症 例

舌に発生した筋上皮腫の1例

神戸労災病院検査科病理¹⁾, 神戸大学医学部病理学第2講座²⁾出射 由香¹⁾ 釜田 里江¹⁾ 平手ゆかり¹⁾ 南 香織¹⁾
北澤 莊平²⁾ 前田 盛²⁾

舌の小唾液腺から発生した筋上皮腫を経験したので報告する。症例は60歳男性で、平成8年7月に当院耳鼻咽喉科を舌腫瘍の精査目的にて受診し、MRIにてT1強調画像で低信号、T2強調画像で不均一な高信号を示す径3cm大の腫瘍を認めた。穿刺吸引細胞診では出現細胞は比較的均一で、孤立性、一部集簇性に存在していた。核は円形、偏在性で一部に大型核を認めた。腫瘍摘出術が施行され、腫瘍は被膜を有し、断面は灰白色充実性であった。組織学的には好酸性の基質が広がり、その間隙に好酸性の胞体と偏在する核を有するPlasmacytoid cellの増生がみられた。免疫組織化学にてS-100、ケラチン、ビメンチン、 α -smooth muscle actinが陽性で、電顕にて腫瘍細胞の胞体内に中間径フィラメントを認めた。以上の所見より筋上皮腫と診断した。唾液腺の穿刺吸引細胞診にてPlasmacytoid cellを認めた場合、頻度としては多形腺腫が多いが、筋上皮腫も鑑別疾患として念頭におく必要があると思われる。

Key words : Myoepithelioma—Aspiration cytology—Tongue—Case report

I. はじめに

II. 症 例

唾液腺から発生する筋上皮腫はまれな腫瘍であり、今までに約100例が報告されているにすぎない¹⁻⁵⁾。今回われわれは舌の小唾液腺から発生した筋上皮腫を経験したので、その穿刺吸引細胞診所見を中心に組織所見、免疫組織化学所見、電顕所見について報告する。

患者：60歳、男性

主 訴：舌根部腫瘍精査

現病歴：平成8年3月全身倦怠感、糖尿病にて近医受診時、舌腫瘍を指摘されるも疼痛、嚥下困難などの自覚症状ないため放置。同年7月に当院耳鼻咽喉科を舌腫瘍の精査目的にて受診。

家族歴：糖尿病

既往歴：肝硬変、糖尿病、副鼻腔炎

画像所見：MRIにて左舌根部にT1強調画像で低信号、T2強調画像で不均一な高信号を示す2.5×2.0×3.2cm大の腫瘍を認めた（Photo.1）。T1強調画像（造影）にて腫瘍は不均一ながらもよく造影されていた。

A case of myoepithelioma of the tongue

Yuka IDEI¹⁾, M.D., Satoe KAMADA¹⁾, C.T., J.S.C., Yukari HIRATE¹⁾, C.T., I.A.C., Kaori MINAMI¹⁾, C.T., J.S.C., Sohei KITAZAWA²⁾, M.D., Sakan MAEDA²⁾, M.D.¹⁾Department of Pathology, Kobe Rosai Hospital of the Labour Welfare Corporation²⁾Second Department of Pathology, Kobe University School of Medicine

論文別刷請求先 ☎ 651-0053 神戸市中央区竈池通4丁目1の

23 神戸労災病院検査科病理 出射由香

平成10年1月16日受付

平成10年4月24日受理

Photo. 1 Magnetic resonance imaging of the head (T2-weighted image). The tumor in the left base of the tongue showed high intensity

III. 病理所見

穿刺吸引細胞診所見

比較的均一な大きさの形質細胞に類似した細胞が孤立性、一部集簇性に出現していた。細胞質は豊富でライトグリーン好性を示し、核は円形で偏在傾向を示しており、クロマチンは細顆粒状で均等に分布しており、1~2個の小型の核小体が認められた。また一部に大型核の細胞も認められた (Photo. 2)。

肉眼所見

腫瘍の大きさは3.7×2.5×3.0 cm、表面は被膜でおおわれており弾性硬であった。剖面は灰白色充実性で、一部に出血によると思われる変色を認めた (Photo. 3)。

組織所見

好酸性の基質が広がり、その間隙に好酸性の豊富な胞体と偏在する核を有する細胞が、索状もしくは充実性に増生していた (Photo. 4)。この細胞はPlasmacytoid cell (hyaline cell) に相当すると考えられた。紡錘形細胞や上皮様細胞は認められず、腺管構造を呈する部分や間質における軟骨様構造も認められなかった。さらに核異型や核分裂像は認められないため筋上皮腫と診断した。

a

b

Photo. 2 Aspiration cytology. a : The tumor cells were comparatively uniform, and distributed scatterly. Some of them had large nuclei. b : The nuclei of the tumor cells were oval, eccentric and their cytoplasm was abundant (Papanicolaou stain, a : ×40, b : ×100)

