頬部にみられた多形性腺腫の3例

笠倉達雄・朝倉昭人・坂元晴彦

乙貫典子・神山卓久・中山晃

橋本 等・大場正亮・小守 昭*

Three cases of pleomorphic adenoma of the cheeks

Tatsuo KASAKURA・Akihito ASAKURA・Haruhiko SAKAMOTO

Noriko OTOZURA・Takahisa KAMIYAMA・Akira NAKAYAMA

Hitoshi HASHIMOTO・Masasuke OBA・Akira KOMORI*

Abstract: A pleomorphic adenoma is the most common of all salivary gland tumors.

The most frequently affected gland is the parotid in major salivary glands and the palate in minor salivary glands is often observed. Incidences on the cheek, lip, floor of the mouth and tongue are comparatively rare.

The writers experienced three cases of the pleomorphic adenoma originating in the cheeks and report as follows.

All were females who complained of swelling of the buccal mucosa. The masses were indolent, circumscribed, well-demarcated, elastically hard and movable. In all cases, the masses were enucleated from the oral, examined histopathologically and diagnosed as the pleomorphic adenoma.

They were diverse and part calcification was seen in only one case.

The prognoses were excellent.

Key words: Pleomorphic adenoma, minor salivary gland, cheek

緒 言

多形性腺腫は、上皮性起源の腫瘍で腺腫に属すと考えられ、良性腫瘍であるが、ときに再発¹⁻⁴⁾、転移^{5,6)}や悪性化⁷⁾をすることがあるため、長期の観察が必要である。

本腫瘍は、唾液腺腫瘍のなかでもっとも頻度が高く、

獨協医科大学口腔外科学教室

(主任：朝倉昭人教授)

* 徳島大学歯学部口腔病理学教室

(主任：小守 昭教授)

Department of Oral Surgery, Dokkyo University
School of Medicine (Chief: Prof. Akihito Asakura)

* Department of Oral Pathology, Tokushima
University School of Dentistry (Chief: Prof.
Akira Komori)

受付日：昭和59年11月15日

大唾液腺、特に耳下腺に多発する。小唾液腺では口蓋部に最も多くみられるが、頬部、口唇、舌および口底部では比較的まれである。

今回、われわれは、頬部に発生した多形性腺腫3症例を経験したので報告する。

症例1

患 者：60歳 女性。

初 診：昭和55年8月■日。

主 訴：左側頬部の腫脹。

既往歴および家族歴：特記事項なし。

現病歴：約3年前より左側頬部口腔粘膜に、大豆大の腫瘤に気づいたが、無痛性であったため放置、最近になり腫瘤が増大してきたため当科を受診した。

現 症：顔貌は左右非対称、左側頬部は鶏卵大に腫脹していた。口腔内所見は、左側頬部に鶏卵大の腫瘤が膨隆しており、表面は健康な粘膜で被われ、一部頬粘膜とわずかに癒着がみられたが、他の周囲組織とは癒着がなく可動性であった(写真1, 2)。

写真 1 症例 1 顔貌所見

写真 3 症例 1 摘出物

写真 2 症例 1 口腔内所見

写真 4 症例 1 (H-E染色, ×100)

X線所見: 胸部X線写真に異常はみられなかった。

処置および経過: 昭和55年9月■日, 全身麻酔下にて, 口腔内より耳下腺開口部の下方に咬合平面に沿って約4cmの切開を加えて, 周囲より鈍的に剝離摘出した。頬粘膜と一部癒着がみられたが, 一塊として摘出できた。摘出物は被膜に包まれた $3.5 \times 3.5 \times 5.0$ cmの大きさで, 断面は灰白色の充実性であった(写真3)。現在4年経過しているが, 再発はなく経過は良好である。

病理組織学的所見: 腫瘍組織の充実性の増殖があり, 円形あるいは楕円形の核を有する多角形の上皮細胞が, 髄様あるいは, 胞巣状に増殖し, 一部に管腔構造もみられる。間質には硝子化が著明で, 腫瘍組織内には, 小さな管腔を形成し, 一部粘液腫様のところもみられることから, 多形性腺腫と診断した(写真4)。

症例2

患者: 41歳 女性。

初診: 昭和57年7月■日。

主訴: 左側頬部腫脹。

既往歴および家族歴: 20年前に肺結核。

現病歴: 1年半前に左側頬部に小指頭大の腫瘍に気づいたが, 自覚症状がないため放置。1年前より, 腫瘍が増大してきたので来院。

現症: 耳下腺前縁部から鼻唇溝にかけて腫脹。鶏卵大の腫瘍で弾性硬, 境界明瞭, 圧痛および自発痛はなく, 周囲組織との癒着はない。顎下リンパ節は触れない(写真5, 6)。

