舌下腺に発生した多形性腺腫の1例

山崎 清 仁・嶋 津 真 史・井 形 伸 弘・大 坪 誠 治
竹 川 政 範・吉 田 裕 一・末 次 博 史・松 田 光 悦
西 村 泰 一・北 進 一

A case of pleomorphic adenoma arising in the sublingual gland

Kiyohito YAMAZAKI・Shinji SHIMAZU・Nobuhiro IGATA・Seiji OHTSUBO
Masanori TAKEKAWA・Yuichi YOSHIDA・Hiroshi SUETSUGU
Mitsuyoshi MATSUDA・Taiichi NISHIMURA・Shin-ichi KITA

Abstract: Pleomorphic adenoma is found in high incidence among various types of tumors in the salivary gland, however, occurrence in the sublingual gland is extremely rare.

We report a case of pleomorphic adenoma originated from the sublingual gland.

The patient, 24 year old female, complained of swelling in her right sublingual region.

Under general anesthesia the tumor was resected with the clinical diagnosis of sublingual gland tumor.

The histopathological findings revealed typical pleomorphic adenoma features.

The patient had no evidence of recurrence at three years and 2 months follow-up after operation.

Sublingual gland pleomorphic adenoma is very rare, and we report of a few remarks and some literature connected with this case.

Key words: salivary gland tumor (唾液腺腫瘍), pleomorphic adenoma (多形性腺腫), sublingual gland (舌下腺)

緒 言

多形性腺腫は唾液腺腫瘍のなかでは最も発生頻度が高く、大唾液腺のなかでも耳下腺に好発し、次いで顎下腺に多く、舌下腺に発生するのはきわめてまれとされている。

今回われわれは多形性腺腫が舌下腺に発生した、まれな1例を経験したので報告する。

症 例

患者：24歳 女性。

旭川医科大学医学部歯科口腔外科学講座
(主任：北 進一教授)
Department of Oral and Maxillofacial Surgery,
Asahikawa Medical College (Chief: Prof. Shin-ichi Kita)

受付日：平成元年12月5日

初 診：昭和61年8月■日。

主 訴：右側舌下部の腫脹。

既往歴・家族歴：特記事項なし。

現病歴：昭和60年8月右側舌下部に違和感を自覚したが、疼痛などがないため放置していた。しかし同部の腫脹硬結が徐々に増大してきたため、昭和61年8月■日某歯科を受診し、同月■日当科を紹介され来科した。

現 症：

全身所見：体格中程度、栄養状態良好で全身的に異常所見はみられなかった。

局所所見：顔貌は左右対称性で、所属リンパ節の腫脹は触知しなかった(写真1)。

口腔内所見では、右側口底部の舌下ヒダに沿って表面平滑、境界比較的明瞭な32×25mmの腫瘤がみられた。両側のWharton氏管からの唾液の流出は良好で、排膿は認めなかった。舌の運動は良好で知覚麻痺、味覚異常は認めない(写真2)。

検査所見：

×線所見：パノラマ×線写真、咬合法×線写真で唾石

写真 1 初診時顔貌正面

写真 3 CT 像

右側口底部にはほぼ円形の mass を認める (△部)

写真 4 Echo 像

口底部に辺縁明瞭な充実性の腫瘍が疑われる。

写真 2 初診時口腔内写真

右側口底部の舌下ヒダに沿って腫瘍がみられる。

あるいは異物などの異常所見は認められなかった。

CT 所見；右側口底部に直径約 25 mm のほぼ円形の mass が確認された (写真 3)。

Echo 所見；口底部に辺縁明瞭な直径約 25 mm の低 Echo 像が存在し、充実性の腫瘍が疑われた (写真 4)。

シンチグラム所見；⁶⁷Ga シンチグラム，唾液腺シンチグラム異常所見は認められなかった。

臨床検査所見；血液一般，血清生化学検査で異常値は示されなかった。

臨床診断；右側舌下腺良性腫瘍。

処置および経過；昭和61年9月■日全身麻酔下に腫瘍摘出術を施行した。腫瘍直上の口底粘膜に舌下ヒダに沿って切開を加え，粘膜を剝離して鳩卵大の被膜を伴う腫瘍を露出した。腫瘍と周囲組織との癒着はなく，腫瘍を

写真 5 摘出した腫瘍

腫瘍は被膜と共に一塊として摘出された。

写真 6 摘出物
表面は分葉状，平滑，黄色を示す。

写真 8b 実質が充実性の細い索状を成している部分。

写真 7 摘出物の剖面
充実性で黄色を示す。

写真 8c さらに一部には舌下腺と思われる混合腺組織を認める。

写真 8a 摘出物の病理組織像
悪性像は認めず，主として多角形の細胞の充実性増殖からなる部分。

術後経過は良好で，3年2か月を経過した現在再発などの異常は認められていない。

摘出物所見：摘出した腫瘍は 45×30×30 mm で分葉状を呈し表面は平滑で黄色であった（写真6），また剖面は充実性で黄色を呈していた（写真7）。

病理組織学的所見：腫瘍の表層は線維性結合組織の被膜で覆われ，一部に被膜内浸潤が認められたが，悪性所見は認められなかった。腫瘍内には主として多角形の細胞の充実性増殖からなる部分（写真8a），実質が充実性の細い索状をなしている部分（写真8b）が認められ，また一部に舌下腺と思われる混合腺組織が認められた（写真8c）。

