舌下面にみられたリンパ上皮性嚢胞の2例

湯浅 誠仁・山口 操・村田 真・大橋三喜男
吉田 好範・小瀬 晃・新藤潤一

**Lymphoepithelial cysts located in the ventral surface of the tongue:
Report of two cases**

Seiji YUASA・Misao YAMAGUCHI・Makoto MURATA
Mikio OHHASHI・Yoshinori YOSHIDA・Akira KOSE
Junichi SHINDO

Abstract: Lymphoepithelial cyst generally occurs in the lateral cervical areas. It is characterized histopathologically as the lymphoid tissue below the lining of the stratified squamous epithelium of the cyst, but the same cyst sometimes occurs in the oral cavity. This report includes two cases of the cyst in the ventral surface of the tongue.

Case 1. A 37-year-old man visited a dental office complaining of dental caries, and was found to have a small tumor on the left side of the ventral surface of the tongue. It appeared as a round mass, approximately 4 mm in diameter, and distinguished from the surrounding oral mucosa. Under local anesthesia, the lesion was totally enucleated. Histopathological findings revealed a cyst with parakeratinizing stratified squamous epithelium and lymph follicles.

Case 2. The same cyst was found on the right side of the ventral surface of the tongue in a 21-year-old woman. The tumor appeared as a round mass, approximately 4 mm in diameter, white in color, and distinguished from the surrounding oral mucosa. Under local anesthesia, total enucleation was performed. Histopathologically, the inner side of the cyst was covered with a parakeratinizing stratified squamous epithelium, and the lymphoid tissue was found below the lining. In addition, we confirmed the continuance between the oral mucosa and the lining of the cyst.

Key words: lymphoepithelial cyst, oral mucosa, continuance to epithelium

緒 言

リンパ上皮性嚢胞は、一般に側頸部に好発し、側頸嚢胞、鰓嚢胞とも呼ばれ、胎生期の鰓性組織の残遺から発生するといわれている¹⁾。しかし時に、類似した病理組織像を示す嚢胞が耳下腺や口腔粘膜下に発生することが

ある。

今回、われわれは舌下面に生じた本嚢胞の2例を経験したので、その概要を報告し、併せてその成因についての考察を加えることにした。

症 例

症例1：37歳 男性。

初 診：昭和58年5月■日。

主 訴：舌下面の腫瘤。

家族歴・既往歴：特記事項なし。

現病歴：昭和58年5月■日、う蝕治療のため某歯科を受診した際、舌下面の腫瘤を指摘され、紹介来院した。

神奈川県大学口腔外科学教室
(主任：新藤潤一教授)
Department of Oral and Maxillofacial Surgery,
Kanagawa Dental College (Chief: Prof. Junichi
Shindo)
受付日：昭和62年9月25日

図 1 症例 1 の口腔内

写真 1 症例 1 の嚢胞全断面
(H-E 染色, 弱拡大)

自覚症状なく、いつから腫瘍が発生したのか患者自身が全く自覚していない。

現 症：左側舌下面に、直径約 4 mm の球状の腫瘍を認める（図 1）。周囲組織との境界は明瞭で、被覆粘膜は正常、硬さは弾性硬で、圧痛は認められない。

処置および経過：初診当日、良性腫瘍の診断のもとに、局所麻酔下で、舌粘膜を含めて摘出手術を施行した。腫瘍は球形で被膜に包まれ、周囲との癒着もなく、容易に摘出できた。術後の経過は良好で、現在まで再発は認められない。

摘出物所見：摘出物の大きさは、直径約 4 mm のほぼ

写真 2 症例 1 の胚中心を有するリンパ性組織
(H-E 染色, 強拡大)

写真 3 症例 1 の錯角化重層扁平上皮
(H-E 染色, 強拡大)