X線所見: 胸部X線写真では, 左右上肺野に肺結核の治療を示す石灰化像を認めるが, 他は異常所見は認められない(写真7)。

写真 5 症例 2 顔貌所見

写真 7 症例 2 胸部X線写真

写真 6 症例 2 口腔内所見

写真 8 症例 2 摘出物

処置および経過：昭和57年7月■日、全身麻酔下にて腫瘍摘出術施行。口腔内より耳下腺開口部下方に切開を加えて、鈍的に剥離摘出した。腫瘍は $2.4 \times 1.3 \times 1.4$ cm, 断面は灰白色で充実性(写真8, 9)。2年2か月経過しているが、経過は良好である。

病理組織学的所見：線維性被膜で囲まれ、腫瘍は全体に粘液腫様で、この中に多角形あるいは紡錘形の細胞が散在している。ところにより、これらの細胞が比較的密なところもあり、これらの部では管腔状構造もみられる。また、一部には扁平上皮細胞によりなる部もみられ、硝子化しているところも一部みられるが、軟骨組織は明らかではない。以上より、多形性腺腫と診断した(写真10, 11)。

症例3

患者：74歳 女性。

初診：昭和57年12月■日。

主訴：左側頬部腫脹。

既往歴および家族歴：数年前より高血圧症を指摘されるも放置。

現病歴：10年前より、左側頬部の腫瘍に気づくも、無痛性のため放置。歯科治療のため近医受診し、腫瘍を指摘され当科紹介され来院。

現症：顔貌左右非対称。口腔内所見では、表面が健康な粘膜で被われた、拇指頭大の腫瘍が触れ、境界は明瞭で周囲組織とは癒着がなく可動性である(写真12)。

X線所見：胸部X線では特に異常がなく、オルソパントモグラムの頬部の腫瘍相当部に円形の石灰化像が認

写真 9 症例 2 摘出物断面

写真 12 症例 3 顔貌所見

写真 10 症例 2 (H-E 染色, $\times 40$)

写真 13 症例 3 オルソパントモグラム

写真 11 症例 2 (H-E 染色, $\times 100$)

写真 14 症例 3 摘出物

写真 15 症例 3 摘出物断面

写真 17 症例 3 (H-E染色, $\times 40$)

写真 16 症例 3 摘出物X線写真

写真 18 症例 3 (H-E染色, $\times 100$)

図 1 症例 3 摘出物赤外線吸収スペクトル

と微量の Fe, Mg が検出された(図1)。現在1年10か月経過しているが、再発もなく経過良好である。

病理組織学的所見：周囲が線維性被膜で囲まれ、腫瘍組織は大部分が高度に硝子化しており、その一部に不規則な石灰化もみられる。結節状の腫瘍組織の主として、周辺部に細胞成分が認められる。この腫瘍細胞は円形あるいは楕円形の核を有する多面形の細胞が小胞巣状または腺管状に比較的密に増殖している。異型性は認められない。腫瘍細胞はところにより空胞状で、ムチカルミン染色に陽性を示すものもみられる。粘液腫様または軟骨様の部分は認められない。以上より多形性腺腫と診断した(写真17, 18)。

考 察

多形性腺腫は、唾液腺腫瘍のなかでもっとも頻度が高く、石川⁸⁾は60～65%、白川⁹⁾は68%と報告している。一般に大部分は、大唾液腺由来であるが、小唾液腺における発生頻度について、Garcelon¹⁰⁾は7%、Hendrick¹¹⁾は17%、Krolls ら¹²⁾は11%と低い値を示している。また、小唾液腺のなかで頰部における発生頻度について、

められる(写真13)。

処置および経過：昭和57年12月■日、全身麻酔下にて左側頰部腫瘍摘出術施行。口腔内より耳下腺開口部下方に切開を加えて、剝離摘出した。摘出物は被膜に包まれた、2.2×1.8×1.8 cm の腫瘍で、断面は灰白色で一部石灰化を伴っていた(写真14, 15, 16)。赤外線吸収スペクトルにより、石灰化物の主成分はリン酸カルシウムであり、EPMA による元素分析では、Ca, P, Zn, Si

Fine ら³⁾ 16%, Chaudhry³⁾ 5.7%, Hendrick¹¹⁾ 3.6%, Frable ら⁴⁾ 13.3%, Soskolre ら¹³⁾ 15.4%, Pogrel¹⁴⁾ 16%, 茂木¹⁵⁾ 7.6%, 藤林⁷⁾ 10.3%, 西嶋¹⁶⁾ 2.9%, 森本¹⁷⁾ 8.8%, 白川⁹⁾ 3.8% といずれも低い値で、比較的まれなことを報告している。

