

〔臨床〕

口蓋部に生じた小唾液腺の腺腫様過形成の1例

大内 知之, 三田村治郎, 矢上 了子, 小山 宏樹,
有路 博彦, 賀来 亨, 小川 優*

北海道医療大学歯学部口腔病理学講座
*アスティ歯科クリニック

(主任: 賀来 亨教授)
*(主任: 小川 優院長)

A Case of Adenomatoid Hyperplasia of the Minor Salivary Gland

Tomoyuki OHUCHI, Jiro MITAMURA, Ryoko YAGAMI, Hiroki KOYAMA,
Hirohiko ARIJI, Tohru KAKU and Masaru OGAWA*

Department of Oral Pathology, School of Dentistry,
HEALTH SCIENCES UNIVERSITY OF HOKKAIDO
* Asty Dental Clinic

(Chief Prof Tohru KAKU)
*(Direct Dr Masaru OGAWA)

Abstract

We report an extremely rare case of adenomatoid hyperplasia of the minor mucous salivary gland in a 53-year-old Japanese male. The patient had painless swelling in the right junction of the hard-soft palate.

The pathological findings and etiology of this complaint were discussed.

Key words adenomatoid hyperplasia, minor salivary gland, palate, histopathology

緒 言

小唾液腺の腺腫様過形成は、良性の増殖性病変である。臨床的に腫瘍性病変を疑わせるが、病理組織学的には非炎症性・非腫瘍性の固有小唾液腺の過形成であり、口蓋部に好発する¹⁾。近年、Buchnerら²⁾やBarrett and Speight³⁾の統計的な報告によりその特徴が明らかになってきたものの、本邦を含めそれ以外の報告は10数編にすぎず⁴⁻¹⁶⁾、不明な点も少なくない。

今回われわれは、53歳男性の口蓋部に生じた小唾液腺の腺腫様過形成の1症例を経験し、病理組織学的検索を行なうとともにその発生機序について考察したので報告する。

症 例

患 者：53歳，男性

初 診：1995年11月

主 訴：口蓋部（硬・軟口蓋移行部）腫脹

現病歴：数年前より右側硬・軟口蓋移行部の腫瘍形成を自覚するが、疼痛など著明な症状がないため放置していた。1995年11月より齶蝕治療のため通院した札幌市内歯科医院にて摘出を勧められた。

既往歴，家族歴：喫煙習慣以外に口蓋部の外傷など特記事項はなかった。

現 症：口腔外所見，X線所見：特記事項なし。

口腔内所見：右側硬口蓋部に主座を置き、一部軟口蓋に及ぶ基部で約5×8mm、高さ約5mmの広基性腫瘍を認めた。腫瘍表面粘膜は健常色を呈し、弾性硬。可動性は認められなかった。他に特記事項はなく、義歯は使用していなかった。

臨床診断：口蓋部良性腫瘍の疑い

処置および経過：1996年3月17日、札幌市内の歯科医院において、局麻下にて腫瘍部口蓋粘膜に紡錘状の切開を加え、被覆粘膜および周囲

組織を一層含めた摘出手術を施行した。腫瘍と口蓋骨や周囲組織との癒着・連続性はなく、容易に剝離され一塊として摘出された。術後11ヵ月現在経過良好で、再発も認めていない。

摘出物の肉眼的所見：摘出物は口蓋粘膜に被覆され腫瘤状を呈し、粘膜表層などに異常所見はなく、剖面では粘膜下に充実性の白～灰黄色の唾液腺様の組織が認められた。

病理組織学的所見：H E染色において摘出組織は、一部に錯角化と上皮脚延長を認める重層扁平上皮に被覆され、上皮下結合組織を一層介して粘液腺の増生が認められた(図1)。粘液腺組織は比較的大きな小葉単位からなり、小葉間は少量の線維性結合組織で境され、腫瘍の本体

