硬口蓋筋上皮腫の1例：造影CTによる多形性腺腫との鑑別診断

宮本 猛・高木律男・星名秀行
林 孝文*・小田陽平**・朔 敬**

Myoepithelioma of the hard palate: report of a case and
differential diagnosis from pleomorphic adenoma by
post-contrast computed tomography

Takeshi MIYAMOTO・Ritsuo TAKAGI・Hideyuki HOSHINA
Takafumi HAYASHI*・Yohei ODA**・Takashi SAKU**

Abstract: A 65-year-old woman was referred to our clinic in October 1997, because of a swelling at the left side of the hard palate. Clinical examination revealed a well-demarcated submucosal mass, measuring 19×18×10 mm. The mass was enhanced markedly on post-contrast computed tomography (CT) in the early phase, which suggested that the tumor had a rich blood flow. The tumor was surgically removed with the patient under general anesthesia. Histologically, it was an encapsulated tumor composed of a dense proliferation of spindle-shaped cells with a scanty but quite vascular stroma. The pathological diagnosis was myoepithelioma, spindle cell type. There has been no evidence of recurrence as of 1 year 10 months after surgery. The findings of post-contrast CT are characteristic and help to differentiate between myoepitheliomas and pleomorphic adenomas, conditions that have similar clinical features.

Key words: myoepithelioma (筋上皮腫), post-contrast CT (造影CT), pleomorphic adenoma (多形性腺腫), palate (口蓋), vascularity (血管分布)

緒 言 症 例

唾液腺筋上皮腫は、多形性腺腫に類似の臨床的特徴を示す良性上皮性腫瘍であるが、その発生はまれで、頻度は全唾液腺腫瘍の1%以下である¹⁾。病理組織学的には、本腫瘍細胞は導管様構造を形成せず、多形性腺腫より増殖傾向が強いとされるが、術前に両者を鑑別することは困難である。今回、65歳、女性の硬口蓋に発生した筋上皮腫の1例を経験し、本腫瘍における造影CT所見に血管分布の豊富な組織構築がよく反映され、多形性腺腫との術前鑑別点の1つとして重要と思われたので報告する。

患 者：65歳、女性。
初 診：1997年10月。 。
主 訴：左側口蓋部の腫脹。
既往歴：48歳時より高血圧症、55歳時より慢性関節リウマチ、59歳時より十二指腸潰瘍でそれぞれ服薬治療中である。
家族歴：特記事項なし。
現病歴：1995年春頃に、左側口蓋部の腫脹を自覚したが、ほかに症状がないため放置していた。1997年10月、左側下顎臼歯痛について、某歯科を受診した際、左側口蓋部の腫脹を指摘され、当科に精査加療を目的に紹介来院した。なお、この間、腫脹の大きさに変化なかった。
現 症：
全身所見：身長156cm、体重53kg。栄養状態良好。
口腔外所見：顔貌は対称で、左右顎下、頸部リンパ節に異常所見なし。
口腔内所見：567 相当の硬口蓋に大きさ19×18×10mmの境界明瞭、表面平滑な正常粘膜でおおわれた粘膜下腫瘍が認められた。触診にて弾性軟で圧痛はなかった(写真1)。
CT所見：左側硬口蓋を中心に、境界明瞭で、辺縁平滑、内部均一な軟組織陰影がみられ(写真2-A)、造影剤(イオ

新潟大学歯学部口腔外科学第二講座
(主任：高木律男教授)
*新潟大学歯学部歯科放射線学講座
(主任：伊藤壽介教授)
**新潟大学歯学部口腔病理学講座
(主任：朔 敬教授)
Second Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Faculty of Dentistry, Niigata University (Chief: Prof. Ritsuo Takagi)
*Department of Oral and Maxillofacial Radiology, Faculty of Dentistry, Niigata University (Chief: Prof. Jusuke Ito)
**Department of Pathology, Faculty of Dentistry, Niigata University (Chief: Prof. Takashi Saku)
受付日：平成12年2月9日

写真1 初診時口腔内
硬口蓋左側臼歯部相当の境界明瞭な腫瘤。

写真3 摘出物
腫瘍は口腔粘膜下に位置し、断面では、黄白色充実性、線維性被膜で明瞭に境界されている。

写真2 CT像
硬口蓋左側臼歯部の境界明瞭で、ほぼ均一な軟組織造影陰影。

写真4 病理組織像（H-E染色 ×20）
腫瘍は、細胞密度が高く、紡錘形細胞の充実性増殖からなる。腫瘍細胞に多形性はなく、束状に配列していわゆる杉綾模様を呈する。

パミロン®300) 100ml 全量注入直後の段階（早期相）でその内部は比較的均一にかつ高度に造影され、血管豊富な病変が考えられた（写真2-B）。また、同病変周囲皮質骨に軽度の圧迫吸収像がみられたものの、悪性を疑う異常吸収像はみいだされなかった。

臨床診断：口蓋良性腫瘍。

処置および経過：1998年1月、全身麻酔下、腫瘍摘出術を施行。腫瘍周囲に3～5mmの安全域を設定、腫瘍は大口蓋神経血管束を取り囲んでいたが、周囲骨組織との癒着はみられず、一塊として摘出した。摘出腔骨面は陥凹し一部粗造であったが、明らかな骨欠損はみられず、鼻腔への交通はなかった。骨の表層を一層削除し、創面をテル

