小児の口底に多発した粘液腫の1例

境野 秀 宣・長尾由実子・関 直 子
楠 川 仁 悟・亀 山 忠 光A case report of multiple myxoma arising
in the floor of the mouth in a childHidenori SAKAINO・Yumiko NAGAO・Naoko SEKI
Jingo KUSUKAWA・Tadamitsu KAMEYAMA

Abstract: Myxoma of oral soft tissue is extremely rare. It occasionally occurs in the mouth floor. We describe a case of myxoma associated with multiple polypoid masses in a child. The patient was a 13-year-old Japanese boy who had already had a polypoid mass located at the right side of the floor of the mouth at birth. When he was 8 years old, three polypoid masses newly appeared. Because the masses showed no evidence of growth, they were not treated until the patient was referred to our hospital. All masses were smooth-surfaced, fresh red, elastic-soft, and unrelated to salivary gland ducts. The masses were excised under local anesthesia. Histopathological examination of the specimen revealed loosely arranged spindle or stellate cells in edematous connective tissue beneath the mucosal epithelium. The diagnosis was a myxoma of soft tissue. There has been no evidence of recurrence as of 3 years after operation.

Key words: myxoma (粘液腫), soft tissue (軟組織), oral cavity (口腔), oral focal mucinosis (該当語句無し), fibroepithelial polyp (線維上皮性ポリープ)

結 言

口腔軟組織の粘液腫はまれとされ、その本態もはっきりしていない。

今回われわれは、小児の口底に発生した多発性ポリープという特異な病態像を呈した粘液腫の1例を経験したので報告する。

症 例

患 者：■■■，男児。

久留米大学医学部口腔外科学教室

(主任：亀山忠光教授)

Department of Oral Surgery, Kurume University
School of Medicine (Chief: Prof. Tadamitsu
Kameyama)

受付日：平成9年5月21日

初 診：平成■■年■■月■■日。

主 訴：右口底部の腫瘍形成。

既往歴，家族歴：特記事項なし。

現病歴：生下時より舌小帯右側に1個の腫瘍形成を認め、さらに5～6年前より、新たに右口底部に3個の腫瘍形成が認められた。同部に増大傾向や痛みがないため放置していたが、歯科治療時に指摘を受け、当科を紹介された。

現 症：

全身所見：身長157cm，体重45kgで、その他特記事項なし。

局所所見：口腔外には特記すべき所見なく、口腔内は右舌下小丘部に大豆大腫瘍(8×6×6mm)1個、右口底部小白歯相当部に小豆大腫瘍(5×4×4mm)1個、その遠心に隣接して米粒大腫瘍(各径3mm)2

写真1 初診時口腔内(13歳時)

写真3 舌小帯右側腫瘍の病理組織像
(H-E 染色, 弱拡大) 写真2 切除物ならびに断面
(左側は右口底部小白歯相当部腫瘍
右側は舌小帯右側腫瘍) 写真4 舌小帯右側腫瘍の病理組織像
(H-E 染色, 強拡大)

個の計4個を認めた(写真1). 腫瘍はすべて類円形, 有茎性で, その表面は平滑, 鮮紅色を呈し, 触診では弾性軟, 圧痛および圧接による退色は認めなかった. また, いずれの腫瘍も舌下腺, 導管との連続性は認められず唾液分泌障害も認めなかった.

臨床検査所見; エコー検査では, 唾液腺との連続性はなく, 表在性で他の臨床検査にも, 特に異常は認めなかった.

臨床診断: 口底部多発性ポリープ.

処置および経過: 平成■年■月■日, 当科外来にて, 局所麻酔下に4個の腫瘍を別々に粘膜上皮を含め切除した. 術後3年10か月経過したが, 再発などなく, 右舌下小丘からの唾液の流出も良好である.

摘出物の肉眼的所見; 腫瘍は弾性軟で, 断面は黄白色を呈し, 均一で充実性, 浮腫性の組織であった(写真2).

病理組織学的所見; 病理組織学的検索は, ヘマトキシリンエオジン染色, アルシアンブルー染色, ムチカルミン染色, 銀染色などに行った. ヘマトキシリンエオジン染色では, 4つの腫瘍はすべて上皮下に胞体

の乏しい紡錘形ないし星状の細胞を有する疎な浮腫性の線維性結合組織の錯綜増殖を認めた. 腫瘍内部には大小の血管の介在, 一部上皮下および内部に著明な出血, 散在性の炎症性細胞浸潤, 比較的膠原線維の豊富な部分の混在を認めた(写真3, 4). また, 浮腫性の線維性基質部分のみにムチカルミン弱陽性, アルシアンブルー陽性反応を認め, ヒアルロニダーゼ消化後, アルシアンブルー染色に染色性の減弱を認めたが, S-100蛋白, PAS 染色はいずれも陰性であった. なお脂肪染色および電顕的検索は行わなかった.

以上の臨床的, 病理組織学的所見より, 口底に多発した粘液腫と診断した.

