舌下腺に発生した導管内乳頭腫の 1 例

柚 鳥 宏 和¹⁾ 橘 進 彰¹⁾ 松 本 耕 祐^{1,2)}
石 田 優¹⁾ 松 尾 健 司^{1,2)} 辻 和 志¹⁾
古 森 孝 英²⁾

要旨：導管内乳頭腫は、単胞性の嚢胞様に拡張した排泄導管内に腫瘍細胞が乳頭状に増殖している非常にまれな疾患である。舌下腺に発生した導管内乳頭腫の報告は本邦ではまだない。

われわれは、顎下腺炎を契機に発見された舌下腺に発生した導管内乳頭腫の 1 例を経験したので報告する。

症例は 38 歳女性、右側顎下部の腫脹を主訴に当科を受診した。舌下部の腫瘤によって、顎下腺管は閉塞していた。MR 画像にて右側舌下腺内に、単房性で類円形腫瘤を認めた。

局所麻酔下に腫瘍摘出生検を施行した。病理検査にて、舌下腺に発生した導管内乳頭腫の診断を得た。

キーワード：導管内乳頭腫、舌下腺、顎下腺炎

緒 言

唾液腺の導管内乳頭腫は導管乳頭腫の一亜型であり、肉眼的に境界明瞭な単嚢胞性腫瘤として認められる。組織学的には嚢胞状に拡張した導管内へ上皮の乳頭状増殖を示すのが特徴である。発生頻度においては、小唾液腺に多く、大唾液腺での発生は少ないとされており、2005 年 WHO 新分類においても、きわめてまれな唾液腺良性腫瘍とされている^{1,2)}。

今回われわれは顎下腺炎を契機に発見された舌下腺に発生した導管内乳頭腫を経験したので報告する。

症 例

患者：38 歳，女性。

初診：2014 年 2 月。

主訴：右側顎部の摂食時疼痛。

既往歴：特記事項なし。

現病歴：2013 年 12 月に右側顎下部に腫脹を認めたため、某市民病院耳鼻科を受診し、急性顎下腺炎との診断にて抗菌薬投与を受けた。その後、右側顎下部の腫脹は軽快したが、右側唾仙痛様疼痛は残存し、精査希望にて 2014 年 2 月当科を初診した。

現症：

全身所見：身長，体重，体格は中等度，栄養状態は良好

であった。

口腔外所見：初診時は右側顎下部の腫脹は認めず、顎下腺は左側と比較するとやや硬く、圧痛を認めた。

口腔内所見：右側口底粘膜は正常で隆起した病変は認めなかった。双指診にて、右側の舌下ヒダに 10mm 大の腫瘤を触知した。右側舌下小丘からの唾液流出は認められなかった。

画像所見：

他院 CT 所見：2013 年 12 月某市民病院耳鼻科で撮影された CT では右側顎下腺の軽度腫大を認めたが、唾石や顎下腺腫瘍は指摘できなかった。また舌下部の腫瘤性病変も指摘できなかった。

MRI 所見：T2 強調画像（水平断像，冠状断像）では、右側舌下腺内に 13×12mm 大の病変が認められた。同病変は境界明瞭で内部やや不均一，高信号を示し、顎下腺管に接するように腫瘤形成を認めた（図 1A，B）。T1Gd 造影画像（水平断像）では、病変は舌下腺内に造影効果を示さず、低信号領域として認められた（図 1C）。

臨床診断：右側舌下腺腫瘍。

処置および経過：穿刺吸引細胞診にて腺組織しか吸引できず、診断が得られなかった。そこで当初は全身麻酔下に術中迅速診断を行い、その結果に対応した手術を計画したが、患者が良悪性の結果が不明のまま手術を受けること、術中迅速診断で悪性の場合、頸部切開が必要なことに強い拒否感を示したため、2014 年 3 月局所麻酔下に術中迅速診断を含めた右側舌下腺腫瘍生検を施行した。右側舌下ヒダに沿って粘膜切開し、舌下腺を確認した。その舌下腺内に薄い被膜で包まれた暗赤色の腫瘍を確認した。術中迅速診断では悪性所見なく、嚢胞性病変との回答を得た。さらに腫瘍と周囲の舌下腺との剥離は容易であり、結果的に摘

¹⁾ 加古川東市民病院歯科口腔外科（主任：橘 進彰）

²⁾ 神戸大学大学院医学研究科外科系講座口腔外科学分野（主任：古森孝英教授）

〔受付：2015 年 5 月 1 日，受理：2016 年 1 月 18 日〕

図 1 MR 写真

A, B: T2 強調画像（水平断像, 冠状断像）では, 右側舌下腺内に $13 \times 10 \times 6$ mm 大の病変として認め, 顎下腺管に接する。同病変は境界明瞭で内部やや不均一, 高信号領域として認める。
C: T1Gd 造影画像（水平断像）では, 病変は舌下腺内に造影効果を示さず, 低信号領域として認める。

