歯肉頬移行部に発生した筋上皮腫の1例

藤森 優子・宇都宮忠彦*・吉田 亨
金田 隆**・山本浩嗣*・名倉英明

A Case of Myoepithelioma of the Gingivobuccal Fold

Yuko FUJIMORI・Tadahiko UTSUNOMIYA*・Toru YOSHIDA
Takashi KANEDA**・Hirotsugu YAMAMOTO*・Hideaki NAGURA

Abstract: Myoepithelioma is a relatively rare benign salivary gland tumor that mainly occurs in the palatal or parotid glands. We encountered a rare case of this tumor in the gingivobuccal fold.

The patient was a 54-year-old Japanese woman with a hemispherical globe-shape swelling. Computed tomography (CT) and ultrasonography showed a tumor in the gingivobuccal submucosa; there was no evidence of bone destruction. The tumor was surgically removed under the clinical diagnosis of a minor salivary gland tumor. Histologically, the tumor was composed mainly of plasmacytoid cells without malignant features. It was diagnosed as a myoepithelioma.

In the Japanese literature, 15 cases of myoepithelioma, including our case, have been reported during the past 10 years. The most common sites were the parotid gland (5 cases, 33.3%) and palate (5 cases, 33.3%). To our knowledge, this is the first case of a myoepithelioma arising in the gingivobuccal fold to be reported in the Japanese literature.

Key words: myoepithelioma (筋上皮腫), gingivobuccal fold (歯肉頬移行部), imaging diagnosis (画像診断)

緒 言

筋上皮腫は筋上皮細胞由来の良性唾液腺腫瘍であり、発生頻度が低く、全唾液腺腫瘍中の約1%以下¹⁾である。好発部位が耳下腺や口蓋の小唾液腺²⁾であり、歯肉頬移行部の症例はまれであった。今回われわれは歯肉頬移行部に発生した筋上皮腫を経験し、臨床的および病理組織学的検討を行い、若干の文献的考察を加えたので報告する。

症 例

患 者：54歳，女性。

初 診：1998年7月■日。

主 訴：左側上顎歯肉頬移行部の腫瘍。

既往歴，家族歴：特記事項なし。

現病歴：1993年頃，当該部の腫瘍を自覚したが，疼痛が

ないため放置していた。最近になって腫瘍が気になり，近医歯科を受診し精査・治療目的で当科を紹介され来院した。

現 症：当該部に小指頭大，半球状で淡赤色，弾性軟，可動性の腫瘍を認めた(写真1矢印)。

超音波画像所見：左側鼻翼部の歯肉頬移行部に境界明瞭な1.1×0.5cm大の類円形の低エコー領域が認められた。病巣内部は一部高エコー域がみられ，充実性腫瘍が疑われた(写真2A)。

単純CT所見：体軸横断像で，左側頬部に筋肉よりやや高濃度の腫瘍が認められた。周囲皮質骨に破壊性骨吸収像はみられなかった。

臨床診断：小唾液腺由来の腫瘍。

処置および経過：1998年8月■日，局所麻酔下にて腫瘍摘出術を施行した。腫瘍周囲粘膜部から紡錘形に切開線を

日本大学松戸歯学部第1口腔外科学教室
(主任：名倉英明教授)

*日本大学松戸歯学部病理学教室
(主任：山本浩嗣教授)

**日本大学松戸歯学部放射線学教室
(主任：金田 隆教授)

Department of Oral Surgery, Nihon University
School of Dentistry at Matsudo (Chief: Prof.

Hideaki Nagura)

*Department of Pathology, Nihon University
School of Dentistry at Matsudo (Chief: Prof.
Hirotsugu Yamamoto)

**Department of Radiology, Nihon University
School of Dentistry at Matsudo (Chief: Prof.
Takashi Kaneda)

受付日：平成11年9月9日

写真1 初診時口腔内写真

写真2

A: 超音波 (エコー) 写真 B: 摘出物写真

写真3 病理組織写真 (HE 染色)

A: 弱拡大 (×100) B: 中拡大 (×200)

入れ、腫瘍を一塊として摘出した。腫瘍は粘膜下に局限しており、骨との癒着が認められなかった。腫瘍は線維性被膜に覆われており、周囲組織との剥離が比較的容易であった。なお、創面は閉鎖創とした。

摘出物所見；摘出物は肉眼的に $1.0 \times 0.7 \times 0.6$ cm 大、不整球形を示し、断面が灰白色で、充実性細顆粒状を呈していた (写真2B)。

