7歳男児の上唇に発現した多形性腺腫の1例

吉岡 泉・喜久田利弘・瀬戸 富雄
中島 健・原 巖

Pleomorphic adenoma of the upper lip in a 7-year-old boy

Izumi YOSHIOKA・Toshihiro KIKUTA・Tomio SETO
Takeshi NAKASHIMA・Iwao HARA

Abstract: Pleomorphic adenoma is a common neoplasm in the oral cavity. This tumor occurs most frequently at the parotid gland in the major salivary gland and at the palate in the minor salivary gland. This tumor rarely develops at the lip. Usually, it appears at the age between 2nd and 5th decades; few cases occur in childhood.

We encountered a case of pleomorphic adenoma on the upper lip of a child. The patient, a 7-year-old boy, visited our clinic with a mass on the upper lip.

There have been 59 cases of pleomorphic adenoma on the upper lip documented in Japan (1961-1991). This patient is the youngest of the 59 cases.

The clinical features of this case are presented along with a review of the literature on pleomorphic adenoma.

Key words: pleomorphic adenoma (多形性腺腫), upper lip (上唇), 7-year-old boy (7歳男児)

緒 言

多形性腺腫は唾液腺腫瘍のなかで、最も発生頻度の高い良性の上皮性腫瘍である。大唾液腺では耳下腺に、小唾液腺には口蓋に多く発生し、口唇に発生することは比較的少ないといわれている。また、本腫瘍は年齢的には20～50歳代に多く小児にはまれであるとされている。今回、われわれは7歳男児の上唇に発現した多形性腺腫を経験したので、その概要に文献的考察を加え報告する。

症 例

患 者：7歳 男児。

初 診：平成3年9月■日。

主 訴：左側上唇部の腫瘍。

家族歴：特記事項なし。

既往歴：アレルギー性鼻炎にて、某耳鼻咽喉科医院に

九州歯科大学口腔外科学第1講座

(主任代行：亀山嘉光助教授)

First Department of Oral Surgery, Kyushu Dental College (Acting Chief: Associate Prof. Yoshimitsu Kameyama)

受付日：平成4年6月15日

写真1 初診時口腔内写真

通院中である。

現病歴：約1か月前より左側上唇部の腫瘍を自覚、通院中の某耳鼻咽喉科を受診したところ、当科受診を勧められ来院した。

現 症：体格、栄養状態ともに中等度で、特記すべき異常所見は認められなかった。顔貌は左右対称で、左側上唇部に限局性の膨隆を認めるも同部皮膚に異常は認められず、また所属リンパ節に腫脹、圧痛などの異常は認められなかった。

口腔内所見：左側上顎側切歯相当上唇部に弾性硬、無痛性の小指頭大の腫瘍を認めた。腫瘍は健常上唇粘膜下

表 1 小唾液腺由来多形性腺腫

	口蓋	口 唇			頬部	舌	その他	計
		上唇	下唇	不明				
本 講 座	39	9	0	0	2	0	6	47
Chaudhry ¹⁾	476	105	13	15	38	18	68	733
Eveson ²⁾	86	27	4	0	14	1	11	143
梶 山 ら ³⁾	533	32	2	20	77	7	48	719

写真 2 病理組織像 (H-E 染色)

に存在し、可動性を有し周囲組織との癒着は認められなかった(写真1)。

臨床診断：上唇部良性腫瘍の疑い。

処置および経過：局所麻酔下に腫瘤上部の粘膜に切開を加え、周囲組織の剥離後腫瘤を一塊として摘出した。腫瘤は周囲組織との癒着はなく、容易に摘出した。術後は順調に経過し、10か月後の現在、再発を認めていない。

摘出物所見：腫瘤の大きさは 11×11×10 mm の類球形で表面は薄い線維性被膜で被包されていた。剖面は黄白色で充実性であった。

病理組織学的所見：腫瘍実質は立方形あるいは多角形の細胞が索状に増殖を示し、ところどころに腺管構造を認めた。間質には硝子化を伴う線維性結合織、粘液腫様変化および軟骨腫様組織がみられた。腫瘍は薄い線維性の被膜を有していた(写真2)。

病理組織学的診断：多形性腺腫。

考 察

多形性腺腫は唾液腺腫瘍のなかで最も発現頻度が高く、唾液腺腫瘍の60～65%を占めるといわれているが、大唾液腺に多く小唾液腺には少ないとされている。

小唾液腺由来のものについて発生部位別頻度をみると口蓋に多く、口唇には比較的少ない。当科において1975年から1991年までの17年間に経験した小唾液腺由来多形性腺腫47例中口唇に発現したものは9例(19.1%)であり、諸家の報告同様口唇に比較的少ないものと考えられた(表1)。

