下唇に発生した類表皮嚢胞の1症例ならびに文献的考察

山岸眞弓美・北村 豊・山田哲男
植田章夫・千野武廣・長谷川博雅*
川上敏行*

Epidermoid cyst in the lower lip: Report of a case and review of the Japanese literature

Mayumi YAMAGISHI・Yutaka KITAMURA・Tetsuo YAMADA
Akio UEDA・Takehiro CHINO・Hiromasa HASEGAWA*
Toshiyuki KAWAKAMI*

Abstract: Epidermoid cyst is known to be derived from impaction of the ectoderm during the embryonic period or is acquired from injury or inflammation. It is a relatively rare disease, especially, in the region of the jaw and oral cavity. The majority of cases occur in the floor of the mouth, and occurrence in the lip is very rare. In this report, we presented a case of an epidermoid cyst in the lower lip, and reviewed 21 cases of dermoid cyst and epidermoid cyst in the region of the lip as reported in the Japanese literature.

The patient, an 18-year-old man, with a chief complaint of swelling in the lower lip was referred by his doctor. He first noted hematoma-like swelling in the right lower lip with no other symptoms about 1 year ago, and purposely bit his lower lip in an effort to reduce the existing swelling. After 1 to 2 weeks, the swelling recurred at the same region, and enlarged gradually. On physical examination, there was a well-defined swelling which was the size of a soybean.

Under the clinical diagnosis of mucocoele, the lesion was surgically enucleated with little difficulty. The removed spherical mass measured 9×8×5 mm, and when cut open emitted a yellow-whitish fluid.

Histopathological study revealed it to be an epidermoid cyst.

Postoperative healing was uneventful and there is no evidence of recurrence after 2 years.

Key words: epidermoid cyst (類表皮嚢胞), lower lip (下唇)

緒 言

類表皮嚢胞は、類皮嚢胞と同様に身体各部に発生するが、とくに卵巣と肛門部の発生頻度が高い。口腔領域における本疾患の発生頻度は比較的低く、その大部分は口底部にみられ、口唇部に発生することはきわめてまれである。

今回、われわれは、下唇に発生した類表皮嚢胞の1症例を経験したので文献的考察を加えて報告する。

松本歯科大学口腔外科学第1講座

(主任：千野武廣教授)

* 松本歯科大学口腔病理学教室

(主任：枝重夫教授)

The first department of Oral and Maxillofacial Surgery, Matsumoto Dental College (Chief: Prof. Takehiro Chino)

* Department of Oral Pathology, Matsumoto Dental College (Chief: Prof. Shigeo Eda)

受付日：昭和63年8月29日

症 例

患 者：18歳 男性.

初 診：1986年7月

主 訴：右側下唇粘膜部の無痛性腫脹.

家族歴：特記事項なし.

既往歴：特記事項なし.

現病歴：約1年前に右側下唇粘膜部に小豆大で血腫様の膨隆を自覚したため噛みつぶしたとのことである. 1～2週間後, 同部に小豆大の膨隆の再発を認めたが自発痛, 誘発痛, 機能障害を欠いたため放置していた. しかし, 同膨隆は徐々に増大したため1986年5月に某医院を受診し, 同医の紹介により精査加療を目的として7月

に来院した.

現 症：

全身所見：特記事項なし.

口腔外所見：特記事項なし.

口腔内所見：右側下唇粘膜部に健常粘膜で被覆された大豆大の膨隆が認められた. 同膨隆は周囲との境界は比較的明瞭であり, 色調はほぼ正常粘膜色であるが, わずかに帯黄色を呈していた. 触診では, 弾性軟, 可動性で圧痛はなく, 被覆粘膜および下在組織との癒着は認められなかった (写真1).

臨床診断：右側下唇部粘液嚢胞.

処置および経過：1986年7月 に局所麻酔下に嚢胞摘出術を施行した. 嚢胞は周囲組織と癒着しておらず一塊として容易に摘出できた (写真2). 術後2年を経過するが再発は認められず経過良好である.

摘出物所見：摘出物は, 大きさ9×8×5mmの類球形で黄白色, 弾性軟であり, 表面にはよく発達した小血管の走行が認められた (写真3). 切断に際し帯黄白色で粘稠性の内容物の流出が認められた.