病理組織学的所見；実質は小型で卵円形～楕円形の細胞が胞巣状ないし索状に増殖していた。増殖する細胞の多くは胞体がエオジン好性で、偏在した核を有する形質細胞様細胞からなり、一部に中心性核の多角形ないし短紡錘形細胞も混在していた。間質は線維性結合組織からなり、一部に粘液腫様部も認められた。腫瘍は線維性被膜で囲まれ被膜外浸潤がみられず、既存の頬腺に近接し発育する部位も観察された (写真3A)。腫瘍細胞は核の大小不同や濃染化など若干程度に差を認めるが、細胞異型や核分裂像がみられなかった (写真3B)。

病理組織学的診断：筋上皮腫。

考 察

筋上皮腫は1992年の新しいWHOの唾液腺腫瘍分類により多形性腺腫から独立して取り扱われるようになった疾患

である。組織学的に①紡錘形細胞型 (spindle cell type) ②上皮様細胞型 (epithelioid cell type) ③形質細胞様 (硝子様) 型 (plasmacytoid cell type) ④混合型 (mixed type) に亜分類されている³⁾。自験例は組織学的所見から形質細胞様細胞を主体とし、一部で短紡錘形細胞が存在することから混合型と考えられた。また、組織学的に明らかな細胞異型や核分裂像がみられなかったことから良性腫瘍の範疇であった。

一般に筋上皮腫は耳下腺や口蓋腺に好発するとされている²⁾。われわれが渉猟し得た範囲では、本邦過去10年間における頭頸部領域での本腫瘍の報告は自験例を含めて15例^{1, 2, 4~15)}であった (表1)。発生部位では耳下腺5例 (33.3%)、口蓋腺5例 (33.3%)、顎下腺、上顎洞、舌、歯肉部が各1例 (6.7%) であり、歯肉類移行部における報告は自験例のみであった。好発年齢は50歳代 (平均50.0歳) であり、男女比は男性9例 (60.0%) に対し女性6例 (40.0%) であった。

一方、国外ではBarnesら¹⁶⁾が頭頸部領域における筋上皮腫42例について報告している。発生部位は耳下腺が21例 (50.0%) と最も多く、次いで口蓋11例 (26.2%)、顎下腺5例 (11.8%)、口唇2例 (4.8%)、頬部、歯肉部、臼後部が各1例 (2.4%) であったが、その中に歯肉類移行部原発の筋上

表1 本邦における過去10年間の筋上皮腫の報告例

症例	報告者	発生部位	年齢	性別	再発
1	川辺ら (1991) ⁴⁾	軟口蓋	53	男	(-)
2	松永ら (1993) ⁵⁾	耳下腺	44	男	(-)
3	塚越ら (1995) ⁶⁾	耳下腺	43	男	(+)
4	篠田ら (1996) ²⁾	硬口蓋	70	男	(-)
5	田淵ら (1996) ⁷⁾	顎下腺	38	男	(-)
6	中村ら (1996) ⁸⁾	軟口蓋	59	女	(-)
7	林ら (1996) ⁹⁾	耳下腺	74	男	不明
8	相田ら (1996) ¹⁰⁾	耳下腺	76	男	(-)
9	楯谷ら (1996) ¹⁾	上顎洞	31	男	(-)
10	喜多ら (1997) ¹¹⁾	硬口蓋	39	女	(-)
11	前田ら (1997) ¹²⁾	歯肉	58	女	不明
12	奥山ら (1997) ¹³⁾	舌根部	12	男	(+)
13	神出ら (1998) ¹⁴⁾	硬口蓋	15	女	(-)
14	小関ら (1998) ¹⁵⁾	耳下腺	84	男	(-)
15	自験例 (1998)	歯肉頬移行部	54	女	(-)

皮腫の記載は認められない。したがって、自験例は発生部位的にまれであるといえる。その一因としては、被覆粘膜である頬粘膜が咀嚼粘膜である口蓋や歯肉と比較して腫瘍発生の誘因となる慢性刺激を受けにくいと考えられる。また平均年齢は53歳で、男女比は0.8 : 1.0とやや女性優位であったものの著明な差が認められなかった。以上より自験例は好発年齢および性差に関する国内外の従来の報告⁵⁾とほぼ一致していた。

