口蓋に発生した腺房細胞腫の1例

鈴木 明・大谷 端夫・小谷 英二・小野 謙三*

A case of acinic cell tumor of the palate

Akira SUZUKI・Tadao OHTANI・Eiji OTANI・Kenzo ONO*

Abstract: A case of acinic cell tumor in the palate is reported in this article. Acinic cell tumor is a relatively rare type of adenocarcinoma of salivary gland origin. The 83-year-old man complained of swelling in the oral palate. A red soft mass (approximately 8mm in diameter) was noticed in the 6 region. Histopathological diagnosis of the surgically removed specimen was acinic cell tumor. The tumor invaded into the maxilla. Surgical excision with a border of normal tissue seems to be effective treatment. The patient had a good clinical course without recurrence or metastasis.

Key words: acinic cell tumor (腺房細胞腫), minor salivary gland (小唾液腺)

緒 言

腺房細胞腫は、漿液性腺房細胞に類似した細胞の増殖を特徴とするまれな唾液腺腫瘍である。その多くは耳下腺に発生し、小唾液腺に生じる報告例はきわめて少ない¹⁾。

今回われわれは、口蓋粘膜部に発生し上顎骨に浸潤したと思われる腺房細胞腫の1例を経験したので報告する。

症 例

患 者：83歳 男性。

初 診：昭和62年2月■日。

主 訴：6 部口蓋粘膜の疼痛。

既往歴：5年前より珪肺結核症および、パーキンソン症候群にて、内科通院治療中。

家族歴：特記事項なし。

写真1 初診時口腔内写真

現病歴：昭和62年2月中旬より、義歯装着時に、6 部口蓋粘膜に腫脹、疼痛を覚え当科に来院した。

現 症

全身所見・口腔外所見：特記事項なし。

口腔内所見：5 残根 6 歯牙欠損を呈しており、6 相当部口蓋粘膜に暗赤色、弾性硬、小豆大の腫瘤を認めたが、境界は明瞭で潰瘍形成は認めなかった(写真1)。

X線所見：歯科用 X 線写真にて、6 相当部の上顎骨に、境界不明瞭な骨破壊像が認められた。CT 像は、右側上顎骨に低吸収域を認め、その範囲は、一部上顎洞骨壁に及んでおり、同部に腫瘍の存在が疑われた。^{99m}Tc 骨シンチグラムでは特に異常集積は認めなかった(写真2, 3, 4)。

臨床検査所見：肺機能検査にて、比肺活量93%、1秒

公立陶生病院歯科口腔外科

(主任：大谷端夫部長)

* 公立陶生病院臨床検査部病理

(主任：小野謙三部長)

Division of Dentistry and Oral Surgery, Tohsei Public Hospital (Chief: Tadao Ohtani)

* Department of Pathology Tohsei Public Hospital (Chief: Kenzo Ono)

受付日：平成元年6月12日

写真 2 歯科用X線写真

写真 3 CT 像

写真 4 ^{99m}Tc シンチグラム

写真 5 口腔内写真 (術後2年)

率64%で、閉塞性障害が認められた。血液一般検査、血液生化学検査、尿検査等では、いずれも異常を認めなかった。

臨床診断：右上顎腫瘍。

処置および経過：昭和62年2月■日、生検を行い、病理組織検査の結果、腺房細胞腫と診断された。呼吸機能の低下がみられたため、内科、麻酔科との対診により、同年3月■日局所麻酔下にて、腫瘍摘出術を施行した。手術は、腫瘍境界部より約1cm 外方に切開を加え、腫瘍組織を含めて上顎骨の部分切除術を行った。洞粘膜は正常粘膜色で平滑であった。

術後経過は良好で、2年の経過観察をするも再発はなく順調である(写真5)。

病理組織学的所見：粘膜下に好塩基性で細顆粒状の胞体を有する特徴的な細胞が充実性に増殖しているのがみられた。強拡大では、腫瘍細胞の大きさは比較的均一で核は小さく、細胞学的には異形性に乏しい。また、腫瘍内に血管も豊富に認められた。しかし、腫瘍は上顎骨髄内にまで広汎に浸潤しており、悪性としての性格を有する

