大きな嚢胞形成がみられた頬部多形性腺腫の1例

頼 正 利・金子忠良・高 浚 源・安田昌律
後藤乙彦・水野智之・宮田秀美・成田令博
内田安信・海老原善郎*

Pleomorphic adenoma in the cheek with formation of large cyst: Report of a case

Lai Jen Li・Tadayoshi KANEKO・Kao Jun YUN
Syoritsu YASUDA・Otohiro GOTO・Tomoyuki MIZUNO
Hidemi MIYATA・Yoshihiro NARITA・Yasunobu UCHIDA
Yoshiro EBIHARA*

Abstract: Pleomorphic adenoma is the most frequently occurring type of tumor in the salivary glands, and for that of the major salivary glands, the parotid gland is the favorite site. The soft palate is the favorite site for pleomorphic adenoma in the minor salivary glands and the cheek is held to be a relatively rare site for its development. The formation of a grossly apparent large cyst has been ill-documented to date. Our experience with one case of pleomorphic adenoma with the formation of a large cyst in the cheek, is presented in the paper.

Key words: pleomorphic adenoma (多形性腺腫), cyst formation (嚢胞形成), minor salivary gland (小唾液腺)

緒 言 症 例

多形性腺腫は唾液腺腫瘍のなかで最も発生頻度が高く、大唾液腺由来のものは耳下腺^{1,2)}、小唾液腺由来のものは軟口蓋に好発し、頬部に発生するものは比較的まれとされている。また、肉眼的にあきらかな大きな嚢胞の形成がみられたという報告は少ない。今回われわれは、頬部に大きな嚢胞を形成した多形性腺腫の1例を経験したので報告する。

患 者：80歳 女性。

初 診：昭和62年12月■。

主 訴：左側頬部の腫脹。

家族歴・既往歴：特記事項なし。

現病歴：昭和62年11月左側頬部の腫脹のため近歯科を受診し、義歯調整と抗生剤の投与を受けたが症状の改善がみられなかったため、当科を紹介され来院した。

全身所見：体格中等度、栄養状態は良好で、全身に異常は認められなかった。

口腔外所見：左側頬部にび慢性の腫脹がみられ、触診により直径約 30 mm 大の境界明瞭な弾性硬の可動性腫瘤を触知した。なお被覆頬部皮膚は健康色を呈し、瘻管は認められなかった(写真1)。

口腔内所見：上下顎ともに無歯顎で、左側頬粘膜の大白歯咬合線相当部に小鶏卵大、半球状、び慢性の腫脹が認められ、被覆粘膜の一部に咬傷様の傷がみられた。触診によって、一部波動を伴う弾性硬の腫瘤を触れ、圧痛を訴えた(写真2)。穿刺を施行したところ、淡黄色透

東京医科大学口腔外科学教室
(主任：内田安信教授)

* 東京医科大学病院病理部
(主任：海老原善郎助教授)

Department of Oral Surgery, Tokyo Medical
College (Chief: Prof. Yasunobu Uchida)

* Department of Surgical Pathology, Tokyo Medical
College Hospital (Chief: Subprof. Yoshiro
Ebihara)

受付日：平成元年7月20日

写真 1 初診時顔貌

写真 3 エコーグラム

写真 2 術前の口腔内所見

写真 4 摘出物

た(写真3)。

臨床検査所見：末血，尿，生化学的検査では，BUN値が 25.4 mg/dl と軽度上昇を示した以外はすべて正常範囲内であった。

臨床診断：頬部腫瘍の疑い

処置および手術：昭和63年1月入院，同年1月20%キシロカイン局所麻酔下において耳下腺乳頭の前方に約3cmの縦切開を加え，腫瘍を周囲組織より鈍的に剝離摘出した。咬筋の内方で，頬脂肪体と接するように存在していた腫瘍は比較的厚い壁を有し，周囲組織と一部に癒着がみられたが，その部は周囲組織を含めて摘出した。

明な内容液が約1ml吸引された。

X線所見：76%ウログラフィン注入による耳下腺造影X線撮影を施行したが，排泄管の狭窄や腺葉の異常所見はみられず，病巣と耳下腺との関連性は認められなかった。

エコー所見：エコーグラムでは左側頬部に類円形15×16mm大の境界明瞭な hypoechoic mass が認められ，massの内部はほぼ均一で，辺縁の不整はみられなかつ

