症例報告

上唇に発生した多形腺腫の1例

伊澤 優一*1) 山口 真吾 1) 堅田 凌悟 1,2) 筑田洵一郎 2) 高松 弘貴 2) 八十 篤聡 2) 鈴木麻衣子 2) 鎌谷 宇明 1,2) 代田 達夫 2)

抄録:多形腺腫は唾液腺腫瘍のなかで最も発生頻度が高く、耳下腺に好発し、口唇に発生すること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腺腫を経験したので報告する。患者は29歳の男性、X-1年Y月頃から上唇の腫瘤を自覚していたが、無痛性であったため放置していた。しかし、X年Y-6月頃から腫瘤が増大してきたため当科を受診した。左側上唇に母指頭大の境界明瞭な可動性のある無痛性で弾性硬の腫瘤を認め、表面粘膜は正常であった。CT 画像、MR 画像、超音波画像で約20×20×20 mm 大の境界明瞭な腫瘤を認めた。左上唇腫瘍の臨床診断で全身麻酔下に腫瘍摘出術を施行した。病理組織学的診断は多形腺腫であった。術後再発所見はなく経過良好である。

キーワード:多形腺腫,上唇,小唾液腺腫瘍

緒言

多形腺腫は唾液腺腫瘍のなかで最も発生頻度が高いが、大唾液腺では耳下腺に、小唾液腺では口蓋腺に好発し、口唇に発生することは比較的まれである^{1.2)}. 今回われわれは、上唇に発生した多形腺腫を経験したので、若干の文献的考察を加えて、その概要を報告する.

症 例

患者:29歳,男性. 初診:X年Y月.

主訴:左上唇の腫瘤.

現病歴: X-1年 Y 月頃から上唇の腫瘤を自覚していたが、無痛性であったため放置していた. X 年 Y-6 月頃から腫瘤が増大してきたため精査加療を目的に当科を受診した.

既往歴・家族歴:特記事項なし.

現症:

全身所見;体格中等度で栄養状態良好.

口腔外所見;上唇は左右非対称で左側上唇が突出

している (写真 1A, B).

口腔内所見;左上唇に母指頭大の境界明瞭な可動性のある無痛性で弾性硬の腫瘤を認め,表面粘膜はほぼ正常であった(写真 2).

CT 画像所見;約 20×20×20 mm 大の境界明瞭な不透過像を認めた.

MR 画像所見; T1 強調像で約 20×20×20 mm 大の境界明瞭な一部低信号な腫瘤を認め, T2 強調 像で約 20×20×20 mm 大の境界明瞭な不均一軽度 高信号な腫瘤を認めた.

超音波検査画像所見;約20×20×20 mm 大の境界 明瞭で内部が不均一な腫瘤を認めた(写真3A ~ D).

臨床診断: 左側上唇腫瘍.

処置および経過:全身麻酔下に腫瘍摘出術を施行した. 腫瘍直上に約20mmの横切開を加え,被膜を損傷しないよう,腫瘍を一塊で摘出した(写真4A,B). 術後再発は認めず,経過は良好である.

病理組織所見:好酸性の内容物を含む液体を入れた,二層性構造の導管上皮に類似する細胞の増生や小腺管形成を認めた. 角化を伴う扁平上皮化生が目立ち,間質には紡錘形細胞の増生や脂肪細胞を認め

〔受付:2020年6月12日, 受理:2020年8月28日〕

¹⁾公益財団法人結核予防会新山手病院歯科口腔外科センター

²⁾ 昭和大学歯学部口腔外科学講座顎顔面口腔外科学部門

^{*}責任著者



写真 1 口腔外写真 A:正面,B:側面 左上唇の突出を認める.



写真 2 口腔内写真 左側上唇に母指頭大の境界明瞭な可動性のある無痛性 で弾性硬の腫瘤を認め、表面粘膜はほぼ正常であった.

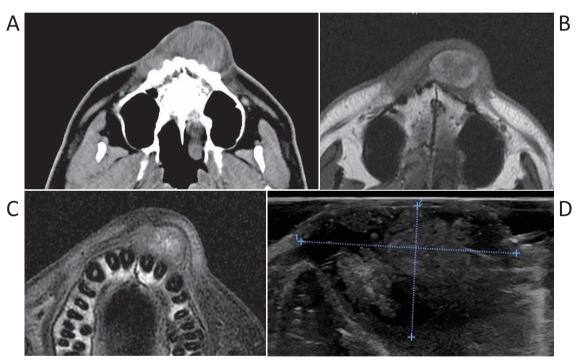


写真 3 画像所見

- A: CT 画像で約 20×20×20 mm 大の境界明瞭な不透過像を認める.
- B: MR 画像の T1 強調像で約 20×20×20 mm 大の境界明瞭で一部低信号の腫瘤を認める.
- C:MR画像のT2強調像で約20×20×20 mm大の境界明瞭で不均一な軽度高信号の腫瘤を認める.
- D: 超音波検査画像で約20×20×20 mm 大の境界明瞭で内部が不均一な腫瘤を認める.