と考えられ、その組織像より腺房細胞腫と診断した(写真6, 7, 8)。

AB pH 2.5-PAS 重染色では、腫瘍細胞は赤紫色に染まり、胞体内に中性および酸性の複合糖質が存在することが示唆された(写真9)。

病理組織学的診断：腺房細胞腫

考 察

腺房細胞腫は、かつては良性の腫瘍と考えられてきたが、1953年 Godwin ら²⁾の報告以来、再発、転移など予

写真 6 病理組織像：粘膜下に広汎に浸潤した腫瘍組織 (H-E 染色 ×20)

写真 8 病理組織像：骨髓中に破壊性の増殖を示す腫瘍組織 (H-E 染色 ×40)

写真 7 病理組織像：腫瘍組織の拡大像 (H-E 染色 ×100)

写真 9 病理組織像：PAS-AB pH 2.5 染色で胞体は濃染する (×100)

後不良例もあることから本腫瘍は、悪性腫瘍と考えられてきた。しかし、1972年以降 WHO 分類ではすべてを癌腫として扱うのは適当でないとして、表記としては一般に腺房細胞腫の名称で唾液腺腫瘍として分類されている^{1,3)}。しかし、悪性の潜在能を有するとして、腺房細胞癌の名称を用いることも多い⁴⁾。

本腫瘍は唾液腺腫瘍のなかでもまれなものであり、唾液腺腫瘍の約 1～2%^{5,6)}といわれている。その 90% 以上が耳下腺に認められ、とくに小唾液腺に由来するものは欧米においても本邦においても報告例は少ない¹⁾。

好発年齢は、40～50歳代で Eneroth ら⁷⁾は、11～78歳にみられ平均45.1歳、Spiro ら⁸⁾は 10～82歳にみられ平均46歳、Ellis ら⁹⁾は 5～84歳にみられ平均38歳、Abrams ら¹⁰⁾は 9～79歳にみられ30～40歳代に多いと述べている。本邦における小唾液腺由来の腺房細胞腫40例では25～83歳にみられ平均54.5歳で、自験例は全40例中最高齢の83歳であった。

性別では、女性にやや多いとされており、石川は男性：女性＝1：2と述べている¹⁾。本邦における小唾液腺由来の腺房細胞腫40例では男性：女性＝1：1.3であ

った。

発生部位としては、われわれが渉猟した限りでは本邦における小唾液腺由来の腺房細胞腫40例中、口蓋17例、口唇5例、頬部7例、臼後三角部7例、その他4例で口蓋部発生率が43%を占めた(表1)。

臨床的特徴として、発育はきわめて緩慢で一般に無痛性の腫瘤として認められ、腫瘍の断面は充実性で灰白色を呈することが多いと報告されている¹⁾。しかし、自験例では、腫瘤の表面は平滑で血管腫のように暗赤色を呈し、直径約8mmと小さく粘膜病変は軽度であったが、X線写真にて上顎骨への境界不明瞭な骨浸潤が強く認められ、特異な臨床像を示していた。

発生由来としては、腺房細胞説と介在部導管細胞説の2つが考えられている。Godwin ら²⁾は腫瘍細胞が漿液性腺房細胞に類似していることから腺房細胞に由来すると述べ、他には腫瘍組織中に介在部導管細胞が電顕的にも観察され、しかも介在部導管細胞は腺房細胞への分化を保持していることや、純粘液腺である舌口蓋腺より本腫瘍が発生したとの報告などがあり、介在部導管細胞由来とする説も支持されている。