写真 5 病理組織像 (弱拡大) H-E 染色

写真 8 病理組織像 (強拡大) H-E 染色

写真 6 病理組織像 (強拡大) H-E 染色

写真 9 病理組織像 (弱拡大) H-E 染色

写真 7 病理組織像 (強拡大) H-E 染色

写真 10 病理組織像 (強拡大) H-E 染色

摘出物所見：摘出物は 15×16 mm 大の球形で、表面は灰白色を呈する比較的厚い壁からなる嚢胞性病変で、内腔には約 1 ml 淡黄色透明の漿液性内容液を含んでいた (写真 4)。

病理組織学的所見：線維性結合組織からなる嚢胞壁は扁平上皮細胞により被覆され、内腔に向って乳頭状に突出し、その壁内に導管上皮細胞に類似した腫瘍細胞が索状あるいは腺管状の増殖巣を形成している (写真 5)。

腫瘍細胞は、類円形の比較的淡明な核を有する細胞と小型な紡錘形の濃染した核を有する細胞からなり、腺管内にはエオジン好性物質を含む部分がみられる (写真 6)。実質の一部には扁平上皮化生を呈する部分が認められ、間質には硝子様を呈する部分と粘液腫様を呈する部分とがみられる (写真 7, 8)。嚢胞腔内には腫瘍細胞と思われる小型細胞の変性壊死塊がみられる。また間質の一部および腔内にはエオジン好性の stellate fibrillar 様物

質が散見される(写真9, 10).

病理組織学的診断: 多形性腺腫.

考 察

多形性腺腫は、きわめて多様な組織像を呈するため、その発生機序については、結合組織性腫瘍説、内皮細胞性腫瘍説、迷芽説、上皮性腫瘍説など種々の説が提唱されてきたが、その後上皮性および間葉性の両組織由来説が主流を占め、長年にわたり混合腫瘍という名称で呼ばれてきた^{2,3)}。しかし近年、Willis (1948)⁴⁾、Bauer (1953)⁵⁾ によって本腫瘍は真の混合腫瘍ではなく、上皮性増殖を主体とし、間葉成分がこれを修飾して多様な像を呈する腺腫に属する上皮性の腫瘍であるとの考えが一般化し、今日では多形性腺腫と呼称されている⁶⁾。

多形性腺腫は、唾液腺腫瘍のなかでは発生頻度が最も高く、石川²⁾は60~65%、白川⁷⁾は68%、Seiferth⁸⁾は59%と報告しているが、その大多数は大唾液腺由来で、小唾液腺に発生する頻度は10~20%とされている^{1,9~12)}。小唾液腺由来のものでは口蓋腺が最も多く、頬腺からの出現率は、Bhaskar と Weinmann¹³⁾は181例中11例(6.1%)、Chaudhry と Vicher³⁾は733例中38例(5.2%)、Lanjuk¹⁴⁾は126例中15例(11.9%)と報告しており、本邦においても、白川⁷⁾の133例中5例(3.8%)、岡本¹⁵⁾の24例中2例(8.3%)といずれも低い出現率で、10%以下とする報告が多い^{16~18)}。

多形性腺腫の好発年齢は、主に中高年層に多く、石川²⁾は20~50歳、斎藤²⁰⁾らは40歳、Bergman²¹⁾は40~60歳、Spiro²²⁾らは48歳と報告している。

性別では、女性に多いとする報告^{4,23)}、性差はないとする報告²⁴⁾がある。なお自験例は80歳女性で、年齢的には高齢で、われわれの渉猟し得た文献の範囲では最高齢者に発生したまれな症例と考えられる。

本症例で特徴的な所見であった嚢胞の形成に関して、多形性腺腫の組織内に小嚢胞がみられることはよく知られているが、臨床的に嚢胞性病変が疑われるほどの大きさの嚢胞が認められることは珍らしく、われわれが渉猟しえた範囲では肉眼的にあきらかな嚢胞が認められたとする報告は12例を認めるのみであった^{25~35)}。さらに、その発生部位は耳下腺または顎下腺の大唾液腺での発生が多く^{25,27,28,30~36)}本症例のように頬部の小唾液腺からの発生は2例の報告がみられるのみであった^{12,29)}。

腫瘍と嚢胞の発生機序に関しては2通りの考え方があられる。ひとつは、嚢胞が腫瘍内において二次的に形成されるとするもので、この形成機序としては、腫瘍が扁平上皮化を生じた一部で細胞変性が生じて嚢胞が形成されるとする説²⁸⁾、腫瘍内にみられる管腔の拡大によって生じた小嚢胞が次第に融合して大嚢胞へ発展するとの説^{25,32,34)}、腫瘍組織内の出血巣が基点となって嚢胞形成