球形で、弾性があった。

病理組織学的所見：腫瘍の中心部にはほぼ Y 字形をしたせまい腔があり、その内面は重層扁平上皮で覆われていた。上皮下にリンパ球の集合とリンパ濾胞の形成がみられた。嚢胞の上方は口腔粘膜の固有層に接し、下方は

写真 4 症例2の初診時口腔内

写真 5 症例2の摘出物

写真 6 症例2の嚢胞全断面
(H-E 染色, 弱拡大)

粗な線維性の被膜で覆われていた。しかし筋層までは及んでいなかった(写真1, 2)。上皮層は数層の扁平上皮からなり、基底部分は平坦であるが、表層に厚い角化層を有し、それが嚢胞腔内に脱落していたが、この角化層には、細胞核が明瞭に認められ、錯角化の所見を呈していた。嚢胞壁が口腔粘膜と接する部分にはリンパ球はほとんど見られず、下方2/3にリンパ球の著しい集積があり、比較的大きなリンパ濾胞を形成していた。なお口腔

写真 7 症例2の錯角化重層扁平上皮
(H-E 染色, 強拡大)

粘膜と嚢胞上皮の連続を思わせる所見はなかった(写真3)。

病理組織学的診断：リンパ上皮性嚢胞。

症例2：21歳 女性。

初診：昭和61年8月■日。

主訴：舌下面の腫瘍。

家族歴・既往歴：特記事項なし。

現病歴：昭和61年8月■日、歯科治療のために来院、舌下面の腫瘍を発見された。患者は初診時病変を全く自覚しておらず、それ以前の病歴は不明であった。

現症：右側舌下面に、約4mm径の球状の腫瘍を認める(写真4)。硬さは弾性硬で、周囲組織との境界は明瞭である。被覆粘膜は腫瘍に圧迫されて白色を呈している。圧痛は認められない。

処置および経過：昭和61年8月■日、局所麻酔下で、表面の粘膜を含めて摘出した。周囲組織との癒着もなく、手術は容易であった。術後の経過は良好で、現在まで再発は認められない。

摘出物所見：摘出物は、大きさ約4mm径の球形(写真5)で、被膜に包まれていた。

病理組織学的所見：腫瘍は嚢胞状で、中心部に楕円形の比較的大い嚢胞腔を有し、薄い嚢胞壁で囲まれていた。嚢胞壁内面は数層の薄い重層扁平上皮で覆われ、腔内は、剝離した角化上皮で満たされていた(写真6)。上皮層は扁平な基底膜を有し、上皮には錯角化がみられたが、細胞核をもつものとたないものとが認められた(写真7)。上皮直下には、多数のリンパ球の集合がみら

写真 8 症例 2 のリンパ性組織
(H-E 染色, 強拡大)

写真 9 症例 2 の口腔粘膜上皮と囊
胞上皮との移行部
(H-E 染色, 強拡大)

れたが、症例 1 はど広範囲ではなく、数か所に分散していた。しかし小さいながら明瞭なリンパ濾胞の形成が認められた(写真 8)。この症例では囊胞上皮と口腔粘膜上皮との、明らかな連続性が認められた。この部分の上皮は口腔粘膜と同じような厚い扁平上皮で短かい瘻管壁を形成し、それが薄い囊胞上皮に移行していた(写真 9)。

病理組織学的診断：リンパ上皮性囊胞。

考 察

リンパ上皮性囊胞は一般に側頸部に多く、口腔内に発生することは非常に稀である。本邦における報告例は、われわれの検索した限りでは、1975年の長谷川ら²⁾の報告が最初で、その後、われわれの 2 例を含めて 27 例であった。なお同時期に報告されたリンパ上皮性囊胞は 308 例で、側頸部 262 例 (85%)、耳下腺 19 例 (8%) に対し、口腔粘膜の症例はその 9% にすぎない。

口腔内の 27 例の発生部位は、舌 (舌はすべて舌下面であった) に 15 例、口底部に 10 例、軟口蓋に 1 例、頬部に 1 例と、舌における発生頻度が高かった²⁻¹⁸⁾ (表 1)。

