舌尖部に発生した多形性腺腫の1例

矢島 幹人・栗田 浩・奥山 秀樹
田島 達彦*・倉科 憲治*・小谷 朗*

Pleomorphic adenoma of the apex of the tongue: Report of a case

Mikito YAJIMA・Hiroshi KURITA・Hideki OKUYAMA
Tatsuhiko TAJIMA*・Kenji KURASHINA*・Akira KOTANI*

Abstract: A rare case of pleomorphic adenoma of the apex of the tongue is reported. A patient, female aged 79 years, had an encapsulated mass, about 3 cm in diameter, on this part of her tongue.

The mass that was well-demarcated and movable could be removed easily, and the clinical course was good with no evidence of recurrence. According to the clinicopathological examination, the tumor seemed to have originated from the anterior lingual gland.

In the minor salivary glands, pleomorphic adenoma is most affected at the palate, and it occurs only infrequently at the tongue. To the knowledge of the authors, there have been only three reported cases of this tumor at the apex of the tongue, including the present case.

Key words: pleomorphic adenoma (多形性腺腫), tongue (apex) (舌尖), minor salivary gland (小唾液腺)

緒 言 症 例

多形性腺腫は唾液腺腫瘍の中でもっとも発生頻度が高く、大唾液腺、特に耳下腺に発生するものが大多数である。小唾液腺に発生するものは比較的少なく、そのほとんどは口蓋に見られ、中でも舌に発生するものはきわめてまれである。

今回著者らは、舌尖部小唾液腺（前舌腺）に由来すると思われる多形性腺腫の1例を経験したので、その概要を報告する。

患 者：79歳 女性。
初 診：1988年4月■日。
主 訴：左側舌尖部の腫脹。
家族歴：特記事項なし。
既往歴：高血圧症、糖尿病にて治療中。
現病歴：約1か月前、左側舌尖部の無痛性腫脹を自覚し、某内科を受診。抗生剤の投与を受けたが腫脹は消退せず、同医の紹介により当科を受診した。

現 症
全身所見：体格、栄養状態ともに中等度で特記事項なし。

口腔外所見：顔貌左右対称。所属リンパ節の腫脹、圧痛は認められなかった。

口腔内所見：左側舌尖部から舌下面にかけて、35×30×25 mm 大の境界明瞭な球状の膨隆が見られた。被覆粘膜は正常色を呈し、潰瘍形成などは見られなかった（写真1, 2）。腫瘍は弾性硬で波動は触知せず、周囲組織との癒着はなかった。同部の自発痛、圧痛はともになく、知覚および味覚の異常はなかった。

CT 所見：左側舌尖部から舌中央部にかけて、境界明

佐久市立国保浅間総合病院歯科口腔外科
(主任：奥山秀樹医長)

* 信州大学医学部歯科口腔外科学教室
(主任：小谷 朗教授)

Department of Dentistry and Oral Surgery,
Asama General Hospital (Chief: Hideki Okuyama)

* Department of Dentistry and Oral Surgery,
Shinsyu University, School of Medicine (Chief:
Prof. Akira Kotani)

受付日：平成元年7月24日

写真 1 初診時口腔内

写真 4 術後口腔内

写真 2 初診時口腔内 (舌下面)

写真 5 摘出物

瞭な充実性の high density mass を認めた (写真3)。

臨床診断：左側舌尖部腫瘍の疑い。

処置および経過：初診時、生検を実施し、多形性腺腫の病理診断を得た。また、一般臨床検査所見において、特に異常はみられなかった。6月■，全身麻酔下に腫瘍摘出術を施行した。腫瘍は境界明瞭で被膜で被われ、周囲組織から容易に剝離摘出できたが、試験切除を行った部分の粘膜を含めて切除した。術後経過は良好で、約1年を経過した現在、再発などの異常所見は認められない (写真4)。

摘出物所見：腫瘍は被膜に包まれ、 $35 \times 30 \times 25$ mm 大で、断面は充実性、黄白色を呈し、一部出血巣が見られた (写真5, 6)。

病理組織学的所見：核異型の乏しい、胞体の淡明な筋上皮様ないし扁平上皮様構造をとる上皮成分が、充実性または索状に増殖し、不規則な胞巣を形成していた (写真7)。全体にあきらかな管腔形成はみられないが、一部には腺管様構造をとる部分もみられ、内腔にはエオジン好性、PAS 陽性を呈する分泌物が含まれていた (写真8, 9)。間質成分は比較的線維化が強く、硝子様ないし粘液腫様構造を呈していた。なお、骨および軟骨形成

写真 3 初診時 CT 像

写真 6 摘出物剖面

写真 9 病理組織像 (PAS, $\times 150$) 写真 7 病理組織像 (H-E, $\times 60$) 写真 10 病理組織像 (H-E, $\times 60$) 写真 8 病理組織像 (H-E, $\times 150$)

はみられなかった (写真10).

