5歳の男児にみられた多形性腺腫の1例

野田 信夫・三角 洋介・宇治 保義・田 縁 昭

Pleomorphic adenoma of the palate in a 5 years old child:
Report of a case

Nobuo NODA・Yosuke MISUMI・Yasuyoshi UJI・Akira TAEN

Abstract: Pleomorphic adenoma frequently occurs after 30 years of age but is rarely seen in childhood. We encountered a preschool ■-year-old male with pleomorphic adenoma of the palate.

A hemispherical tumor with distinct margins (1.5×1.5×1.5 cm) was observed in the right transitional portion from the soft to hard palate.

Pathohistological examination showed a relatively distinct fibrous capsule of the tumor, and epithelial elements and interstitial tissue intermixed to various degrees. In Japan, a relatively large number of school children (13) with pleomorphic adenoma have been reported.

However, the disease is rarely found in infants or preschool children, and only 4 patients including our case have been reported in Japan and Western countries. In addition, our patient is the youngest among those with pleomorphic adenoma arising in the small salivary gland, especially the palate.

Key words: pleomorphic adenoma, 5-year-old

緒 言 症 例

多形性腺腫は1948年 Willis¹⁾ により、その組織像が病理組織学的に複雑多様な像を呈する上皮性由来の腺腫に属するものと考えられて以来、現在に至るまで内外ともに数多くの報告がなされてきた。

本腫瘍の発生年齢は、あらゆる年代にみられるようであるが、30歳代以後の中老年層に比較的多く発生するといわれている²⁾。一般に、小児に本腫瘍の発生する頻度は低いといわれているが、特に乳幼児期に発生した報告はきわめて少ないようである。

今回われわれは、5歳幼児の口蓋に発生した多形性腺腫の1例を経験したので、その概要を報告する。

患 者：5歳8か月 男児。
初 診：昭和59年3月■日。
主 訴：右側口蓋部腫瘍形成。
家族歴：特記事項なし。
既往歴：特記事項なし。

現病歴：昭和58年9月頃（5歳1か月時）、右側口蓋部に腫瘍を認めるも放置。その後、徐々に増大傾向を示すため昭和59年3月某歯科受診、紹介により当科を受診した。

現 症：全身所見は、体格、栄養状態中等度で特記すべき異常所見は認められなかった（写真1）。

口腔内所見は、口蓋正中部よりやや右側で、硬口蓋部後方、および軟口蓋の一部にわたり、示指頭大、比較的境界明瞭な半球状の腫瘍を認めた。腫瘍表面は平滑で、ほぼ健康粘膜色を呈し、弾性硬、圧痛および自発痛は認められなかった（写真2）。

X線所見：異常所見は認められなかった。

臨床検査成績：一般血液検査、血液生化学検査に異常

熊本大学医学部歯科口腔外科学講座

（主任：田縁 昭教授）

The Department of Dent Oral Surgery, Kumamoto University Medical School (Chief: Prof. Akira Taen)

受付日：昭和62年9月2日

写真1 初診時顔貌

写真2 術前口腔内所見

所見は認められなかった。

臨床診断：口蓋部腫瘍。

処置および経過：昭和59年4月■日，全身麻酔下にて腫瘍摘出術を施行した。腫瘍周囲約3mmの健康粘膜部に切開線を設定し，硬口蓋部は骨膜に達する切開を加え骨膜とともに剝離した。腫瘍は軟口蓋にかかる部は，口蓋帆挙筋の一部を含め一塊として切除。摘出した。腫瘍下の口蓋骨には軽度の陥凹を認めた。摘出後，軟口蓋部は閉鎖創とし，硬口蓋部はセロイド保護床にて創部を被覆し手術を終了した。術後3年経過するも再発の傾向もなく経過良好である（写真3）。

摘出物所見：摘出物は，総重量1.5g，大きさ1.5×1.5×1.5cm，圧べいされた半球状を呈し弾性硬であった（写真4）。

写真3 摘出物所見

写真4 摘出物断面所見

写真5 術後口腔内所見

断面は，充実性，乳白色を呈し，やや粘稠感を認めた（写真5）。

病理組織学的所見：腫瘍は比較的明瞭な線維性被膜で被包されており，上皮成分および間質成分とが種々の割合で混在していた。腫瘍実質は，充実性に索状，あるい

写真6 病理組織所見：腫瘍は比較の明瞭な線維性被膜で被包され、上皮細胞および間質が種々の割合で混在している (H-E, ×40)