表 1 小唾液腺由来の腺房細胞腫

— 本邦報告例 —

報告者	報告年	性別	年齢	部位	来院までの期間	治療法	経過
島田 ¹³⁾	1955	不明	不明	口蓋5例, 下唇1例	不明	不明	不明
玉生 ¹⁴⁾	1959	男	49	硬口蓋	20年	切除+放射線	10年後他因死
		女	71	硬口蓋	25年	放射線	不明
三吉, 他 ¹⁵⁾	1963	女	53	軟口蓋	1年10か月	摘出	
杉山, 他 ¹⁶⁾	1965	男	69	白後三角部	2年	摘出+放射線	1年半良好
児玉 ¹⁷⁾	1969	女	40	口蓋	4年	摘出	6年10か月再発(—)
増田, 他 ¹⁸⁾	1971	女	43	軟口蓋	1か月	摘出	3年再発, 転移(—)
谷 ¹⁹⁾	1972	男	56	舌(再発例)	3年	摘出+放射線+化学療法	再発例
藤林, 他 ²⁰⁾	1972	女	24	下顎骨体	3年半	切除	3年再発(—)
		男	45	頬部	1年半	摘出+放射線	5年4か月再発(—)
馬場, 他 ²¹⁾	1973	女	40	口唇	2年	摘出	2年6か月再発(—)
加藤, 他 ²²⁾	1973	女	64	白後部	約2週間	切除+放射線	1年半再発, 転移(—)
江崎, 他 ²³⁾	1974	男	66	硬口蓋	約2週間	摘出	10か月再発(—)
小川, 他 ²⁴⁾	1976	女	45	上咽頭	7か月	摘出	1年再発(—)
岩崎, 他 ²⁵⁾	1977	女	64	左頬粘膜	5年	摘出+化学療法	1年11か月再発(—)
坂井, 他 ²⁶⁾	1977	男	36	鼻副鼻腔	8年	上顎切除	6か月再発(—)
井上, 他 ²⁷⁾	1978	女	53	白後部	1年3か月	摘出	不明
五十嵐, 他 ²⁸⁾	1979	女	67	口蓋	3か月	摘出+放射線	不明
山下, 他 ²⁹⁾	1981	女	不明	口蓋	不明	摘出+放射線	6年
木村, 他 ³⁰⁾	1981	女	不明	下唇	不明	摘出	3年
梅田, 他 ³¹⁾	1981	男	62	上唇	1年	摘出+化学療法	2か月再発, 転移(+)
川本, 他 ³²⁾	1981	男	75	上唇	3~4年	摘出	不明
高橋, 他 ⁴⁾	1982	男	41	舌根部	11か月	摘出+放射線+化学療法	7年後腫瘍死
領家, 他 ³³⁾	1982	男	52	右頬部粘膜 ~鼻腔	5年	摘出+放射線+化学療法	2年7か月再発, 転移(—)
茂木, 他 ³⁴⁾	1983	女	36	口蓋	4日	摘出	3年再発, 転移(—)
宮川, 他 ³⁵⁾	1984	男	65	軟口蓋部	1年	摘出+化学療法	3年2か月再発, 転移(—)
Inoue, 他 ³⁶⁾	1984	女	53	白後部	1年	摘出	4年再発, 転移(—)
		女	53	白後部	4年	摘出	6年再発, 転移(—)
谷, 他 ³⁷⁾	1985	女	64	左頬部粘膜 ~白後部	2週間	摘出	1年3か月再発, 転移(—)
安齊, 他 ³⁸⁾	1985	女	48	白後三角部	1か月	摘出+放射線	3年6か月再発, 転移(—)
Sasaki, 他 ³⁹⁾	1985	男	46	白後部	不明	摘出+郭清	再発, 転移(—)
清見, 他 ⁴⁰⁾	1986	女	58	右頬粘膜	2年	摘出	3年7か月再発, 転移(—)
Hiratsuka 他 ⁴¹⁾	1987	男	46	軟口蓋	1年	摘出	3年再発, 転移(—)
大竹, 他 ⁴²⁾	1988	男	59	頬粘膜	5年	摘出	8年3か月再発, 転移(—)
本報告例	1988	男	83	口蓋	約2週間	摘出	1年2か月再発, 転移(—)

耳下腺を主とする大唾液腺の局所再発は, Eneroth ら⁷⁾ (1966) は, 約30%, Spiro ら⁵⁾ (1978) は, 約36%と報告している。遠隔転移は, 肺, リンパ節, 脊椎が主体で局所再発に比べて3~12%と低い。また5年生存率は約75~90%^{7,10)}と高いが, 20年生存率は約55~75%⁷⁾とな

り, 再発傾向が遅いといわれている。また, 小唾液腺部の再発, 転移の報告例もあるが, 予後の不良なものはきわめてまれである。このように本腫瘍の特徴としては経過が長く通常の悪性腫瘍に比べれば予後が良いことが挙げられる。