病理組織学的所見：摘出物は10%ホルマリンで固定した後, パラフィン切片としH-E染色およびVan Gieson

染色を施して鏡検した. 嚢胞壁は比較的薄い線維性の組織からなり, 内腔には eosin に好染した層状あるいは塊状を示す角質変性物が充満していた (写真4). 嚢胞の内面は重層扁平上皮によって裏装されていたが (写真5), その一部分は慢性炎症により破壊されていた. な

写真2 術 中

写真3 摘出物

写真1 初診時口腔内

写真4 嚢胞の全形像, 内腔に eosin に好染する角質変性物が充満している (×9).

写真5 嚢壁は線維性組織よりなり、重層扁平上皮によって裏装されている(×115)。

お、嚢壁を構成する線維性組織内に皮膚付属器官は全く認められなかった。

病理組織学的診断：類表皮嚢胞。

考 察

類皮嚢胞および類表皮嚢胞は、外胚葉の嵌入あるいは後天的な外傷や炎症などによる上皮組織の迷入によって発生する嚢胞で、嚢胞壁が表皮および汗腺、皮脂腺、毛嚢などの皮膚付属器官から構成されるものを類皮嚢胞、単に表皮のみに裏装されるものは類表皮嚢胞として区別されている¹⁾。これらの嚢胞は、卵巣や直腸を含む肛門部などに好発するのをはじめ全身の各所に発生するが、口腔領域に発生することは比較のまれである。高橋ら²⁾、大野ら³⁾は、文献上から口腔領域では、類皮嚢胞は少なく類表皮嚢胞が多いと述べている。これらの嚢胞は口腔領域では口底部に発生することが多く、同部以外では口唇、顎骨内、頬部、軟口蓋などに発生した少数例が報告されている。New ら⁴⁾の1910年以降の25年間における1,495例の統計的報告によれば、630例(42.1%)が卵巣、665例(44.5%)が肛門部、103例(6.9%)が頭頸部における発生である。頭頸部の103例中24例(23.3%)は口底部、顎下部、オトガイ下部にみられ、口唇にはわずか3例(2.9%)の発生をみるにすぎない。大野ら(1979)³⁾は口腔領域の軟組織に発生した嚢胞700例のうち、類皮嚢胞および類表皮嚢胞の占める割合は46例(6.6%)であり、口唇部に発生したものは700例中6例(0.9%)であったと報告している。したがって、これらの疾患の口唇部における発生頻度はきわめて低いものと考えられる。

口唇部における類皮嚢胞および類表皮嚢胞の報告は、本邦においてわれわれの渉猟し得た範囲では、著者らの1例を加えた21例⁽²³⁻³²⁾であり、その内訳は表1に示し

たとおりである。その発生部位は上唇11例、下唇10例で、上唇と下唇はほぼ同数であり、下唇に発生した10例のうち2例は口角部であった。年齢、性別については、記載のある13例について統計的観察を行った。その結果、年齢分布は1歳8か月から64歳の広範囲にわたっており、平均年齢では男性が29.3歳、女性は2.9歳で大差がみられた。しかし女性は1.7歳と4歳の2例とともに若齢ではあるが、少数例であるため発現年齢の傾向を知るには今後の症例の追加を待って検討する必要がある。性別では13例中11例(84.6%)が男性であり、口唇部においてはこれらの嚢胞は男性に好発する傾向がみられた。この結果は、口唇以外の顎口腔領域では性別発生頻度に大差はないとする報告^{2,3,5)}とは大きく異なっていた。口唇部は、整容的にも知覚の敏感な点からも膨隆がみられた場合にその異常に気づきやすい部位であり、とくに女性ではその傾向が強いと思われる。この点から、口唇部にこれらの嚢胞発生による異常がみられるにもかかわらず受診せずにいる潜在的な患者は女性では男性よりも少ないと思われる。それゆえに13例という少数例からの性別発生頻度ではあるが、口唇では男性に好発するという結果は妥当性があると考えられた。大きさは1.5 inch (約3.8 cm)の1例を除いてはすべて母指頭大以下であった。このように比較的小さな症例が多い理由として(1)口唇発生例では、前述のような理由で患者が気づきやすいため早期に受診すると考えられる。(2)他の部位、とくに口底などに比べて発育速度が遅い、(3)迷入芽の発育開始時期が遅い、などがあげられる。口腔領域では類皮嚢胞は類表皮嚢胞より大きい傾向が強いとの報告³⁾があるが、口唇の類表皮嚢胞に限ってみてもそれに近い結果であった。その理由として類皮嚢胞に存在する皮膚付属器官である汗腺や皮脂腺が関与していると考えられる。すなわち、それらの腺組織の産生物により内圧が亢進し、類皮嚢胞よりも大きく成長しやすいのではないだろうか。口唇部に発生した類皮嚢胞の腺組織では、4例全例に皮脂腺、1例に汗腺が観察されており、嚢胞の増大に皮脂腺の及ぼす影響の大きいことが示唆された。