写真7 病理組織所見：上皮細胞が充実性に索状あるいは胞巣状に増殖している (H-E, ×100)

写真8 病理組織所見：管腔形成を認めるが不明瞭で細胞の離開、間質の介在を認める。(H-E, ×100)

は胞巣状に増殖しており、間質は塊状の上皮胞巣内部に介在し、粘液腫状、あるいは小嚢胞状を呈していた(写真6)。

表1 本邦における学童期多形性腺腫報告例

症例	報告者	年齢	性別	部位
1	玉生 ⁸⁾ (1959)	15	F	不明
2	小守ら ²¹⁾ (1977)	15	F	軟口蓋
3	小守ら ²¹⁾ (1977)	12	M	顎下腺
4	小守ら ²¹⁾ (1977)	15	M	硬口蓋
5	小守ら ²¹⁾ (1977)	14	F	硬口蓋
6	小守ら ²¹⁾ (1977)	10	F	硬口蓋
7	小守ら ²¹⁾ (1977)	8	F	硬口蓋
8	小守ら ²¹⁾ (1977)	7	M	顎下腺
9	岡本ら ²⁰⁾ (1977)	11	F	口蓋
10	山上ら ¹⁸⁾ (1987)	9	F	硬口蓋
11	有賀ら ¹⁷⁾ (1983)	14	F	硬口蓋
12	磯貝ら ¹³⁾ (1986)	6	F	硬口蓋
13	松村ら ¹⁹⁾ (1987)	11	F	上唇

表2 乳幼児に発生した多形性腺腫報告例

報告者	発症年齢	発生部位
Howard ら ⁸⁾ (1950)	出生時	耳下腺
Krolls ら ¹¹⁾ (1972)	生後10日	耳下腺
鬼塚ら ¹²⁾ (1976)	3か月	下口唇
本報告例	5歳	硬軟口蓋移行部

上皮細胞は、大小不同の細胞よりなり充実性に胞巣状、あるいは索状の増殖が認められ、また一部には好酸性の紡錘形細胞の配列を認めた(写真7)。

間質部において、腫瘍細胞の管腔形成は不明瞭であるが、1～数層の多角形、あるいは立方形の細胞が配列し管腔を形成していた。しかし、管腔と間質との境界は不明瞭で細胞の離開、粘液物質の介在が認められた(写真8)。

病理組織診断：良性多形性腺腫。

考 察

小児の口腔領域に発生する腫瘍は、成人に比べ、性差、年齢、発生部位、および組織型などにおいて若干異なる特徴を示すようである。すなわち、小児期好発病変は、リンパ管腫、血管腫などの管系腫瘍、あるいは神経性腫瘍などの非上皮性腫瘍が好発し、上皮性腫瘍の発生は比較的に少ないとされているようである。

一般に小児の唾液腺腫瘍はまれで、その発生頻度はすべての唾液腺腫瘍の約5%以下といわれている³⁾。

多形性腺腫は、唾液腺腫瘍の中で最も発生頻度が高く、大唾液腺では耳下腺に、小唾液腺では口蓋に多く発生している⁴⁾。本腫瘍の発生年齢は、主に中高年層に多

く、石川、秋吉ら⁹⁾は、20～50歳代に多くみられるとしており、Bauer and Bauer ら²⁾は、30歳代以後に発生し、増齢につれて発生率も増加すると述べている。また玉生⁶⁾、森本ら⁷⁾は、それぞれ好発年齢の平均を42.2歳、41.8歳と報告している。このように、小児に本腫瘍が発生するのはまれで、Howard ら⁸⁾によれば、文献上の多形性腺腫2,309例中15歳以下の小児は66例(3%)にみられたと報告し、Kauffman ら⁹⁾は、多形性腺腫712例のうち6例(0.8%)に、さらにCastro ら¹⁰⁾は、2,135例の唾液腺腫瘍中小児(16歳以下)18例に本腫瘍がみられたと報告している。

本邦における学童期(6～15歳)に発生した多形性腺腫は、われわれが渉猟した範囲では表1のごとく13例と比較的数多くの症例を認めた^{6,13,17-21)}(表1)。しかし、乳幼児期に発生した多形性腺腫は、本邦および欧米においても著者らの報告例を含めわずか4例にすぎず^{8,11,12)}(表2)、小唾液腺のうち本報告例のごとく口蓋に発生した症例は、磯貝ら¹³⁾の6歳、女児が最年少であり、最も低年齢で発症した症例の報告と推察される。