Photo. 3 Surgical specimen. The tumor was surrounded by a fibrous capsule, and the cut surface was grayish and solid

免疫組織化学

腫瘍細胞はS-100 (Photo. 5)、ケラチン、ビメンチンには全体的に陽性を示したが、 α -smooth mus-

Photo. 4 Light microscopy. The tumor was composed of plasmacytoid cells with round eccentric nuclei surrounded by an abundant eosinophilic cytoplasm. There were eosinophilic stroma between the tumor cells (H-E stain, a: $\times 4$, b: $\times 20$)

cle actin (SMA) には少数の細胞が陽性を示すのみであった。

電顕像

腫瘍細胞間にデスモゾーム接合が認められた。また、胞体内に多数の中間径フィラメントが認められた (Photo. 6)。

IV. 考 察

唾液腺の筋上皮腫は1943年にSheldonが最初に報告したまれな腫瘍であり¹⁾、従来は多形腺腫の亜型とみなされていたが、多形腺腫に比べて局所侵襲性の発育を示すことが多く、悪性化の率も高いので、1991年のWHO分類では独立した疾患として扱われるようになった⁶⁾。最近では免疫染色および電顕的に筋原性分化をみないとの理由より plasmacytoid adenoma の名称が提唱され、使用される傾向にある。

Photo. 5 Immunohistochemical staining (S-100). The cytoplasm of the tumor cells showed positive staining ($\times 20$)

悪性筋上皮腫との鑑別は浸潤破壊性増殖パターンの有無、細胞異型、核分裂像の有無により行われる。本症例では被膜浸潤がなく、細胞異型、核分裂像もみられないため良性と診断した。完全摘出された場合には経過観察でよいが、残存のみられる場合には再発および悪性転化をきたす可能性があるため、追加切除の考慮が必要である。

唾液腺原発の筋上皮腫として報告されている症例は現在まで約100例程度であるが¹⁻⁵⁾、その発生部位としては耳下腺が最も多く、顎下腺さらに口腔内小唾液腺と続く³⁾。小唾液腺の中では口蓋に好発し、舌に発生することはきわめてまれである⁶⁾。一般に小唾液腺腫瘍全体に占める舌発生の頻度は0.5~9%と少なく^{7,8)}、その中でも悪性腫瘍の占める割合が高いことより⁸⁾、今回のわれわれの症例は非常に稀有な症例であると考えられた。

組織学的には筋上皮腫は腫瘍性筋上皮細胞から構成される腫瘍であり^{1,3)}、腺上皮系細胞成分はみられないか、みられてもごくわずかである。また、間葉様構造への移行はみられないとされており、この点が多形腺腫との鑑別において重要である⁶⁾。腫瘍性筋上皮細胞には紡錘形細胞、形質細胞様細胞 (Plasmacytoid cell)、上皮様細胞などのタイプがあり、これらの細胞が単独で、もしくは混在して認められる⁶⁾。一般的には紡錘形細胞の方が多いが、小唾液腺から発生する筋上皮腫では形質細胞様細胞の方が紡錘形細胞よりも優勢であるとの報告があり³⁾、われわれの症例でも形質細胞様細胞の索状もしくは充実性増生を認め、紡錘形細胞は認められなかった。

免疫組織化学的には本腫瘍の構成細胞は多形腺腫に

Photo. 6 Electron microscopy. a : The tumor cells were attached by desmosomes ($\times 12,000$). b : Many intermediate filaments were found in the cytoplasm of the tumor cells ($\times 25,000$)

において認められる腫瘍性筋上皮細胞と同様な染色性を示し、S-100、ケラチン、ビメンチン、 α -SMA、GFAP (glial acidic fibrillary protein) などに対して陽性所見を示し、免疫組織化学の所見からは筋上皮腫と多形腺腫との鑑別は困難であるとされている^{3,4,6}。われわれの症例では α -SMAは少数の細胞で陽性を示すのみであったが、文献的にもS-100、ケラチンに比して α -SMAの陽性率は低いとされており^{3,6}、 α -SMAの染色性で筋上皮腫の診断を除外することは適当ではないと思われる。

電顕的には腫瘍細胞と間質の間にみられる基板や細胞間のデスモゾーム接合、胞体内の中間径フィラメント、および細胞膜近傍にみられるミオフィラメントなどの所見を有するとされている^{4,9}。われわれの症例はデスモゾーム接合および胞体内に中間径フィラメントを有しており、これらは従来の報告と合致していた。一方、筋上皮腫の細胞像については、従来ほとんど報告されていないが、原らは径20~30 μm 、核の偏在した卵円形の異型細胞 (plasmacytoid cell) が

