

〔臨床〕 松本歯学 4 : 60~66, 1978

特異な内容物を有する Dermoid Cyst の 1 症例
 —— 特にその組織化学的および生化学的検索 ——

林 俊子, 川上敏行, 枝 重夫
 松本歯科大学 口腔病理学教室 (主任 枝 重夫 教授)

平岡行博, 原田 実
 松本歯科大学 口腔生化学教室 (主任 原田 実 教授)

丸茂忠英, 龍方孝典, 亀山嘉光, 千野武広
 松本歯科大学 口腔外科学第 1 講座 (主任 千野武広 教授)

A Case of Dermoid Cyst Containing Globular Inclusions
 —— Their histochemical and biochemical natures ——

TOSHICO HAYASHI, TOSHIYUKI KAWAKAMI and SHIGEO EDA
Department of Oral Pathology, Matsumoto Dental College
(Chief: Prof. S. Eda)

YUKIHIRO HIRAOKA and MINORU HARADA
Department of Oral Biochemistry, Matsumoto Dental College
(Chief: Prof. M. Harada)

TADAHIDE MARUMO, TAKANORI RYUKATA,
 YOSHIMITSU KAMEYAMA and TAKEHIRO CHINO
Department of Oral Surgery I, Matsumoto Dental College
(Chief: Prof. T. Chino)

Summary

A dermoid cyst appeared in the floor of a the mouth of a 47-year-old woman (Figs. 1, 2). Incision of the resected specimen (Fig. 3) revealed that it contained many small globular inclusions (Fig. 4). The cyst wall had a lining of stratified squamous epithelium and sebaceous glands (Fig. 5) and foreign body giant cells (Fig. 6). Therefore, it was diagnosed histopathologically as dermoid cyst. Histochemical and biochemical analyses about the globular inclusions (Figs. 4, 7) showed that they consisted mainly of lipids especially cholesterol (Fig. 10; Table 1) and partly of proteins excepting collagen fibers (Fig. 9; Table 2) and polysaccharides (Fig. 8).

緒 言

dermoid cyst (皮様嚢胞, 類皮嚢胞)は, 外胚葉に由来する嚢胞で, 口腔領域では口腔底部に好発し, 稀に口唇, 頬部に発生することもある。

本嚢胞は, 角質変性した内容物と, 嚢胞壁に皮脂腺や汗腺, 毛根などの皮膚付属器官を有しているのが特徴で, 皮膚付属器官をもたないものは epidermoid cyst (表皮様嚢胞, 類表皮嚢胞)と呼ばれ区別される。発現頻度は, dermoid cyst の方が後者 epidermoid cyst よりはるかに低い。

今回著者らは, 47歳女性の口腔底部に腫脹を来たした dermoid cyst の症例を経験し, 病理組織学的検索とあわせて, その特異な嚢胞内容物について, 組織化学的および生化学的検索を試みたので, その概要を報告する。

症 例

患者: 藤○文○, 47歳, 女性

初診: 昭和52年3月26日

主訴: 舌下部の腫脹

家族歴・生活歴: とともに特記事項はない。

既往歴: 4年前心臓肥大を指摘される。現在, 腎炎にて投薬中。

現病歴: 昭和51年夏頃, 口腔底部に示指頭大の無痛性腫脹に気づき, 同時に発音障害を自覚する。昭和52年2月, 某歯科に義歯作製を希望して受診したところ, 同腫瘍の指摘を受け, 本学を紹介さ



図1: 術前顔貌所見。頤下にわずかに腫脹がある。

れ来院した。

口腔外所見: 顔貌は左右対称で(図1), 僅かに頤部を前上方に突き出すと頤下部にクルミ大の瀰漫性の腫脹があり, 表面は正常皮膚色を呈していた。触診すると, 皮膚および下在組織とは可動性で, 母指頭大の弾性軟の腫瘍を触れた。

口腔内所見: 口腔底正中部に小鶏卵大の瀰漫性の腫脹があり, 舌は前上方に押し上げられた様相を呈していた。腫脹部の表面粘膜は健康色で滑沢(図2), 触診すると鶏卵大の腫瘍を認め, 硬度は弾性軟, 粘膜とは可動性であった。圧迫により凹陷を呈し, 口腔内外より双手診を行なうと, 頤下の腫瘍と一体であることが確認された。

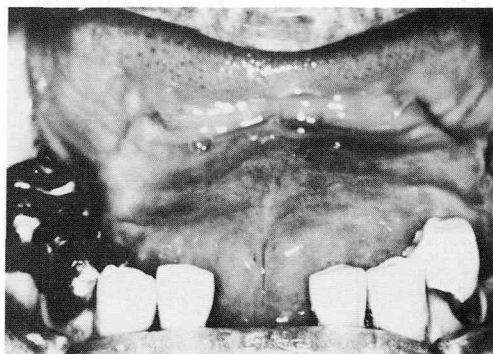


図2: 術前口腔内所見。舌下部にも腫脹がある。

検査所見:		尿 検 査	
血液一般検査		色調	淡黄
赤血球数	469 × 10 ⁴ /mm ³	比重	1.014
白血球数	4300 /mm ³	pH	7.0
血色素量	12.0 g/dl	蛋白	—
ヘマトクリット値	39 %	糖	—
全血比重	1.042	ビリルビン	—
血小板数	20 × 10 ⁴ /mm ³	ウロビリリン	—
血 沈	6 mm/h	ウロビリノーゲン	±
ABO式血液型	B	ケトン体	—
Rh式血液型	+	潜血	+