一般に本腫瘍が小児に発生するのはきわめて少ないといわれている。なかでも、前述したごとく学童期に発生した多形性腺腫は13例もの報告があり、むしろ乳幼児期における発生の方がまれであるといえよう。

本腫瘍の来院までの経過年数は比較的長く、西嶋ら¹⁴⁾は最短15日から最長20年で、ほぼ3年未満に来院したと報告している。同様に玉生⁶⁾4.4年、茂木ら¹⁵⁾は4.3年であったとしており、他の報告例も5年前後の経過年数であった。これらの一要因として、本腫瘍は無痛性で緩慢な発育様式をとるため一般に長い経過をとるものと考えられる。さらに小児に発生した多形性腺腫発見の困難となる要因は、小児の取り扱いの困難さ、および患児の診察に対する協力、病歴の自己表現の不十分さがより発見、診断を困難にしていると考えられる。

本腫瘍の予後は一般に良好であるといわれているが、しばしば再発傾向^{3,8,9)}、悪性化^{5,16)}も認められるため、患児の年齢からも今後長期にわたる経過観察が必要であり、さらに詳細な予後観察を続けていく予定である。

結 語

1) 5歳幼児の口蓋に発生した多形性腺腫の1例について報告した。

2) 乳幼児に発生した多形性腺腫は、本邦および欧米において4例を認めるのみで、口蓋に発生した報告では本報告例が最年少であった。

引 用 文 献

1) Willis, R.A.: Pathology of Tumors. 1st Ed,

Butterworth and Co, London, 1948, p 320-348.

- 2) Bauer, W.H. and Bauer, J.D.: Classification of glandular tumors of salivary glands-study of one hundred forty-three cases. Arch Path 55: 328-346 1953.
- 3) Byars, L.T., Ackerman, L.V., et al.: Tumors of salivary gland origin in children. A clinical pathologic appraisal of 24 cases. Ann Surg 146: 40-51 1975.
- 4) Rauch, S.: Speicheldrüsen des Menschen. Georg Thieme Verlag, Stuttgart, 1959, p 354-433.
- 5) 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.
- 6) 玉生みい: 唾液腺腫瘍の臨牀的研究, 特に小口腔腺腫瘍について. 口腔外科学会誌 5: 2-18 1959.
- 7) 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: 864-869 1977.
- 8) Howard, J.M., Rawson, A.J., et al.: Parotid tumors in children. Surg Gyn Obst 90: 307-319 1950.
- 9) Kauffman, S.L. and Stout, A.P.: Tumors of the major salivary glands in children. Cancer 16: 1317-1331, 1963.
- 10) Castro, E.B., Huvo, A.G., et al.: Tumors of the major salivary glands in children. Cancer 29: 312-317 1972.
- 11) Krolls, S.O., Trodahl, J.N., et al.: Salivary gland lesions in children. Cancer 30: 459-469 1972.
- 12) 鬼塚謙治, 井口次男, 他: 3か月女児の下口唇に発現した多形性腺腫の1例(抄). 日口外誌 22: 965 1976.
- 13) 磯貝治喜, 平 博彦, 他: 6歳女児に見られた口蓋多形性腺腫の1例. 口科誌 35: 329-337 1986.
- 14) 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統計的観察, 1. 多形成腺腫. 日口外誌 19: 348-352 1973.
- 15) 茂木克俊, 大畑直暉, 他: 頬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) 藤林孝司, 小幡幸男, 他: 小唾液腺腫瘍の臨牀的研究. 口科誌 21: 901-928 1972.
- 17) 有賀 功, 伊藤恒生, 他: 小児の口蓋にみられた多形性腺腫の1症例(抄). 日口外誌 29: 1161 1983.
- 18) 山上隆裕, 小林一光, 他: 小児の口蓋に発生した多形性腺腫の1例, 小児の唾液腺腫瘍に関する文献的考察. 日口外誌 33: 171-174 1987.
- 19) 松村耕治, 早津良和, 他: 小児の上唇に発生した多形性腺腫の1例. 日口外誌 33: 171-174

- 1987.
- 20) 岡本次郎, 森 昌彦: 多形性腺腫の臨床的病理学的研究. 日口外誌 23: 193-211 1977.
- 21) 小守 昭, 高城 功, 他: 小児の唾液腺腫瘍. 口病誌 44: 93-100 1977.