症 例

上口唇皮膚混合腫瘍（軟骨様汗管腫）の 1 例

清 水 正 嗣 河 野 憲 司* 藤 原 省 三
野 口 琢 矢 後 藤 陽 一 郎

要旨：左側上唇皮膚混合腫瘍の 68 歳男性の症例を報告した。腫瘍は上唇左側下中央部に小硬結として発症，4 か月で小膨隆に進展し，大きさは約 10×10×7 mm，エコー検査などで境界明瞭，良性の腺系腫瘍と臨床診断した。そこで試験切除なしに一期的に腫瘍全切除，欠損皮膚部を含めて修復再建が必要との方針を立てた。同腫瘍一形成外科の手術が，2002 年 03 月 15 日に入院，同日局麻下に行われた。左側上唇 vermillion border 上方に径約 12mm の皮切と共に腫瘍全摘，深さ約 10mm，右上方に形成のために弧状切開を加え，組織一部切除及び皮膚と筋層の移動を伴って，左右バランスを取りつつ口唇形成を実施した。摘出物の組織学的診断は，皮膚付属組織関連の良性混合性腫瘍（軟骨様汗管腫），周囲に腫瘍組織残留なし。更にその組織所見は，唾液腺原発の多形性腺腫と強く類似していた。経過は順調，術後 13 か月余の現在，形態的，機能的に問題なく患者も満足している。

キーワード：皮膚混合腫瘍，軟骨様汗管腫，上口唇，口唇欠損再建，腫瘍・形成外科

はじめに

混合腫瘍は通常皮膚組織関連の性状を持ち，皮膚科領域に多く発表を見る¹⁾。口腔およびその粘膜領域においては，大小唾液腺組織との関連性を考えさせる発症が多く，その組織診断は多形性腺腫とされる。われわれ口腔顔面外科的立場からは，当領域混合腫瘍は少なく，特に上唇皮膚と関連するものは非常に少ない。その治療は腫瘍に対しては全摘出で唾液腺原発のものと同様であるが，後者は口内法で可能であるが，前者は口外法によらねばならず，口唇原発であると，その腫瘍摘除後口唇形成の問題が大きい。

そのような両観点から本例に報告の意義を見だし，若干の考察を加えたい。

症 例

患者は 68 歳男性，初診の 2001 年 11 月，左側上唇皮膚中央下方部に 2~3 mm の硬結に気づいたが，炎症性のもと診断され放置していた。ところが約 4 か月後で径 7~8 mm，高さ 2~3 mm の平坦性皮膚膨隆を家族が指摘し，2002 年 3 月 15 日に当院を受診，入院した。

全身既往歴として，内科的に胃潰瘍，結核の既往がある

がともに治療終了経過良く，現疾患と関連のある既往歴としては，当該腫瘍部にかみそりを使って感染，炎症の疑いを持ったという患者本人よりの報告があった。

初診時現症として，写真 1 に見るごとく，上唇左側中央皮膚下方に直径 5 mm，高さ 3 mm の限局性膨隆があり，表面やや発赤あるも潰瘍はなく，疼痛など自覚症状はみられていない。触診では，小硬結として触れたが，境界は比較的明瞭であった。口腔内所見としては，齲蝕治療歯はあるが，根尖病巣など炎症性病巣変化は X 線所見でも認めなかった他，主訴病巣に関連する病変はなかった。

画像診断としては，上唇該当部の超音波検索を実施，写真 2 にみるように，真皮内に境界比較の明瞭な低エコー領域を認め，皮下層への進展は軽度であった。

以上の所見から，臨床診断は上唇皮膚腫瘍とし，臨床的

写真 1 初診時所見
左側上口唇下方域に小膨隆を認める（矢印）。

長門記念病院あご顔面消化器外科（主任：清水正嗣院長，大分医科大学名誉教授）

* 大分医科大学医学部腫瘍病態制御講座（歯科口腔外科学）（主任：柳澤繁孝教授）

〔受付：2003 年 2 月 21 日，受理：2003 年 3 月 28 日〕

写真 2 超音波検査所見
皮下に限局性、境界比較の明瞭な低エコー病変域を示す（矢印）。スケール：5mm

写真 3 手術時所見
予定切開線（a）と縫合後の所見（b）を示す。

には良性のものと考えた。

処置及び経過

治療法として、腫瘍切除術が予定された。良性腫瘍の可能性大と考え、それに準ずる技法に依って進めつつ、確定診断は腫瘍の大きさから、一期切除、摘出物全体の術後組織学的検索結果に待ち、もし必要があれば、第2回拡大手術も実施されると患者の同意を得て行われた。

手術は、8万倍エピネフリン含有2%キシロカインの左側眼窩下孔伝達麻酔による局麻下に実施した。その腫瘍切除に当たっては上唇皮膚部の切除となるので、その欠損の形成的修復をも考慮した切開創の設計が必要とされた。

そこで、写真3aにみるごとく彎曲切開に一部皮膚切除及び赤唇部に5×10mm大の追加切除を行い、かつ皮下において健常筋肉束の有茎性移動を含めて、上唇形成縫合を実施して手術を終了した（写真3b）。