が生じるとの説³⁶⁾、などがある。さらに曾田¹²⁾は、嚢胞壁の上皮成分に扁平上皮以外の円柱上皮が存在し、嚢胞内容液が好酸性物質を含んだ粘液性で、腫瘍に隣接して混合唾液腺が認められたことより、腫瘍により、唾液腺の導管が閉塞されて粘液貯留嚢胞が形成されたと推測している。

もうひとつは、既存の嚢胞性病変の一部が腫瘍化し増殖するとするもので、高久²⁷⁾は、耳下腺嚢胞の一部にきわめて少量の腺腫の増殖がみられたとし、嚢胞性病変に比べて腫瘍性病変の占める量的割合を判断基準として嚢胞壁からの腫瘍化と推測している。

自験例は腫瘍組織内にあきらかな出血巣はみられず、腫瘍細胞に扁平上皮化がみられ、嚢胞壁は重層扁平上皮で被覆されており、さらに嚢胞腔内に Thackray ら³⁷⁾が述べている、stellate fibrillar 様物質とともに腫瘍細胞と考えられる小型細胞の変性壊死塊が認められた。以上の点から腫瘍細胞に変性が生じた結果、二次的に嚢胞が形成された可能性が強く示唆された。しかし、腫瘍の発生から病変の発見までの時間的経過ならびに腫瘍の発育増殖を勘案すると、後者の嚢胞壁における腫瘍性増殖説も否定はできないものとする。

本腫瘍の治療は、一般に摘出手術が行われているが、組織学的に腫瘍細胞が被膜内あるいは被膜外に浸潤して小結節を形成していたり、部分的に被膜を欠いていることもあることから、手術時に癒着状態を注意深く検索しながら、周囲組織を含めて摘出することがより完全であるといわれている^{12,38)}。

初回手術15年後に再発した頬部多形性腺腫の報告³⁹⁾や、再発腫瘍の悪性化例も報告されているので⁴⁰⁾、長期にわたる観察が必要である。

結 語

80歳の女性で、左側頬部に大きな嚢胞を形成し、耳下腺との関係もみられなかったことから、頬部小唾液腺由来の多形性腺腫と考えられた1例を経験したので報告した。現在術後18か月を経過し、経過は良好であり、再発徴候は認められていない。今後も慎重に経過観察を継続して行く予定である。

本論文の要旨は、昭和63年6月18日第121回東京医科大学医学学会総会において発表した。

引 用 文 献

- 1) Rauch, S.: Speicheldrüsen des Menschen. Georg Thieme Verlag, Stuttgart, 1959, p 354-433.
- 2) 石川梧朗監修: 口腔病理学Ⅱ. 第2版, 永末書店, 京都, 1984, 718-728頁.

