

## 〔症例報告〕

## 口蓋に発生した筋上皮腫の1例

森川 哲郎<sup>1)</sup>, 瀧本 紘佑<sup>2)</sup>, Bhoj Raj Adhikari<sup>1)</sup>, Puja Neopane<sup>1)</sup>, 原田 文也<sup>1)</sup>, 宇津宮 雅史<sup>1)</sup>,  
中條 貴俊<sup>1)</sup>, 吉田 光希<sup>1)</sup>, 佐藤 惇<sup>1)</sup>, 西村 学子<sup>1)</sup>, 永易 裕樹<sup>2)</sup>, 安彦 善裕<sup>1)</sup>

- 1) 北海道医療大学歯学部生体機能・病態学系臨床口腔病理学分野  
2) 北海道医療大学歯学部生体機能・病態学系顎顔面口腔外科学分野

## A case of Myoepithelioma of the palate

Tetsuro MORIKAWA<sup>1)</sup>, Kosuke TAKIMOTO<sup>2)</sup>, Bhoj Raj ADHIKARI<sup>1)</sup>, Puja NEOPANE<sup>1)</sup>,  
Fumiya HARADA<sup>1)</sup>, Masafumi UTSUNOMIYA<sup>1)</sup>, Takatoshi CHUJO<sup>1)</sup>, Koki YOSHIDA<sup>1)</sup>, Jun SATO<sup>1)</sup>,  
Michiko NISHIMURA<sup>1)</sup>, Hiroki NAGAYASU<sup>2)</sup> and Yoshihiro ABIKO<sup>1)</sup>

- 1) Division of Oral Medicine and Pathology, School of Dentistry, Health Sciences University of Hokkaido  
2) Division of Oral and Maxillofacial Surgery, School of Dentistry, Health Sciences University of Hokkaido

**Key words** : myoepithelioma, plate, salivary gland tumor

## Abstract

We report a case of myoepithelioma of the palate.

The frequency of occurrence of myoepithelioma is 1.5% in all salivary gland tumors. A 52-year-old woman was referred to our hospital with the chief complaint of swelling on the right palate. After various examinations, removal of the tumor was carried out under general anesthesia. Microscopically, the tumor was surrounded by fibrous membrane. The solid growth of neoplastic myoepithelial cells was seen as main compo-

nent, virtually surrounding hyaline-like eosinophilic substance. Immunohistochemical studies revealed strongly positive reactions by the tumor cells for Cytokeratin Wide, Vimentin and S-100 protein. CK7, smooth muscle actin (SMA), p63 and Glial Fibrillary Acidic Protein (GFAP) were weakly positive.

From the results described above, the pathological diagnosis of myoepithelioma was made.

## 抄 録

口蓋に発生した筋上皮腫のケースを報告する。筋上皮腫は、発生頻度は全唾液腺腫瘍における1.5%と稀な疾患である。52歳の女性は、口蓋の右側の腫脹を主訴に当院紹介となった。検査の後、全身麻酔下で腫瘍の切除を行った。

病理組織学的に腫瘍組織は境界明瞭な線維性被膜に包まれており、その内部は紡錘形細胞と形質細胞様の腫瘍性筋上皮細胞の充実性増殖を主体としていた。免疫組織化学染色の結果から、CK Wide染色、Vimentin染色、S-100蛋白染色で強陽性、CK 7染色、SMA染色、p63染色、GFAP染色では弱陽性であった。

以上の結果から、病理診断は、筋上皮腫であった。

## 緒 言

筋上皮腫は、良性上皮性腫瘍であり、発生頻度は全唾液腺腫瘍における1.5%と稀な疾患である。好発部位としては耳下腺や口蓋で無痛性の腫瘍である (Cardesa & Alos, 2005)。組織学的には、腫瘍性筋上皮細胞の増殖を特徴とし、腫瘍細胞の形態は紡錘形、形質細胞様、硝子細胞様、上皮様、明細胞ないしはそれらの混在する多彩な組織像を呈する (森永ら, 2015; 日本唾液腺学会, 2005)。今回われわれは、52歳女性の口蓋に発生した筋上皮腫の1例を経験したので、病理組織学的検討を加え、その概要を報告する。

