口蓋部に発生した偽リンパ腫の1例

岡内豊美・吉岡秀郎*・田中徳昭*
竹田宗弘*・古郷幹彦・松矢篤三

A case of pseudolymphoma of the palate

OKAUCHI Toyomi · YOSHIOKA Hideo* · TANAKA Noriaki*
TAKEDA Munehiro* · KOGO Mikihiro · MATSUYA Tokuzo

Abstract: We report a case of pseudolymphoma of the palate. A 55-year-old woman was referred to our hospital because of swelling of 9 years' duration on the left side of the palate. Intraorally, a well-circumscribed lesion measuring approximately 30mm was noted. Radiographically, computed tomography revealed resorption of the maxillary bone, and ^{67}Ga scintigraphy showed abnormal uptake on the left side of the palate. Microscopically, the tumor showed hyperplasia intermingled with lymphoid follicles and interfollicular lesions. The latter consisted of lymphocytes, plasma cells, eosinophils and larger histiocytic cells, none of which showed atypical or neoplastic findings. Immunohistochemically, the lesion consisted of an admixture of cells that were positive for CD45RO, CD20, and S-100 protein.

Key words: pseudolymphoma (偽リンパ腫), palate (口蓋), CD45RO (UCHL1)

緒 言

偽リンパ腫はリンパ球増殖性疾患の良性病変に分類される疾患である¹⁾。本疾患は節外性に発生し、その組織像は一見して悪性リンパ腫に類似していることから偽リンパ腫と呼ばれている²⁾。本疾患が口腔内に発生することはきわめてまれと考えられる。今回われわれは硬口蓋に発生した偽リンパ腫を経験したので、若干の病理組織学的検索を加え報告する。

症 例

患 者：55歳，女性。

初 診：1998年3月

大阪大学大学院歯学研究科統合機能口腔科学専攻顎口腔
病因病態制御学講座（口腔外科学第一教室）

（主任：古郷幹彦教授）

*大阪労災病院歯科口腔外科

（主任：吉岡秀郎部長）

First Department of Oral and Maxillofacial Surgery,
Division of Pathogenesis and Control of Oral Disease,
Course for Integrated Oral Sciences and Stomatology,
Osaka University, Graduate School of Dentistry (Chief:
Prof. KOGO Mikihiro)

*Department of Dentistry and Oral Surgery, Osaka Rosai
Hospital (Chief: Dr. YOSHIOKA Hideo)

受付日：2002年2月14日

採択日：2003年10月28日

主 訴：6,7部口蓋側歯肉の腫脹。

既往歴：特記事項なし。

家族歴：特記事項なし。

現病歴：1989年頃より6,7部歯肉の腫脹を自覚したが、疼痛を伴わないため放置していた。しかし、腫脹が消失しないため1998年3月当科を受診した。

現 症：

全身所見：体格中等度で栄養状態良好であった。

口腔外所見：顔貌および頸部リンパ節に異常所見は認めなかった。

口腔内所見：6,7部相当の口蓋側歯肉から口蓋にかけて直径30mmの境界明瞭で弾性軟の腫脹および7の頬側偏位を認めた。腫脹部の表面は暗紫色を呈していた（写真1）。

画像所見：CT写真では腫脹部に近接した上顎骨に骨吸収が認められるが、上顎洞に異常は認められなかった（写真2）。また、 ^{67}Ga シンチグラフィーでは左側口蓋部に異常集積を認めたが、他臓器には異常集積を認めなかった（写真3）。

臨床診断：上顎腫瘍の疑い。

処置および経過：長期間腫脹が続いていたことより腫瘍性病変を疑い、6,7部口蓋側歯肉腫脹部より試験切除を行った。病理組織学的には、腫脹部の粘膜上皮は錯角化を

写真1 術前の口腔内写真
[67] 部硬口蓋側歯肉に腫脹を認める。

写真2 術前 CT 像
[67] 部口蓋側の上顎骨に骨吸収を認める (矢印)。

写真3 術前 ^{67}Ga シンチグラフィー
左側口蓋部に ^{67}Ga の異常集積を認める (矢印)。

写真4 試験切除標本の病理組織像 (H-E 染色, A: $\times 40$ B: $\times 100$)
粘膜上皮の錯角化を認め、上皮下にリンパ濾胞の形成を伴う肉芽組織の形成、好酸球、リンパ球、形質細胞の浸潤を認める。