口腔内にみられる本囊胞は多くのものが臨床的に、粘液瘤、脂肪腫、線維腫などと診断されており、肉眼的には診断が難しいとされている⁹⁾。われわれの経験した 2 例は一見粘液瘤に似ているが、Blandin-Nuhn 腺よりも下方であり、硬さも粘液瘤よりも硬く、内容液が透視できたり、波動を触れたりすることもない。また脂肪腫や線維腫はこれほど小さいものは稀であるし、硬さも異

表 1 部位別症例数 (本邦 1975~1987 年)

発生部位	症例数	(%)
側 頸 部	262	(85)
耳 下 腺	19	(8)
口 腔 内	27	(9)
舌 下 面	15	
口 腔 底	10	
軟 口 蓋	1	
頬 部	1	
計	308	

なるので鑑別が可能である。しかし本症は非常に稀なものであるから、臨床症状だけで、本症を診断することは不可能であるし、またその必要もないと思われる。

本症の診断は組織学的に囊胞壁が上皮組織で覆われ、その下層にリンパ組織があればその条件が満たされるわけであるが、本邦報告例 27 例を通覧してみると、われわれの 2 例を含めた 23 例に共通点が非常に多く、4 例はこれとやや異質の所見を示していることに気づく(表 2)。

そのうち症例 1⁴⁾、症例 3⁹⁾ の 2 例は、生後 26 日と 60 日の乳児で、いずれも舌下面ないし舌下正中部に発生した巨大な囊胞であり、囊胞壁内面は絨毛、円柱上皮や立方上皮で被覆されていた。リンパ組織は症例 1 では部位により著しい浸潤とリンパ濾胞の形成がみられたが、症例 3 はリンパ球の浸潤も軽度でリンパ濾胞もみられてい

表 2 口腔粘膜に発生したリンパ上皮性嚢胞

(本邦1975~1987年)

発表者名	症例数	年 齢	性 別	発生部位	大きさ	上 皮	角 化	濾 胞	交 通
1. 守谷ら ⁴⁾	1	0	男	口 底	40 mm	扁平 絨毛 円柱 立方	—	—	—
2. 沖中ら ⁵⁾	1	5	男	口 底	30 mm	扁平	—	+	—
3. 山田ら ⁶⁾	1	0	女	舌	20 mm	立方	—	—	—
4. 小林ら ⁷⁾	1	84	男	頬 部	60 mm	扁平	—	—	—
					30 mm	扁平	—	—	—
5. 長谷川ら ²⁾	2	27	女	舌	5 mm	扁平	+	+	+
		19	男	口 底	5 mm	扁平		+	+
6. 杉原ら ³⁾	1	41	女	舌	6 mm	扁平	+	+	—
7. 大枝ら ⁸⁾	1	45	女	軟口蓋	5 mm	扁平	+	+	—
8. 藤原ら ⁹⁾	2	41	女	口 底	8 mm	扁平	+	+	+
		75	女	口 底	5 mm	扁平		+	
9. 寺坂ら ¹⁰⁾	1	31	女	口 底	10 mm	扁平	+	+	—
10. Sakodaら ¹¹⁾	2	19	女	舌	5 mm	扁平	+	—	+
		33	女	舌	5 mm	扁平	+	+	+
11. 河野ら ¹²⁾	1	30	女	口 底	8 mm	扁平	+	+	—
12. 高山ら ¹³⁾	1	34	男	舌	5 mm	扁平	+	+	
13. 今本ら ¹⁴⁾	2	35	女	舌	5 mm	扁平			—
		47	女	舌	5 mm	扁平			+
14. 横尾ら ¹⁵⁾	4	46	女	舌	3 mm	扁平		+	
		43	男	舌	10 mm	扁平		+	
		11	女	舌	5 mm	扁平		+	
		38	女	口 底	6 mm	扁平		+	
15. 玉生ら ¹⁶⁾	2	54	女	舌	6 mm	扁平	+	+	
		24	男	口 底	7 mm	扁平	+	+	
16. 柳澤ら ¹⁷⁾	1	57	男	口 底	8 mm	扁平	+	+	—
17. 田中ら ¹⁸⁾	1	40	女	舌	7 mm	扁平		+	
18. 自験例	2	37	男	舌	4 mm	扁平	+	+	—
		21	女	舌	4 mm	扁平	+	+	+