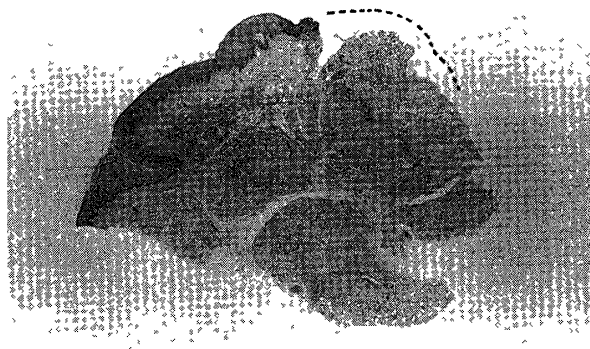


写真1 摘出物剖面H E染色標本ルーペ像。広基性に増生した腫瘍の概形を示す。(点線部は標本作製過程で上皮が脱落した部分)

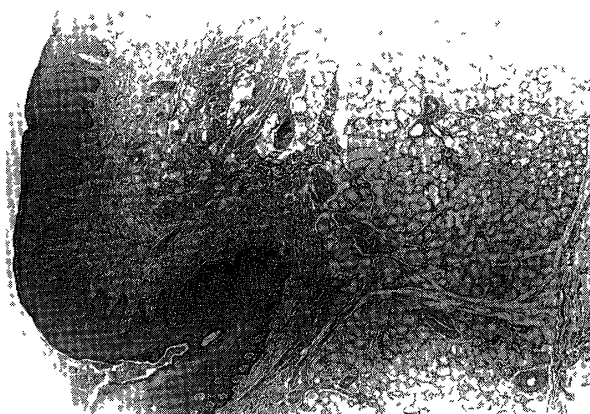


写真2：H E染色，弱拡大所見
口蓋粘膜上皮下に、小葉構造を呈する唾液腺組織を認める。

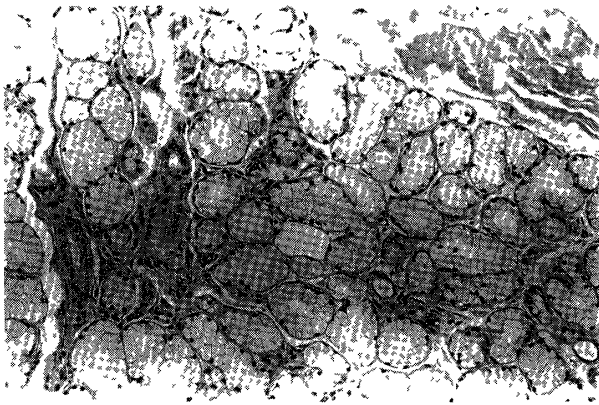


写真3：H&E染色，強拡大所見
正常な唾液腺構造を認める。細胞異型は認めない。

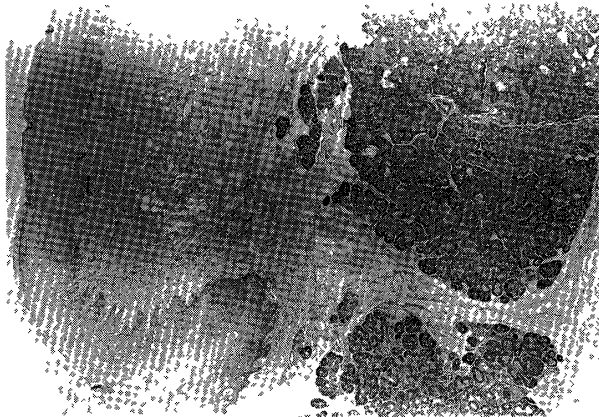


写真4：ムチカルミン染色，弱拡大所見
写真2と連続切片，小葉構造を呈する小唾液腺部分に陽性所見を示す。

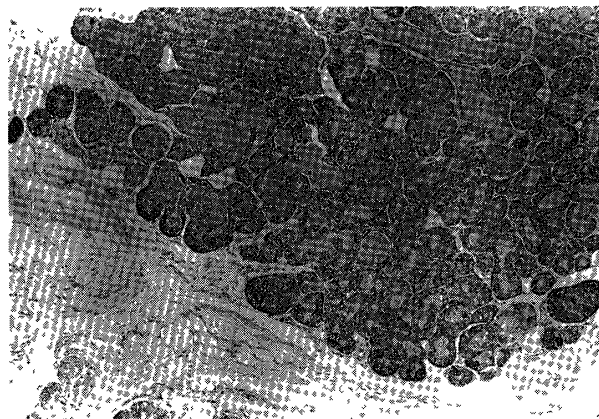


写真5：ムチカルミン染色，強拡大所見
腺房部に陽性所見を示す。

はこの粘液腺の増生と考えられた。周囲組織との境界は一部明瞭ではないものの、核異型を含めた細胞異型、構造異型はともに認めなかった。

また、炎症性変化もほとんど認められなかった(図2, 3)。ムチカルミン染色では腺房部および腺腔内に正常口蓋腺と同様の粘液腺の性状を示す陽性所見を示した(図4, 5)。