## 症 例

患者：52歳，女性。

初診：20XX年4月。

主訴：右側口蓋部の腫脹

既往歴：子宮内膜症

家族歴：特記事項なし。

現病歴：X-1年12月頃より右側口蓋部に粘膜色の小指頭程の腫瘤を自覚したが、疼痛はなく大きさに変化がないため放置していた。翌年、4月上旬より、同部に違和感が生じるようになり、その数日後同部に圧迫感を生じ、舌で押すと疼痛を伴うようになり、近医歯科医院を受診したところ、精査治療を目的に当科受診となった。

現症：口腔外は、特に異常所見を認めなかった。口腔内は口蓋正中よりやや右側に直径10mmの腫瘤を認めた。腫瘤は境界明瞭、色調は正常粘膜色で一部は赤色を呈し、潰瘍等は認められず、弾性やや硬であった(図1)。また、圧痛はごく軽度に認められた。上顎残存歯の打診痛、及び根尖相当付近の圧痛等も認めなかった。

画像所見：パノラマX線写真、CT検査(図2)、MRI検査のいずれでも軟組織及び骨組織に明らかな異常所見は認めなかった。

臨床診断：右側口蓋腫瘍

処置および経過：全身麻酔下にて右側正中中部付近の腫瘍



図1 初診時口腔内写真(ミラー像)  
口蓋正中よりやや右側に直径10mmの弾性やや硬で一部は赤色の粘膜色をした腫瘤を認める。

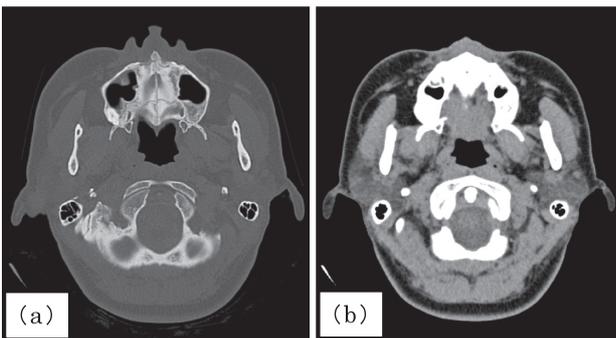


図2 CT画像：水平断(a：硬組織 b：軟組織)  
明らかな異常所見は認めなかった。

周囲に2mmのsurgical marginを設定し、骨膜下まで切開を加え腫瘍の切除を施行した後、人工皮膚を用い縫合した。

病理組織学的所見：H.E.染色では、腫瘍組織は境界明瞭な線維性の被膜に包まれており、その内部は唾液腺の筋上皮に由来する腫瘍細胞の充実性増殖を主体とし、実質周囲には好酸性の硝子様物質を散在性に認めた。腺管構造や粘液様の像はほとんど認めなかった(図3)。特殊染色及び免疫組織化学染色を行ったところPeriodic Acid Schiff (PAS)染色、Mucicarmine染色では陰性であり、腫瘍内部に粘液物質は認めなかった。Cytokeratin Wide

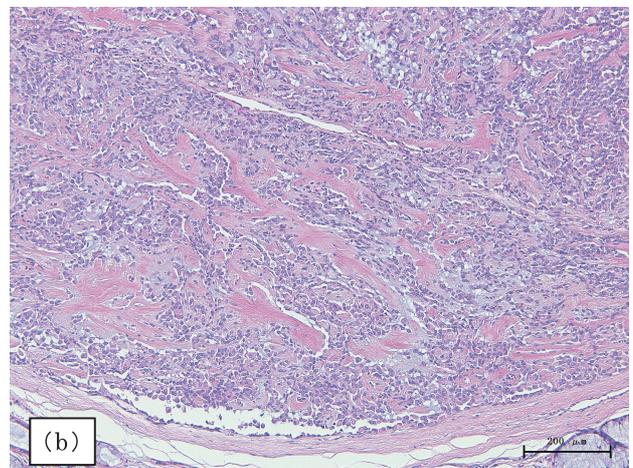
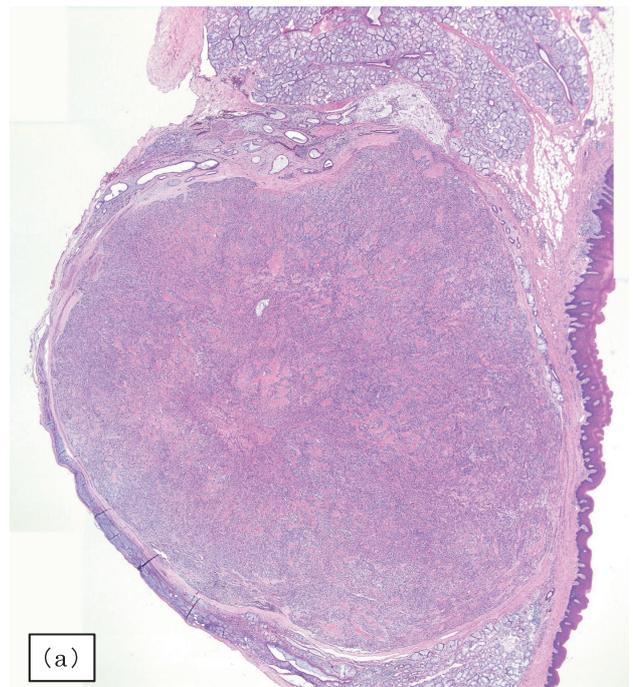