頰部小唾液腺に発生した多形性腺腫の症例報告¹⁸⁻²³⁾も少なく、いずれもまれな事を付記している。

本腫瘍の発育は緩慢で、しかも腫瘍以外症状がないため、初発より長い年月を経過して受診する場合が多い。玉生¹⁾は来院までの平均期間は4.4年、西嶋¹⁶⁾は4.9年、Hendrick¹¹⁾は平均5.2年といずれも長く、また、われわれの渉猟し得た頰部小唾液腺にみられた多形性腺腫の症例報告では、1か月より最長33年で平均すると6.9年でかなり長期にわたり放置されている。

本腫瘍の治療法としては、外科的切除が一般に行われている。線維性被膜内あるいは、被膜外へ腫瘍が増殖している可能性があるため²⁴⁾、摘出には被膜を破らず、周囲健康組織を含めて切除することが望ましいと考えられているが、頰部においては顔面神経の損傷を懸念し、可及的に切除せざるを得ない。

再発に関しては、小唾液腺では比較的まれと言われており、玉生¹⁾は29例中2例、Fine³⁾らは再発なし、Chaudhry ら³⁾は30例中2例、Frable ら⁴⁾は42例中2例の再発を報告しているが、山本²⁷⁾は頰部小唾液腺に発生した多形性腺腫で初回手術後15年後に再発した症例を報告しており、長期の観察が必要と思われる。再発の原因としては、Seiferth ら²⁸⁾の言う、被膜を損傷することや腫瘍の取り残しが考えられるが、組織型が再発に関係することも指摘されており、Naeim ら²⁹⁾は、白川⁹⁾はいずれも細胞成分の少ない粘液様間質を持つものに再発が多いと報告している。症例3は細胞成分が少ない再発の多い type に属すると考えられ、今後の十分な経過観察が必要と思われる。

多形性腺腫では、ごくまれに転移をきたした報告もある。Gerughty ら⁵⁾は35例中3例に肺とリンパ節への転移がみられ、そのうち2例はさらに骨へ転移していたと報告し、Chen⁶⁾は仙骨への転移例を報告している。

悪性化に関しては、藤林⁷⁾が31例中2例に悪性化を認め、馬場⁴⁰⁾は多形性腺腫は良性腫瘍とされているが low grade malignant な腫瘍として扱うことを述べている。

多形性腺腫における石灰化の報告はまれであり、Dyke ら⁴¹⁾は耳下腺に発生した多形性腺腫においてシュウ酸カルシウムの沈着がみられた症例を報告している。Gerughty ら⁵⁾は悪性多形性腺腫25例中8例に石灰化を認め、Brown⁴²⁾、Grymer ら⁴³⁾も石灰化物を含む悪性多形性腺腫を報告し、石灰化と悪性化の関連が示唆される。われわれの症例においても石灰化物を含む多形性腺腫があり、今後の注意深い経過観察が必要と思われる。

結 語

頰部小唾液腺に発生した多形性腺腫の3症例を経験したので報告した。3例とも口腔内より摘出し、術後2年から4年経過しているが再発もなく経過良好である。

本論文の要旨は、昭和59年10月20日第130回日本口腔外科学会関東地方会において発表した。

引 用 文 献

- 1) 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: 2-18 1959.
- 2) Fine, G., Marshall, R.B., et al.: Tumors of the minor salivary glands. *Cancer* 13: 653-669 1960.
- 3) Chaudhry, A.P., Vickers, R.A., et al.: Introral minor salivary gland tumors. An analysis of 1414 cases. *OS OM OP* 14: 1194-1226 1961.
- 4) Frable, W.J. and Elzay, R.P.: Tumors of minor salivary glands. A report of 73 cases. *Cancer* 25: 932-941 1970.
- 5) Gerughty, R.M., Scofield, H.H., et al.: Malignant mixed tumors of salivary gland origin. *Cancer* 24: 471-486 1969.
- 6) Chen, K.T.K.: Metastasizing pleomorphic adenoma of the salivary gland. *Cancer* 42: 2407-2411 1978.
- 7) 藤林孝司, 小幡幸男, 他: 小唾液腺腫瘍の臨床的研究. 口科誌 21: 901-928 1972.
- 8) 石川梧朗監修: 口腔病理学Ⅱ. 第2刷. 永末書店, 京都, 1984 718-728頁.
- 9) 白川正順: 唾液腺腫瘍の臨床病理学的研究. 慈医誌 95: 1402-1419 1980.
- 10) Garcelon, G.G.: Salivary gland tumors. Management and results. *Arch Surg* 78: 12-16 1959.
- 11) Hendrick, J.W.: The treatment of tumors of minor salivary glands. *Surg Gynecol Obstet* 118: 101-111 1964.
- 12) Krolls, S.O. and Hicks, J.L.: Mixed tumors of the lower lip. *OS OM OP* 35: 212-217 1973.
- 13) Soskolre, A., Sela, J., et al.: Minor salivary gland tumors.: a survey of 64 cases. *J Oral Surg* 31: 528-531 1973.
- 14) Pogrel, M.A.: Tumors of the salivary gland tumors.: A histological and clinical review. *Br J Oral Surg* 17: 47-56 1979.
- 15) 茂木克俊, 大畑直暉, 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: 222-229 1970.

