

症 例

上唇に発生した多形性腺腫の2例

平 井 経一郎 住 友 伸一郎 齊 藤 雅 則
毛 利 謙 三 兼 松 宣 武 高 井 良 招
朝日大学歯学部口腔外科学講座（主任：高井良招教授・兼松宣武教授）

抄録 多形性腺腫は唾液腺腫瘍の中で最も多くみられ、そのほとんどが耳下腺に発症する。しかし、小唾液腺では口蓋腺に多く、口唇における発症は比較的まれである。

今回、われわれは上唇に発生した多形性腺腫の2例を経験したのでその概要を報告する。

症例1：患者は52歳の男性で、上唇内側の腫瘤の精査を主訴に当科を受診した。腫瘤は拇指頭大で楕円形、ゴム様硬、可動性であり、被覆粘膜はやや赤みをおびていた。

症例2：患者は22歳の女性で、上唇内側の腫瘤の精査を主訴に当科を受診した。腫瘤は拇指頭大で楕円形、弾性軟、可動性であり、被覆粘膜はやや赤みをおびていた。

両症例ともに多形性腺腫疑いの臨床診断下、一部周囲組織を含めて摘出を行い、いずれも多形性腺腫であった。症例1は多形性腺腫ではまれな脂肪組織が腫瘍実質内に散在性に認められた。これは同腫瘍内の筋上皮様の細胞が間葉様の構造への移行時に生じた形質発現として脂肪変性したものであると考えられた。

両症例ともに術後約1年9か月経過した現在、再発傾向もなく経過良好である。

キーワード：多形性腺腫，上唇，脂肪組織

緒 言

多形性腺腫は唾液腺由来の腫瘍で腺管様構造、粘液腫様組織、軟骨腫様組織など多様な組織像を示す¹⁾。本腫瘍は全唾液腺腫瘍の45~74%を占め²⁻⁵⁾、そのほとんどが耳下腺に発生する^{4,5)}。また、全体の6.5%~11%が

小唾液腺に発生し^{6,7)}、それらの約88%が口蓋に、2%が口唇に発生すると報告されている³⁾。

今回、われわれは上唇に発生した多形性腺腫の2例を経験したのでその概要を報告する。

症 例 1

患 者：52歳，男性

初 診：平成12年4月19日

主 訴：上唇の腫脹

既往歴：高血圧症にて内服治療中
35歳時に肺炎に罹患

家族歴：特記事項なし

現病歴：約10年前から上唇の腫瘤に気付いていたが、他に症状がないため放置していた。最近、徐々に増大してきたため近医を受診、精査を勧められ当科紹介来院した。

現 症：上唇内側の正中やや左側に23×12×20mm大の楕円形の腫瘤を認め、ゴム様硬、可動性で被覆粘膜

は正常粘膜よりやや赤みをおびていた(Fig 1-1)。

MRI所見：T1，T2共に腫瘤の境界は明瞭で、信号強度は舌下腺とほぼ同様であった(Fig. 1-2)。

細胞診所見：CLASS IIで、悪性を示す所見は認めなかった。

臨床診断：多形性腺腫疑い

処置および経過：平成12年6月8日、静脈内鎮静法を併用した局所麻酔下に一部周囲組織を含めて摘出した。腫瘍周囲は容易に剥離可能であった(Fig. 1-3)。

摘出物所見：摘出物は20×12×18mm大の類円形で、表面は平滑、割面は充実性で帯黄白色であった。

確定診断：腫瘍内に脂肪組織が散在性に認められたが、多形性腺腫と診断した(Fig 1-4)。

(平成14年3月11日 受理)



