. *臨皮* 29: 947 1975.
- 6) 永井智子, 他: 水疱様変化を伴った石灰化上皮腫. *日皮会誌* 86: 755 1976.
- 7) 金丸哲山, 他: 表面一部水疱状を呈した巨大石灰化上皮腫の1例. *皮膚臨床* 20: 940 1978.
- 8) 川田雄祥, 他: 頬部にみられた calcifying epithelioma の症例. *口外誌* 7: 68 1961.
- 9) 小宮山一雄, 他: Pilomatrixoma の臨床病理学的検討. *日大歯学* 51: 861 1977.
- 10) 浅田洗一, 他: 顎下・上顎部に発生した calcifying epithelioma の1例. *日口外誌* 23: 729 1977.
- 11) 鈴木和彦, 他: 右側耳下部に発生した calcifying epithelioma の1例. *日口外誌* 24: 619 1978.
- 12) 石川武憲, 他: いわゆる石灰化上皮腫(Malherbe)の1症例における病理学的所見からみた文献的考察. *日口外誌* 24: 1344 1978.
- 13) 堂原義美, 他: 石灰化上皮腫の2例. *日口外誌* 25: 1191 1979.
- 14) Warvi, W.N., et al.: Epithelial cysts and cystic tumor of the skin. *Am J Pathol* 19: 765 1943.
- 15) Castigliano, S.G., et al.: Benign calcifying epithelioma of the skin. *Arch Dermatol Syph* 70: 590 1954.
- 16) Ch'in, K.Y.: Calcified epithelioma of the skin. *Am J Pathol* 9: 497 1933.
- 17) Fink, W.: Die verkalkenden Epitheliome der Haut und ihre Beziehungen zu Organisationsvorgängen in Atheromen. *Arch Pathol Anat* 289: 527 1933.
- 18) Côte, F.H.: Benign calcified epithelioma of the skin. *J Pathol* 43: 575 1936.
- 19) King, L.S.: Mummified epidermal cysts (so-called Calcified epitheliomas). *Am J Pathol* 23: 29 1947.
- 20) Turhan, B., et al.: Bemerkungen über die sogenannten verkalkenden Epitheliome der Haut und ihre Genese. *Dermatologica* 85: 73 1942.
- 21) Lever, F.W., et al.: Calcifying epithelioma of Malherbe. *Histopathology of the skin*. V. ed 15, Lippincott Co, Philadelphia, 1975, p 506.
- 22) Fobis, R. Jr., et al.: Pilomatrixoma(calcifying epithelioma). *Arch Dermatol* 83: 606 1961.
- 23) Peterson, W.C. Jr., et al.: Calcifying epithelioma of Malherbe. *Arch Dermatol* 90: 404 1964.
- 24) Hulett, R.M.: Trichomatrioma. A clinicopathologic entity separable from calcifying epithelioma of Malherbe. *AMA Arch Dermatol* 77: 285 1958. 22) より引用.
- 25) 東 敏一郎, 他: 石灰化上皮腫. *耳喉* 47: 385 1975.
- 26) 河合清隆, 他: 頸部に発症した石灰化上皮腫の1例. *耳展* 20: 837 1977.
- 27) Hashimoto, K., et al.: Calcifying epithelioma of Malherbe. *J Invest Dermatol* 46:391 1966.
- 28) 青木良枝, 他: 石灰化上皮腫の1例. 特にその成分について. *東女医大誌* 35: 270 1965.
- 29) 川村太郎, 他: 家族的に発生せる石灰化上皮腫の2例に就いて. *皮性誌* 45: 147 1939.