図3 摘出標本H.E.染色像：(a：20x b：100x)  
(a) 腫瘍組織は境界明瞭な薄い線維性の被膜に囲まれている。  
(b) 唾液腺の筋上皮に由来する腫瘍細胞の充実性増殖を認めた。その周囲には好酸性の硝子様物質を散在性に認め、腺管構造や粘液様の像は認めなかった。

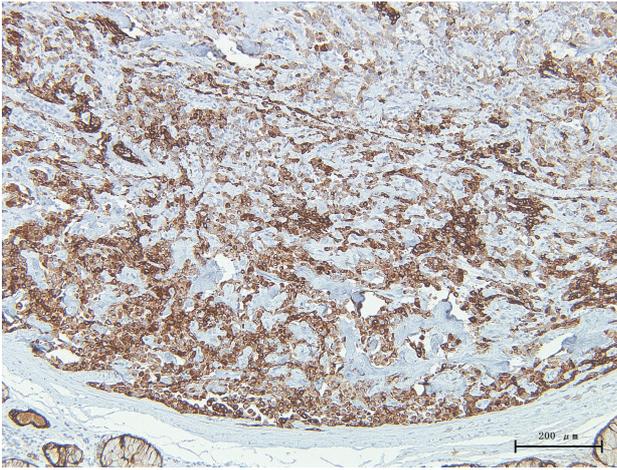


図4 摘出標本CK Wide免疫組織化学染色像  
CK Wide染色では腫瘍性筋上皮細胞が腫瘍全体の広範囲に強陽性を示している。

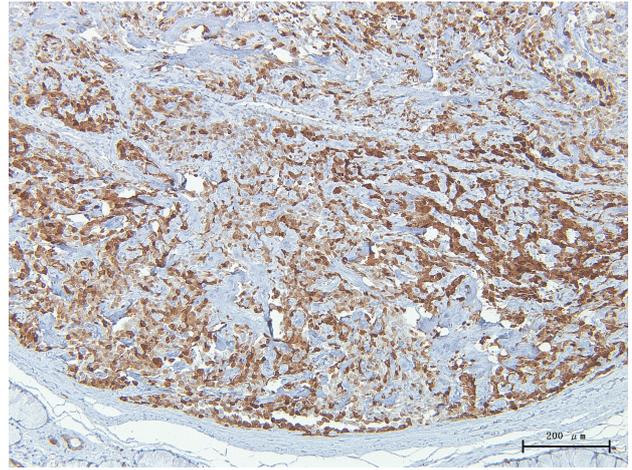


図6 摘出標本S-100免疫組織化学染色像  
S-100染色では筋上皮細胞が強陽性を示している。

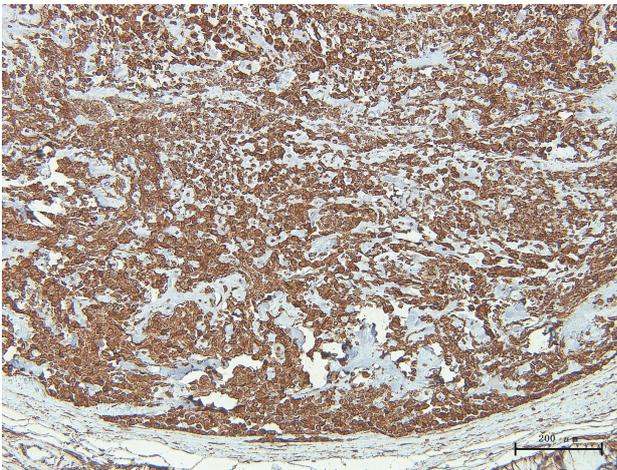


図5 摘出標本Vimentin免疫組織化学染色像  
Vimentin染色では筋上皮細胞が腫瘍の広範囲に強陽性を示している。

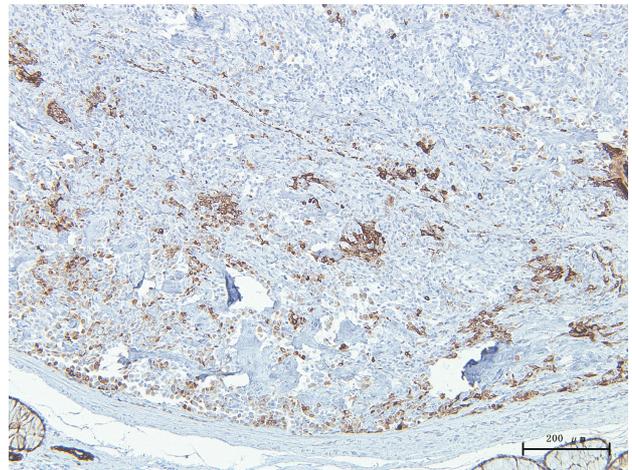


図7 摘出標本CK 7免疫組織化学染色像  
CK 7では腫瘍細胞にびまん性の陽性像を呈している。

(CK Wide) 染色 (図4) 及びVimentin染色 (図5), S-100蛋白染色 (図6) で強陽性, CK 7 染色 (図7),  $\alpha$ -smooth muscle actin (SMA) 染色, p63 染色, Glial Fibrillary Acidic Protein (GFAP) 染色 (図8) で弱陽性であった。

病理組織学的診断：筋上皮腫

## 考 察

筋上皮腫の発生頻度は、全唾液腺腫瘍の1.5%を占め、好発部位としては耳下腺に多く、次に口蓋に多く発生する無痛性の腫瘍である (Cardesa & Alos, 2005)。WHO分類では筋上皮腫は構成成分の大部分が腫瘍性筋上皮細胞からなると定義している (Cardesa & Alos, 2005)。一般に薄い線維性の被膜で覆われるが小唾液腺発生症例では被膜が明瞭でないこともある。組織学的に