図 2 摘出標本病理組織像

A: 12×10 mm の拡張した導管を伴う舌下腺組織を認める (HE 染色 $\times 40$)。
B, C: 拡張導管の中には狭小な血管結合組織の間質を伴いつつ異型性に乏しい円柱ないし立方状上皮が乳頭状あるいは網目状の構造を形成して突出している (B: HE 染色 $\times 200$, C: HE 染色 $\times 400$)。

出生検となった。その際, 摘出組織の舌側に圧排された顎下腺管を確認し保存した。摘出直後より, 舌下小丘からの唾液の流出を確認した。

病理組織学的所見: 12×10 mm の拡張した導管を伴う舌下腺組織であり (図 2A), 拡張導管の中には狭小な血管結合組織の間質を伴いつつ異型性に乏しい円柱ないし立

方状上皮が乳頭状あるいは網目状の構造を形成して突出している所見であった (図 2B, C)。

病理組織学的診断：導管内乳頭腫。

術後経過：術後病理組織学的診断結果は、導管内乳頭腫の診断であったため、腫瘍摘出のみで経過観察となった。

術後9か月のMR画像では腫瘍再発は認められず、顎下腺管の開存も確認された。口腔内所見では、右側舌下ヒダからの唾液流出を認め、右側顎下部の圧痛や唾仙痛様の疼痛は消失していた。また、舌下小丘からの唾液流出は良好であった。現在、術後1年10か月で再発なく経過している。

考 察

唾液腺の導管内乳頭腫は内向性導管乳頭腫、乳頭状唾液腺腫とともに導管乳頭腫として一括されるきわめてまれな唾液腺良性腫瘍である。肉眼的には境界明瞭な単嚢胞性腫瘤として認められる。導管内乳頭腫の発生頻度は極めて少なく、全唾液腺腫瘍の0.13%と報告されている¹⁾。性差はなく、発症年齢は8歳から77歳と報告されている¹⁾。大唾液腺での発症は耳下腺が多く、今回渉猟し得た過去の報告¹⁻¹⁰⁾では、唾液腺に発生した本腫瘍56例中、小唾液腺が35例、耳下腺が16例、顎下腺が3例、舌下腺が2例と舌下腺での発生は極めて少ない。また、本邦での唾液腺における報告例を渉猟したところ、舌下腺発生例としては自験例が初めてであった。

病理組織学的には、嚢胞状に拡張した導管内に円柱から立方上皮細胞 (1層あるいは2層) の複雑に分岐した乳頭状増殖がみられ、線維血管性芯を伴っている。上皮にはときおり粘液細胞が混在しているのが特徴的所見で形態学的に確定診断が可能である^{1,2)}。本症例も、拡張した導管の中には細い間質を伴いつつ異型性に乏しい円柱ないし立方状上皮が乳頭状あるいは網目状の構造を形成しており、形態学的に典型的な組織像を呈していた。

画像診断については、MR画像ではT2強調画像にて高信号、T1強調画像にて低信号であると報告され⁶⁾、自験例においても同様の所見であった。T1Gd造影画像では造影効果は見られなかったが、過去の報告に造影効果についての検討はなかった。導管内乳頭腫の穿刺吸引細胞診所見では、嚢胞性の背景中に上皮細胞の乳頭状構造を認めるとあるが²⁾、実際には管腔構造の中で乳頭状に増殖するため、穿刺吸引細胞診を行っても、典型的な腫瘍細胞は必ずしも吸引できないとされている。本症例も双指診にて舌下腺内に腫瘤を触知したが、穿刺吸引による細胞量の少なさや舌下腺の混入などで正確な診断が得られなかった。

当科における舌下腺腫瘍の治療方針は良性では舌下腺を含めた摘出を基本とし、悪性ならば頸部リンパ節郭清を含

めた術式を基本としている。本症例も局所麻酔下に舌下腺腫瘍生検を行ったが、腫瘍が小さかったため、結果的に摘出生検を施行した。過去の報告により³⁻¹⁰⁾、導管内乳頭腫の治療方針は腫瘍摘出のみで予後は良好であるとされている。本症例も摘出標本の病理診断にて導管内乳頭腫との診断を得たため、追加切除は行わなかった。しかし、口蓋腺の再発症例⁵⁾や導管内乳頭腫の悪性転化が示唆される耳下腺原発腺癌の報告もあり¹¹⁾、摘出後の十分な経過観察は必要であると考えられた。本症例も摘出生検のみで経過観察する方針としたが、現在のところ再発を認めていない。

