9歳女児の口蓋にみられた多形性腺腫の1例

小林 明子・小林 裕・石井 純一・木野 孔司
吉増 秀實・天笠 光雄

A case of pleomorphic adenoma of the palate in a 9-year-old girl

Akiko KOBAYASHI・Yutaka KOBAYASHI・Junichi ISHII

Koji KINO・Hidemi YOSHIMASU・Teruo AMAGASA

Abstract: Pleomorphic adenoma arises very rarely in the palate of children, although it is the most common benign salivary gland tumor in adults. This paper describes a case of pleomorphic adenoma arising in the palate of a 9-year-old girl. She was referred to our hospital for evaluation of a swelling in the right side of the palate. The clinical diagnosis was a benign palatal tumor. Histopathological examination of a biopsy specimen, taken with the patient under local anesthesia, revealed a pleomorphic adenoma. The tumor was removed under general anesthesia, and macroscopic examination disclosed a firm, opaline, encapsulated nodule. The microscopic diagnosis of the entire nodule was also pleomorphic adenoma of a palate. Healing was completed by 50 days after the operation, and there has been no clinical evidence of recurrence as of 30 months there after.

Key words: pleomorphic adenoma (多形性腺腫), children (小児), minor salivary gland (小唾液腺)

緒 言

多形性腺腫は比較的高頻度にみられる唾液腺腫瘍であるが、小児ではまれであり、そのほとんどは耳下腺に発生している。今回われわれは9歳女児の口蓋小唾液腺に発生した多形性腺腫を経験したので報告する。

症 例

患 者：9歳 女児

初診日：1995年1月■日

主 訴：右側口蓋部の膨隆

家族歴および既往歴：特記事項なし

現病歴：1995年1月■日歯科の定期検診で右側口蓋部の膨隆を指摘され、紹介により当科を受診した。

現 症：身長137.3cm、体重32kg。右側硬軟口蓋移行部に20×28mmの境界明瞭、弾性硬の腫瘤を認めた。

被覆粘膜は平滑で正常色を呈し、圧痛など自覚症状はなかった(写真1)。

画像所見：口腔内より行った超音波診断では右側硬口蓋に18×24×15mmの内部エコー不均一な像を認め、骨の圧迫吸収が疑われた(写真2)。CT像では右側口蓋に直径12mmの境界明瞭な腫瘤が認められ、右側上顎臼歯部歯槽突起口蓋側皮質骨および鼻腔底の骨の圧迫吸収がみられた(写真3)。

臨床検査所見：一般血液検査、血清生化学検査などに異常所見を認めなかった。

臨床診断：右側口蓋良性腫瘍の疑い

処置および経過：1995年2月■日の生検にて多形性腺腫と診断されたことから、同年5月■日全身麻酔下にて右側口蓋腫瘍切除術を施行した。腫瘍周囲5mmの健常域を含めて切開し、上方は骨膜および腫瘍の被膜を含め剥離切除した。圧迫吸収により陥凹していた骨は骨バーにて一層削除した。術創にアクロマイシン含有軟膏ガーゼを置き、シーネにて圧迫止血した。術後7日目にシーネおよび軟膏ガーゼを除去し、経口摂取とし、術創は術後50日でほぼ上皮化した。術後2年間再発などの徴候を認めず、良好に経過し、上顎歯列にも

東京医科歯科大学歯学部口腔外科学第一講座

(主任：天笠光雄教授)

First Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Faculty and Dentistry, Tokyo Medical and Dental University (Chief: Prof. Teruo Amagasa)

受付日：平成9年12月19日

写真1 口腔内写真
右硬軟口蓋に膨隆をみとめる。

写真2 水浸法による口腔内からの超音波像
後部エコーの増強がみられ骨の圧迫吸収が疑われた(矢頭)。

写真3 CT像
腫瘍による骨の圧迫がみられる(矢頭)。

写真4 切除物剖面
境界明瞭な充実性の腫瘍であった。

写真5 病理組織像
HE染色。腫瘍細胞が索状胞巣状に増殖しており、管腔形成もみられた。

異常を認めず、7]の萌出が確認された。

切除物肉眼所見：線維性被膜に被覆された境界明瞭な卵円形の腫瘍で、剖面は乳白色、充実性であった(写真4)。

切除物の病理組織学的所見：腫瘍は粘膜側を除いて線維性結合組織に被包されていた。腫瘍組織は索状、胞巣状に増殖し、管腔形成もみられた。間質は軟骨粘液腫様な線維組織が主体で部分的に脂肪組織が介在していた。細胞異型は認めず、生検と同様に多形性腺腫の所見であった(写真5)。

考 察

小児の唾液腺腫瘍は多形性腺腫、粘表皮癌が多いとされているが、15歳以下の小児における唾液腺腫瘍はまれであり、10歳未満ではさらに少ない^{1~4)}。Castroら²⁾によれば大唾液腺腫瘍2,135例中16歳以下が1.7%、小守ら³⁾によれば全唾液腺腫瘍469例中16歳以下が2.1%と報告されている。小児多形性腺腫の好発部位は成人同様耳下腺で、口蓋の発症は少なく^{1, 4~6)}、10歳以

下では1996年以前に国内外で10例の報告があるのみである(表1)。これによると不明の1例を除いて男女比は1:8で女兒が多く、病理組織像は成人と大差はない^{3~5, 7~13)}。他の大唾液腺も含めた小児の多形性腺腫では、男女比が1:1.7から1:2^{3, 4, 13)}で女兒の発生頻度が若干多く報告されているが、口蓋では圧倒的に女兒の報告例が多い。