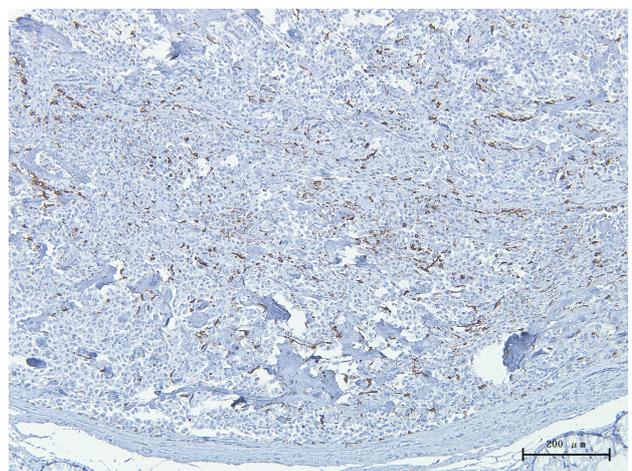


図8 摘出標本GFAP免疫組織化学染色像  
GFAP染色では間質様を呈する腫瘍性筋上皮細胞に弱陽性を示している。

腫瘍細胞の形態のタイプは紡錘形，形質細胞様，硝子細胞様，上皮様，明細胞ないしはそれらの混在する組織像を示す（森永ら，2015）。

本症例では，腫瘍組織は境界明瞭な線維性被膜に包まれており，その内部は紡錘形細胞と形質細胞様の腫瘍性筋上皮細胞の充実性増殖を主体とし，実質周囲には好酸性の硝子様物質を散在性に認めた．文献的には，耳下腺発生例では紡錘細胞型が，口蓋発生例では，形質細胞様細胞型が多いと報告されているが，本症例においては両タイプの混在型であった（Cardesa & Alos, 2005；長谷川ら，2006）．筋上皮腫では多形腺腫でみられるような軟骨・粘液腫様軟骨の間質は認められないことが多形腺腫との鑑別の手助けになる．本症例においても腫瘍内部には腺管形成や軟骨・粘液腫様軟骨の間質は認められない．mixed appearanceなどの粘液様の間質は認めず，PAS染色，Mucicarmine染色においても陰性を示し粘液成分は確認されなかった．このことから多形腺腫は否定された．また，周囲や被膜内への浸潤や細胞・核異型，核分裂像などの悪性所見も確認されなかった．免疫組織化学染色を行うことにより，正常筋上皮細胞ではCytokeratinが陽性となり，その他に非特異的筋上皮マーカーであるVimentin，S-100蛋白，GFAP，筋上皮系に特異的なマーカーであるSMA，筋上皮／基底細胞型マーカーであるp63などに陽性を呈するとされる．今回の症例で行った免疫組織化学染色の結果からは，CK Wide染色，Vimentin染色，S-100蛋白染色で強陽性，CK7染色，SMA染色，p63染色，GFAP染色では弱陽性であった．腫瘍性筋上皮細胞の形態のタイプによってはS-100蛋白，Vimentinには明瞭な染色を示すがさまざまな程度にCKの反応を示し，actinの染色性は弱くGFAPは染まらないという報告もある（二階ら，1989；岡田ら，2004）．

以上の所見から，本症例は筋上皮腫と判断された．多形腺腫との臨床態度の差異はほとんどない．筋上皮腫の再発率は低く，予後は良好であるとされているが，長期存在例や再発を繰り返す症例では稀に悪性化をきたすという報告もある（Ellis & Auclair, 2008；神出ら，1998；日本唾液腺学会，2005；Sciubba & Brannon, 1982）．病理組織学的には間質様構造（粘液腫様，軟骨様など）や腺管形成の有無が鑑別となり，しばしば境界病変が見られることがある．また，発生頻度も唾液腺腫瘍の1%以下と稀なことから，他の唾液腺腫瘍と的確に鑑別し評価することが，治療後の経過観察においても重要である．