ダーミス®で被覆後、抗生物質を塗布したガーゼを填塞し、保護床を装着し手術を終了した。術後1年10か月を経過した現在、再発はない。

摘出物肉眼所見：腫瘍は33×27×18mmの線維性被膜で明瞭に被包された充実性で、断面では黄白色を示した（写真3）。

病理組織学的所見：腫瘍細胞は、紡錘形で細胞密度高く増殖していたが、管腔は形成せず、多形性等の悪性所見はなかった（写真4）。渡銀染色やマッソントリクローム染色では、間質の空隙はわずかであったが、腫瘍細胞間に多数の毛細血管が分布していた。

免疫組織化学的所見：ほぼすべての腫瘍細胞にS-100蛋白質およびビメンチンの陽性、平滑筋アクチンおよびケラチンの弱陽性所見がえられた。このほか、多数の毛細血管分布がUEA-Iレクチン結合（写真5-A）と第Ⅷ因子関連

写真5 病理組織像

間質には毛細血管が多数分布している。

A: UEA-I レクチン結合 (×50)

B: 第Ⅷ因子関連抗原染色 (×80)

抗原染色 (写真5-B) で描出された。

病理組織学的診断: 筋上皮腫 (紡錘形細胞型)。

考 察

筋上皮腫は、1943年に Sheldon²⁾ が報告したのが最初とされ、1991年の WHO 分類第二版³⁾ より独立して扱われるようになった唾液腺腺腫の1つである。疾患概念が比較的新しく、その診断についても多少の混乱があったため、これまで誤診されたり、多形性腺腫と診断されていた可能性が指摘されている⁴⁾。

筋上皮腫の好発部位は耳下腺、口蓋小唾液腺で、発生年齢は20～60歳台に多く、性差はとくに認められない^{1, 4)}。病理組織学的には、紡錘形細胞型、形質細胞様細胞型、類上皮細胞型、明調細胞型、およびそれらの混在型に分類される⁵⁾。腫瘍性筋上皮細胞は、形態学的所見と S-100蛋白質、アクチンまたはミオシン等の筋上皮細胞マーカー³⁾ の免疫組織化学的局在を組み合わせることで判定されている⁶⁾。

本例は、被膜があり、細胞異型がないこと、紡錘型細胞に上皮性格があること、管腔形成がなく、S-100蛋白質陽性であることから、筋上皮腫の紡錘形細胞型と診断された。

筋上皮腫の臨床像は多形性腺腫のそれに類似しており、両者にきわだった差異はなく、術前に鑑別することは困難と考えられている⁷⁾。

本症例は、初診時造影 CT 所見 (写真2-B) において、造影剤全量静注直後の早期相の段階で内部がほぼ均一で高度

の造影性を示したことより、血流の豊富な病変が示唆された。毛細血管が多数分布する病理組織学的所見は CT 所見における強い造影性を裏付けるもので、間質成分が豊富であるのに血管分布に乏しい多形性腺腫との鑑別診断に重要な所見である。

現在までに、私達が検索しえた筋上皮腫の報告88例のうちでは、造影 CT 所見の時間的推移と組織学的構築との関係について意図的に検討した報告はない。わずかに川辺ら¹⁾ が紡錘形細胞と形質細胞様細胞の混在した筋上皮腫について、腫瘍内部が不均一に造影されたと報告しているのみである。また耳下腺多形性腺腫の造影 CT 所見としても、Lev ら⁸⁾ の、腫瘍内部の均一な造影性が時間経過とともに増強されるという報告があるにすぎない。したがって組織学的亜型と造影性の経時的変化との関連については、今後症例を集積しさらに検討する必要がある。

筋上皮腫の治療法は切除術が第一選択であるが、症例数は少ないものの、術後の再発例⁷⁾、悪性転化例⁹⁾ も散見されるため、今後も厳重な経過観察が必要である。

結 語

65歳、女性の硬口蓋に発生した筋上皮腫の1例を経験した。造影 CT では、早期相から均一に強く増強され、血流豊富な本腫瘍の組織構築がよく反映され、多形性腺腫との術前鑑別点のひとつとして重要と思われたので報告した。

本論文の要旨は第25回日本口腔外科学会北日本地方会 (1999年5月、新潟市) において発表した。

引 用 文 献

- 1) 川辺良一, 増田元三郎, 他: 小唾液腺の Plasmacytoid myoepithelioma - 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.
- 2) Sheldon, M.H.: So-called mixed tumors of the salivary glands. Arch Pathol 35: 1-20 1943.
- 3) Seifert, G.: Histological typing of salivary gland tumours: WHO International Histological Classification of Tumours. 2nd Ed, Springer-Verlag, Berlin, 1991. p12.
- 4) 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.
- 5) 朔 敬, 周 志瑜: 唾液腺筋上皮腫. 病理と臨床 17: 824-825 1999.
- 6) 国府田英敏, 柿澤 卓, 他: 軟口蓋に発生した悪性筋上皮腫の1例. 日口外誌 44: 574-576 1998.
- 7) Sciubba, J.J. and Brannon, R.B.: Myoepithelioma of salivary glands. Cancer 49: 562-572 1982.
- 8) Lev, M.H., Khanduja, K., et al.: Parotid pleomorphic adenomas delayed CT enhancement. AJNR 19: 1835-1839 1998.
- 9) Palma, S.D. and Guzzo, M.: Malignant myoepithelioma of salivary glands: Clinico-pathological features of ten cases. Virchow Arch A Pathol Anat Histol 423: 389-396 1993.