腫瘍全切除摘出物は、幅・長さ・深さ各10×15×8mmであった。その組織学的所見は、真皮深層に結節状の境界明瞭な腫瘍を認めた（写真4a）。その構成は二層性上皮細胞により囲まれた管腔構造を形成し、間質は軟骨組織様あるいは粘液組織様を呈していた（写真4b）。確定診断は、皮膚混合腫瘍（軟骨様汗管腫）であった。なお、切除断端の腫瘍露出はなく、また腫瘍内には悪性変化を疑わせる所見は認めなかった。

術後2日目で退院、以後、外来診療に移ったが、術後経過良好、7日で全抜糸、創部の発赤、腫張は徐々に軽快して行った（写真5）。現在、術後13か月余であるが、皮膚赤唇境界線域の移行は自然のままとなり、上唇左右対称性もほぼ十分回復されている。上唇の運動障害はなく、手術野下方に軽い知覚鈍麻が残るが障害と訴えられるほどでなく、患者は満足している。

写真 4 摘出物の組織所見
a：真皮深層に境界明瞭な腫瘍を認める。b：腫瘍実質は二層性の上皮細胞に囲まれた管腔構造よりなり、軟骨腫様または粘液腫様の間質を伴っている（右上）。ともに HE 染色、原図 a：10 倍、b：270 倍。

考 察

1) 上口唇腫瘍の摘出術

口唇腫瘍の治療法について、本稿では対象を良性に限って若干論じることにするが、原則的に第一選択とされるものは、本報告のごとく外科的全摘出である。その際、腫瘍

写真 5 術後2週間の創部治癒状態
上口唇の左右対称性は良好である。

の組織学的性状を確認するため、試験切除を実施するか否かが挙げられる。対象組織の臨床的性状、主に大きさと、部位的事項および画像診断学的検索結果などから考慮されるが、本例のごとき小型腫瘍にあつては、一括切除、術後検索結果を待って、更なる方針を決めるという方針が取られよう。ただその場合、患者に対するインフォームドコンセントの重要性は欠かせない。

口腔内から外科処置可能な場合は、切除野の粘膜および周辺組織の可動性、組織進展性も大であるから、相当大きな腫瘍でも切除後の形成外科的配慮はそれほど必要にならない。しかし、口唇皮膚発症の場合は、本例のごとき発症初期、進展軽度の例であっても、腫瘍の全摘出・完全切除後には、しばしば口唇形成術に準ずる処置、配慮が必要とされる。本例では、本文記載の方法程度で十分であったが、もしこれが大きい場合は、Estlander-Abbeの手法の採用などが必要とされよう²⁾。

2) 軟骨様汗管腫の臨床的ならびに病理組織学的性状

本腫瘍が上唇皮膚組織関連で発症し、われわれ口腔顎顔面外科領域を受診することは稀である。診療科を別として、皮膚科領域ならば汗腺由来の腫瘍でそれほど稀とはいえないが、まとまった症例数を扱った本邦論文は少ないようである。軟骨様汗管腫26例の臨床的検討を行った大塚らの報告³⁾などでは、本腫瘍の好発部位は顔面皮膚で、なかでも上眼瞼部や上口唇部に多い。性別は女性にやや多く、初診時年齢は14~68歳、平均46歳であった。

本報告例の病理学的確定診断は皮膚混合腫瘍(軟骨様汗管腫)であった。本腫瘍は唾液腺由来の混合腫瘍(多形性腺腫)と類似した組織像を有する¹⁾。発症部位、関連母組織の違いが大きいにもかかわらず、その組織学的所見がほぼ同一であることは興味深い。これは汗腺と唾液腺のいずれにも存在する筋上皮細胞が混合腫瘍の発生に関与するためと考えられている^{4,5)}。

本腫瘍は組織学的に、腫瘍腺管が二層性上皮により囲まれ、拡張した管腔あるいは嚢胞腔を形成する型(アポクリン型)と、単層の上皮で囲まれた小管腔を形成する型(エックリン型)の2つの組織型に分類されている⁶⁾。前者の方が多く⁶⁾、自験例はアポクリン型に分類される。間質には化生により粘液組織、軟骨組織あるいは骨組織などの形成を認め、間質成分についても唾液腺混合腫瘍と明らかな相違はないようである⁷⁾。

本腫瘍の術後再発は少なくなく、不十分な切除が原因と考えられている^{3,8,9)}。これは、とくに発症から時間的経過が立ち、腫瘍増殖の大きい場合に、腫瘍が分葉状ないし多結節性に発育し、種粒性に健常組織中に小腫瘍塊が存在することと関連する^{1,9)}。さらに本腫瘍の中には転移を示すものや、長期間経過例で悪性型へ移行するものが、頻度は高くないが見られている^{6,9,10)}。この所見は唾液腺混合腫瘍(多形性腺腫)が時に癌化すること(多形性腺腫内癌)、あるいは原発再発を繰り返した多形性腺腫が、良性の組織像であるにもかかわらず、遠隔転移を生ずるものがあることと似ている¹¹⁾。われわれも、術後組織検査で良性とされたにもかかわらず、再発を繰り返し、悪性へ移行したと考えられた口蓋多形性腺腫の1例を経験している¹²⁾。このようなことから顔面の皮膚混合腫瘍においては、良性といえども、腫瘍外科的視点から腫瘍の取り残しがないように慎重に切除範囲を決定し、同時に形成外科的視点からは切除後の審美性と機能性を考慮することが大切である。