初診時臨床診断は、口唇部に発生した場合では表1に示したように、記載のある報告によると、脂肪腫3例、類皮嚢胞の疑い2例、類表皮嚢胞の疑い2例、良性腫瘍1例であった。自験例では、被覆粘膜の色調より脂肪腫の疑いももたれたが、現病歴から粘液嚢胞との臨床診断を下した。口底、顎下部、オトガイ下部に発生した症例の場合、他の疾患との鑑別診断は比較的容易であり、臨床診断は類皮嚢胞あるいは類表皮嚢胞と下される⁷⁾ことが多いようである。しかし、これらの嚢胞の口唇部における発生頻度は非常に低く、特徴のある臨床所見を得難いことから、術前に類皮嚢胞あるいは類表皮嚢胞と診断することは困難であり、さらに両者の嚢胞が疑われた場

表 1 口唇部に発生した類皮嚢胞, 類表皮嚢胞

	報告者	報告年	年齢	性	発生部位	大きさ	初診時臨床診断	病理診断	備 考
1	平川ら ²³⁾	1952	21	M	上唇~鼻橋部	15 mm	—	類皮嚢胞	上唇正中裂随伴
2	原田ら ²⁴⁾	1960	13	M	上唇 (小帯部)	—	—	類皮嚢胞	
3	Kuroyanagi ら ²⁵⁾	1973	42	M	上唇 (左側)	1.5 inch (3.8 cm)	—	類表皮嚢胞	
4	草野ら ²⁶⁾	1973	20	M	上唇 (右側)	8 mm	脂肪腫	類表皮嚢胞	外傷既往
5	松田ら ²⁷⁾	1975	5	M	上唇	母指頭大	線維性脂肪腫	類表皮嚢胞	
6	石川ら ¹³⁾	1976	43	M	下唇 (左側口角部)	20×25 mm	脂肪腫の疑い	類表皮嚢胞	外傷既往
7	円林ら ⁵⁾	1976	1.7	F	上唇 (正中)	母指頭大	皮様嚢胞の疑い	類表皮嚢胞	
8	藤城ら ²⁸⁾	1978	35	M	下唇 (右側)	母指頭大	—	類表皮嚢胞	
9	大野ら ³⁾	1979	—	—	上唇	—	—	類表皮嚢胞	
10	大野ら ³⁾	1979	—	—	上唇	10 mm 未満 2 例	—	—	
11	大野ら ³⁾	1979	—	—	上唇	10~20 mm 2 例	—	—	
12	大野ら ³⁾	1979	—	—	下唇	30~40 mm 1 例	—	類表皮嚢胞	
13	大野ら ³⁾	1979	—	—	下唇	50~60 mm 1 例	—	類表皮嚢胞	
14	大野ら ³⁾	1979	—	—	下唇	—	—	類表皮嚢胞	
15	檜林ら ²⁹⁾	1982	31	M	下唇 (左側口角部)	小指頭大	類表皮嚢胞の疑い	類表皮嚢胞	多発性症例
16	覚道ら ⁶⁾	1986	4	F	上唇 (人中)	18×15×18 mm	良性腫瘍	類表皮嚢胞	
						5×5×5 mm		類表皮嚢胞	
						5×5×5 mm		類表皮嚢胞	
						3×3×3 mm		類表皮嚢胞	
						2×2×2 mm		類表皮嚢胞	
17	檜林ら ³⁰⁾	1986	64	M	下唇 (左側)	23×16×15 mm	類表皮嚢胞の疑い	類表皮嚢胞	
18	斉藤ら ³¹⁾	1986	30	M	下唇 (左側)	12×12×12 mm	皮様嚢胞の疑い	類表皮嚢胞	
19	落合ら ³²⁾	1987	—	—	下唇	—	—	類表皮嚢胞	
20	落合ら ³²⁾	1987	—	—	上唇	—	—	類表皮嚢胞	
21	著者ら	1988	18	M	下唇 (右側)	9×8×5 mm	粘液嚢胞	類表皮嚢胞	

