頬粘膜部に発生した乳頭状嚢胞型腺房細胞癌の1例

田野 智之・伊賀 弘起・茂木 勝美
吉田 秀夫・林 良夫*・佐藤 光信

A case of acinic cell carcinoma of papillary cystic type arising in the buccal mucosa

TANO Tomoyuki・IGA Hiroki・MOTEGI Katsumi
YOSHIDA Hideo・HAYASHI Yoshio*・SATO Mitsunobu

Abstract: Acinic cell carcinoma usually arises in the parotid gland and rarely occurs in the minor salivary glands. We report a case of acinic cell carcinoma of papillary cystic type arising in the buccal mucosa. The patient was a 45-year-old woman who had a painless swelling in the right buccal mucosa. The tumor measured 18 × 15 mm and was elastic hard in consistency. The tumor was excised under local anesthesia. Histologically, the tumor appeared to be encapsulated, and the tumor cells were arranged in papillary and partially microcystic patterns. Immunohistochemical examination showed that the tumor cells were positive for S-100 protein, lysozyme, α -antitrypsin, and AE1/AE3 and partially positive for periodic acid-Schiff (PAS). The histopathological diagnosis was acinic cell carcinoma of papillary cystic type. The postoperative course was uneventful, and there was no evidence of recurrence or metastasis 20 months after operation.

Key words: acinic cell carcinoma (腺房細胞癌), papillary cystic type (乳頭状嚢胞型), buccal mucosa (頬粘膜)

緒 言

腺房細胞癌は、漿液性腺房細胞に類似した細胞増殖を特徴とする腫瘍で、頻度は唾液腺腫瘍の約1%で、80%以上が耳下腺に発生する¹⁾。小唾液腺からの発生例はまれである。また、病理組織学的に充実型が最も多く、乳頭状嚢胞型の報告例はきわめてまれである。今回われわれは、頬粘膜部に発生した乳頭状嚢胞型腺房細胞癌の1例を経験したので報告する。

症 例

患 者：45歳、女性。

徳島大学大学院ヘルスバイオサイエンス研究部口腔腫瘍制御学分野

(前主任：佐藤光信教授)

* 徳島大学大学院ヘルスバイオサイエンス研究部口腔分子病態学分野

(主任：林 良夫教授)

Department of Therapeutic Regulation for Oral Tumors, Health Bioscience, Graduate School of Tokushima University (ex-Chief: Prof. SATO Mitsunobu)

* Department of Oral Molecular Pathology, Health Bioscience, Graduate School of Tokushima University (Chief: Prof. HAYASHI Yoshio)

受付日：2006年3月30日

採択日：2007年1月30日

初 診：平成16年7月2日。

主 訴：右側頬粘膜部の腫瘍。

現病歴：平成13年12月頃から右側頬粘膜部の腫瘍を自覚した。平成15年6月に、某外科にて加療を勧められたが、本人の希望で加療していなかった。平成16年6月下旬、近医歯科を受診し、同病変の精査を勧められ、紹介により同年7月2日、当科初診となった。

既往歴：特記事項なし。

家族歴：特記事項なし。

現 症：

全身所見：体格は中等度、栄養状態は良好。

口腔外所見：顔貌は左右対称で、頸部リンパ節に腫脹、圧痛は認めなかった。

口腔内所見：右側頬粘膜部の上顎小白歯相当部に18×15mm大の弾性硬で可動性を有する無痛性の腫瘍を認めた。色調は正常粘膜色を呈する部位と一部暗紫色を呈する部位が認められた。退色反応は認めなかった(写真1)。