た (写真 5A, B).

病理組織学的診断:多形腺腫.

考察

全唾液腺腫瘍のなかで多形腺腫の発生頻度は60~

 $70\%^{1}$ と最も多く,発生部位は,耳下腺 84%,顎下腺 8%,舌下線 0.5%,小唾液腺 6.5%,その他 1% とされている 2)。また,小唾液腺での発生部位は口蓋 67.5%,口唇 10%,頰部 5%,舌 2.5%,その他 $15\%^{3}$ とされ,口唇に発生することは比較的まれで

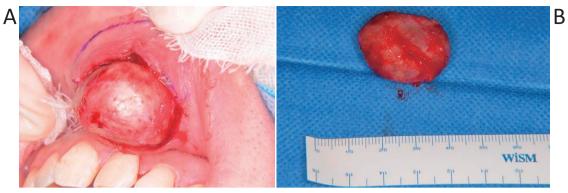


写真 4 術中所見 A:術中写真, B:摘出物写真

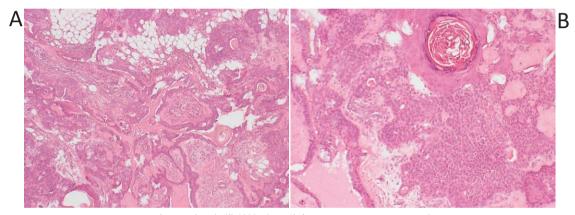


写真 5 病理組織所見 (HE 染色 A: ×40 B: ×200)

A: 好酸性の内容物を含む、二層性構造の導管上皮に類似する細胞の増生や小腺管形成を認めた.

B: 角化を伴う扁平上皮化生が目立ち、間質には紡錘形細胞の増生や脂肪細胞を認めた.

ある. 口唇の多形腺腫は発育が緩慢で、潰瘍形成や疼痛を伴うことが少ないことから、受診までの期間は平均3.8年と比較的長期間放置されやすいとされている⁴. 大きさは、小指頭大29.6%、拇指頭大29.6%、示指頭大14.8%、鶏卵大14.8%、雀卵大3.7%、小鶏卵大3.7%、大豆大3.7%との報告があり、口唇の多形腺腫は他の部位のものと比べて小さい傾向にあると言われている⁵). 硬さは弾性硬81.0%、弾性軟が19.0%と弾性硬が多い⁶). 平均年齢は42歳で30歳代にピークがあると報告がある⁷). 男女差は女性に多いとされている³). 上唇と下唇ではほとんどが上唇と言われている⁷). 自験例は、29歳男性、左上唇の母指頭大、弾性硬の多形腺腫で、受診までに1年経過したものであった.

病理組織学的には上皮性細胞と非上皮性細胞が湿

在する多彩な像を呈し、粘液成分優勢型(間質型)、 上皮成分優勢型(腺腫型)、管腔形成筋上皮成分優勢型(中間型)、筋上皮類似性筋上皮成分優勢型(筋 上皮腫類似型)の4型に分類される⁸⁾. 間質型は被 膜が不完全なことが多く、被膜欠損部の不完全摘出 により再発が多く、腺腫型は茸状突起や娘腫瘍が多 く認められるため、取り残しによる再発が多いとさ れている⁸⁾. 本症例は間質型と考えられた.

多形腺腫の再発率は $2\sim8\%$ であるとされ 9 , 再発例は術後数年以内に起こることは少なく、5年から10年の観察では不十分という報告もある 10 . 悪性化は3形腺腫の $3\sim4\%$ にみられ、5年以内の悪性化は1.5%で、3形腺腫の長期放置が悪性化に関与するとされ311).

口唇腺原発の唾液腺腫瘍では20~30%に悪性腫

瘍が認められるため¹²⁾, 術前診断が重要であるも, 悪性腫瘍と術前に診断するのは困難な場合が多い. MR 画像が有用であるとの報告があるものの, 良悪 性の判断は困難とされる¹³⁾. また, 切開生検は被膜 への切開と細胞播種の可能性があるため, 摘出を前 提とした外科的処置が有用であるとされる¹⁴⁾.

