小唾液腺に生じた乳頭状囊腺腫の1例

柳澤高道・夏見淑子・堀池周司・國富照子
木下尚樹・前田憲昭・吉岡 濟

Papillary cystadenoma of minor salivary gland origin: report of a case

Takamichi YANAGISAWA・Yoshiko NATUMI・Syuji HORIIKE
Teruko KUNITOMI・Naoki KINOSHITA・Noriaki MAEDA
Wataru YOSHIOKA

Abstract: Papillary cystadenoma is a relatively rare salivary gland tumor which has been reported sometimes in association with minor salivary glands.

Here, we report a case of papillary cystadenoma of minor salivary gland origin located in the floor of the mouth, in a 59-year-old woman. The patient complained of swelling of the floor of the mouth. During the course of the first medical examination, a circumscribed, elastic hard, movable, dark reddish oval mass was found in the floor of the mouth just by the lower right wisdom tooth, measuring 12×13 mm.

Clinically an hemangioma was suspected. Under general anesthesia, the lesion was totally excised. Histologically, sections revealed a small and a large cystlike cavities lined with tall, eosinophilic granular epithelial cells disposed in papillary projections filling the lumen. Histopathologically it was diagnosed as a papillary cystadenoma.

There was no evidence of recurrence in the patient 7 months after the operation.

Key words: papillary cystadenoma, minor salivary gland, floor of mouth

緒 言

乳頭状囊腺腫はまれな腫瘍であり、主に耳下腺にみられるが、きわめてまれに小唾液腺にも生じる¹⁾。

今回、われわれは口底に生じた本腫瘍の1例を経験したので文献的考察を加え、その概要を報告する。

症 例

患 者：59歳 女性。

初 診：昭和60年11月■日。

兵庫医科大学歯科口腔外科学講座
(主任：吉岡 濟教授)

Department of Dentistry and Oral Surgery, Hyogo
college of Medicine (Chief: Prof. Wataru Yoshioka)

受付日：昭和61年11月19日

主 訴：右口底の腫瘍。

家族歴：特記事項なし。

既往歴：昭和52年より心筋梗塞にて通院加療中。

現病歴：1か月前に右口底の疼痛を伴う腫瘍に気づくも、疼痛が軽度であったためそのまま放置した。しかし数日前より疼痛が強くなったため近医を受診、その後同院より当科を紹介され来院した。

現 症：全身所見；体格中等度、栄養状態良好で、その他に特記すべき事項なし。

局所所見；右側下顎第三大臼歯相当口底に12×13 mm 弾性硬の半球状腫瘍を認めた。腫瘍表面は平滑で暗赤色を呈していた。所属リンパ節は右側顎下リンパ節を大豆大で1個触知したが、圧痛なく可動性であった。

臨床検査所見：異常値はなくすべて正常範囲内であった。

臨床診断：右口底部血管腫の疑い。

処置ならびに経過：昭和61年3月■日全麻下にて腫瘍摘出術を施行、周囲組織との癒着は認められず剝離は容

写真 1 口腔内写真

写真 4 嚢胞様腔内への上皮の乳頭状増生
(H-E 染色, ×100)

写真 2 摘出物写真

写真 5 嚢胞様腔内への乳頭状に突出した上皮組織
大小の不規則な腺腔形成と細胞質内小腔形成を伴う。
(H-E 染色, ×100)

写真 3 病理組織像 (H-E 染色, ×40)

写真 6 増殖した上皮組織

核濃染・核細胞質比上昇・核型不整を示す異型細胞
が散見される。(H-E 染色, ×200)