小児の口蓋における多形性腺腫は、疾患の発生そのものが少ないのに加えて、小児であるために口腔内の自覚症状に乏しく、親や医師、歯科医師などの指摘により本疾患に気付くことが多い。したがってこのような機会がないと受診に至らないことも報告症例数が少ないことの一因と考えられた。本例でも小児の口腔内では決して小さくない腫瘍であるが、患者自身の自覚症状はないままに経過していた。

切除物は肉眼的にも病理組織学的にも成人のものと差はないと報告されているが³⁾、本症例も同様に線維性結合組織に被包された乳白色、充実性の腫瘍であり、境界は明瞭で容易に骨から剥離された。口蓋の被覆粘

表1 小児口蓋多形性腺腫の報告例

報 告 者	年齢	性	部位	大きさ (cm)	経 過
Byars ら (1957) ⁴⁾	9	—	硬 口 蓋	—	5年後再発により手術. その後28年間再発なし.
小守ら (1977) ³⁾	10	女	硬 口 蓋	1.5×1.5	—
	8	女	硬 口 蓋	2.5×2.0	—
山上ら (1981) ⁷⁾	9	女	右硬軟口蓋	2×3.5×2	術後2年再発なし.
McIlveen ら (1987) ⁸⁾	7	女	左 硬 口 蓋	2×1×1	—
Lack ら (1988) ⁹⁾	10	男	軟 口 蓋	2.0	切除組織断端に腫瘍細胞がみられたため3週間後再手術. その後5年間再発なし.
Austin ら (1992) ¹⁰⁾	10	女	右 口 蓋	2×3	術後1年再発なし.
Fonseca ら (1991) ¹¹⁾	8	女	軟 口 蓋	—	—
Noghreyan ら (1995) ¹²⁾	8	女	硬 口 蓋	—	術後1年6か月再発なし.
Courten ら (1996) ¹³⁾	10	女	右 硬 口 蓋	2.3×2.0	術後9年再発なし.
自験例 (1997)	9	女	右硬軟口蓋	2.0×2.8	術後2年6か月再発なし.

膜上皮は正常な重層扁平上皮であった。多形性腺腫の病理組織像はさきめて多彩であるが⁶⁾、本症例では腔内に好酸性分泌物を伴った腫瘍細胞による管腔形成と軟骨粘液腫様線維組織による間質が認められ、成人における多形性腺腫と同様の病理組織所見であった。

多形性腺腫の治療法は外科的切除とされているが、腫瘍組織片特に軟らかい粘液腫様組織が創面にこぼれて後に再発する場合もあるとの報告があり^{4, 6)}、十分に注意しながら切除すべきであると考えられた。小児の口蓋における多形性腺腫の悪性化例は報告されていないが、再発例は報告されているため長期にわたる経過観察が必要である^{4, 14)}。また Courten らは術後9年で摘出部位に小さなくぼみがみられるのみと報告しているが¹³⁾、小児では癒痕形成による歯列不正が出現する可能性も考えられるため、成長にともなう経過観察も必要である。本症例は2年6か月後の現在も経過良好であるが、さらに長期にわたる経過観察を行うつもりである。

結 語

今回われわれは9歳女児の口蓋部にみられた多形性腺腫の1例を経験したので若干の考察を加えて報告した。

引 用 文 献

1) Krolls, S. O., Trodahl, J. N., et al: Salivary gland lesions in children. A survey of 430 cases. *Cancer* 30 : 459-469 1972.
2) Castro, E. B., Huvos, A. G., et al: Tumors of the major salivary glands in children. *Cancer* 29 : 312-317 1972.
3) 小守 昭, 高城 功, 他 : 小児の唾液腺腫瘍. *口病誌* 44 (2) 93-100 1977.
4) Byars, L. T., Ackerman, L. V. et al: Tumors of salivary gland origin in children.

A clinical pathological appraisal of 24 cases. *Ann Surg* 146 : 40-51 1957.
5) Galich, R: Salivary gland neoplasms in children. *Arch Otolaryngol* 89 : 878-892 1969.
6) 石川 梧朗 : 口腔病理学Ⅱ. 永末書店, 東京, 1982, 718-728.
7) 山上隆裕, 小林一光, 他 : 小児の口蓋に発生した多形性腺腫の1例—小児の唾液腺腫瘍に関する文献的考察—. *日口外誌* 27 (1) 125-131 1981.
8) McIlveen, L. P., Sharp, H. K.: Pleomorphic adenoma of a minor salivary gland: report of a case. *Quint Int* 18 (3) 211-213 1987.
9) Lack, E. E., Upton, M. P.: Histopathologic review of salivary gland tumors in childhood. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg* 144 : 898-906 1988.
10) Austin, J. R., Crockett, D. M.: Pleomorphic adenoma of the palate in a child. *Head Neck* 14 : 58-61 1992.
11) Fonseca, I., Martins, A. G. et al: Epithelial salivary gland tumors of children and adolescents in southern Portugal. *Oral Path* 72 : 696-701 1991.
12) Noghreyan, A., Gatot, A.: Palatal pleomorphic adenoma in a child. *J Laryngol Otol* 109 : 343-345 1995.
13) de Courten, A., Lombardi, T.: Pleomorphic adenoma of the palate in a child: 9-year follow-up. *Int J Oral Maxillofac Surg* 25 : 293-295 1996.
14) Malone, B., Baker S. R.,: Benign pleomorphic adenomas in children. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 93 : 210-214 1984.