CT所見：右側上顎臼歯部頬側に、10×15mm程度の内部不均一な類円形の腫瘍性病変を認める。筋肉と同程度のCT値で、周囲組織との境界は明瞭であった(写真2)。

超音波所見：低エコー信号を示す、境界明瞭な腫瘍として検出された。頬筋より口腔粘膜側に存在し、頬筋との境

写真1 初診時の口腔内写真

右側頬粘膜部に18×15mm大の弾性硬で可動性を有する無痛性の腫瘍(矢印)を認める。

写真2 CT像

右側上顎臼歯部頬側に内部不均一な類円形の腫瘍(矢印)を認める。

界は明瞭であった(写真3)。

臨床診断：右側頬粘膜良性腫瘍。

処置および経過：平成16年7月8日、局所麻酔下に腫瘍摘出術を施行した。腫瘍は薄い被膜で覆われ、周囲との

写真3 超音波像

低エコー信号を呈し、境界明瞭な腫瘍を認める。

写真4 術中写真

腫瘍は薄い被膜で覆われ、周囲組織との癒着もなく容易に摘出された。

癒着もなく容易に摘出された(写真4)。術後の経過は良好であり、術後20か月を経過した現在まで、再発、転移は認めない。

摘出標本所見：摘出標本の表面は凹凸不整、弾性硬であった。

病理組織学的所見：腫瘍は全周にわたり線維性被膜に被覆され、乳頭状、一部小嚢胞状に増殖していた(写真5A, B)。腺房細胞に類似した腫瘍細胞は、大小不整で、明瞭な核小体を有し、一部核分裂像(写真5C)を認めたが、細胞

写真5 病理組織像

(H-E 染色 A : $\times 20$, B : $\times 100$, C : $\times 400$)

腫瘍は全周にわたり線維性被膜に被覆され、乳頭状、一部小嚢胞状に増殖していた (A, B)。腫瘍細胞は腺房細胞に類似し、大小不整で、明確な核小体を有し、一部核分裂像 (C, 矢印) を認めた。

異型は軽度であった。

免疫組織学的所見：腫瘍細胞は、S-100 protein, lysozyme, α -antitrypsin, AE1/AE3 に陽性像を示した。また、PAS 染色では一部に陽性像を示した。Ki-67 の陽性率は 3 ～ 4 % を示した (写真 6)。

病理組織学的診断：乳頭状嚢胞型腺房細胞癌。

考 察

腺房細胞癌は漿液性腺房細胞に類似した細胞増殖を特徴とする腫瘍で、以前は良性の腫瘍と考えられたが、1991 年の WHO 分類¹⁾では、癌腫の一つとして分類されたまれな唾液腺腫瘍である。頻度はまれで、唾液腺腫瘍の約 1 ～ 2.4 % を占めるにすぎない。本腫瘍の約 80 % が耳下腺に発生し、小唾液腺に発生するものは約 13 % である¹⁾。小唾液腺では、口蓋、口唇に続いて頬粘膜が多いと報告されてい

る²⁾。

臨床的には、一般に発育緩慢な無痛性の腫瘍として認められ、多形性腺腫と鑑別できない。しかし、ときには痛みを伴い、また発育の速やかな例もある。肉眼的に周囲組織との境界および線維性被膜の存在は明らかなことも不明なこともある。本症例では、可動性を有する弾性硬で無痛性の腫瘍を形成しており、また CT 所見、超音波所見より周囲との境界は明瞭であった。臨床経過ならびに臨床所見より唾液腺良性腫瘍、とりわけ小唾液腺由来の多形性腺腫を想定し外科的切除術を行った。

本疾患に対する治療法については、放射線療法が有効であったとの報告³⁾もあるが、ほとんどの症例で手術療法が主体とされている²⁾。本症例では病理組織学的に腫瘍が被膜を超えて増殖しておらず、細胞異型も軽度であったこと、また患者がさらなる治療を望まなかったことから、追加治

写真6 免疫組織像

- A : PAS 染色で一部に陽性像を示した (× 400).
 B : S-100 protein 染色で陽性像を示した (× 400).
 C : lysozyme 染色で陽性像を示した (× 400).
 D : α -antitrypsin 染色で陽性像を示した (× 400).
 E : AE1/AE3 染色で陽性像を示した (× 400).
 F : Ki-67 の陽性率は 3 ~ 4 % と低値を示した (× 400).

療は行わず、外来通院による経過観察とした。

本腫瘍は、他の唾液腺悪性腫瘍と比較して予後は良好であり、局所再発率は 8 ~ 36 %⁴⁾、所属リンパ節転移率は 5 ~ 16 %⁵⁾、肺、脊椎などへの遠隔転移率は 3 ~ 13.5 %^{6, 7)}、さらに、5 年生存率は 76 ~ 89 %^{1, 5)} で、一般的に低悪性であるといわれている。しかしながら、5 年以上の経過で再発した症例もあり^{8, 9)}、本症例においても、長期にわたる厳重な経過観察が必要であると思われた。

