口蓋に発生した乳頭状嚢腺腫の1例

石井宏昭・笠原英生・佐々木眞一
松本康博・松浦正朗・瀬戸皖一

A case of papillary cystadenoma of the palate

Hiroaki ISHII・Hideo KASAHARA・Shinichi SASAKI
Yasuhiro MATSUMOTO・Masaroh MATSUURA・Kanichi SETO

Abstract: We describe a 28-year-old man with a papillary cyst adenoma arising in the hard palate. The patient came to the hospital for further evaluation of a mass in the hard palate. MRI examination revealed a mass in the hard palate and signs of bone resorption. The mass was enucleated in a single mass under general anesthesia. The histopathological diagnosis was a papillary cyst adenoma. Forty-two months have passed since the operation, and the patient's progress has been good, without any signs of recurrence.

Key words: papillary cyst adenoma (乳頭状嚢腺腫), minor salivary gland (小唾液腺), palate (口蓋)

緒 言

腺上皮が種々の形の広い管腔を囲んで増殖し、腔内への乳頭状の突出を示すものを乳頭状嚢腺腫 (papillary cystadenoma) といい、乳頭状増殖のないものは単に嚢腺腫 (cyst adenoma) と呼ばれている¹⁾。本腫瘍はまれな良性腫瘍で甲状腺、卵巣などに発生するが口腔領域での報告は非常に少ないとされている。今回われわれは口蓋に発生した乳頭状嚢腺腫の1例を経験したのでその概要を報告する。

症 例

患 者：28歳，男性。

初 診：平成4年7月■日。

主 訴：口蓋部の腫脹。

現病歴：平成4年7月，歯科治療のため某歯科を受診したところ左口蓋の腫瘤を指摘され，精査目的にて当科に紹介されて来院した。

既往歴，家族歴：特記事項はない。

現 症：左側口蓋の臼歯相当部に正常粘膜色，周囲との境界比較的明瞭な類円形の腫瘤があり弾性硬の部分と波動様の部分が混在していた (写真1)。

画像検査所見：各種の単純X線写真ならびにパノラマX線写真において骨吸収などは観察されなかった。MRI (T1強調画像) において周囲との境界は比較的明瞭で均一な高信号に描出される充実性の腫瘤が硬口蓋に存在し骨の圧迫吸収を認めたが鼻腔および上顎洞への浸潤はなかった (写真2)。

臨床検査所見：血液一般，生化学，および尿検査では，特に異常値は認められなかった。

臨床診断：小唾液腺良性腫瘍。

処置および経過：患者の都合によりしばらく経過観察を行い平成4年10月■，生検を施行したところ，嚢腺腫との診断を得た。そこで，10月■，全麻下で腫瘍切除術を施行した。骨との剥離は比較的容易で口蓋粘膜とともに腫瘍を一塊として切除した。

現在，術後3年6か月経過しているが再発傾向なく経過良好である。

手術材料所見：切除物は20×20×30mmの卵型を呈した腫瘤であった (写真3)。

病理組織学的所見：腫瘍に明らかな被膜は認められなかったが，比較的均一な結合組織の層により被包され，周囲の正常唾液腺との境界も比較的明瞭であった。

鶴見大学歯学部第一口腔外科学教室
(主任：瀬戸皖一教授)

First Department of Oral and Maxillofacial surgery, school of Dental Medicine, Tsurumi University. (Chief: Prof. Kanichi Seto)

受付日：平成7年9月22日

写真1 初診時口腔内写真
左側口蓋に類円形の腫瘍が認められる。

写真3 摘出物写真
20mm×20mm×30mmの腫瘍。

写真5 病理組織像
（強拡大，H-E染色）

嚢胞壁は1～2層の上皮細胞からなる部分（A）とともに内方に向かって乳頭状増殖している部分（B）が認められた。

写真2 MRI像（T1強調画像）
左側口蓋に境界明瞭な高信号に描出される腫瘍が認められる。

写真4 病理組織像（弱拡大，H-E染色）
大小多数の不規則な形態の嚢胞形成が認められる。

また、腫瘍は比較的緻密な線維性結合組織の中に大小多数の不規則な形態の嚢胞形成が認められた（写真4）。嚢胞壁は1～2層の円柱状あるいは扁平状の上皮細胞からなり、一部内方に向かって乳頭状に腫瘍細胞が充実性に増殖している部分も認められた。しかしながら、結合組織内にリンパ組織の増生は認められなかった（写真5）。

以上の所見より最終的に乳頭状嚢腺腫と診断した。

考 察

1972年のWHOの唾液腺腫瘍の分類²⁾では多形性腺腫に対し単形性腺腫との分類がなされ乳頭状嚢腺腫は単形性腺腫の中の、その他の腺腫に含まれていた。1991年に改定された分類³⁾では単形性腺腫というグループはなくなり多形性腺腫などとともに嚢腺腫として並列して分類され、それはpapillary cystadenomaとmucinous cystadenomaに細分されている。

本腫瘍は腺組織より発生するまれな腫瘍で、口腔領域では耳下腺などの他、きわめてまれに小唾液腺にも発生すると報告されている⁴⁾。

小唾液腺由来の良性腫瘍に占める本腫瘍の発生頻度は、Chaudhryら⁵⁾は800例中16例(2.0%)、Crockerら⁶⁾は26例中2例(7.7%)であったと報告しており、本邦では森本ら⁷⁾が自験例について検討し、57例中1例(1.8%)が本腫瘍であったと述べているが、いずれ