伴っており、さらに上皮下にリンパ濾胞の形成を伴う肉芽組織、著明な好酸球、リンパ球、形質細胞の浸潤が認められ、偽リンパ腫の病理診断を得た (写真4)。同年6月[67]部、全身麻酔下に口腔内より腫瘍切除術を施行した。現在手術後3年8か月経過するが、腫瘍の再発は認められていない。

手術標本所見：切除した腫瘍は弾性軟で、36mm $\times$ 26mmの大きさであった。腫瘍断面は充実性で黄白色を呈し、周囲組織との境界は明瞭であった (写真5)。腫瘍は過形成を示す胚中心を伴うリンパ濾胞を多数認め、また間質の一部に硝子化した部分が認められた (写真6A)。リンパ濾胞間構造を構成する細胞はCD20、CD45RO (写真6B)、S-100が陽性で、IgG、IgM、IgA、CD30が陰性であった。以上

から本症例を口蓋部に発生した偽リンパ腫と確定した。

考 察

偽リンパ腫はリンパ球増殖性疾患の良性病変に分類される疾患であり、節外性に発生しその組織像は一見して悪性リンパ腫に類似していることから偽リンパ腫と呼ばれている。偽リンパ腫は病理組織学的に2つのタイプに分類され、1つは過形成を示す胚中心をもつリンパ濾胞構造が多数形

写真5 切除標本の剖面

腫瘍は充実性で黄白色を呈し、周囲組織との境界は明瞭であった。

成されているもので lymphoid (follicular) hyperplasia (以下 LH) であり、もう一方は small lymphoid cell のびまん性増殖をみるものでその中心には胚中心が散在するものである³⁾。本症例は過形成を示す胚中心を伴うリンパ濾胞構造を多数認め、また間質の一部に硝子化した部分が認められ、リンパ濾胞間構造を構成する細胞は CD20, CD45RO, S-100 が陽性で、IgG, IgM, IgA, CD30 が陰性であったことから偽リンパ腫 LH と診断した。偽リンパ腫 LH と鑑別診断を要する疾患としては濾胞性リンパ腫、Castleman 病が挙げられる。濾胞性リンパ腫との鑑別では①濾胞の大きさ、②分裂像、③ tingible body macrophage (染色性の淡い細胞質のマクロファージ) が重要である³⁾。濾胞性リンパ腫では濾胞の大きさ・形は比較的一定であるのに対し、偽リンパ腫 LH では濾胞の大きさ・形は不同である。また、濾胞性リンパ腫では分裂像が少ないのに対し、偽リンパ腫 LH では分裂像が比較的多くみられ、tingible body macrophage は偽リンパ腫 LH では多くみられるが、濾胞性リンパ腫ではほとんどみられない。本症例でも濾胞の大きさ・形は不同であり、分裂像や tingible body macrophage を認めたことから鑑別は可能であった。

Castleman 病は反応性のリンパ節腫大を主徴とする原因不明の比較的まれな疾患であり、病理組織学的所見から hyaline vascular type (以下 HV) と plasma cell type (以下 PC) に分類される⁴⁾。HV, PC とともに基本構造の保たれたリンパ節に濾胞の過形成と、濾胞間の形質細胞および好酸球増殖を認めるが、加えて HV では萎縮性の胚中心と濾胞内外の血管増生が特徴的であり、血管の一部は胚中心にまで侵入し硝子化を呈することもある。PC では血管増生は

写真6

- A 切除標本の病理組織像 (H-E 染色, $\times 200$)
著明な好酸球, リンパ球, 形質細胞の浸潤を認め、一部に硝子化を認める。
- B 切除標本の免疫染色像 (CD45 RO, $\times 200$)
CD45RO 陽性を示す細胞を多数認める。