ない。特に症例3は報告者も嚢胞を疑いながらも診断を保留しており、他の23例とは異質の、むしろ甲状舌管嚢胞に近いものではないかと思われた。

他の2例は5歳と85歳の男性で、年齢が異常に離れていることと、嚢胞が巨大であることが異質であったが、病理組織学的にはいずれも重層扁平上皮で覆われ、明確な記載はないが、錯角化が見られるようであり、リンパ濾胞も存在するので、病理組織学的には他の大多数の症例と共通点が多かった。

以上の4例を除いた23例(表2)^{2,3,8~18)}についてみると、大きさはすべて直径10mm以下であり、発生部位も軟口蓋の1例を除き、舌下面と口底部に限定されてい

た。発症年齢は11歳と75歳が1例ずつみられるが、その他は、30歳代と40歳代に多かった。性別では男性5例、女性16例で女性が男性の3倍の発生頻度であった。

組織学的には、すべて重層扁平上皮で覆われ、錯角化があると記載されたものが12例あった。しかし、その他は記載不明瞭で、明らかに非角化と記載されたものは1例もなかった。また、上皮下には、本嚢胞の特徴とされるリンパ性組織が存在していた。

口腔粘膜にみられるリンパ上皮性嚢胞の発生機序に関しては、不明な点が多いが、現在2つの考え方がある。Bhaskarは側頸部のリンパ上皮性嚢胞について、頸部リンパ節に迷入した上皮によって側頸嚢胞が発生するとい

う見解を発表し¹⁰⁾、鰓原説を否定しているが、口腔粘膜の嚢胞についても同様に異所性の腺上皮が口腔粘膜に存在するリンパ性組織に迷入し、嚢胞化するという説を主張している²⁰⁾。Vickers ら²¹⁾は、ハムスターの顎下リンパ節内に頬粘膜上皮を移植して、9例中7例に本嚢胞と同じ組織像を示す嚢胞の発生を認めたことから、この説を支持している。もう1つは、Knapp^{22,23)}による腺窩閉塞説で、口腔には Waldeyer 環以外にも、軟口蓋、口腔底、舌下面などに腺窩を有するリンパ性組織、すなわち、扁桃が存在し、その腺窩が閉塞することにより、本嚢胞が発生するとした。長谷川²⁾、Buchner ら²⁴⁾は、連続切片標本作製し、口腔粘膜上皮と嚢胞上皮の連続性を証明することによりこの説を支持している。

今回の2例についてみると、症例1では、口腔粘膜上皮の連続性が認められなかったが、症例2では、上皮の明らかな連続性が認められたことから、Knapp^{22,23)}の腺窩閉塞説が有力のように思われた。