導管内乳頭腫は、臨床上是無痛性の境界明瞭な腫瘤であり¹⁾、本症例においても境界明瞭な腫瘤であり圧痛などは認めなかったが、腫瘍による圧迫によって顎下腺管の閉塞をきたしていたため、唾仙痛様疼痛が生じていた。舌下腺に発生した場合は顎下腺管と近接していることから、本症例のように顎下腺炎を契機に発見されることもあると考えられた。

結 語

舌下腺では本邦初となる導管内乳頭腫の1例を経験したので、文献的考察も加え報告した。

謝 辞

稿を終えるにあたり、病理学的診断に関してご教授を賜りました病理診断科の横崎 宏先生 (神戸大学大学院医学研究科病理学講座病理学分野教授) に深謝いたします。

本論文の要旨は第59回NPO法人日本口腔外科学会総会・学術大会 (2014年10月、千葉市) において発表した。

本論文について申告すべき利益相反状態はありません。

文 献

- 1) Barnes, L., Everson, J.W., et al.: World Health Organization classification of Tumours. Pathology and genetics of head and neck tumours. International Agency for Research on Cancer, Lyon, 2005, 270-271.
- 2) 二階宏昌：腫瘍鑑別アトラス唾液腺。文光堂、東京、2006、74-77.
- 3) Ellis, L.G., Auclair, L.P., et al.: Surgical pathology of the salivary glands. MPP25: WB Saunders, Philadelphia, 1991, 238-251.
- 4) 吉賀大午、石川文隆、他：臼歯腺に生じた導管内乳頭腫の1例。九州歯会誌 66：210-213, 2012.
- 5) 市来 剛、鹿嶋光司、他：軟口蓋頬粘膜移行部に発生した導管内乳頭腫の1例。Hosp Dent 23：33-36, 2011.
- 6) 山本哲彰、山下善弘、他：頬部に生じた導管内乳頭腫の1例。九州歯会誌 63：236-240, 2009.
- 7) Aikawa, T., Mitsunobu, K., et al.: Intraductal papilloma aris-

- ing from sublingual minor salivary gland: Case report and immunohistochemical study. *Oral Pathol Oral Radiol Endod* 107 : 34-37, 2009.
- 8) 原田 直, 今田 忍, 他: ブランデン・ヌーン腺の導管内乳頭腫の 1 例と文献的考察. *広大歯誌* 30 : 111-114, 1998.
- 9) Ishikawa, T., Imada, S., et al.: Intraductal papilloma of the anterior lingual salivary gland. *Int J Oral Maxillofac Surg* 22 : 116-117, 1993.
- 10) Ripari, M., Romeo, U., et al.: Intraductal Papilloma of Minor Salivary Glands: Case Report. *Int J Oral-Med Sci* 3 : 167-170, 2005.
- 11) Shiotani, A., Kawamura, M., et al.: Pappillary adenocarcinoma possibly arising from an intraductal papilloma of the parotid gland. *ORL J Otorhinolaryngol Relat Spec* 56 : 112-115, 1994.

A case of intraductal papilloma arising in the sublingual gland

Hirokazu Yutori¹⁾, Akira Tachibana¹⁾, Kousuke Matsumoto^{1,2)},
Suguru Ishida¹⁾, Kenji Matsuo^{1,2)}, Kazuyuki Tsuji¹⁾
and Takahide Komori²⁾

¹⁾ Department of Oral Maxillofacial Surgery, Kakogawa East City Hospital (Chief: Dr. Tachibana Akira)

²⁾ Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Kobe University Graduate School of Medicine
(Chief: Prof. Komori Takahide)

Abstract

Intraductal papilloma is a luminal papillary proliferation of duct epithelium that arises from a segment of the interlobular or excretory duct and causes unicystic dilatation, and is very rare. A review of the Japanese literature reveals no reports of intraductal papilloma arising in the sublingual gland.

We report a case of intraductal papilloma arising in the sublingual gland that was diagnosed as submandibular sialoadenitis.

A 38-year-old woman visited our hospital with the chief complaint of right submandibular swelling. We detected a mass in the right sublingual gland that caused obstruction of the submandibular duct. MR imaging suggested that the round mass had a clear and smooth margin in the sublingual gland.

The tumor was enucleated under local anesthesia. The excised specimen was histologically diagnosed as intraductal papilloma of the sublingual gland.

Key words : intraductal papilloma, sublingual gland, submandibular sialoadenitis

Requests for reprints to: Dr. Yutori H., Department of Oral & Maxillofacial Surgery, Kakogawa East City Hospital, 797-295, Issiki, Kakogawa-shi, Hyogo, 675-0115, Japan