合にそのいずれかを臨床的に診断することは不可能と思われる。

病理組織学的診断では、記載のみられる20症例、計24例の嚢胞についてみると20例(83.3%)が類表皮嚢胞、4例(16.7%)が類皮嚢胞であり、口唇においてもその他の顎顔面領域と同様に、類表皮嚢胞が類皮嚢胞に比較してはるかに多い結果であった。それぞれの平均年齢は類表皮嚢胞29.2歳、類皮嚢胞9.9歳であり、類皮嚢胞のほうがより若年者にみられる傾向にあった。組織型別に性差を検討した文献は少ないが、村田ら⁸⁾は類皮嚢胞は女性に多く、類表皮嚢胞は男性に多いと述べている。われわれの口唇部に関する統計では、性別の記載のある類表皮嚢胞はすべて男性であり、類皮嚢胞に関しては男女同数であった。この結果より類表皮嚢胞は女性の口唇部には発生しにくいと考えられた。次に発生部位と病理組織学的診断を対比してみると、4例の類皮嚢胞はすべて上唇正中部に発生している。この事実から、発生学的には内側鼻突起と両側の上顎突起が癒合するという複雑な発生過程にある同部には、類皮嚢胞が類表皮嚢胞よりも発生しやすい環境を有しているものと考えられる。

本嚢胞の成因については、さまざまな説が報告されているが⁹⁻¹⁵⁾、一般的には胎生期における外胚葉の嵌入によって生じるといわれている。Török¹⁴⁾、Johnston¹⁵⁾らは外胚葉の迷入時期の違いによって類皮嚢胞と類表皮嚢胞の差が生じ、胎生早期に迷入した場合は類皮嚢胞のタイプとなり、それより遅れて胎生末期に迷入した場合は、類表皮嚢胞のタイプに発育すると述べている。また、国見¹²⁾は類表皮嚢胞は、類皮嚢胞の皮膚付属器官が内圧により萎縮消失したものではないかと考察している。しかし、国見¹²⁾が述べている内圧による類表皮嚢胞成因説は考えにくい。その理由として類皮嚢胞が類表皮嚢胞に先行して存在するのなら、緩徐な増大傾向を示す嚢胞の発育傾向から、類皮嚢胞が類表皮嚢胞より小さいと考えられるが、実際は大野ら³⁾の統計でも逆の結果であった。覚道ら⁶⁾の多発性症例の報告では、同一部位に類皮嚢胞および類表皮嚢胞が存在している。この症例では外傷の既往もないことから、おそらく先天的に、しかも同時期に複数の迷入芽としての外胚葉の迷入が生じたと推察されるが、同部位より摘出された4例の類表皮嚢胞よりも類皮嚢胞の方がはるかに大きい形態をしている。この事実は、類皮嚢胞がより速い発育速度を有していることを強く示唆するものであろう。また、Torresら¹⁶⁾、馬場ら¹⁷⁾は後天的な外傷や炎症による上皮あるいは表皮の迷入によって発生したと思われる症例を報告しており、円林ら⁵⁾は先天的に迷入芽が存在し、外傷によって刺激され増大したと思われる症例を報告している。

本症例では、現病歴から、先天的な迷入芽が咬傷の刺激により発育増大した可能性と、咬傷によって後天的な迷入芽を作り、それが発育した可能性の両者が考えられ

た。

処置法については、口唇部に発生した症例ではほとんどが口腔内から摘出されている。再発の可能性については、嚢胞が完全摘出された場合の予後は良好であるが、同一部位に多発性にみられた症例の報告^{6,7,18,19)}もあることを考慮にいれ、摘出に際しては慎重に行う必要がある。また、処置法が不完全摘出や単なる切開、穿刺であった場合、再発した症例も少数例報告されている^{3,5)}。

類皮嚢胞および類表皮嚢胞の悪性転化の可能性については、Thoma²⁰⁾、Archer²¹⁾、Shaferら²²⁾が指摘しているが、本邦においては顎顔面領域で悪性転化をきたした報告例は、われわれの渉猟しえた範囲においては認められなかった。

結 語

1. 18歳男性の下唇に発生した類表皮嚢胞の1症例について報告した。
2. 本邦における口唇部に発生した類皮嚢胞、類表皮嚢胞の21例の報告例について文献的に考察した。