組織学的には、Abrams ら⁹⁾(1965)は、腫瘍構成細胞を① acinic cell, ② intercalated duct cell, ③ vacuolated cell, ④ clear cell, ⑤ non specific glandular cell の5型に分類し、また、腫瘍細胞の配列形式を①充実型、②小嚢胞型、③乳頭状嚢胞型、④濾胞型の4型に分類している。自験例では、acinic cell が認められ、配列は充実型であった。

腫瘍細胞は形態学的には漿液細胞の性格を有していたが、組織化学的検索では、中性および酸性的複合糖質すなわち粘液物質を腫瘍細胞内に含むことが示唆された。このことより、本腫瘍の発生母地として多分化能を有する介在部からの未分化細胞が考えられる。Abrams ら⁹⁾、Chen ら¹¹⁾、奥井ら¹²⁾は、腫瘍発生起源を分泌上皮と他の未分化上皮の混在によるといっている。一般に唾液腺は分泌物の性質により粘液腺と漿液腺に分類され、本症例でみられた漿液腺では好酸性の分泌顆粒が認められるはずであるが、実際には粘液性分泌顆粒が認められたわけである。これはこの腫瘍が分泌上皮のみから発生すると考えるには適当でないと思われる。

小唾液腺由来の本腫瘍は予後不良例はきわめてまれとされているが、本症例では、腫瘍細胞の骨髓内への浸潤が認められたことから長期にわたる経過観察が必要と思われた。

結 語

腺房細胞癌は、まれな腫瘍で、われわれは83歳男性の口蓋粘膜に発生し上顎骨に浸潤した症例について組織学的および組織化学的検討をし、若干の文献的考察を加えた。

本論文の要旨は、第13回日本口腔外科学会中部地方会において発表した。

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、745-748頁。
- 2) Godwin, J.T., Foote, F.W., et al.: Acinic cell adenocarcinoma of the parotid gland. *Amer J Path* 30: 465-477 1954.
- 3) Thackray, A.C.: International histological classification of tumor. No. 7. Histological typing of salivary gland tumor, WHO, Geneva, 1972, p 23-24.
- 4) 高橋 弘, 王橋信彰: 舌根部小唾液腺より発生した腺房細胞癌の1剖検例. *癌の臨床* 28: 1740-1745 1982.
- 5) Spiro, R.H., Huvos, A.G., et al.: Acinic cell carcinoma of salivary origin. *Cancer* 41: 924-935 1978.

- 6) Eneroth, C.M.: Salivary gland tumor in the parotid gland, submandibular gland, and the palate region. *Cancer* 27: 1415-1418 1971.
- 7) Eneroth, C.M., Jakobsson, P.A., et al.: Acinic cell carcinoma of the parotid gland. *Cancer* 19: 1761-1772 1966.
- 8) Ellis, G.L., Corio, R.L.: Acinic cell adenocarcinoma. *Cancer* 52: 542-549 1983.
- 9) Abrams, A.M., Cornyn, J., et al.: Acinic cell adenocarcinoma of the major salivary glands. *Cancer* 18: 1145-1162 1965.
- 10) Perzin, K.H., Livolsi, V.A.: Acinic cell carcinomas arising in salivary glands. *Cancer* 44: 1434-1457 1979.
- 11) Chen, S.Y., Brannon, R.B., et al.: Acinic cell adenocarcinoma of minor salivary glands. *Cancer* 42: 678-685 1978.
- 12) 奥井 寛, 石川武憲, 他: 腺房細胞腫の1例における complex carbohydrates 分泌の細胞化学的検索. *日口外誌* 31: 2201-2212 1985.
- 13) 島田義弘: 所謂唾液腺型混合腫瘍の組織発生に就いて. *日病会誌* 44: 243-259 1959.
- 14) 玉生みい: 唾液腺腫瘍の臨床病理学的研究. *日口外誌* 5: 2-18 1959.
- 15) 三吉康郎, 大山 勝, 他: 軟口蓋に発生せる Oxyphilic Acinic Cell Adenoma 症例およびその病理組織学的考察. *日耳鼻* 66: 1258-1268 1963.
- 16) 杉山拓也, 藤村恭史, 他: Acinic Cell Carcinoma の1症例. *日口外誌* 11: 197-199 1965.
- 17) 児玉 学: 唾液腺腫瘍の臨床病理学的研究. *日大歯学* 43: 307-329 1969.
- 18) 増田正樹, 国泰清男, 他: 軟口蓋部にみられた腺房細胞癌 (Acinic cell carcinoma) の1例. *日口外誌* 17: 423-427 1971.
- 19) 谷 一郎: 舌に発生した Acinic Cell Adenocarcinoma の1例. *耳鼻* 18: 246-248 1972.
- 20) 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.
- 21) 馬場謙介, 鷺津邦雄, 他: 唾液腺腫瘍. *癌の臨床* 19: 893-911 1973.
- 22) 加藤久夫, 松川公敏, 他: 臼後部に発生した腺房細胞癌 (Acinic cell carcinoma) の1例. *新潟歯学会誌* 3: 9-14 1973.
- 23) 江崎民夫, 加藤裕生, 他: 小唾液腺房細胞癌の1例. *癌の臨床* 20: 553-560 1974.
- 24) 小川 明, 竹田千里, 他: 上咽頭腺房細胞癌の1例. *耳喉* 48: 993-998 1976.
- 25) 岩崎二三男, 大西 真, 他: 頬粘膜に発生した腺房細胞癌の1例. *日口外誌* 23: 695-700 1977.
- 26) 坂井 真, 新川 敦, 他: 両側上顎にわたる血管腫を思わせた Acinic Cell Carcinoma の1例. *耳鼻臨床* 70: 711-719 1977.
- 27) 井上 孝, 内田晴夫, 他: 舌口蓋腺より発生した Acinic Cell Carcinoma の1症例. *日口外*