病理組織学的診断：口蓋部小唾液腺の腺腫様過形成

考 察

本疾患が小唾液腺の腺腫様過形成という診断名で初めて報告されたのは、Arafatら⁶⁾の Adenomatoid hyperplasia of mucous salivary glands であり、それ以前は同様の疾患が Intraoral, mucinous, minor salivary gland lesions presenting clinically as tumors⁴⁾や, minor salivary gland lesion presenting clinically as tumor⁵⁾として報告されている。Arafatら⁶⁾以後も minor salivary gland hyperplasia⁹⁾などの診断名で報告され、本邦でも口蓋腺過形成^{10,13)}や小唾液腺過形成¹⁶⁾という病名で報告されているが、いずれもその本態は同様のものである。本疾患の発生頻度は比較的稀とされ、おもに口蓋部粘膜に単発性に発生し、病理組織学的には異型のない小唾液腺組織の増生であるが、Scullyら¹²⁾が報告論文の副題で A wolf in sheep's clothing ならぬ another sheep in wolf's clothing と呼んだように、臨床的に腫瘍性病変を疑わせるのが大きな特徴である。また、疼痛もなく経過することが多く、歯科診療中に偶然発見された例も少なくない^{3,7,8,15)}。過去の報告例の臨床診断は多形性腺腫を疑ったもの^{2,3-6,10,13,16)}をはじめ、他の唾液腺腫瘍^{2,3,6,8,11,12)}や線維腫^{6,15)}など腫瘍性病変を疑ったものが非常に多い。自験例でも良性唾液腺腫瘍の臨床診断がなされていた。

一方、唾液腺組織の増生や過形成と診断されたものは5症例^{2,4,6,7,14)}のみであった。そのうち2例は生検によつて的確な診断がなされたものであり、本疾患は病理組織学的には腫瘍性病変

との鑑別診断は比較的容易であることから、的確な臨床診断を行なうには、十分その特徴を把握しておくことと共に、生検が非常に有用であると思われた。

また本疾患の発生機序については臨床的特徴などに比して不明な点が多い。大唾液腺の肥大の原因として、耳下腺・顎下腺の無症候性腫大では内分泌障害・肝障害・前立腺肥大などの関係が述べられ¹⁷⁾、また両側性に耳下腺に生じる唾液腺症も原因不明とされているが、種々の代謝・分泌障害による腺房細胞での分泌顆粒放出阻害^{18,19)}が一因として挙げられている。しかし、小唾液腺の過形成の原因について言及したものは少なく、検索した報告例のほとんどが全身状態に特記すべき事項もなく、薬物の服用なども認められないため、上記に挙げられた原因は考えにくい。Arafatら⁶⁾は多くの症例の既往に特記事項もないことから、腺房が特発性に増殖した可能性を指摘した。また、Barrett and Speight³⁾は喫煙習慣や義歯の使用による刺激との関連性についても検索し、20例のうち喫煙に関する情報の得られた12例全症例において、喫煙習慣があったと報告している。さらに、確認し得た12例のうち6例が上顎義歯を使用していたとし、明確ではないものの、喫煙習慣および上顎義歯使用による慢性炎症、局所的外傷との関係が本疾患発生の重要な要因となりうると述べている。また、Aufdemorteら⁸⁾の報告例では年間15パットの喫煙と中等度の飲酒習慣のある患者での症例を、石橋ら¹⁰⁾は一日20本、濱田ら¹⁶⁾は一日60本の喫煙習慣のある患者での症例を報告している。自験例でも程度は不明であるが喫煙習慣のある患者での発生例であった。またBarrett and Speight³⁾の報告以外にも義歯使用者での発生例^{5,10,12)}が報告されている。また口蓋以外の小唾液腺の分布部位である頬粘膜、口唇、舌および臼後三角部での報告例も少数ながらみられ、本疾患はすべての小唾液腺分布部位