病理組織学的診断：多形性腺腫。

考 察

舌下腺腫瘍は他の大唾液腺腫瘍に比べて発生頻度は約1%と低く¹⁾，組織型においては腺様嚢胞癌，類表皮癌などを含め腺癌が全体の80%²⁾を占め，発生頻度は低い

被膜ごと一塊として摘出し，創を一次的に縫縮した（写真5）。周囲には腫瘍の他に正常な舌下腺は認められず舌下腺腫瘍と考えられた。

ものの悪性の経過をとる傾向が強いとされている。

一方多形性腺腫は、唾液腺腫瘍のなかで最も発生頻度が高く、石川らによると全唾液腺腫瘍の60~65%¹⁾、Bauerは70%³⁾、白川は68%⁴⁾を占めると報告している。

発生部位では耳下腺に好発し、Foote & Frazell⁵⁾によると大唾液腺に発生した多形性腺腫の約90%が耳下腺、顎下腺には約10%、舌下腺には1%以下と非常にまれとされている。

性別では女性にやや多いとしているものが多く^{4,6,7)}、発病年齢については他の唾液腺腫瘍に比較し幅広い分布を示すとされている^{1,3,4)}。

本症の組織発生については種々な説があるが、導管系上皮細胞由来という説⁸⁻¹⁰⁾が一般には支持されているようである。また舌下腺は導管系上皮細胞が耳下腺に比べ著しく少ないことから、舌下腺における多形性腺腫の発現が少ないのではないかと考えられている⁹⁾。

本症例は、(1) CT 所見や手術所見から解剖学的に舌下腺相当部であったこと、(2) 手術時顎下腺管と腫瘍とが連絡しており、腫瘍の他には正常な舌下腺が存在しなかったこと、(3) 病理組織像で同一腫瘍被膜に覆われて、腫瘍内の一部に正常な舌下腺と思われる腺組織が認められたこと、などの理由から舌下腺原発の多形性腺腫と診断した。

多形性腺腫の予後は一般に良好であるが、森本ら¹¹⁾は4.9%、玉生⁷⁾は8%、島田¹²⁾は8.5%に再発を認めたと報告している。再発の第一の要因は、多くの報告にみられるように不完全な手術術式にあることが多い。本症例においては、腫瘍は周囲組織との癒着はなく、また比較的硬い被膜で被覆され、一塊として摘出し得たことから完全摘出がなされたものと考えている。

悪性化については、藤林ら¹³⁾が悪性化した症例を報告しているのをはじめ、いくつかの報告が散見された^{1,14,15)}。

本症例は術後3年2か月経過した現在異常を認めていないが、今後も注意深い観察が必要であると考えている。

結 語

われわれは、24歳の女性に発生した舌下腺の多形性腺腫を経験したので若干の文献的考察を加えて報告した。

本論文の要旨は、昭和62年4月6日第41回日本口腔科学会総会（東京）において発表した。

引用文献

- 1) 石川梧朗, 秋吉正豊: 口腔病理学Ⅱ. 改訂版. 永末書店, 京都, 1982, 718-728.
- 2) Ranknow, R.M., and Mignogna, F.: Cancer of the sublingual salivary gland. *Am J Surg* 118: 790-795 1969.
- 3) Bauer, W.H. and Bauer, J.D.: Classification of glandular tumors of salivary glands. *Arch Pathol* 55: 328-346 1953.
- 4) 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.
- 5) Foote, F.W. and Frazell, E.L.: Tumor of the major salivary glands. *Cancer* 6: 1065-1133 1953.
- 6) Willis, R.A.: *Pathology of Tumors*. 4th Ed, Butterworth Co, London, 1967. 319-344.
- 7) 玉生みい: 唾液腺腫瘍の臨床的研究 (特に小口腔腺腫瘍について). 口外誌 5: 2-18 1959.
- 8) 松浦博夫: 唾液腺筋上皮細胞の病理形態学的研究 2. 多形性腺腫の免疫組織化学的, 超微形態学的観察所見. 广大医誌 28: 95-118 1980.
- 9) 桐田忠昭, 望月光治, 他: 右側舌下腺に生じた多形性腺腫の1例. 口外誌 31 1388-1394 1985.
- 10) Takeuchi, J., Sobue, M., et al.: Pleomorphic adenoma of the salivary gland with special reference to histochemical electron microscopic studies. *Biochemical analysis of glycans in vivo and in vitro*. *Cancer* 36: 1771-1784 1975.
- 11) 森本忠三, 辻本守孝, 他: 小唾液腺腫瘍の臨床統計的観察 1) 良性腫瘍. 口外誌 23: 846-869 1977.
- 12) 島田義弘: 所謂唾液腺型混合腫瘍の組織発生に就いて—唾液腺腫瘍の諸型の比較研究. 日病会誌 44: 23-46 1955.
- 13) 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.
- 14) 太田邦夫: 唾液腺腫瘍について (形態学の問題を中心に) 臨床病理 3: 201-213 1955.
- 15) Thackray, A.C. and Lucas, R.B.: Tumor of the major salivary glands. *Atlas of tumor pathology*. AFIP. Washington DC, 1974, 316-325.