本腫瘍は病理組織学的には腫瘍細胞の配列様式から、充

実型 (solid pattern)、小囊胞型 (microcystic pattern)、乳頭状囊胞型 (papillary cystic pattern) および濾胞型 (follicular pattern) に分類されている¹⁾。そのうち、漿液性腺房細胞に類似した腫瘍細胞が充実性で均一に増殖する充実型が最も多く定型例とされており、垂型例は少ない^{10 ~ 13)}。われわれが渉猟しえた限り頬粘膜に発生した乳頭状囊胞型の報告は本症例がはじめてであり、きわめてまれなケースであったと考えられる。また、Spiro ら⁵⁾ は、乳頭状囊胞型が最も予後が不良であったと報告しているが、一般的に組

織型と予後との関連はなく^{1, 6)}, 腫瘍を被覆する被膜形成の有無, 手術時の被膜の損傷および腫瘍の浸潤性発育が予後に影響を与えるとされている^{5~7)}.

本症例の組織像では, 大小不整で, 明瞭な核小体を有する腫瘍細胞は, 被覆上皮直下に, 乳頭状の増殖パターンを示していた. 免疫染色において, 腫瘍細胞は腺房細胞のマーカーの一種である S-100 protein, 分泌マーカーの lysozyme, α -antitrypsin および上皮系マーカーのサイトケラチン AE1/AE3 にも陽性像を示した. 以上の結果から, 乳頭状嚢胞型腺房細胞癌との診断が可能であった. さらに, 腫瘍細胞の増殖活性のマーカーである Ki-67 の陽性率¹⁴⁾ が 3~4% と低値を示したことは, 本腫瘍の成長が緩徐であったことに符合し, さらに悪性度も低いことを示唆する所見と考えられた.

唾液腺腫瘍においては, 本症例のように臨床的に良性腫瘍と考えられても, 悪性腫瘍である場合があるので, 生検を含めた注意深い術前診断が必要であると考えられた.

結 語

45 歳女性の頬粘膜に発生した非常にまれな乳頭状嚢胞型腺房細胞癌の 1 例を経験したので報告した.

引 用 文 献

- 1) Seifert, G. and Sobin, L.H.: Histological Typing of Salivary Gland Tumors: In Collaboration with L.H. Sobin and Pathologists in Six Countries. Second Ed, Springer-Verlag, Geneva, 1991, p17-19.
- 2) 宮内美和, 井垣浩一, 他: 有茎性腫瘍を呈したまれ

な臼後部腺房細胞癌の 1 例. 日口外誌 47: 607-610 2001.

- 3) 鶴田至宏, 馬谷克則, 他: 上咽頭 acinic cell tumor の 1 例—上咽頭高線量率腔内照射法による治療法—. 癌の臨床 31: 1319-1326 1985.
- 4) Eneroth, C.M., Jakobsson, P.A., et al.: Acinic cell carcinoma of the parotid gland. Cancer 19: 1761-1722 1966.
- 5) Spiro, R.H., Hurvos, A.G., et al.: Acinic cell carcinoma of salivary origin. Cancer 41: 924-935 1978.
- 6) Abrams, A.M., Cornyn, J., et al.: Acinic cell carcinoma of the major salivary glands. A clinicopathologic study of 77 cases. Cancer 18: 1145-1162 1965.
- 7) Ellis, G.L. and Corio, R.L.: Acinic cell adenocarcinoma. A clinicopathologic analysis of 294 cases. Cancer 32: 542-549 1983.
- 8) 二村好憲, 春日好雄, 他: 小唾液腺原発の腺房細胞癌の 1 例. 日臨外医会誌 54: 365-369 1993.
- 9) 濱口裕弘, 古郷幹彦, 他: 植皮裏装を行った腹直筋皮弁による頬部再建例. 日口外誌 42: 1130-1132 1996.
- 10) 浜尾 綾, 岡田宗久, 他: 頬粘膜部に発生した濾胞型腺房細胞癌の 1 例. 日口外誌 49: 578-581 2003.
- 11) 森 祐介, 青木隆幸, 他: 頬粘膜に発生した小嚢胞型腺房細胞癌の 1 例. 日口外誌 50: 668-671 2004.
- 12) 中屋佳子, 有賀美紀子, 他: 唾液腺腺房細胞癌の捺印細胞診の 2 例. 日臨細胞会誌 37: 486-489 1998.
- 13) 斎藤友克, 大村 進, 他: 進行した上顎腺房細胞癌の 1 例. 日口診誌 11: 453-456 1998.
- 14) 川崎五郎, 柳本惣市, 他: 舌扁平上皮癌症例における Ki-67 抗原の発現と組織学的悪性度評価との関連について. 口科誌 48: 116-120 1999.