## 結 語

今回われわれは，52歳女性の口蓋に発生した筋上皮腫の一例を経験したので文献的考察を加えて報告した．本論文に関して開示すべき利益相反はない．

## 文 献

- Cardesa A & Alos L. Pathology and Genetics of Head and Neck Tumours (World Health Organization Classification of Tumours). International Agency for Research on Cancer (IARC): 259-260, 2005.
- Ellis GL & Auclair PL. AFIP atlas of tumor pathology series 4: tumors of the salivary glands. Armed Forces Institute of Pathology Washington, DC: 123-133, 2008
- 長谷川陽一，服部賢二，宇野吉裕，岡崎鈴代．筋上皮腫および悪性筋上皮腫症例の免疫組織学的検討．耳鼻咽喉科臨床 99: 945-949, 2006.
- 神出敏影，古賀賢三郎，木下基司，斎藤輝海，外山正彦，高橋洋平．口蓋に発生した筋上皮腫の1例，日口外誌 44: 70-72, 1998.
- 森永正二郎，高田隆，長尾俊孝．腫瘍病理鑑別診断アトラス頭頸部腫瘍 I 唾液腺腫瘍第1版: 128-131, 2015.
- 二階宏昌，小川郁子，高田隆，伊集院直邦．唾液腺腫瘍の免疫組織化学-腫瘍性筋上皮の染色所見を中心に-．病理と臨床 7: 574-581, 1989.
- 日本唾液腺学会．唾液腺腫瘍アトラス第1版: 51-56, 2005.
- 岡田宗久，重松久夫，志田裕子，鈴木正二，草間薫，坂下英明．口蓋に発生した筋上皮腫の1例．日口外誌 50: 87-90, 2004.
- Sciubba JJ & Brannon RB. Myoepithelioma of salivary glands: report of 23 cases. Cancer 49(3): 562-572, 1982.



森川 哲郎

北海道医療大学大学院歯学研究科臨床口腔病理学専攻博士課程2学年  
平成18年3月 北海道札幌北陵高等学校 卒業  
平成20年4月 北海道医療大学歯学部 入学  
平成26年3月 北海道医療大学歯学部 卒業  
平成26年4月～平成27年3月 北海道医療大学病院 臨床研修歯科医  
平成27年4月 北海道医療大学大学院歯科研究科 入学  
現在に至る