- 16) 西嶋克己, 日高豊蔵, 他: わが教室における唾液腺腫瘍の臨床的観察. 1. 多形性腺腫. 日口外誌 19: 20-24 1973.
- 17) 森本忠三, 辻本守孝, 他: 小唾液腺腫瘍の臨床統計的観察. 1) 良性腫瘍. 日口外誌 23: 120-125 1977.
- 18) 玉井健三, 河合宏一, 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: 81-83 1973.
- 19) 豊田裕介, 志水和弘, 他: 頰部多形性腺腫の1例. 城歯大紀要 6: 425-427 1977.
- 20) 加藤乃藤, 岡 和雄, 他: 右側頰部小唾液腺に原発した多形性腺腫の1症例. 校正医誌 2: 50-53 1977.
- 21) 深谷忠芳, 古賀一郎, 他: 頰部に発生した多形性腺腫の2例. 日口外誌 25: 49-52 1979.
- 22) 坂元晴彦, 朝倉昭人, 他: 頰部に存在した多形性腺腫の1例. 日口外誌 27: 46-49 1981.
- 23) 黒川英雄, 鳥越義広, 他: 頰部に発現した多形性腺腫の1例. 九州歯会誌 36: 358-366 1982.
- 24) 高木澄雄, 大津淳一郎, 他: 頰部に発生した多形性腺腫の1例. 日口外誌 28: 132-135 1982.
- 25) 河野信彦, 亀井敏昭: 頰部に発生した多形性腺腫の1例. 日口外誌 29: 148-150 1983.
- 26) 宇沢俊一, 白川正順, 他: 頰部に発生した多形性腺腫の1例. 日口外誌 29: 216-220 1983.
- 27) Mardirossian, G. and Najjar, T.A.: Mixed tumor of minor salivary gland-An unusual case. J Oral Med 36: 4-6 1981.
- 28) 時田 優, 丸谷雅晴, 他: 頰粘膜に発生した多形性腺腫の2例(抄). 口科誌 25: 526 1976.
- 29) 阿部洋一郎, 飯塚芳夫, 他: 頰部小唾液に発生した良性多形性腺腫の2症例(抄). みちのく歯学誌 8: 34 1977.
- 30) 伊藤一晴, 千葉良人, 他: 小唾液腺に原発した多形性腺腫の2例(抄). 日口外誌 23: 741 1977.
- 31) 白川正順, 岡 和雄, 他: 多形性腺腫の4例(抄). 日口外誌 24: 86 1978.
- 32) 吉田 享, 泉 広次, 他: 頰部粘膜下に発生した多形性腺腫の1症例(抄). 口科誌 22: 250 1973.
- 33) 黒田文夫, 滝川富雄, 他: 頰部および口底部に生じた多形性腺腫の2例(抄). 日口外誌 28: 80 1982.
- 34) 三角洋介, 矢島裕子, 他: 頰部に発生した多形性腺腫の1例(抄). 口科誌 31: 468 1982.
- 35) 梶 隆一, 白敷力也, 他: 頰粘膜に発生した良性多形性腺腫の1例(抄). 日口外誌 28: 186 1982.
- 36) 金城 孝, 小池正夫, 他: 口腔内に生じた多形性腺腫の病理組織学的研究, 周囲組織への発育状態について. 日口外誌 28: 34-38 1982.
- 37) 山本悦秀, 小浜源郁, 他: 初回手術の15年後に再発が確認された頰部小唾液腺原発多形性腺腫の1例. 日口外誌 28: 61-65 1982.
- 38) Seiferth, L.B., Kleinsser, O., 他: 唾液腺腫瘍の病理と臨床. 耳鼻臨床 59: 627-637 1966.
- 39) Naeim, F., Forseberg, M.I., et al.: Mixed tumors of the salivary glands. Growth pattern and recurrence. Arch Pathol Lab Med 100: 271-275 1976.
- 40) 馬場謙介, 鷺津邦雄, 他: 唾液腺腫瘍—その組織型と予後—. 癌の臨床 19: 893-911 1973.
- 41) Dyke, P.C., Hajdn, S.I., et al.: Mixed tumor of parotid containing calcium oxalate crystals. Arch Path 91: 89-92 1971.
- 42) Brown, J.M.: An unusual salivary gland calculus. Med J Aust 2: 877-878 1970.
- 43) Grymer, L.F., Jørgensen, K., et al.: Carcinoma in a calcified pleomorphic adenoma of the submandibular gland. J Laryngol Otol 96: 373-376 1982.