上唇に発生した孤立性毛包上皮腫の1例

鶴田 敬司・長畠駿一郎・貞森平樹・小林良一
谷崎明弘・三宅 実・新谷浩成

Solitary trichoepithelioma of the upper lip: report of a case

Keishi TSURUTA・Shunichiro NAGAHATA・Hiraki SADAMORI
Ryoichi KOBAYASHI・Akihiro TANIZAKI・Minoru MIYAKE
Hiroshige SHINTANI

Key words: solitary trichoepithelioma (孤立性毛包上皮腫), upper lip (上唇)

緒 言

孤立性毛包上皮腫は1901年, Wolters¹⁾ が最初に記載した疾患で, 非遺伝性の毛包由来の良性腫瘍と考えられている。成人期に発生し, 主として顔面, とくに鼻を中心とした部位に生じる比較的まれな疾患である。

今回, われわれは右側上唇部に発生した孤立性毛包上皮腫の1例を経験したので概要を報告する。

症 例

患 者: 37歳 男性。

初 診: 昭和62年9月■日。

主 訴: 右側上唇部の腫瘍形成。

家族歴・既往歴: 特記すべき事項なし。

現病歴: 昭和59年頃より, 右側上唇部の腫瘍に気づき, 昭和60年頃より, 腫瘍周囲に硬結を触れるようになったが, 無痛性のため放置していた。昭和62年8月, 健康診断の際, 同部の腫瘍を指摘され, 当科を紹介され来院した。

現 症

全身所見: 体格・栄養ともに中等度。

局所所見: 右上唇口角付近に 13×10 mm, 表面は不整で潰瘍形成はなく, 色調は淡紅色, 弾性硬の半球状に隆起した腫瘍を認めた(写真1)。

臨床診断: 右側上唇部腫瘍。

処置および経過: 昭和62年9月■日, 上記診断で生検を行い, 孤立性毛包上皮腫の疑いの病理診断を得た。昭

写真1 初診時局所写真

写真2 病理組織像 (H-E 染色, 弱拡大)

和62年10月■日, GOË 全皮下に腫瘍摘出術, 頬粘膜弁による形成術を行った。術後4年を経過したが, 再発もなく経過良好である。

摘出物所見: 摘出物は 15×11×6 mm で, 被膜は認められず弾性硬, 淡紅色であった。内部は充実性で, 割面は乳白色を呈していた。

病理組織学的所見: 腫瘍は真皮内に存在し, 一部表皮と連続したところもみられた。腫瘍細胞は好塩基性の細胞よりなり, 充実性あるいは索状配列を示し, 腫瘍胞巣内には大小さまざまな角質嚢腫が認められた。腫瘍胞巣は豊富な線維性間質で取り囲まれ, 両者の間に裂隙は認められなかった(写真2)。腫瘍細胞は基底細胞様細胞

香川医科大学医学部歯科口腔外科学講座

(主任: 長畠駿一郎教授)

Department of Oral and Maxillofacial Surgery,
Kagawa Medical School (Chief: Prof. Shunichiro
Nagahata)

受付日: 平成3年11月28日

写真3 腫瘍細胞による角質嚢腫の形成と毛包に分化しているところ (H-E 染色, 強拡大).

で構成され, 毛包への分化が認められた(写真3). 以上の病理組織学的所見より孤立性毛包上皮腫と診断した.

考 察

孤立性毛包上皮腫は毛包の分化を示す良性の上皮性腫瘍で, 皮膚科領域において報告例が散見されるが, 口腔外科領域においてはまれな疾患である. 毛包上皮腫は臨床的には多発性丘疹状毛包上皮腫 (trichoepithelioma-apulorum multiplex) と孤立性毛包上皮腫 (solitary trichoepithelioma) に分類されている.

発生部位は, Gray ら²⁾ は鼻を中心とした顔面に集中しているが, そのほか, 頭部, 頸部, 背部, 上腕などに認められたと述べている.

大きさは一般的に小型であるが巨大化する場合もある. 斉木ら³⁾ は顔面の例は一般に小型で, 頭部, 背部の例は大型の傾向があり, 顔面の例でも徐々に増大する傾向が認められるが, 多発例のほとんどは大きさに変化がないとしている.

発生年齢は, 欧米では生下時より30歳前後までに生じたものが多く, 性別では男性に多いとされている^{2,4)} が, 本邦では女性にやや多いようである.

遺伝性において, 孤立性毛包上皮腫は家族的発生を示さず遺伝関係はないとされている. 一方, 多発性毛包上皮腫の場合, 家族的発生を認め常染色体優性遺伝を示し, Gray ら²⁾ は64%に遺伝性を認めたと報告している. この点から宮田⁵⁾ は多発性において高率に認められる遺伝性が孤立性に認められないことは, 病理学的に両者は類似しているが発生学的にかなり異なるものと推定しており興味深い.

腫瘍の発育はきわめて緩慢で, 疼痛もほとんどないため腫瘤に気づいてから来院までの期間もさまざまである. 自験例においては来院までに3年を経過していた.

本疾患における病理組織学的所見は, 1) 角質嚢腫

をいれた基底細胞様細胞よりなる充実性胞巣の形成, 2) 基底細胞様細胞のレース模様状あるいは索状の増殖, 3) 胞巣辺縁での基底細胞様細胞の柵状配列, 4) 毛構造への高度の分化, 5) よく発達した結合組織よりなる間質の形成, 6) 脂腺への分化, 7) 角質嚢腫の破壊による異物反応, などが挙げられ, 多発性の場合と同じ所見を呈する.

鑑別を要する疾患としては, 毛包系腫瘍とくに角化型基底細胞上皮腫 (keratotic basal cell epithelioma), 毛包腫 (trichofolliculoma), 線維性硬化性毛包上皮腫 (desmoplastic trichoepithelioma) があるが, 臨床所見および組織学的な毛包への分化度の程度により区別される.

治療法としては Osguthorpe ら⁶⁾ は凍結外科, 電気焼灼, 剝皮術などは再発を起こしやすく切除術がもっとも有効な手段としており, 四宮ら⁷⁾ も十分な切除後に局所皮弁を用い被覆することが整容的にも, 再発防止の点からも奨められると述べている. 自験例においても十分な切除後, 局所粘膜弁による被覆を行い, 術後4年が経過しているが再発もなく経過良好である.

結 語

今回われわれは, 37歳の男性の右側上唇部に発生した孤立性毛包上皮腫の1例を経験したので文献的考察を加えて報告した.

本論文の要旨は第33回日本口腔外科学会総会(昭和63年10月1日, 郡山)において発表した.

引用文献

- 1) Wolters, M.: Epithelioma adenoides cysticum. Arch Dermatol Syph 56: 89-100 1901.
- 2) Gray, H.R. and Helwig, E.B.: Epithelioma adenoides cysticum and solitary trichoepithelioma. Arch Dermatol 87: 102-114 1963.
- 3) 斉木 実, 井上隆美, 他: Solitary Trichoepithelioma の3例. 臨皮 33: 901-905 1979.
- 4) Zeligman, I.: Solitary trichoepithelioma. Arch Dermatol 82: 89-94 1960.
- 5) 宮田千珈子: 単発性毛嚢上皮腫について. 皮膚臨床 12: 1143-1148 1970.
- 6) Osguthorpe, J.D. and Calcaterra, T.C.: Trichoepithelioma: report of an unusual case and review of the literature. Head Neck Surg 1: 461-464 1979.
- 7) 四宮 茂, 青山亮介, 他: 鼻部孤立性毛包上皮腫の2例. 形成外科 31: 1078-1083 1988.