易であった。現在、術後7か月を経過するが再発はなく予後良好である。

摘出物所見：摘出物は15×14×13mm大の暗赤色の腫瘤で、断面は数個の嚢胞腔を有していた。

病理組織学的所見：組織学的には、腫瘍はその内部に大小の嚢胞腔様の形成を認め、腔内壁より腔内方へ向う

表 1 小唾液腺に由来した乳頭状囊腺腫の報告例

発 表 者 名	年 次	年 齢	性 別	発 生 部 位
Skorpil ³⁾	1941	78	女	口 蓋
		28	女	口 蓋
Stout ⁴⁾	1946	50	女	舌 下 面
Hobaek ⁵⁾	1949	45	女	口 蓋
Castigliano, et al. ⁶⁾	1954	58	男	口 蓋
Vellions, et al. ⁷⁾	1955	不明	不明	口 蓋
Brooks, et al. ⁸⁾	1956	31	男	口 蓋
		63	男	口 蓋
Collins ⁹⁾	1958	74	女	頬 粘 膜
Bernier, et al. ¹⁰⁾	1958	不明	男	頬 粘 膜
		53	女	頬 粘 膜
		64	男	頬 粘 膜
Chaudhry, et al. ¹¹⁾	1960	64	男	頬 粘 膜
Chaudhry, et al. ¹⁾	1961	40	女	口 底
		40	女	下顎小白歯相当部
Calhoun, et al. ¹²⁾	1965	51	女	上 唇
Parnes ¹³⁾	1966	53	男	頬 粘 膜
Goldman ¹⁴⁾	1967	58	女	口 蓋
Akin, et al. ¹⁵⁾	1973	53	男	下 唇
Wilson, et al. ¹⁶⁾	1974	77	男	下顎歯槽粘膜
森本ら ²⁾	1977	51	男	口 蓋
Kerpel, et al. ¹⁷⁾	1978	72	女	頬 粘 膜
林ら ¹⁸⁾	1981	41	女	白 後 三 角
金城ら ¹⁹⁾	1982	52	女	口 咽 頭 部
Kameyama, et al. ²⁰⁾	1985	73	男	下 唇
自験例	1986	59	女	口 底

表 2 部位別発生頻度

部 位	症例数	発生率(%)
口 蓋	9	37.5
頬 粘 膜	6	25.0
口 唇	3	12.5
舌	1	4.2
口 底	1	4.2
下顎小白歯相当部	1	4.2
下顎歯槽粘膜	1	4.2
白 後 三 角	1	4.2
口 咽 頭 部	1	4.2

表 3 年齢分布

年 齢	症例数	比率 (%)
0～ 9	0	0
10～19	0	0
20～29	1	4.5
30～39	1	4.5
40～49	4	18.2
50～59	9	41.0
60～69	2	9.1
70～79	5	22.7
80～	0	0

* 24例中 2例を年齢不詳のため除外

上皮組織の不規則な乳頭状増生がみられた。上皮細胞は主に円柱状あるいは立方状で、類円形または橢円形核を有し細胞質はやや好酸性あるいは淡明であった。一方、一部に核濃染・核細胞質比上昇・核型不整を示す異型細胞も散見された。また上皮組織中には大小の不規則な腺腔形成と細胞質内小腔形成がみられ、いずれもこの一部

にジアスターゼ消化 PAS 染色，アルシアンブルー染色陽性所見が示され粘液産生が確認された。間質は比較的密な膠原線維性結合組織よりなり一部に硝子化，組織球の集簇像が認められた。
病理組織学的診断：乳頭状囊腺腫。

考 察

乳頭状囊腺腫は副睪丸、甲状腺、喉頭等に発生する腺組織由来のまれな疾患で、口腔領域では大唾液腺にみられ小唾液腺に発生するものはきわめてまれである。Chaudhry ら¹⁾は小唾液腺の良性腫瘍の文献的考察を行ったところ800症例中16例(2.0%)が乳頭状囊腺腫であったと述べており、本邦では森本ら²⁾が同様自験例について検討したところ57例中1例(1.7%)が本腫瘍であったと報告している。

われわれが渉猟し得た小唾液腺由来の乳頭状囊腺腫の報告例は、表1に示すように1941年 Skorpil³⁾が最初に報告して以来現在までに24例¹⁻²⁰⁾であり、本邦での報告例はそのうち4例^{2, 18-20)}であった。

発生部位は口蓋が24例中9例(37.5%)で最も多く、次いで頬粘膜の6例(25.0%)であり両者で全体の60%以上を占めていた。

発症年齢は28~78歳で40歳以上に発生頻度が高く、50歳代が全体の41%であった。

性別では男女の別が不明であった1例を除いた23例について検討したところ、その男女比は1:1.3で明らかな性差はみられなかった。

組織学的には、腺上皮が種々の形の管腔をかこんで増殖し腔内への乳頭状の突出を示し、上皮細胞は好酸性で円柱状または立方状をなしており、明細胞や粘液細胞あるいはオンコサイト様の細胞が存在することもある。間質は結合組織からなり、硝子化や軽度のリンパ球浸潤を認めることもあるが、リンパ組織の増生はないといわれている²¹⁾。本症例ではこれに加えてさらに上皮細胞の一部に核濃染・核細胞質比上昇・核型不整を示す細胞が散見された。これは本腫瘍所見の一部に含んだ腺癌の報告例²²⁾もあることから非常に興味のある所見と思われた。また諸家の報告の中には Kerpel ら¹⁷⁾や Kameyama ら²⁰⁾のように上皮組織内に粘液細胞が多数みられたため特に粘液細胞型とした症例や、メラニン色素を含んだオンコサイトを有する症例¹⁴⁾もみられた。