Fig 1-1 Intra oral view in case 1



Fig 2-1 Intra oral view in case 2



Fig 1-2 MRI view in case 1

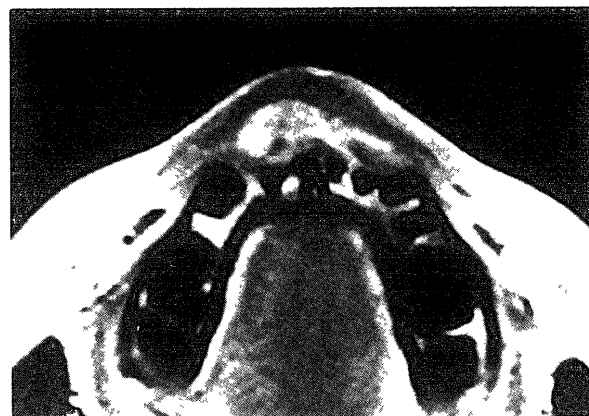


Fig 2-2 MRI view in case 2



Fig 1-3 Findings during operation in case 1



Fig 2-3 Findings during operation in case 2

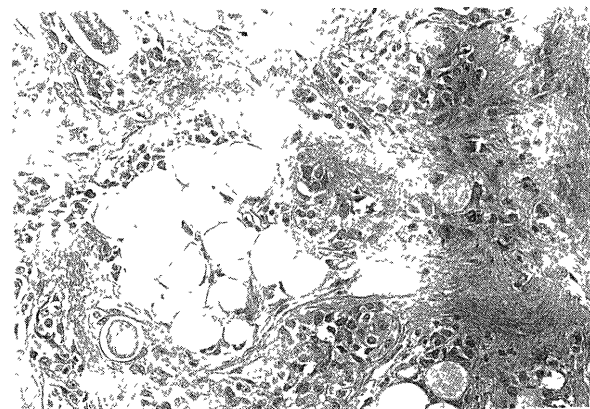


Fig 1-4 Histopathological finding (HE staining) that fatty tissue scattered in case 1 tumor

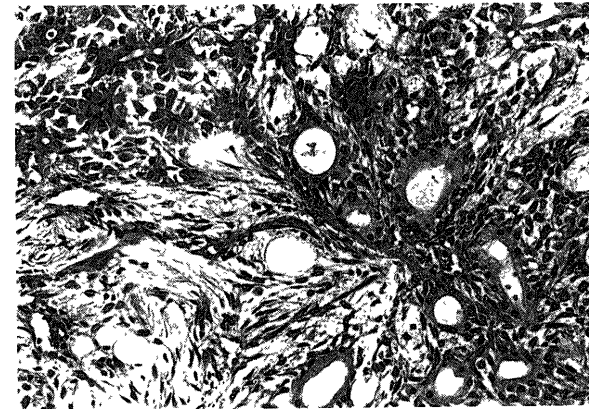


Fig 2-4 Histopathological finding (HE staining) in case 2

症 例 2

患 者：22歳，女性

初 診：平成12年4月19日

現病歴：約4年前に上唇の腫瘤に気付いたが，疼痛がないため放置していた。最近，やや増大したため精査加療を目的に来院した。

現 症：上唇内側の正中やや右側に20×10×18mm大の楕円形の腫瘤を認め，弾性軟，可動性で被覆粘膜は正常粘膜よりやや赤みをおびていた(Fig. 2-1)。

MRI所見：T1，T2共に腫瘤の境界は明瞭であった(Fig. 2-2)。

細胞診所見：CLASS IIで，悪性を示す所見は認めなかった。

臨床診断：多形性腺腫疑い

処置および経過：平成12年6月20日局所麻酔下にて一部周囲組織を含めて摘出した(Fig. 2-3)。

確定診断：多形性腺腫(Fig. 2-4)

考 察

多形性腺腫はその多彩な病理組織像から長年にわたり，混合性腫瘍と呼ばれてきたが⁸⁾，Willis⁹⁾，Bauer¹⁰⁾により上皮性由来で腺腫に属すると提唱されて以来，多形性腺腫という名称が一般化している。

本腫瘍は唾液腺腫瘍中45～74%と最も発生頻度が高く²⁻⁵⁾，耳下腺で51.4～84%と多発すると報告されている^{4,5)}。また，小唾液腺で6.5%～11%^{6,7)}と発生頻度は低く，石川³⁾はその約88%が口蓋，4%が頬部，3%が歯槽部，2%が口唇にみられると報告している。これらの報告より上唇に発生することは比較的まれであり，上唇が下唇に比較して多発する原因は複雑な発生経過をたどり，上皮の迷入が起こりやすいためと考えられている¹¹⁾。