おわりに

左側上口唇皮膚原発の混合腫瘍(軟骨性汗管腫)、68歳男性症例を報告した。腫瘍は直径10mmたらずであったが、処置は外科的全摘出が選択され、実施に際しては口唇領域の腫瘍外科と形成的口唇形成術の視点・技術が合わせ必要とされた。

摘出物の組織学的検索結果では、腫瘍の取り残し、あるいはplus Xの所見は見られなかった。術後1年1か月余の現在、形態的、機能的両面より、患者本人の判断を含め満足の状態にある。

文 献

- 1) Hirsch, P. and Helwig, E.B.: Chondroid syringoma; mixed tumor of the skin, salivary gland type. Arch Dermatol 84: 835-847, 1961.
- 2) 藤田浄秀, 大谷隆俊: 第29章顎顔面再建術, 1. 顔面・口腔軟組織に対する再建術, 大谷隆俊他編著, 図説口腔外科学手術書, 第1版, 医歯薬出版(株), 東京, 1989, 747-765.
- 3) 大塚 壽, 森本浩明, 他: 皮膚混合腫瘍の26例. 日形会誌 20: 517-522, 2000.
- 4) Duran, J.V., Flores, L.D. et al.: Ultrastructure of chondroid syringoma. Role of the myoepithelial cell

- in the development of the mixed tumor of the skin and soft tissues. *Cancer* 44 : 1148-1156, 1979.
- 5) Darick, I., Nostrand, A.W.P et al.: Histogenesis of salivary gland pleomorphic adenoma (mixed tumor) with an evaluation of the role of the myoepithelial cell. *Human Pathol* 13 : 62-75, 1982.
- 6) Lever, W.F. and Schaumburg-Lever, G.: *Histopathology of the skin*. 7th ed. Lippincott Co. Philadelphia, 1990, 621-622.
- 7) Shimizu, S., Han-yaku, H. et al.: Immunohistochemical study of mixed tumor of the skin with marked ossification. *Dermatology* 193 : 255-257, 1990.
- 8) Adlam, D.A. and Wood, G.A.: The chondroid syringoma (mixed tumor of skin). Report of a case in the upper lip. *Oral Surg. Oral Med. Oral Pathol.* 61 : 69-71, 1986.
- 9) Toback, T.G. and Toback, C.J.: Chondroid syringoma. A review of the literature and case report. *J. Ame. Pod. Med. Assoc.* 79 : 563-565, 1989.
- 10) Harrist, T.J., Aretz, T.H., et al.: Malignant chondroid syringoma. *Arch Dermatol* 117 : 719-724, 1981.
- 11) Ellis, G.L. and Auclair, P.L.: *Atlas of Tumor Pathology. Tumors of the salivary glands*. Armed Forces Institute of Pathology, Washington, D.C., 1996, 245-251.
- 12) 鈴木加代子, 清水正嗣, 他: 放射線療法が奏効した上顎広範進展の良性多形性腺腫の1例. *口外誌* 26 : 431-435, 1980.

Mixed tumor of the skin (chondroid syringoma) occurring in the upper lip : report of a case

Masatsugu Shimizu, Kenji Kawano*, Shouzo Fujiwara,
Takuya Noguchi and Yoichiro Goto

Department of Maxillo-Facial and Digestive Surgery,
Nagato Memorial Hospital

(Chief : Dr Masatsugu Shimizu, Prof. Emeritus
of Oita Medical University)

*Department of Oncological Science (Oral and Maxillo-Facial Surgery),
Faculty of Medicine, Oita Medical University
(Chief : Prof. Shigetaka Yanagisawa)

Abstract

A case of mixed tumor of the skin (chondroid syringoma) occurring in the upper lip of a 68-year-old man is reported. The lesion was a painless mass measuring 10×10×7 mm in the left side of the upper lip. Ultrasound examination revealed a well-circumscribed nodule in the dermis. With a tentative diagnosis of benign skin tumor, the lesion was excised with a normal tissue margin and the defect was closed while taking care to ensure the symmetrical form of the upper lip under local anesthesia.

Histological examinations of the surgical material showed a proliferation of branching tubular and ductal structures, which were lined by two layers of epithelial cells, and chondroid or myxoid stroma. A pathological diagnosis was so-called mixed tumor of the skin (chondroid syringoma).

As of 13 months after surgery, there is neither sign of recurrence nor esthetic or functional disturbance, and the patient is satisfied with the outcome of the operation.

Key words : mixed tumor of the skin, chondroid syringoma, upper lip, reconstruction of lip defects, tumor-plastic surgery

Requests for reprints to : Dr. Shimizu M., Furuno 1091-11, Hasama-machi, Oita, 874-5511 Japan.