- 3) Chaudhry, A.P., Vicher, R.A., et al.: Intraloral minor salivary gland tumors. An analysis of 1414 cases. *OS OM OP* 14: 1194-1226 1961.
- 4) Willis, R.A.: *Pathology of Tumors*. 1st Ed, Butterworth Co, London, 1948, p 320-348.
- 5) Bauer, W.H. and Bauer, J.D.: Classification of glandular tumor of salivary glands: Study of one hundred forty-three cases. *Arth Path* 55: 328 1953.
- 6) 石川梧朗, 秋吉正豊: 口腔病理学Ⅱ. 永末書店, 京都, 1984, 718頁.
- 7) 白川正順: 唾液腺腫瘍の臨床病理学的研究. *慈恵医誌* 95: 1402-1419 1980.
- 8) Seiferth, L.B., Kleinsasser, O. 他: 唾液腺腫瘍の病理と臨床. *耳鼻臨床* 59: 627-637 1966.
- 9) Hendrick, J.W.: The treatment of tumors of minor salivary gland. *Surg Gynecol Obstet* 118: 101-111 1964.
- 10) Krolls, S.O. and Hicks, J.L.: Mixed tumor of the lower lip. *Oral Surg* 35: 212-217 1973.
- 11) 西嶋克巳, 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. 多形性腺腫. *日口外誌* 19: 348-352 1973.
- 12) 曾田忠雄, 野口 誠, 他: 嚢胞を形成した頬部多形性腺腫の1例. *日口外誌* 34: 182-187 1988.
- 13) Bhasker, S.N. and Weinmann, J.P.: Tumors of the minor salivary glands, A study of twenty three cases. *OS OM OP* 8: 1278-1297 1955.
- 14) Lanjuk, S.W.: Die Behandlung epithelialer Neoplasmen der Speicheldrüsen. *Dtsch Stomst* 18: 82-85 1968.
- 15) 岡本次郎, 森 昌彦: 多形性腺腫の臨床病理学的研究. *日口外誌* 23: 193-211 1977.
- 16) Mardirossian, G. and Najjar, T.A.: Mixed tumor of minor salivary gland-An unusual case. *J Oral Med* 30: 4-6 1981.
- 17) 笠倉達雄, 朝倉昭人, 他: 頬部にみられた多形性腺腫の3例. *日口外誌* 31: 675-681 1985.
- 18) 高木澄雄, 大津淳一郎, 他: 頬部に発生した多形性腺腫の1例. *日口外誌* 28: 132-135 1982.
- 19) 宇沢俊一, 白川正順, 他: 頬部に発生した多形性腺腫の1例. *日口外誌* 29: 216-220 1983.
- 20) 斎藤利夫, 手島真一, 他: 唾液腺腫瘍の臨床統計的観察. *口科誌* 26: 154-165 1977.
- 21) Bergman, F.: Tumors of the minor salivary glands. A report of 46 cases. *Cancer* 23: 538-543 1969.
- 22) Spiro, R.H., Koss, L.C., et al.: Tumors of minor salivary origin. A clinico pathologic study of 492 cases. *Cancer* 31: 117-129 1973.
- 23) 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.
- 24) Howard, J.M., Rawson, A.J., et al.: Parotid tumors in children. *Surg Gyn Obst* 90: 307-319 1950.
- 25) 山口 操, 村田 真, 他: 嚢胞を形成した顎下腺多形性腺腫の1例. *日口外誌* 31: 2213-2217 1985.
- 26) 杉 政和, 佐藤光信, 他: 口蓋に発生した巨大な嚢胞を伴う唾液腺多形性腺腫の1例について. *日口外誌* 26: 1221-1225 1980.
- 27) 高久 暹, 小林明男, 他: 嚢胞壁の一部に腫瘍様構造を伴った耳下腺嚢胞の1例. *日口外誌* 25: 317-320 1979.
- 28) Dergan, M. and Dergan, B.K.: Epidermal inclusion cyst in pleomorphic Adenoma (Mixed parotid tumor). *Ear Nose Throat J* 56: 52-54 1977.
- 29) 茂木克俊, 大畑直輝, 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.
- 30) 木村淑志, 近藤清志: 唾液腺多形性腺腫 (いわゆる混合腫瘍) の臨床的・病理組織学的検討. *耳喉* 52: 249-255 1980.
- 31) 宇都宮幸正, 藤村孝司, 他: Carcinoma in pleomorphic adenoma と考えられる嚢胞状を呈した顎下腺腫瘍の1例. *日口外誌* 29: 715-721 1983.
- 32) 藤本勝彦, 氣賀昌彦, 他: 大きな嚢胞形成を伴った顎下腺多形性腺腫の1例 (抄). *日口外誌* 33: 231 1987.
- 33) 樋田謙二郎, 福田仁一, 他: 嚢胞様構造を伴った耳下腺部多形性腺腫の2例 (抄). *日口外誌* 33: 250 1987.
- 34) 井上 聡, 志村 力, 他: 巨大嚢胞を形成した顎下腺多形性腺腫の1例 (抄). *日口外誌* 29: 1168 1983.
- 35) 高橋利典, 小島正明, 他: 多量の粘液を貯留した, いわゆる唾液腺混合腫瘍の1例 (抄). *口科誌* 23: 234 1974.
- 36) Lucas, R.B.: *Pathology of Tumors of The Oral Tissues*. ed 4, Churchill Livingstone, London, 1984, p 298-313.
- 37) Thackray, A.C., Lucas, R.R., et al.: Tumors of the major salivary glands. in atlas of tumor pathology. sec fasc 10, Armed Forces Institute of Pathology, Washington DC, 1974, p 16-39.
- 38) 川俣智子, 久代秀郎, 他: 上唇に発生した多形性腺腫の1例. *日口外誌* 28: 2047-2051 1982.
- 39) 山本悦秀, 小浜源郁, 他: 初回手術15年後に再発が確認された頬部小唾液腺原発多形性腺腫の1例. *日口外誌* 28: 2047-2051 1982.
- 40) 藤木芳司, 小幡幸男, 他: 小唾液腺腫瘍の臨床的研究. *口科誌* 21: 901-908 1972.