治療法は、切除範囲が広くなると術後の瘢痕拘縮や組織欠損による口唇の変形や、機能障害を生じさせる可能性があることから、周囲組織との癒着や浸潤がなければ、周囲健常組織を含めた切除よりも生検を兼ねた摘出がよいと報告されている¹³⁾. 自験例でも摘出術のみを行い、これまで再発はなく口唇の変形や機能障害も伴わず経過は良好であるが、今後も十分に経過観察を行う予定である。

結 語

上唇に発生した多形腺腫の1例を経験したので、 その概要を若干の文献的考察を加えて報告した.

利益相反

本論文に関して. 開示すべき利益相反状態はない.

文 献

- 1) 石川梧朗. 多形性腺腫. 口腔病理学Ⅱ. 改訂版. 京都: 永末書店: 1982. pp718-728.
- Rauchi S. Tumoren der kleinen und aberrierenden Speicheldruesen. Arch Geschwulst. 1959;14:243–256.
- 3) Chundhry AP, Vickers RA, Gorlin RJ, et al. Intraoral minor salivary gland tumors. An analy-

- sis of 1414 cases. Oral Surg Oral Med Oral Pathol. 1961:14:1194-1226.
- 4) Bernier JL. Mixed tumors of lip. *J Oral Surg* (*Chic*). 1946;4:193–202.
- Thackray AC, Lucas RB. Adenolymphoma. Tumors of the major salivary glands. Washington DC: Armed Forces Institute of Pathology; 1974. pp40-55.
- 6) 梶山 稔, 銅城将紘, 矢野茂良, ほか. 顎下部 に再発した多形性腺腫の1例. 日口腔外会誌. 1981:27:989-995.
- 7) Kolls SO, Hicks JL. Mixed tumors of the lower lip. Oral Surg Oral Med Oral Pathol. 1973;35:212–217.
- 8) 坂下英明, 宮田 勝, 宮本日出, ほか. 唾液腺腫瘍 411 例の病理組織学的検討. 日口腔診断会誌. 1991:4:284-301.
- Batsakis JG, Regezi JA, Bloch D. The pathology of head and neck tumors: salivary glands, part3. Head Neck Surg. 1979;1:260-273.
- 10) 白川正順, 藍沢茂雄. 唾液腺腫瘍の臨床病理学的研究 多形性腺腫の組織型と予後との関係を中心にして. 歯科ジャーナル. 1984;19:95-104.
- 11) 森谷徳文, 山田朋弘, 三島克章, ほか. 口唇に 生じた多形腺腫の2例. 日口腔外会誌. 2008;54: 688-692.
- 12) 山 満, 野間弘康, 笠原清弘, ほか. 上唇に 発生した多形性腺腫内癌腫の1例. 日口腔外会 誌. 1997:43:613-615.
- 13) 谷口広祐,内藤久貴,森 久美子,ほか.下唇 に発生した多形腺腫の1例.日口腔診断会誌. 2016:**29**:86-91.
- 14) 丘佐和子,河田 了,山口智子,ほか.耳下腺 に発生した乳頭状嚢胞腺癌例.耳鼻臨床. 2001;94:915-919.

A case of pleomorphic adenoma of the upper lip

Yuichi Izawa^{*1)}, Shingo Yamaguchi¹⁾, Ryogo Katada^{1,2)}, Junichiro Chikuda²⁾, Hiroki Takamatsu²⁾, Atsutoshi Yaso²⁾, Maiko Suzuki²⁾, Takaaki Kamatani^{1,2)} and Tatsuo Shirota²⁾

Abstract — Pleomorphic adenoma is the most common type of salivary gland tumor, frequently occurring in the parotid gland. Here, we report a case of pleomorphic adenoma of the minor salivary gland of the upper lip of a 29-year-old male. He noticed the tumor a year ago, and it gradually increased in size over the past six months. The tumor was painless and movable, with an elastic consistency. The tumor surface was normal, and computed tomography, magnetic resonance imaging, and ultrasound imaging showed that the tumor had clear boundaries. It was approximately $20 \times 20 \times 20$ mm in size. Tumor excision was performed under general anesthesia, following a clinical diagnosis of left upper lip tumor. The histopathological diagnosis was pleomorphic adenoma. The postoperative course of the patient was uneventful, and there was no evidence of recurrence.

Key words: pleomorphic adenoma, upper lip, minor salivary gland tumor

(Received June 12, 2020 : Accepted August 28, 2020)

¹⁾ Dentistry and Oral Surgery, Shin-Yamanote Hospital, Oral and Maxillofacial Surgery

²⁾ Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Showa University School of Dentistry

^{*}To whom corresponding should be addressed