好発年齢は20～50歳で中年以降に多く^{3,5)}，本症例は22歳と55歳で報告とほぼ同様であった。病悩期間は約5年で^{3,12)}，症例1は10年でやや長期間におよんだ。また，本腫瘍が中年以降に多発し病悩期間が長い原因は腫瘍の発育が緩慢で，かつ無痛性のため長期間放置されることが一因であると考えられる¹³⁾。

口唇における本腫瘍の大きさは直径0.5cm～2.5cmで^{10,14)}，本症例はいずれも平均的な大きさであった。

多形性腺腫は同一腫瘍内で多様な組織像を示すことが特徴であり，腺腔を形成する腺上皮様の細胞とその外周に位置する筋上皮様の細胞との2相性構造からなる。また，筋上皮様の細胞の形質発現は多角形細胞から紡錘形，星芒状，さらには粘液腫様へと多様であ

り¹⁵⁻¹⁸⁾，0.5～1.0%と極めてまれに脂肪細胞の介在や，骨形成を伴うことが報告されている¹⁹⁾。本腫瘍に含まれる脂肪組織の由来は腫瘍組織周囲の脂肪組織が腫瘍の発育や増殖に伴い内部に取り込まれたもの，脂肪組織の腫瘍化によるものおよび腫瘍組織の脂肪変性によるものが考えられている²⁰⁾。症例1で腫瘍内に脂肪組織が散在性に認められたが，これらの由来は周囲組織との癒着を認めなかったこと，病理組織学的に脂肪組織と腫瘍実質の間に被膜がなく悪性所見が認められなかったことおよび本腫瘍が上皮由来であることなどより腫瘍内の筋上皮様の細胞が間葉様の構造への移行時に生じた形質発現として脂肪変性したものであると考えられた。

治療法は単純な摘出術のみでは再発しやすく，著しい機能障害を残さない程度で，周囲組織を含めて摘出することが最良の方法であると考えられている²¹⁾。また，3mmの安全域を含めて切除することが望ましいが，口唇の場合は摘出後の瘢痕拘縮や醜形を回避するため被膜に沿って摘出術を行うことがある。しかし，再発例も多く，周囲組織を含めた摘出術が推奨される^{22,23)}。本症例ではいずれも術後の審美性を考慮した上で一部周囲組織を含め被膜に沿った摘出術を行い，術後約1年9か月経過した現在，再発もなく経過良好である。しかし，多形性腺腫は再発や悪性転化を呈すこともあり^{1,3,15,17,18)}，今後とも十分な経過観察が必要と思われる。

引用文献

- 1) Seifert, G and Sobin, L H Histological typing of salivary gland tumors WHO International Histological Classification of Tumors, 2nd ed., SpringerVerlag (Heidelberg Germany), 11～12, 1991.
- 2) Ellis, G L And Auclair, P L Atlas of tumor pathology Tumors of the salivary glands, 3rd series, AFIP (WashingtonDC USA), 39～57.
- 3) 石川悟郎監修・口腔病理学Ⅱ. 改訂版第2刷, 永末書店, 京都, 718～728, 1984.
- 4) Seiferth, L B and Kleinsasser, O 唾液腺腫瘍の病理と臨床. 耳鼻臨床, 59. 627～637. 1966.
- 5) 白川正順: 唾液腺腫瘍の臨床病理学的研究. 慈医誌, 95. 1402～1419, 1980.
- 6) Rauch, s. Tumor der kleinen und aberrierenden speicheldrüsen Arch Geschwulst, 14 243～256, 1959.
- 7) Krolls, S O and Hicks, J L Mixed tumors of the lower lip OM OS OP, 35: 212～217, 1973.
- 8) Billroth, T Beobachtungen über Geschwulste der Speicheldrüsen Virchow Arch Path Anat, 17: 357, 1859.
- 9) Willis, R A Pathology of tumors 1th Ed, Butter