の報告をみてもその発生頻度は低い。木原ら⁴⁾によれば、Skorpil⁸⁾が最初に報告して以来、29例が報告されているにすぎず、自験例を含めてもわずかに30例であった(表1)。この30例について発生部位を検討すると、口蓋10例、頬粘膜が7例と多く、その他に口唇5例、歯肉4例、口底2例、舌下面・口峽咽頭部が各1例であった。また、性差はなく、発生年齢は28歳から78歳にわたり50歳以上が約7割を占め壮年に多い傾向が認められた。自験例はSkorpil⁸⁾の報告とともに最年少であった。組織由来については一般的に唾液腺の介在部導管上皮と考えられており¹⁾、本例においても口蓋部小唾液腺に由来するものと推察された。

鑑別診断にはWarthin腫瘍があげられるが本例にはリンパ組織は存在せず診断は比較的容易であった。

本腫瘍は良性腫瘍であるが、Skorpil⁸⁾は局所破壊性に増殖し、生物学的に悪性の潜在能を有すると述べており、不完全な摘出による再発例も報告されている^{9,10)}。したがって、治療法については十分に周囲健康組織を含めて切除すべきとの報告が多いが、木原ら⁴⁾は本邦での9例中6例に摘出術がなされ、全例再発はないとも述べている。自験例では口腔内所見およびMRIにおいて腫瘍は境界比較の明瞭で類球形を呈し、充実性に均一な高信号を示していた。また、硬口蓋への骨吸収は浸潤様増殖ではなく圧迫様であったことなどから良性腫瘍の可能性が高いと判断した。さら

表1 小唾液腺に由来した乳頭状囊腺腫の報告例

No	発表者	年次	年齢	性別	発生部位
1	Skorpil	1941	78	F	軟口蓋
2	Skorpil	1941	28	F	軟口蓋
3	Stout	1946	50	F	舌下面
4	Hobock	1949	45	F	口蓋
5	Castigliano, et al.	1954	58	M	硬口蓋
6	Vellions, et al.	1955			口蓋
7	Brooks, et al.	1956	31	M	硬口蓋
8	Brooks, et al.	1956	63	M	軟口蓋
9	Collins	1958	74	F	頬粘膜
10	Hornstein	1959	65	M	上唇
11	Chaudhry, et al.	1960	40	F	口底
12	Chaudhry, et al.	1960	40	F	歯肉
13	Chaudhry, et al.	1961	64	M	頬粘膜
14	Calhoun, et al.	1965	51	F	上唇
15	Parnes	1966	53	M	頬粘膜
16	Goldman	1967	58	F	軟口蓋
17	Akin, et al.	1973	53	M	下唇
18	Wilson, et al.	1974	77	M	歯肉
19	森本ら	1977	51	M	硬口蓋
20	Kerpel, et al.	1978	72	F	頬粘膜
21	林ら	1981	41	F	歯肉
22	金城ら	1982	52	F	口峽咽頭部
23	木村ら	1984	49	M	歯肉
24	Kameyama, et al.	1985	73	M	下唇
25	柳澤ら	1987	59	F	口底
26	植野ら	1988	67	M	頬粘膜移行部
27	佐々木ら	1991	71	F	上唇
28	永峰ら	1992	69	F	頬粘膜
29	木原ら	1991	46	M	頬粘膜
30	自験例	1993	28	M	硬口蓋

文献4)より改変

に腫瘍は粘膜下に存在していたので生検は可能である
と考え術前に組織診断を行った後、腫瘍切除術を施行
した。切除後の骨面を観察すると、ほぼ皿状に吸収さ
れていたが表面滑沢であり浸潤破壊を疑わせる所見は
認められなかった。また、病理所見においても周囲組

織への浸潤は観察されず腫瘍は一塊として切除し得た
と考えられるが今後も綿密な経過観察が必要と思われ
た。

結 語

28歳、男性の口蓋に発生し骨吸収を伴った乳頭状囊
腺腫の1例を経験したので報告した。

本論文の要旨は、第38回日本口腔外科学会総会（1993
年11月、新潟市）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．改定版，永末書
店，京都，1990，735-736頁。
2) Thackray, A.C. and Soblin, L.H.:
Histological Typing of Salivary Gland
Tumours. WHO, Geneva, 1972.
3) Seifert, G.: International Histological
Classification of tumours. Histological
Typing of Salivary Gland Tumours.
WHO, Geneva, 11-17, 1991.
4) 木原俊之，楠川仁梧，他：頬粘膜に見られた乳
頭状囊腺腫の1例．口科誌 43: 69-73. 1994.
5) Chaudhry, A.P. and Vickers, R.A., et al.:
Interoral minor salivary gland tumors;
an analysis of 1414 cases. Oral Surg. 14:
1194-1226, 1961.
6) Crocker, D.J., Cavaralis, C.J., et al.:
Interoral minor salivary gland tumors:
report of thirtyeight cases. Oral Surg. 29:
60-68, 1970.
7) 森本忠三，辻本守孝，他：小唾液腺腫瘍の臨床
統計的観察．日口外誌 23: 864-869 1977.
8) Skorpil, F.: Uber das Cystadenoma
papillare der grossen und Kleinen
Speicheldrusen. Frankfurt Ztschr Path 55:
39-59 1941.
9) Brooks, H.W., Heibert, A.E., et al.: Papil-
lary cystadenoma of the palate; a review
of the literature and report of two new
cases. Oral Surg. 9: 1047-1050 1956.
10) 金城 孝，小池正夫，他：口峽咽頭部に生じた
乳頭状囊腺腫の1例．日口外誌 28: 1788-1790
1982.