本論文の要旨は第12回日本口腔外科学会中部地方会(1987年6月、福井)において発表した。

引 用 文 献

- 1) 石川梧朗監修：口腔病理学Ⅱ．改訂版，永末書店，京都，1982，401-403頁。
- 2) 高橋庄二郎，大西栄蔵：口腔底皮様嚢腫の2例ならびに本邦文献による統計的観察。歯科学報 52: 34-39 1952。
- 3) 大野邦博，曾田忠雄，他：口腔領域の類表皮嚢胞50例の臨床統計ならびに本邦における文献的考察。日口外誌 25: 842-847 1979。
- 4) New, G.B. and Erich, J.B.: Dermoid cysts of the head and neck. Surg Gynecol Obst 65: 48-55 1937。
- 5) 円林義一，空閑祥浩，他：上口唇正中部に発生した皮様嚢胞の1例。日口外誌 22: 842-846 1976。
- 6) 覚道健治，荒木春美，他：上唇に発生した類皮および類表皮嚢胞の1例。日口外誌 32: 1238-1243 1986。
- 7) 山下佐英，増田敏雄，他：皮様嚢胞の11例。日口外誌 19: 480-487 1973。
- 8) 村田憲彦，渡辺一夫，他：耳後部に発生した皮様嚢腫の一症例。耳喉 45: 179-182 1973。
- 9) Bergmann, E.: Hundbuch der Praktisch Chirurgie. 4 Auf Bd 1. Stuttgart, 1913, p 976。
- 10) Anderson, W.D.: Pathology. Mosby, St. Louis, 1957, p 1185。
- 11) Ackerman, L.V.: Surgical Pathology. Mosby,

- St Louis, 1953, p 94.
- 12) 国見正明：口腔底皮様嚢腫 2 例. 耳喉 27: 391-393 1955.
- 13) 石川武憲, 森沢宣生, 他：左側口角を含む下口唇部に発症した興味ある Epidermoid cyst の 1 症例—特にコレステリン結晶と異物巨細胞反応からみた問題点について—. 日口外誌 22: 406-412 1976.
- 14) Török, 文献 2) より引用.
- 15) Johnston, W.H.: Cysts of the floor of the mouth. Ann Otol 51: 917 1942.
- 16) Torres, J.S. and Higa, T.T.: Epidermoid cyst in the oral cavity. Oral Surg 30: 592-600 1970.
- 17) 馬場孝雄, 福井勝男, 他：口腔底皮様嚢胞の 1 例. 日口外誌 14: 98-102 1968.
- 18) 高井 宏, 落合 武, 他：乳児の歯肉にみられた Multiple epidermal inclusion cysts の 1 例について. 日口外誌 16: 46-48 1970.
- 19) 佐藤研一, 額賀康之, 他：2 個の小嚢胞を伴う舌下型皮様嚢胞の 1 例. 日口外誌 24: 1212-1216 1978.
- 20) Thoma, K.H.: Oral Pathology. ed 3, Mosby Co, St Louis, 1960, p 924.
- 21) Archer, W.H.: Oral and Maxillofacial Surgery. ed 4, Saunders Co, Philadelphia and London, 1975, p 522.
- 22) Shafer, W.G., Hine, M.K., et al.: A textbook of Oral Pathology, ed 2, Saunders Co, Philadelphia, 1963, p 71-389.
- 23) 平川正輝, 久原勝之, 他：上唇正中披裂と同時に現われた鼻橋部皮様嚢腫の一例に就いて. 九歯会誌 6: 31-35 1952.
- 24) 原田愷種：口腔皮様嚢腫の 2 例 (抄). 日耳鼻 53: 286 1960.
- 25) Kuroyanagi, K. and Kawabata, T.: Epidermoid cyst of the upper lip: Report of a case. Bull Tokyo dent Coll 14: 95-98 1973.
- 26) 草野彰康, 藤原弘旦, 他：上唇に発生した類皮嚢胞の一例 (抄). 口科誌 22: 267 1973.
- 27) 松田 登, 大久保滋郎, 他：当科における軟組織に発生した類皮嚢胞, 類表皮嚢胞 17 症例の概要. 口科誌 24: 109-116 1975.
- 28) 藤城松一, 堂原義美, 他：下口唇に発生した epidermoid cyst の 1 例 (抄). 日口外誌 24: 648 1978.
- 29) 横林敏夫, 川崎建治, 他：下唇に発生した類表皮嚢胞の 1 例および文献的考察. 口科誌 31: 307-311 1982.
- 30) 横林敏夫, 中村なが子, 他：下唇に発生した類表皮嚢胞の 1 例 (抄). 口科誌 35: 767 1986.
- 31) 斎藤 進：下唇に発生した類表皮嚢胞の 1 例 (抄). 口科誌 35: 767 1986.
- 32) 落合 力, 富田汪助, 他：口唇に発生した類表皮嚢胞の 2 例 (抄). 口科誌 36: 1086 1987.