病理組織学的診断: 多形性腺腫.

考 察

多形性腺腫は唾液腺の小導管部あるいは終末部に由来する上皮性起源の腫瘍と考えられており、一般に全唾液

腺腫瘍の60~65%を占め、もっとも高頻度に発生するといわれている¹⁾.

好発部位は大唾液腺、特に耳下腺であり、小唾液腺における本腫瘍の発生頻度は低く、文献的には7²⁾, 14³⁾, 17⁴⁾%などの報告がある. このうち口蓋が大多数を占め、小守⁵⁾の報告では小唾液腺184例中、口蓋が149例ともっとも多く、以下、頬部22例、口唇10例、口底2例で、舌はわずか1例(0.5%)のみであった. そのほかの報告でも、舌における発現頻度は2.4~3.5%⁶⁻⁸⁾程度で、かなりまれなものと考えられる. これに対し、唾液腺由来の悪性腫瘍は、従来より舌にも比較的多く認められており、Chaudhry ら⁹⁾は、悪性腫瘍についてみると舌は口蓋に次いで2番目に発生頻度が高かったと述べている. 文献例⁹⁾で見ると、舌における良性腫瘍に対する悪性腫瘍の比率は約6:1で、圧倒的に悪性腫瘍が多かった.

舌には前舌腺(Blandin-Nuhn氏腺)、Ebner氏腺(舌縁部)、後舌腺の3群の小唾液腺の存在が知られている. このうち、後舌腺に由来する悪性腫瘍については、Geopfelt ら¹⁰⁾、Kessler ら¹¹⁾が合わせて35例報告し、また、Burbank ら¹²⁾は43例の舌に発生した唾液腺腫瘍の研究で、1例のみが多形性腺腫で、ほかはすべて悪性腫

瘍であり、いずれも舌根部原発であったと述べている。このようなことから、舌の中でも後舌根に由来する唾液腺悪性腫瘍は、比較的好くみられるものと思われる。しかしながら、舌尖部に発生した唾液腺腫瘍の報告は、著者らが渉猟しえた範囲で記載が不明なものを除くと、わずか4例（多形性腺腫2例^{13,14)}、乳頭状腺癌1例¹⁵⁾、管状腺癌1例¹⁶⁾）であった。自験例では、松本ら¹³⁾、杉浦ら¹⁴⁾が述べているような、腫瘍の被膜の一部に前舌腺と思われる混合腺組織が付着していたという所見は得られなかった。しかし、Brunschwig¹⁷⁾が指摘しているように舌腺からの多形性腺腫の発生の可能性と、腫瘍が舌尖部から舌下面にかけて存在したことから、前舌腺から発生したものと考えた。

本腫瘍の診断に当たり、臨床病態だけから良性か悪性かの判断を下すことは、しばしば困難な場合もありうる。これは唾液腺腫瘍の特徴とも思われるが、一見良性腫瘍にみえながら、組織学的に悪性腫瘍と診断されるものがあり、また、診断に当たって生検を実施できない場合も多い¹⁸⁾。Wartin 腫瘍のようにかなり特異的に、画像診断上判別されるものもみられるが¹⁹⁾、基本的には以上の点を念頭に置き、注意深い触診によりわずかな変形、可動性の欠如、周囲との癒着の有無を確認することが大切と思われる。本症例では、患者の訴えによると初診の約1か月前より腫瘤を自覚していたとのことであった。しかしながら、小唾液腺腫瘍では口腔内への突出により発音、咀嚼障害が認められるにもかかわらず本人の自覚がないもの、違和感すら自覚しないものが多いことから²⁰⁾、実際にはかなり以前から腫瘤は存在し、きわめて緩徐に増大してきたものと思われる。また、被覆粘膜に潰瘍形成などの異常はなく、触診において腫瘤はほぼ球形で、舌組織内で良く可動しており周囲に硬結は触れなかったことから、良性腫瘍と臨床診断を行った。このほか、舌に発生する良性腫瘍としては、血管腫、リンパ管腫、線維腫、神経鞘腫などがあげられ、これらとの鑑別診断も必要である。また、まれであるが舌膿瘍の可能性も考慮し、特に深在性の場合、波動を触知せず腫瘍との鑑別が必要となるので、時として消炎療法を行いながら、経過観察を行うことも診断の一助となりうる^{20,21)}。

本腫瘍の治療法は外科的切除が主体で、一般には、被膜外側で剝離摘出する方法で十分といわれている。しかしながら、良性腫瘍といえども被膜外、あるいは脈管内浸潤が見られ、安易な摘出は、腫瘍の残存、再発につながるため、肉眼的および組織学的に問題があれば、周囲の健康組織および腫瘍上の粘膜を含めて切除するのが適当とされている^{8,20)}。

