上唇に発生した初期多形性腺腫の1例

土井田 誠・渡辺二三雄・杉山 貴敏*
石丸 純一*・立松 憲親*・岡 伸光*

A case of a small pleomorphic adenoma of the upper lip

Makoto TOIDA・Fumio WATANABE・Takatoshi SUGIYAMA*
Jun-ichi ISHIMARU*・Norichika TATEMATSU*・Nobumitsu OKA*

Abstract: We report a case of an extremely small pleomorphic adenoma of the upper lip in a 62-year-old Japanese female. The tumor measuring 3×1 mm, is the smallest one among the 72 Japanese cases of the lip to be reported in 53 papers published since 1969. Histopathologically, marked proliferation of epithelial and myoepithelial neoplastic cells predominated, with minimal myxomatous or chondromatous characteristics. These findings support the idea that the present tumor may represent a pleomorphic adenoma in the early stages of development.

Key words: pleomorphic adenoma (多形性腺腫), upper lip (上唇)

緒 言

多形性腺腫は唾液腺腫瘍のなかでは最も発生頻度の高い腫瘍であるが、その多くは耳下腺に生じ、頬・口唇・舌などの口蓋腺以外の小唾液腺に関連して発生することは比較的まれである¹⁾。今回われわれは上唇に生じた本腫瘍を1例経験したが、本例では腫瘍の大きさが 3×1 mmときわめて小さく、われわれが検索し得た本邦における口唇発生例のなかでは最小の症例と考えられた。また病理組織学的にも本腫瘍の組織発生や発育段階の初期像を考える上で興味深い所見が認められたのでその概要を報告する。

症 例

患 者: 62歳 女性。
初 診: 平成3年5月■日。

JA岐阜厚生連掛斐総合病院歯科口腔外科・口腔科
(主任: 渡辺二三雄部長・土井田 誠部長)

* 岐阜大学医学部口腔外科学教室
(主任: 岡 伸光教授)

Department of Oral Surgery and Oral Medicine, Ibi General Hospital (Chief: Dr. Fumio Watanabe, Dr. Makoto Toida)

* Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Gifu University School of Medicine (Chief: Prof. Nobumitsu Oka)

受付日: 平成4年10月19日

主 訴: 右側上唇粘膜の小腫瘍。

家族歴: 7年前, 父親が胃癌にて死亡。

既往歴: 特記事項なし。

現病歴: 1か月ほど前, 右側上唇粘膜下に小さなコリコリしたものがあることに気づき, 手術を希望して来科した。

現 症

全身所見: 体格中等度で栄養状態良好。

局所所見: 54)相当の上唇粘膜下に直径約2 mmの境界明瞭, 可動性で弾性軟の腫瘤を触知した。粘膜表面は正常色を呈し, 異常は認められなかった。

臨床診断: 口唇腺の単なる肥大(ただし, 深在性の粘液嚢胞や多形性腺腫など唾液腺腫瘍の可能性も否定できなかった)。

処置および経過: 6月■日, 局所麻酔下に腫瘤摘出術を施行。腫瘤直上の粘膜に縦切開を加え, 鈍的に剝離を行うと腫瘤は周囲組織からきわめて容易に剝離され, 周囲組織には異常が認められなかったため腫瘤のみの摘出を行った。術後経過は良好で1年4か月後の現在も再発は認められない。

摘出物所見: 摘出物は 3×1 mmのごく小さな卵形をした白色調の組織で, 表面は平滑であった。

病理組織所見: 腫瘍は硝子化の高度な厚さ0.2~1.5 mm程度の不均一な厚さの線維性被膜を有し, 被膜内に直径約1 mmの類円形の腫瘍組織本体がみられた(写真1)。腫瘍組織内では腺上皮様/筋上皮様腫瘍細胞が2相性のあきらかな導管様構造を成しながら, あるいは多角

写真1 摘出組織の全体像 (H-E 染色, スケール = 200 μ m)

腫瘍本体 (T) をとりまく被膜 (C) 内にも拡張した腫瘍性導管様構造が散見されるが、被膜外には腫瘍浸潤は認められない。

写真2 腫瘍組織の強拡大像 (H-E 染色)

二相性導管様構造 (d) といわれる daisy flower-like clusters (矢印) を示す。

形腫瘍細胞が蜜に増殖する像が主体を成し、あきらかな粘液腫様部・軟骨腫様部は認められなかったが、腫瘍胞巣間にはこれを分画する硝子様の細胞間マトリックスが少量認められ、一部にこの硝子様物質が放射線状構造を有する小類円形塊状物を形成する部分もみられた (写真2)。また被膜内にもやや拡張した腫瘍性導管様構造物が多数認められ、被膜内浸潤の像を呈していたが、被膜外には口唇腺および若干の筋組織がみられるのみで、腫瘍成分は認められなかった (写真1)。

病理診断：多形性腺腫。

考 察

口唇に発生した多形性腺腫について、梶山ら²⁾は24文献中の34例に自験例1例を加えた本邦例35例について検索を行っているが、その後われわれが渉猟し得た限りでは28文献中49例の報告³⁻³⁰⁾がみられる。梶山らの35例にこの49例と今回の1例を加えた85例について発生部位を