自験例の組織起源は左側犬歯部歯肉頬移行部から頬粘膜にかけて腫瘍が増大していることから、位置的に頬腺由来と推定される。

筋上皮腫は多形性腺腫に比べ腫瘍の被膜外浸潤を起こしやすく、再発、悪性転化例も報告されている^{5, 8)}。今回、われわれが渉猟した本邦15例のうち術後の経過について報告があったものは自験例を含めて12例であった。このうち再発を認めたのは2例(13.3%)であったが、2例とも悪性であった。悪性筋上皮腫の場合、腫瘍の被膜が不完全であり、腫瘍細胞は異型を呈し周囲組織へと浸潤性、破壊性に増殖するので³⁾、腫瘍摘出術を行った場合、被膜外に細胞が残存し再発しやすい。自験例では細胞の異型性はみられず被膜外浸潤が認められなかったため、再発の可能性は低いと考えられる。また、腫瘍が耳下腺に接していると顔面神経の損傷を恐れるあまり摘出が不十分になりやすいため再発率が高いが、位置的に摘出が行いやすい顎下腺、口蓋、頬部などの再発例はまれとされている¹⁷⁾。筋上皮腫は多形性腺腫と比較して若干再発率が高いが、摘出が比較的容易な歯肉頬移行部ではその率も低いと考えられる。

自験例における術前のCTおよびエコーによる画像所見では腫瘍が粘膜下に限局しており、顎骨の吸収像は認めら

れなかった。また治療までの経過が約5年と緩慢であったことから、臨床所見と合わせ小唾液腺由来の腫瘍を疑った。したがって、手術は粘膜下に限局した同腫瘍の摘出を施行したが、現在術後1年にて再発傾向は認めていない。しかしながら、前述したように筋上皮腫は多形性腺腫に比べ再発、悪性化しやすいため、今後長期間にわたる経過観察が必要となると考えられる。

結 語

54歳女性の左側歯肉頬移行部に発生したまれな筋上皮腫の1例を経験し、若干の文献的考察を加え報告した。

引 用 文 献

1) 楯谷一郎, 杉丸忠彦, 他 : 副鼻腔筋上皮腫例. 耳鼻臨床 89: 1359-1364 1996.
2) 篠田 豊, 連 利隆, 他 : 口蓋に発生した悪性筋上皮腫の1例. 日口外誌 42: 310, 427-429 1996.
3) Seifert, G. and Sobin, L.H.: The World Health Organization's Histological Classification of Salivary Gland Tumors. Cancer 70: 379-385 1992.
4) 川辺良一, 増田元三郎, 他 : 小唾液腺の Plasmacytoid myoeplithelioma - 軟口蓋に生じた1症例とその文献的考察 -. 日口外誌 37: 1055-1062 1991.
5) 松永心子, 出井博明, 他 : Low grade malignancy と考えられる耳下腺筋上皮腫の1例. 口科誌 42: 762-768 1993.
6) 塚越 卓, 大門路子, 他 : 耳下腺悪性筋上皮腫の1例. 形成外科 38: 549-553 1995.
7) 田淵経司, 浅野重之, 他 : 顎下腺筋上皮腫の1症例. 耳喉頭頸 68: 72-75 1996.
8) 中村雅哉, 須永義市, 他 : 悪性唾液腺筋上皮腫の1例. 日臨細胞誌 35: 562-566 1996.
9) 林 雄三, 信藤 肇, 他 : Palisading pattern を示した耳下腺筋上皮腫の1例. 病院病理 13: 106 1996.
10) 相田順子, 岡田 夢, 他 : Reticular myoeplithelioma に類似の組織像を呈した耳下腺腫瘍の1例. 病院病理 14: 60 1996.
11) 喜多 淳, 岩井 大, 他 : 口蓋原発低悪性型筋上皮腫の1例. 耳鼻 43: 30-33 1997.
12) 前田昭太郎, 森山昌樹, 他 : 小唾液腺の Plasmacytoid plemorphic adenoma (所謂 plasmacytoid myoeplithelioma) の一例. 病院病理 15: 55 1997.
13) 奥山晃子, 渡辺雄介, 他 : 舌根部より発生した悪性筋上皮腫例. 耳鼻臨床 90: 325-330 1997.
14) 神出敏彰, 古賀賢三郎, 他 : 口蓋に発生した筋上皮腫の1例. 日口外誌 44: 70-72 1998.
15) 小関孝之, 中野勝彦, 他 : 耳下腺原発悪性筋上皮腫の1例. 市立釧路医誌 10: 180-183 1998.
16) Barnes, L., Appel, B.N., et al.: Myoeplitheliomas of the head and neck: Case report and review. J Surg Oncol 28: 21-28 1985.
17) 市原秀記, 加藤幸弘, 他 : 長時間にわたり再発をくり返し悪性化した頬部多形性腺腫の1例. 日口外誌 42: 424-426 1996.