考 察

粘液腫は, 通常顎骨中心性に発生し, 口腔軟組織での発生はきわめてまれで, その本態, 組織由来についても今日まで確たる見解は得られていない. 仁木ら¹⁾による1941年から1991年までの本邦報告例の集計によれば, 総数18例でその数は少なく, 発生年齢は2か月から97歳, 平均43.9歳で, 歯肉12例, 口蓋2例, 舌2例,

頬粘膜1例, 口底1例としている。

一方外国では発生部位については, Woodら²⁾は歯肉, 口蓋に, Elzayら³⁾は頬粘膜, 口蓋, 口底に好発し, 口腔のどこにでも発生するとしている。

本腫瘍の本態については, Stout⁴⁾が胎生期結合織に類似した構造よりなる真の腫瘍と考えているのに対し, Thomaら⁵⁾, 石川⁶⁾, 藤岡⁷⁾は線維腫の粘液変性によるものとしている。これらの見解の相違については, 粘液を産生する粘液芽細胞の存在を認めるか否かが鍵となっており, 前者の立場では, 岡山ら⁸⁾, 植野ら⁹⁾が粘液腫瘍細胞の存在を認めたとし, Harrison¹⁰⁾, Whiteら¹¹⁾は腫瘍細胞の分泌活動を観察し得たとしている。

後者の立場では, 奥井ら¹²⁾は線維芽細胞の変性の最終過程での細胞内容の放出によるものとし, 粘液芽細胞の存在を否定している。また, 阪本ら¹³⁾は, 腫瘍細胞を淡細胞および暗細胞の2種類に大別し, 形態的に線維芽細胞様の性格を有する淡細胞が, コラーゲンを吸収する代わりに粘液成分を産生し, 同時に暗細胞はコラーゲンを吸収することによる粘液変性であるとし, その本態は線維腫と推定している。

本症例においては線維上皮性ポリープと考えたが, ヒアルロン酸産生は確認できたものの, 電顕的検索は行いえず, 細胞成分自身の粘液産生を明らかにする所見は得られなかった。また, 銀染色で細網線維はみられなかった。本疾患に類似する疾患としては, oral focal mucinosisが挙げられる。Tomich¹⁴⁾の報告によると, oral focal mucinosisの8例に詳細な組織化学的検討を加え, 未知の刺激因子により線維性組織の過剰なヒアルロン酸産生をきたした疾患と推定している。さらに, 粘液腫が局所浸潤傾向を示したり, 周囲組織との境界が不明瞭であるのに対し, 境界が比較的明瞭であり, 銀染色で細網線維が証明されないことで鑑別できるとしている。また, 外陰部, 肛門では, これに類似する病名に対し, 線維上皮性ポリープとの概念があり, 組織学的には正常な上皮に被覆された浮腫性の結合織の増生による単発, あるいは多発性の腫瘤形成をみるもので, 組織学的所見は粘液腫, oral focal mucinosisときわめて類似している。本症例の病名としては線維上皮性ポリープが最も妥当と考えられるが, 詳細な組織化学的な報告がみられず, 口腔領域での報告がまだみられない点から, 粘液腫と診断した。しかし, これらの異同については今後症例を積み重ねてさらに検討する必要があるものと考え。粘液腫の多発について言及した報告はきわめてまれで, 西川ら¹⁵⁾の口蓋, 口唇のほか, 腋下, 陰囊, 肛門など全身に多発し, 家族性発生を記載した1例をみるのみである。しかし, 本症例では家族内発生はみられず, 身体他部の発症もみられなかった。このような小児の口底に多発した粘液腫もしくは線維性病変の報告はみられず, このよう

な病変の発現, 多発の意義は明らかにはならなかった。

結 語

今回われわれは, 小児の口底に発生した多発性ポリープという特異な病態像を呈し, 組織学的に粘液腫と診断された1例を経験し, 若干の文献的考察を加え, その概要を報告した。

本論文の要旨は第27回日本口腔科学会九州地方部会において発表した。

引 用 文 献

- 1) 仁木 寛, 杉村智行, 他: 口底に生じた粘液腫の1例. 日口外誌 37: 1063-1064 1991.
- 2) Wood, N.K., Goaz, P.W.: Differential diagnosis of oral literature. ed 2, Mosby Co, St Louis, 1980, p135.
- 3) Elzay, R.P., Werner, D. and Richmond, Va.: Myxoma of the paratal-oral soft tissues. Oral Surg 45: 246-254 1978.
- 4) Stout, A.P.: Myxoma, the tumor of primitive mesenchyme. Ann Surg 127: 706-719 1948.
- 5) Thoma, K.H. and Goldman, H.M.: Central myxoma of the jaw. Am J Orthod and Oral Surg 33: 532-540 1974.
- 6) 石川 梧朗: 口腔病理学Ⅱ. 永末書店, 京都, 1982, 493頁.
- 7) 藤岡幸雄: 中心性顎骨線維腫の種々相について. 口科誌 9: 323-333 1959.
- 8) 岡山秀昭, 伊藤隆利, 他: 電顕的に観察した粘液線維腫の1例. 日口外誌 19: 491-495 1973.
- 9) 植野 茂, 覚道健治, 他: 電顕的に観察した粘液線維腫の1例. 一特に細胞質内 collagen fibrin とその由来について. 日口外誌 25: 1093-1102 1979.
- 10) Harrison, J.D.: Odontogenic Myxoma: Ultrastructural and histochemical studies. J Clin Path 26: 570-582 1973.
- 11) White, K.D., Chan, S.Y., et al.: Odontogenic myxoma: A clinical and ultrastructural study. Oral Surg 39: 901-917 1975.
- 12) 奥井 寛, 長畑 光, 他: Central fibroma のいわゆる myxomatous change に関する電顕的観察. 日口外誌 22: 805-811 1976.
- 13) 阪本貴司, 植野 茂, 他: 粘液線維腫の電顕的および細胞化学的観察. 歯科医学 53: 532-536 1990.
- 14) Tomich, C.E.: Oral focal mucinosis. Oral Surg 38: 714-724 1974.
- 15) 西川益利, 西川恵子: 全身に多発した粘液線維腫例. 耳鼻臨 84: 809-812 1991.