みると、上唇が81例、下唇が4例で、圧倒的に上唇の発生例が多く、これまでの報告と一致していた。81例の上唇発生例のうち患者の性別・年齢に関する記載のあきらかな報告例についてみると、男性27例、女性46例 (不明8例) で女性に多く、年齢に関しては0~9歳が0例、10~19歳が4例、20~29歳が14例、30~39歳が12例、40~49歳が11例、50~59歳が12例、60~69歳が8例、70~79歳が6例、80歳以上が0例 (不明14例) であった。病変に気づいてから来院するまでの期間は1か月以下が5例、6か月未満4例、1年未満3例、2年未満5例、5年未満15例、10年未満7例、20年未満9例、20年以上7例 (不明26例) で1か月以内の来院は55例中本例も含めて5例と少なかった。腫瘍の大きさについては、大きさの表現方法が報告間で異なるため、以下の2通りの方法で集計を行った。すなわち小豆大1例、大豆大6例、小指頭大10例、示指頭大ないし空豆大6例、拇指頭大8例、雀卵大1例、小鶏卵大1例、鶏卵大4例で、大豆大以上が37例中36例で圧倒的に多く、最小のものは林ら¹¹⁾の小豆大の症例であった。また数値のあきらかなものでは、両方の表現方法の記載されている報告もあるため若干の重複があるが、最大長径 5 mm 以下が2例、10 mm 未満7例、15 mm 未満11例、20 mm 未満12例、25 mm 未満7例、30 mm 未満3例、40 mm 未満2例、50 mm 未満1例、50 mm 以上0例で、5 mm 以下の症例は45例中わずかに池田ら²⁶⁾の症例 (直径 5 mm) とわれわれの症例 (3×1 mm) の2例のみであった (両集計間の重複は13例で、総計69例、不明12例)。また下唇症例については大豆大1例、最大長径 10 mm および 20 mm が各1例 (不明1例) で、今回の症例はわれわれの検索し得た本邦における口唇発生例のうち最小の症例と考えられた。一般に口唇の多形性腺腫は他の部位のものと比べて小さい傾向にあるとされている³¹⁾が、これは同部位の異常が他部位に比して早期に自覚・発見され易いことによると思われる。しかしながら今回のように小さなものはきわめて特殊な例であろう。腫瘍は本来増大の一途をたどる病変であるから、多形性腺腫もできるだけ小さなうちに切除するのが望ましい。特に審美性が重視される口唇においては、腫瘍が大きくなるほど術後に醜形を残す危険性も増大するのではおさらである。今回の症例では、患者が早期に異常に気づき、強く手術を希望して早期に来院したことなどにより結果的にほとんど最小といつてよい手術侵襲で腫瘍を摘出することができた。もちろん多形性腺腫に対しては、本来、梶山ら²⁾も述べているように摘出よりも周囲組織を含めて生検を兼ねた切除を行うのが望ましく、病変がもう少し大きければわれわれもそうしていたと思うが、今回のように病変の大きさがあまりにその常識的な範囲を逸脱している場合には誤診を招きやすく、注意が必要と思われる。本腫瘍は良性腫瘍のわりには再発率が高いため³⁾、今後も経過観察を

つづける予定である。

多形性腺腫は一般には粘液腫様あるいは軟骨腫様の細胞間マトリックスに富む領域を多少なりともその組織内に有することを組織学的特徴とし、このマトリックスの本態については、最近の研究により、主に筋上皮細胞に由来する腫瘍細胞によって産生された基底膜成分（ラミニン・Ⅳ型コラーゲン・種々の酸性ムコ多糖等）の蓄積にはかならないことが明らかにされている^{32,33)}が、本例では腫瘍全体がほとんど腺上皮様および筋上皮様腫瘍細胞の密な増殖像によって占められており、細胞間マトリックスはごく少量認められるのみであった。これは白川³⁴⁾のいう上皮成分優勢型（腺腫型）の最極端に相当する像と思われるが、これは腫瘍がごく小さなものであったことも考えあわせ、本腫瘍の組織発生を考える上で興味深い所見と思われる。すなわち多形性腺腫は発育段階初期においては腺上皮/筋上皮性腫瘍細胞の増殖を主体とし、その後、細胞間に基底膜成分に富む大量のマトリックスを産生しながら増殖をつづけ、やがて本腫瘍に特徴的な粘液腫様部や軟骨腫様部を形成するに至るものと考えられた。なお多形性腺腫において比較的にまれにみられるとされる放射線状構造を有する小類円形硝子様塊状物（いわゆる daisy flower-like cluster）³¹⁾が、発育段階初期のものと思われる本例のような小さな腫瘍にも認められたことは特記すべき所見と思われた。