- worth co, London, 320~348, 1948.
- 10) Bauer, W H and Baez, J D Classification of glandular tumors of salivary glands *Arch Path*, **55** 328~346, 1953.
 - 11) Bernier, J L Mixed tumors of lip *J Oral Surg*, **4** 193~202, 1946.
 - 12) 西島克巳, 日高豊蔵, 岸 幹二, 駒井正昭, 樋口 満, 田村淳一. わが教室における唾液腺腫瘍の臨床的観察. 1. 多形性腺腫. 日口外誌, **19** 348~352, 1973.
 - 13) 川俣智子, 久代秀郎, 脇 要, 頼 正利, 星山寿男, 宮田秀美, 成田令博, 内田安信, 外野正己. 上唇に発生した多形性腺腫の1例. 日口外誌, **32** 873~877, 1986.
 - 14) 山本浩嗣, 高木 実, 泉 廣次, 樋口俊夫, 高野浩行: 上唇に発生した多形性腺腫の1例. 口科誌, **27** 83~88, 1978.
 - 15) 宮崎正編集: 口腔外科学. 第1版第6刷, 医師薬出版株式会社, 東京, 136~138, 1983.
 - 16) 内田稔著: 顎口腔外科診断治療大系, 第1刷, 講談社, 588~589, 1991.
 - 17) 石川達也監修 アドバンスシリーズ [1] 口腔外科・病理診断アトラス第1版第3刷, 医師薬出版株式会社, 東京, 304~305, 1996.
 - 18) 二階宏昌著: 組織診断アトラス・顎口腔の病変, 杏林書院, 東京, 55~58, 1997.
 - 19) Seifert, G, Donath, K and Schafer, R Lipomatous pleomorphic adenoma of the parotid gland Classification of lipomatous tissue in salivary glands *Pathol Res Pract*, **195** 247~252, 1999.
 - 20) 奥田 孝, 土井田 誠, 南谷美幸, 安岡 忠, 渡辺二三雄, 奥富 直, 立松憲親, 岡 伸光: 小唾液腺由来の多形性腺腫の3症例とその病理組織像の比較. 日口外誌, **34**: 248~255, 1988.
 - 21) 坂下英明, 宮田 勝, 林守 源, 車谷 宏: 上唇に発生した多形性腺腫の2例. 日口外誌, **35** . 2921~2925, 1989.
 - 22) 北島 正, 服部 徹, 岡本善弘, 樽沼修二 口唇多形性腺腫における臨床的問題点一症例ならびに手術方針に関する考察一. 日口外誌, **31**: 2471~2476, 1985.
 - 23) 辻 雅明, 吉田憲司, 平松幹子, 高井克憲, 倉内 惇, 竹花茂樹, 亀山洋一郎: 上顎に発生した多形性腺腫の2症例. 愛院大歯誌, **26** . 241~245, 1988.
-

Two Cases of Pleomorphic Adenomas of the Upper Lip

KEIICHIRO HIRAI, SHINICHIRO SUMITOMO,
MASANORI SAITOH, KENZO MOURI,
NOBUTAKE KANEMATU and YOSHIAKI TAKAI

*Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Asahi University School of Dentistry
(Chief Prof. Yoshiaki Takai and Prof. Nobutake Kanematu)*

Key words : Pleomorphic adenoma, Upper lip, Fatty tissue

Abstract *Pleomorphic adenoma (PA) is the most common neoplasm of salivary gland origin. The most common site among the major glands is the parotid gland and that among the minor glands is the palate. However, PA on the lip is relatively uncommon. There is reported two cases of PA on the upper lip.*

Case 1 . A 52-year-old man was referred to Asahi University Hospital due to a 10-year history of a slow growing oval mass underneath the left upper lip mucosa. The mass was 23 × 12 × 20 mm and was elastically hard and mobile. The superficial lip mucosa showed a slight redness. There were no symptom other than swelling.

Case 2 . A 22-year-old woman presented for precise evaluation of a painless oval mass underneath the right upper lip mucosa with 4-year duration. The mass was 20 × 10 × 18 mm, and was soft and mobile. The superficial lip mucosa showed slight redness.

The clinical diagnosis in both cases was upper lip tumor suspected of being PA. Surgical resection was performed in both cases and histopathological diagnosis confirmed PA. Fatty tissue composed the tumor in case 1 and these finding were considered very rare. The fatty tissue scattered in case 1 might have arisen due to dysphasic and/or meta plastic changes of modified myoepithelial cells.

In both cases, 20 months have passed since surgery, and there has been no sign of recurrence. The progresses are good.