表 2 年齢別発生頻度—上唇部多形性腺腫—
(1961～1991)

年 齢	症例数(%)
0 ～ 9	1*(1.7)
10 ～ 19	6 (10.2)
20 ～ 29	14 (23.7)
30 ～ 39	8 (13.6)
40 ～ 49	13 (22.0)
50 ～ 59	10 (16.9)
60 ～ 69	4 (6.8)
70 ～	3 (5.1)
	59 (100)

* 自験例

一方、多形性腺腫の発生年齢についてみると、20～50歳代に好発し、全年齢層に占める小児患者の頻度はきわめて少ないとされている。本腫瘍の若年層における発生に関して、Kauffmanら⁴⁾の報告によれば、多形性腺腫712例中小児(15歳以下)での発現は6例(0.8%)であった。また Rauch⁵⁾は多形性腺腫406例中3例(0.5%)が10歳以下であったといい、磯貝ら⁶⁾は10歳未満に生じた本腫瘍は全多形性腺腫の0.6%であったとしている。

このように多形性腺腫は部位的に口唇に少なく、年齢的に小児にまれなものであり、今回のような小児に発現した上唇部本腫瘍はきわめてまれなものと考えられる。そこで上唇部多形性腺腫の年齢別発生頻度をみると、われわれの渉猟した範囲(1961～1991)の本邦報告例50例にわれわれの教室で1975年以降経験した9例を加えた総数59例中、20～50歳代が76.2%を占め、10歳未満の症例は本症例1例のみであった(表2)。また、小児発現例は、増田ら⁷⁾の15歳女性、松村ら⁸⁾の11歳女性および自験例7歳男性の3例のみであった。したがって7歳児における今回の症例は、本邦において報告された上唇部多形性腺腫のうちでは、最も低年齢に発生したものであると思われた。

本腫瘍の若年層における発現がきわめて少ないのは、

その発育が緩慢で疼痛などの自覚症状を欠くためと推察される。また小児の病歴に関する自己表現の不十分さや、診察に対する協力を得ることが難しいことなども発現や診断を困難にしていると思われる。そのため本腫瘍の症状の自覚から初診までの経過期間は比較的長く、上唇部多形性腺腫においても青年期や壮年期の症例で小児の時期より症状を自覚していたものもあり、また鬼塚ら⁹⁾は胎生期より発現していたと考えられる 3 か月女児の下唇の症例を報告している。したがってその発生頻度は少ないものの、早期発見には留意しなければならないものと考えられた。

結 語

今回われわれは 7 歳男児の上唇に発現した多形性腺腫の 1 例を経験したので、その概要に文献的考察を加えて報告した。

引 用 文 献

- 1) Chaudhry, A.P., Vickers, R.A., et al.: Intra-oral minor salivary gland tumors. Analysis of 1414 cases. *Oral Surg* 14: 1194-1226 1961.
- 2) Eveson, J.W. and Cawson, R.A. (1985a) Tumors of the minor (oropharyngeal) salivary glands: A demographic study of 336 cases. *J Oral Pathol* 14: 500-509 1985.
- 3) 梶山 稔, 黒川英雄, 他: 上唇に発生した多形性腺腫の 1 例. *日口外誌* 30: 1000-1005 1984.
- 4) Kauffman, S.L. and Stout, A.P.: Tumors of the major salivary glands in children. *Cancer* 16: 1317-1331 1963.
- 5) Rauch, S.: *Die Speicheldrüsen des Menschen*. Stuttgart, 1959, Georg Thieme Verlag, p354-433.
- 6) 磯貝治喜, 平 博彦, 他: 6 歳女児にみられた口蓋多形性腺腫の 1 例. *口科誌* 35: 329-337 1980.
- 7) 増田 勉, 池田重雄: 所謂皮膚混合腫瘍並に其所謂唾液腺混合腫瘍との関連. *日皮会誌* 75: 1-12 1959.
- 8) 松村耕治, 早津良和, 他: 上唇に発生した多形性腺腫の 1 例 (抄). *日口外誌* 32: 1724 1986.
- 9) 鬼塚謙治, 井口次夫, 他: 3 か月女児の下口唇に発現した多形性腺腫の 1 例 (抄). *日口外誌* 22: 965 1976.