に生じる可能性があると思われる。しかし、その多くは口蓋に発生しており、さらに口蓋における本疾患の好発部位と小唾液腺の解剖学的分布部位は必ずしも一致せず、このことも喫煙や義歯などの複数の刺激と本症の発生との関係を示唆するものかもしれない。

結 語

口蓋部に生じた小唾液腺の腺腫様過形成の1例を経験し、その概要を報告するとともに、その発生機序について考察した。

参考文献

1. Warnock, G R, Jensen, J L, and Kratochvil, F J, Developmental Disease, Ellis, G L, Auclair, P L, and Gnepp, D R ed Surgical Pathology of the Salivary Glands, 10-25, W B Saunders Company, Philadelphia, 1991
2. Buchner, A B, Merrell, P W, Carpenter, W M and Leider, A S Adenomatoid hyperplasia of minor salivary glands, *Oral Surg Oral Med Oral Pathol*, 71(5) 583-587, 1991
3. Barrett, A W, and Speight, P M Adenomatoid hyperplasia of oral minor salivary glands, *Oral Surg Oral Med Oral Pathol*, 79(4) 482-487, 1995
4. Giansanti, J S, Baker, G O, and Waldrom, C A Intraoral, mucinous, minor salivary gland lesions presenting clinically as tumors, *Oral Surg*, 32(6) 918-922, 1971
5. Devildos, L R, and Langrois, C C Minor salivary gland lesion presenting clinically as tumor, *Oral Surg*, 41(5) 657-659, 1976
6. Arafat, A, Brannon, R B, Colonel, L and Ellis, G L Adenomatoid hyperplasia of mucous salivary glands, *Oral Surg*, 52(1) 51-55, 1981
7. Brannon, R B, Houston, G D, and Meader, C L Adenomatoid hyperplasia of mucous salivary glands a case involving the retromolar area, *Oral Surg Oral Med Oral Pathol*, 60(2) 188-190, 1985
8. Aufdemorte, T B, Ramzy, I, Holt G R, Thomas, J R, and Duncan, D L Focal

- adenomatoid hyperplasia of salivary glands A differential diagnostic problem in fine needle aspiration biopsy, *Acta Cytologica*, 29(1) 23-28, 1985
9. Austin, M B, Frierson Jr, H F Pathologic quiz case 1, *Arch Otolaryngol Head Neck Surg*, 112 336-339, 1986
10. 石橋利文, 高坂栄一, 武田さき子, 根本一男: 腫瘍を疑わしめた口蓋腺過形成の1例, 日口外誌, 32(6): 1042-1045, 1986。
11. Brown F H, Houston, G D, and Sagan, M A Adenomatoid hyperplasia of mucous salivary glands report of two cases, *J Periodontol*, 58(2) 125-127, 1987
12. Scully, C, Eveson, J W, and Richards, A Adenomatoid hyperplasia in the palate another sheep in wolf's clothing, *Br Dent J*, 173 141-142, 1992
13. 小野芳男, 対馬壽夫, 貝森光大: 多形性腺腫を思わせた口蓋腺過形成の1例, 日口外誌, 38(3): 496-497, 1992。
14. Petri III, W P, Carr, R F, and Kahn, C S Adenomatoid hyperplasia of the palate, *J Oral Maxillofac Surg*, 51 310-311, 1993
15. 坂下英明, 宮田 勝, 宮本日出, 宮地優子, 車谷宏: 臼後部に発生した小唾液腺の腺腫様過形成の1例, 口科誌, 43(4): 591-594, 1994。
16. 濱田良樹, 濱田明子, 高田典彦, 堀内俊克, 松本康博, 瀬戸皖一: 軟口蓋に発生した小唾液腺過形成の1例, 日口外誌, 41(9): 838-840, 1995。
17. 沢木修二, 設楽哲也, 野村恭也: 臨床耳鼻咽喉科学4—咽喉科編, 53, 中外医学社, 東京, 1979。
18. 福島祥紘: 唾液腺症, 飯島宗一編: 現代病理学大系第13巻A〔消化管I〕唾液腺・肝臓I, 25-27, 中山書店, 東京, 1985。
19. 鈴木晴彦: 唾液腺症, 野村恭也・石井哲夫編: 耳鼻咽喉科診断治療大系6, 53, 講談社, 東京, 1987。