集団または孤立性に出現し、核は円~卵円形で大小不同がみられ、核のクロマチンは微顆粒状で、小~中型の好酸性の核小体が1~2個みられたと報告している⁵。われわれの症例もほぼ同様の特徴を有しており、穿刺吸引細胞診所見から筋上皮腫の可能性を推定しうるものであった。ただし、後述するごとく細胞診所見のみでは筋上皮腫と多形腺腫との鑑別は困難であり、確定診断には摘出腫瘍からの組織標本にて腫瘍性筋上皮細胞の増生と間葉様構造の欠如を確認する必要があると思われる。

近年唾液腺腫瘍に対して穿刺吸引細胞診施行の頻度が増加しており、良性腫瘍の場合には多形腺腫であることが多い。多形腺腫にみられる筋上皮細胞の細胞像について、広川らは上皮様集塊型、形質細胞様型、粘液腫様型、紡錘形細胞型の4型に分類し、これらが混在してみられることが多いと報告している¹⁰。さらに筋上皮腫では形質細胞様型、紡錘形細胞型、上皮様集塊型などがみられ、多形腺腫にみられる筋上皮細胞と鑑別することはできないとしている。このことより細

胞診単独にて筋上皮腫との診断をつけることは適当でないと思われるが、今後唾液腺の穿刺吸引細胞診にてこれらの特徴を有する細胞が出現している場合には多形腺腫に加えて筋上皮腫の可能性を考慮する必要があると思われる。

稿を終えるにあたり、ご意見、ご協力を賜りました大阪医科大学中検病理 森川政夫技師に深謝致します。

本論文の要旨は第36回日本臨床細胞学会秋期大会（横浜）において発表した。

Summary

Background : Myoepithelioma of the salivary gland is a rare tumor. It has been allocated a category in more recent classifications, such as the 1991 WHO revision.

Case : We report a case of myoepithelioma arising in a minor salivary gland of the tongue. A 60-year-old man presented to an outside hospital in July 1996 for further examination of tumor of the tongue. Magnetic resonance imaging (MRI) showed that the tumor was of low intensity in the T1-weighted image, and of high intensity in the T2-weighted image. Fine-needle aspiration of the tumor was performed and the Papanicolaou-stained smear revealed that the tumor cells were uniform, and were either scattered or in a cluster. The nuclei of the tumor cells were oval, eccentric and some of them were large. Macroscopically, the tumor was 3.7×2.5×3.0 cm in size and surrounded by a fibrous capsule. The cut surface of the tumor was grayish and solid. Histologically, the tumor was composed of plasmacytoid cells with round eccentric nuclei surrounded by an abundant eosinophilic cytoplasm. Immunohistochemistry with antibodies to S-100, keratin and vimentin showed strongly positive staining, and there was weak staining for α -smooth muscle actin. Ultrastructural examination revealed many intermediate filaments in the cytoplasm of the tumor cells. A diagnosis of myoepithelioma was established from these pathological findings.

Conclusion : The appearance of plasmacytoid cell in aspiration cytology from salivary gland tumors seem to be a useful finding for the diagnosis of myoepithelioma.

文 献

- 1) Sheldon, W.H. So-called mixed tumors of the salivary glands. Histochemical and ultrastructural observations. Arch. Pathol. 1943 ; 35 : 1~20.
- 2) Nesland, J.M., Olafsson, J., Sobrinho-Simoes, M. Plasmacytoid myoepithelioma of the palate. A case report with ultrastructural findings and review of the literature. J. Oral Pathol. 1981 ; 10 : 14~21.
- 3) Simpson, R.H.W., Jones, H., Beasley, P. Benign myoepithelioma of the salivary glands : a true entity? Histopathol. 1995 ; 27 : 1~9.
- 4) Dardick, I. Myoepithelioma : Definitions and diagnostic criteria. Ultrastruct Pathol. 1995 ; 19 : 335~345.
- 5) 原 仁, 須田耕一, 木村正博, 石井恵理, 小山敏雄, 河西八郎・ほか. 口蓋に発生した筋上皮腫の1例—細胞学的検討—. 日臨細胞誌 1991 ; 30 : 618~619.
- 6) 二階宏昌. 組織診断アトラス 顎口腔の病変. 東京 : 杏林書院. 1997 : 58~60.
- 7) Regezi, J.A., Lloyd, R.V., Zarbo, R.J., McClatchey, K. D. Minor salivary gland tumors. A histologic and immunohistochemical study. Cancer 1985 ; 55 : 108~115.
- 8) Goldblatt, L.I., Ellis, G.L. Salivary gland tumors of the tongue. Analysis of 55 new cases and review of the literature. Cancer 1987 ; 60 : 74~81.
- 9) Takai, Y., Mori, M. Myofilament localization and immunoelectron microscopic detection of muscle-specific actin in neoplastic myoepithelial cells in pleomorphic adenomas and myoepitheliomas. Ultrastruct Pathol. 1994 ; 18 : 575~591.
- 10) 広川満良, 梶田美由紀, 清水道生. 唾液腺多形腺腫にみられる筋上皮細胞の細胞像. 日臨細胞誌 1997 ; 36 : 128~131.