乳頭状囊腺腫は良性腫瘍であるが再発しやすいといわれている。われわれの文献的検索でも初診時にすでに再発例であった1例¹⁹⁾を含め4例^{3, 8, 9, 19)}に再発を認めており、2度の再発(初回手術後16年および18年)をみた症例もみられた³⁾。再発しやすい理由として Skorpil³⁾は本腫瘍が局所破壊性に増殖するためであり、生物学的に悪性の潜在能を有しているためであると述べている。これは Brooks ら⁸⁾や Collins⁹⁾によっても支持されているが、Brooks ら⁸⁾はさらに本腫瘍は悪性度の低い悪性腫瘍として考えるべきであると述べている。本症例も前述のごとくに上皮細胞の一部に異型細胞が散見されたことから Skorpil³⁾の説を支持し得るかもしれない。したが

って本腫瘍の治療に際しては、病理組織所見を十分に考慮した処置の選択がなされる必要があるといえる。

結 語

われわれは、59歳女性の右口底部に生じた乳頭状囊腺腫の1例を経験したので文献的考察を加え、その概要を報告した。

本論文の要旨は、第31回日本口腔外科学会総会(昭和61年10月16日、久留米)において報告した。

引 用 文 献

- 1) Chaudhry, A.P. and Vickers, R.A.: Intraoral minor salivary gland tumors; an analysis of 1,414 cases. OS OM OP 14: 1194-1226 1961.
- 2) 森本忠三, 辻本守孝, 他: 小唾液腺腫瘍の臨床統計的観察. 日口外誌 23: 864-869 1977.
- 3) Skorpil, F.: Über das Cystadenoma papillare der grossen und kleinen Speicheldrüsen. Frankfurt Ztschr Path 55: 39-59 1941.
- 4) Stout, A.P.: Tumor seminar. Texas State J Med 91: 567-597 1946.
- 5) Hoback, A.: Intraoral mucous and salivary gland mixed tumors. Acta Radiol 32: 229-247 1949.
- 6) Castigliano, S.G. and Gold, L.: Intraductal papilloma of the hard palate; case report of an undescribed lesion of a minor salivary gland. OS OM OP 7: 232-238 1954.
- 7) Vellions, F. and Davidson, D.: The natural history of tumors peculiar to the salivary glands. Am J Clin Pathol 25: 147-157 1955.
- 8) Brooks, H.W., Hiebert, A.E., et al.: Papillary cystadenoma of the palate; a review of the literature and report of two new cases. OS OM OP 9: 1047-1050 1956.
- 9) Collins, E. M.: Papillary cystadenoma of accessory salivary gland. Am J Surg 96: 749-750 1958.
- 10) Bernier, J.L. and Bhaskar, S.N.: Lymphoepithelial lesions of salivary glands; histogenesis and classification based on 186 cases. Cancer 11: 1156-1179 1958.
- 11) Chaudhry, A.P. and Gorlin, R.J.: Papillary cystadenoma of minor salivary gland origin; report of a case. OS OM OP 13: 452-454 1960.
- 12) Calhoun, N.R., Cerine, F.C., et al.: Papillary cystadenoma of the upper lip; report of a case. OS OM OP 20: 810-813 1965.
- 13) Parnes, E.I.: Papillary cystadenoma; report

- of a case. *OS OM OP* 21: 782-785 1966.
- 14) Goldman, R.L.: Melanogenic papillary cystadenoma of the soft palate. *Am J Clin Pathol* 48: 49-52 1967.
 - 15) Akin, R.K., Kreller, A.J., et al.: Papillary cystadenoma of the lower lip; report of case. *J Oral Surg* 31: 858-860 1973.
 - 16) Wilson, D.F. and MacEntee, M.I.: Papillary cystadenoma of ectopic minor salivary gland origin. *Oral Surg* 37: 915-918 1974.
 - 17) Kerpel, S.M., Freedman, P.D., et al.: The papillary cystadenoma of minor salivary gland origin. *Oral Surg* 46: 820-826 1978.
 - 18) 林 誠一, 遠藤盛孝, 他: 小唾液腺に発生した乳頭状囊腺腫の1例. *日口外誌* 27: 1629-1632 1981.
 - 19) 金城 孝, 小池正夫, 他: 口咽頭部に生じた乳頭状囊腺腫の1例. *日口外誌* 28: 1788-1790 1982.
 - 20) Kameyama, Y., Okada, Y., et al.: Papillary cystadenoma. *Int J Oral Surg* 14: 556-559 1985.
 - 21) 石川梧朗監修: 口腔病理学Ⅱ. 改訂版, 永末書店, 京都, 1982, 735-736頁.
 - 22) 野田三重子, 畠山節子, 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. (抄) *口科誌* 28: 676 1979.