なく、あっても濾胞間組織のみにとどまり、また濾胞間には顕著な形質細胞浸潤を示すことが知られている^{3, 4)}。本症例では濾胞間には形質細胞、好酸球、リンパ球を認めたが、形質細胞のみの顕著な浸潤は認めず Castleman 病 PC との鑑別は容易であった。また、濾胞内・濾胞間に硝子変性を示す線維性結合組織の増生を認めるものの、著明な血管の増生や硝子化した血管等は認めず、このことから Castleman 病 HV との鑑別は可能であった。

今回われわれが検索し得た限りでは、口腔内原発の偽リンパ腫は 10 症例あり、その発生部位は頬粘膜 2 例、口唇 3 例、舌 2 例、口底 1 例、口蓋 2 例で、男女比は 1 : 4 であった^{5 ~ 11)}。治療法としては外科的切除以外にステロイド投与で治癒したとの報告もある^{6, 7)}。予後は良好で再発症例の報告はない。

偽リンパ腫の原因としては、報告が少ないことや分類の定義が明確でないため原因不明とされているものが多い。本症例では間質に線維組織や硝子変性を伴っていることより、炎症が比較的長期に及んでいたことが考えられ、慢性炎症から生じたものと考えられる。また、今回の文献的検索により偽リンパ腫は眼窩、肺、胃、唾液腺などで報告があることから¹²⁾、腺組織に発生するという共通点が考えられた。また、口腔内の症例でも口唇^{2, 8)}、頬粘膜^{1, 8)}、口蓋^{6, 11)}など小唾液腺が存在する部位であることから腺組織と関連があるのではないかと推測された。

結 語

今回われわれは硬口蓋に発生した偽リンパ腫の 1 例を経験したので、免疫組織学的検討を行い報告した。

本論文の内容の一部は第 10 回日本口腔科学会近畿地方分会

(1998 年 12 月、大阪) にて発表した。

引 用 文 献

- 1) 安田正秀, 馬場道忠, 他: 頬部に発生した pseudo-lymphoma の 1 症例. 耳鼻臨床 78: 123-127 1995.
- 2) 小松弘美, 相場節也, 他: 下口唇の pseudolymphoma. 臨床皮膚科 49: 641-643 1995.
- 3) 青笹克之, 石黒信吾, 他: 治療のための病理診断学. 南山堂, 東京, 1995, 329-345 頁.
- 4) Keller, A.R., Hochholzer, L., et al.: Hyalinevascular and plasma-cell types of giant lymph node hyperplasia of the mediastinum and other locations. Cancer 29: 670-683 1972.
- 5) 松本堅太郎, 井上真樹, 他: 舌ポリープを伴う反応性リンパ球形成 reactive lymphoid の一例. 福岡歯大会誌 24: 285-288 1997.
- 6) 藤岡 学, 吉位 尚, 他: ステロイドが奏功した口蓋 pseudolymphoma の一例 (抄). 日口外誌 40: 41 1994.
- 7) 松割 聡, 藤田顕治, 他: 他臓器に腫瘍形成を認めステロイドが奏功した偽リンパ腫の 1 例 (抄). 口科誌 45: 390 1996.
- 8) del Rio, E., Sanchez, Y.E., et al.: Oral pseudo-lymphoma: a report of two cases. J Cutan Pathol 24: 51-55 1997.
- 9) de Vicente Rodriguez, J.C., Santos Oller, J.M., et al.: Atypical histio-cytic granuloma of the tongue: case report. Br J Oral Maxillofac Surg 29: 350-352 1991.
- 10) Kabani, S., Cataldo, E., et al.: Atypical lympho-histiocytic infiltrate (pseudolymphoma) of the oral cavity. Oral Surg Oral Med Oral Pathol 66: 587-592 1988.
- 11) John, M.W., Arlet, R., et al.: Follicular lymphoid hyperplasia of the hard palate: a benign lympho-proliferative process. Oral Surg 55: 162-168 1983.
- 12) 赤木忠厚, 他編集: 腫瘍病理アトラス—境界病変と鑑別診断—. 医歯薬出版, 東京, 1994, 151-169 頁.