引用文献

- 1) 石川梧朗：唾液腺の腫瘍。石川梧朗監修；口腔病理学Ⅱ。改訂版、永末書店、京都、1982、716-775頁。
- 2) 梶山 稔、黒川英雄、他：上唇に発現した多形性腺腫の1症例。日口外誌 30: 1000-1005 1984。
- 3) 森井栄作、高橋顕仁、他：上口唇に発生した多形性腺腫の1例(抄)。日口外誌 26: 549 1980。
- 4) 深谷周清、滝川幹男、他：上唇に発生した多形性腺腫の1症例(抄)。日口外誌 29: 1161 1983。
- 5) 橋本康司、岡本一起子、他：上口唇に発生した多形性腺腫の1例とその文献的考察(抄)。日口外誌 30: 1078 1984。
- 6) 加藤一栄、玉井健三：上唇に生じた多形性腺腫の1例。日口外誌 30: 861-864 1984。
- 7) 北島 正、服部 徹、他：口唇多形性腺腫における臨床的問題点一症例ならびに手術方針に関する考察一。日口外誌 31: 2471-2476 1985。
- 8) 大浦教一、杉原一正、他：上唇に発生した多形性腺腫の2例。日口外誌 31: 2608-2611 1985。
- 9) 枝松 満：上口唇部に発生した多形性腺腫の1例。山形県病医誌 19: 57-59 1985。
- 10) 川俣智子、久代秀郎、他：上唇に発生した多形性腺腫の1症例。日口外誌 32: 873-877 1986。
- 11) 林 英昭、関川嘉昭、他：上唇に発生した多形性腺腫の3例(抄)。口科誌 35: 1192-1193 1986。
- 12) 高沢一良、船本長一郎、他：稀な上唇多形性腺

腫の1症例。金医大誌 12: 297-302 1987。

- 13) 松村耕治、早津良和、他：小児の上唇に発生した多形性腺腫の1例。日口外誌 33: 171-174 1987。
- 14) 辻 雅明、吉田憲司、他：上唇ならびに右側上顎小白歯齦肉頰移行部に発生した多形性腺腫の2症例(抄)。口科誌 37: 812-813 1988。
- 15) 奥田 孝、土井田 誠、他：小唾液腺由来の多形性腺腫の3症例とその病理組織像の比較。日口外誌 34: 248-255 1988。
- 16) 片倉 朗、高木多加志、他：口唇に発生した多形性腺腫の5例(抄)。日口外誌 34: 2912-2913 1988。
- 17) 国府田英敏、片倉 朗、他：下唇に発生した多形性腺腫の1例(抄)。口科誌 38: 1355 1989。
- 18) 山本 学、山本 修、他：上唇および頬部に発生した多形性腺腫の2症例。日口外誌 35: 925-929 1989。
- 19) 高山泰雄、牛久保佳郎、他：小唾液腺（頬部、上唇）に発生した多形性腺腫の5例。日口外誌 35: 1320-1326 1989。
- 20) 野村俊夫、岡田正明、他：上唇に発現した混合腫瘍の1例(抄)。日口外誌 35: 1663 1989。
- 21) 平野吉雄、大西正則、他：上唇に発現した多形性腺腫の1例—電子顕微鏡所見を中心に—。日口外誌 35: 1822-1826 1989。
- 22) 坂下英明、宮田 勝、他：上唇に発生した多形性腺腫の2例。日口外誌 35: 2921-2925 1989。
- 23) 柴崎 信、星 秀樹、他：上唇部に発生した多形性腺腫の1例(抄)。日口外誌 36: 222 1990。
- 24) 宮腰哲二、臼井康裕、他：上唇に発生した多形性腺腫の6例(抄)。日口外誌 36: 2197 1990。
- 25) 村上徳夫、内海俊明、他：上唇に生じた多形性腺腫の1例(抄)。日口外誌 37: 919 1991。
- 26) 池田洋一、森川雅之、他：頬部および上唇の多形性腺腫の4例。日口外誌 37: 1517-1522 1991。
- 27) 宮田 勝、坂下英明、他：上唇に発生した多形性腺腫の2症例(抄)。口科誌 40: 712 1991。
- 28) 龍田恒康、竹島 浩、他：上唇に発生した多形性腺腫の1例(抄)。日口外誌 37: 2209 1991。
- 29) 堀江憲夫、緒方慶治、他：上唇にみられた多形性腺腫の1例(抄)。日口外誌 37: 2252 1991。
- 30) 岡村晶子、岡沢恵子、他：上唇に発生した多形性腺腫の3例(抄)。口科誌 41: 597-598 1992。
- 31) Thackray, A.C. and Lucas, R.B.: Tumors of the Major Salivary Glands. 1st Ed, AFIP, Washington, DC, 1974, p 16-39。
- 32) 土井田 誠、赤尾清剛、他：唾液腺腫瘍の基底膜・間質成分の免疫組織化学的研究。結合組織 18: 71-85 1986。
- 33) 竹内 純：唾液腺腫瘍にみられる細胞間マトリックス（粘液様物質）の特色。石川栄世、牛島有、遠城寺宗知編集；外科病理学。第2版、文光堂、東京、1990、152-153頁。
- 34) 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。