結 語

われわれは、舌下面に生じたリンパ上皮性嚢胞の2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。

1) 症例は37歳男性と21歳女性で、いずれも舌下面に直径約4mmの腫瘤を示した。しかし、いずれも歯科治療の際偶然発見されたもので、患者は自覚していなかった。

2) 病理組織学的には嚢胞は錯角化重層扁平上皮で覆われ、上皮下にリンパ濾胞の形成がみられた。

3) 症例2においては嚢胞上皮と口腔粘膜上皮の連結、移行が認められた。

本論文の要旨は62年6月27日、第138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) King, E.S.J.: The lateral lympho-epithelial cyst of the neck (branchial cyst). Aust NZ J Surg 29: 109-121 1949.
- 2) 長谷川 清, 松村智弘, 他: 口腔粘膜にみられたリンパ上皮性嚢胞の二症例について. 阪大歯誌 20: 59-63 1975.
- 3) 杉原一正, 朔 敬, 他: 舌下面にみられたリンパ上皮性嚢胞の1例. 日口外誌 23: 643-648 1977.
- 4) 守谷友一, 菊地正明, 他: 口底部に発現した鰓原性嚢胞の1例. 日口外誌 24: 331-336 1978.
- 5) 沖中芳彦, 奥園達也, 他: 舌下部腫瘤—第一鰓裂由来の鰓性嚢腫—. 日医新報 (2903) 43-46 1979.
- 6) 山田史郎, 寺島良治, 他: 乳児にみられた巨大

- な先天性舌下面嚢胞の1例. 日口外誌 26: 474-477 1980.
- 7) 小林和江: 2個の鰓嚢胞が頬部に存在した1例(抄). 日口外誌 26: 861 1980.
- 8) 大枝直樹, 三村 保, 他: 軟口蓋にみられたリンパ上皮性嚢胞の1例. 日口外誌 28: 192-195 1982.
- 9) 藤原康次, 河野泰孝, 他: 口腔底に発生したリンパ上皮性嚢胞の2例. 口科誌 32: 613-617 1983.
- 10) 寺坂修治: 口腔底にみられたリンパ上皮性嚢胞の1例(抄). 日赤医学 35: 604 1983.
- 11) Sakoda, S., Kodama, Y., et al.: Lymphoepithelial cyst of oral cavity; report of a case and review of the literature. Int J Oral Surg 12: 127-131 1983.
- 12) 河野勝寿, 樋口勝規, 他: 口底にみられたリンパ上皮性嚢胞の1例. 日口外誌 29: 1637-1639 1983.
- 13) 高山泰男, 見崎 徹, 他: 舌下面に生じたリンパ上皮性嚢胞の1例(抄). 日口外誌 29: 2117 1983.
- 14) 今本 公, 岩本 忍, 他: 舌下部にみられたリンパ上皮性嚢胞の2例(抄). 日口外誌 31: 1254 1985.
- 15) 横尾恵美子, 天竺光雄, 他: 耳下腺内に発生したリンパ上皮性嚢胞の1例. 日口外誌 31: 1157-1162 1985.
- 16) 玉生武夫, 平沼康彦, 他: リンパ上皮性嚢胞の2例(抄). 日口外誌 31: 3048-3049 1985.
- 17) 柳澤高道, 伴 由美, 他: 口底部にみられたリンパ上皮性嚢胞の1例. 日口外誌 32: 837-841 1986.
- 18) 田中耕一郎, 久野 均, 他: 舌下面にみられたリンパ上皮性嚢胞(鰓嚢胞)の1例. 日口外誌 33: 551-555 1987.
- 19) Bhaskar, S.N. and Bernier, J.L.: Histogenesis of branchial cysts; a report of 468 cases. Am J Path 35: 407-423 1958.
- 20) Bhaskar, S.N.: Lymphoepithelial cysts of the oral cavity; report of twenty-four cases. Oral Surg 21: 120-128 1966.
- 21) Vickers, R.A. and Der Muhll, O.H.: An investigation concerning inducibility of lymphoepithelial cysts in hamsters by autogenous epithelial transplantation. J Dent Res 45: 1029-1032 1966.
- 22) Knapp, M.J.: Oral tonsils: Location, distribution, and histology. Oral Surg 29: 155-161 1970.
- 23) Knapp, M.J.: Pathology of oral tonsils. Oral Surg 29: 295-304 1970.
- 24) Buchner, A., Hansen, L.S., et al.: Lymphoepithelial cysts of the oral cavity; a clinicopathologic study of thirty-eight cases. Oral Surg 50: 441-449 1980.