- 誌 24: 1228-1234 1978.
- 28) 五十嵐淑晴, 今井昭雄, 他: 口蓋腺房細胞腫の1症例. 耳鼻臨床 72: 889-895 1979.
 - 29) 山下忠雄, 水野信介, 他: 唾液腺腫瘍の治療と予後の検討. 頭頸部腫瘍 8: 136-138 1981.
 - 30) 木村高樹, 八重垣健, 他: 過去21年間の当教室における唾液腺腫瘍の臨床統計. 頭頸部腫瘍 8: 106-107 1982.
 - 31) 梅田敬子, 馬場駿吉, 他: 上口唇腺房細胞腫の1例とその一次的再建術について. 耳喉 53: 1127-1131 1981.
 - 32) 川本知佳, 和久田幸之助, 他: Acinic Cell Tumor の2症例(抄). 頭頸部腫瘍 8: 101 1981.
 - 33) 領家利男, 尾崎登喜雄, 他: 腺房細胞腫の1例一頬部一鼻腔, 副鼻腔に重複した稀有なる症例について. 口科誌 32: 195-204 1983.
 - 34) 茂木健司, 武内章浩, 他: 口蓋部に生じた acinic cell tumor の症例. 日口外誌 29: 47-52 1983.
 - 35) 宮川 明, 平塚博義, 他: 軟口蓋部に発生した腺房細胞腫の1例(抄). 日口外誌 30: 101 1984.
 - 36) Inoue, T., Shimono, M., et al.: Acinic cell carcinoma arising in the glossopalatine glands: A report of two cases with electron microscopic observations. Oral Surg 57: 398-407 1984.
 - 37) 谷 慶明, 小池正夫, 他: 頬粘膜に生じた腺房細胞腫の1例. 日口外誌 31: 296-300 1985.
 - 38) 安斎友博, 大谷 敏, 他: 小唾液腺に由来する腺房細胞腫の一症例と本邦における文献的考察. 耳鼻臨床 78 増 1: 928-933 1985.
 - 39) Sasaki, T., Tanaka, N., et al.: Ultrastructure of acinic cell carcinoma in the retromolar region. J Clin. Electron Microscopy 18: 799-800 1985.
 - 40) 清見原正騎, 石川武憲, 他: 穿刺吸引細胞診の術前診断で判明した頬腺由来腺房細胞腫の1例. 日臨細胞誌 25: 726-730 1986.
 - 41) Hiratsuka, H., Imamura, M., et al.: Acinic cell carcinoma of minor salivary gland origin. Oral Surg 63: 704-708 1987.
 - 42) 大竹智子, 覚道健治, 他: 左側頬粘膜部に発生した腺房細胞腫の1例. 日口外誌 34: 1510-1515 1988.