また、発生部位によっては、たとえば、口唇、頬部では顔面神経の損傷や術後の変形などを考慮して、可及的に切除範囲を小さくせざるをえない場合もあるので、手術にあたっては慎重な対応が望まれる²²⁾。自験例では、

腫瘍の周囲との癒着はなく、被膜でよく被包されており、容易に剝離摘出できたが、生検時の癒痕と思われる被覆粘膜を含めて切除した。病理組織学的にも、被膜外への浸潤あるいは被膜内の腫瘍の残存などは認められなかった。しかし、初回手術後15年という長期を経て再発した症例²³⁾や、悪性化した症例²⁴⁾、また、再発腫瘍が病理組織学的に腺様嚢胞癌の形態を取った症例²⁵⁾なども報告されていることから、今後も長期にわたり慎重な経過観察を続けていく予定である。

結 語

舌尖部に発生した多形性腺腫の1例について、若干の文献的考察を加えて報告した。

本論文の要旨は、第43回日本口腔科学会総会（1989年、長崎）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、718-728頁。
- 2) Garcelone, C.G.: Salivary gland tumors, Management and results. Arch Surg 78: 12-16 1959.
- 3) 白川正順：唾液腺腫瘍の臨床病理学的研究。慈医誌 95: 1402-1419 1980.
- 4) Hendrick, J.W.: The treatment of tumors of minor salivary glands. Surg Gynecol Obstet 119: 101-111 1964.
- 5) 小守 昭：小唾液腺腫瘍ならびに顎下腺腫瘍の組織型と病態。日病会誌 70: 5-15 1981.
- 6) 小川裕三、長谷川 清、他：唾液腺108腫瘍例の臨床病理学的検討。阪大歯誌 26: 381-388 1981.
- 7) Frible, W.J. and Elzay, R.P.: Tumors of minor salivary glands. A report of 73 cases. Cancer 25: 932-941 1970.
- 8) Chaudhry, A.P., Vickers, R., et al.: Introral minor salivary gland tumors. An analysis of 1414 cases. OS OM OP 14: 1194-1226 1961.
- 9) Spiro, R.H., Koss, L.G., et al.: Tumors of minor salivary origin. A clinicopathologic study of 492 cases. Cancer 31: 117-129 1973.
- 10) Geopfelt, H., Giraldo, A.A., et al.: Salivary gland tumors of the base of the tongue. Arch Otolaryngol 102: 391-395 1976.
- 11) Kessler, D.J., Mickel, R.A., et al.: Malignant salivary gland tumors of the base of the tongue. Arch Otolaryngol 111: 664-666 1985.
- 12) Burbank, P.M., Dockerty, M.B., et al.: A clinicopathologic study of 43 cases of glandular tumors of the tongue. Surg Gynecol Obstet

- 109: 573-583 1959.
- 13) 松本和彦, 末統義幸, 他: 舌に発生した唾液腺多形腺腫(いわゆる混合腫瘍)の1例. 耳喉 51: 711-715 1979.
- 14) 杉浦正幸, 栗田賢一, 他: 舌に発生した多形性腺腫の1症例. 日口外誌 29: 1611-1615 1983.
- 15) Crocker, T.P., Kroutner, A., et al.: Papillary adenocarcinoma of minor salivary gland origin in a child. Arch Otolaryngol 109: 827-831 1983.
- 16) Yajima, M., Yamazaki, T., et al.: Tubular adenocarcinoma of the apex of the tongue. J Oral Maxillofac Surg 47: 86-88 1989.
- 17) Brunschwig, A.: Mixed tumor of the tongue and sublingual gland. Surg Gynecol Obstet 50: 407-415 1930.
- 18) 矢島幹人, 峯村俊一, 他: 唾液腺に発生した腺様嚢胞癌13例の臨床的ならびに病理組織学的検討. 日口外誌 34: 1716-1722 1988.
- 19) 山崎 正, 峯村俊一, 他: Wartin 腫瘍における画像診断. 口科誌 37: 36-46 1988.
- 20) 亀山忠光, 田中俊一: 唾液腺疾患—良性腫瘍病変—. 歯科ジャーナル 28: 71-81 1988.
- 21) 倉科憲治, 小木曾 暁, 他: 舌腺瘍の3例. 口科誌 37: 710-715 1988.
- 22) 峯村俊一, 中島みどり, 他: 頬部に発生した多形性腺腫の2例. 日口外誌 33: 1871-1875 1987.
- 23) 山本悦秀, 小浜源郁, 他: 初回手術の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.
- 24) 藤林孝司, 小幡幸男, 他: 小唾液腺腫瘍の臨床的研究. 口科誌 21: 901-928 1972.
- 25) 羽染直樹, 古藤茂昭, 他: 再発巣が腺様嚢胞癌の形態をとった多形性腺腫の1例(抄). 口腔腫瘍抄録集 7:33 1989.