臨床診断: 舌下-頤下型皮様嚢胞

処置: 昭和52年4月5日, N.L.A 麻酔下にて, 口腔内より摘出手術を開始したところ, 頤下部において下顎骨との癒着のため剥離が困難であったが, 他の部では剥離は容易であった。腫瘍は頤舌骨筋にはさまれてくびれ, ちょうど口腔底に向かって松茸様の形を呈していた。創は一部開

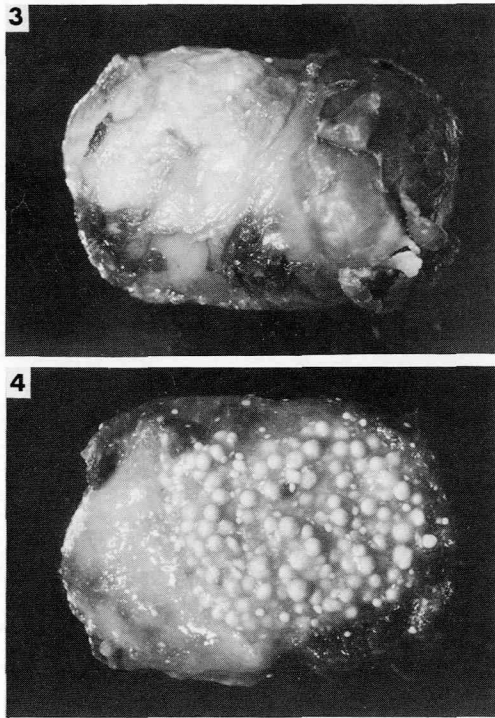


図3：摘出物

図4：摘出物断面。直径1～3mmの球状物が充満している。

放創としてガーゼドレーンを挿入して手術を終了した。術後1年経過するも再発の徴候はなく、経過良好である。

摘出物所見：腫瘍の大きさは約60×40×30 mm, 55 g で淡赤色の被膜に被われ、やや固めの波動をふれた(図3)。割を入れた所、白濁した漿液の中に径が1～3 mmの大小不同の黄白色の球状物が現われた(図4)。

病理組織学的所見：摘出物は10%ホルマリン固定パラフィン切片を作製し、H-E染色、PAS染色、Bernett-SeligmanのDDD染色を施して鏡検した。またこの他に球状内容物を数個取り出し、ゼラチン包埋凍結切片とし、Sudan Black BおよびOil red O染色を施した。

裏装上皮は重層扁平上皮で上皮突起を持たず、角質化の傾向が強い。さらに上皮直下には皮脂腺が認められたが(図5)、毛嚢や汗腺は発見できなかった。嚢胞壁の一部に上皮が破壊され幼若な肉芽が盛り上がったところがあり、ここに多核の異物巨細胞が多数出現しているのが認められた(図

6)。嚢胞腔内の直径1～3 mmの球状物には、パラフィン切片においてもなお残存する同心円状の線維様物を認め、これはH-E染色ではエオシンに薄くピンクに染まり(図7)、中性多糖類のためのPAS染色に弱陽性(図8)、-SH、-S-S-基のためのBernett-SeligmanのDDD反応にもわずかに反応するだけである(図9)。しかし、球状物の周囲をうめる好中球や壊死組織から成る物質は、これらいずれの染色にも強く反応した(図7～9)。さらに、脂質(中性脂肪)のためのSudan Black B染色およびOil red O染色を施したものでは球状物は強く反応した(図10)。

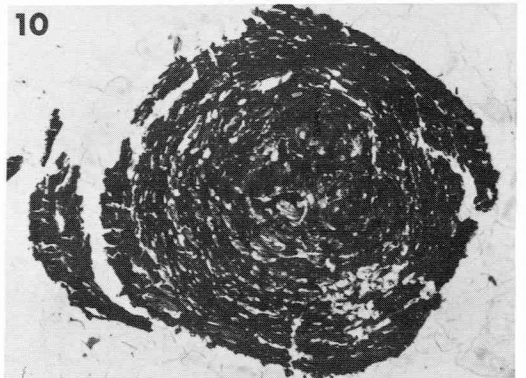
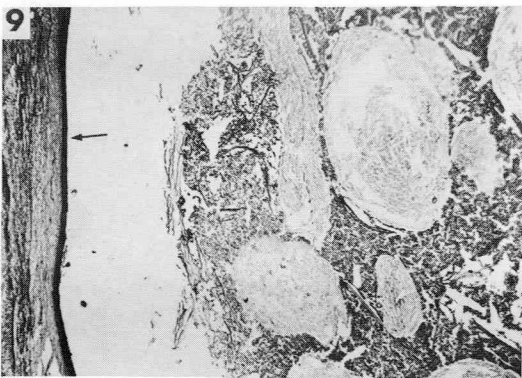
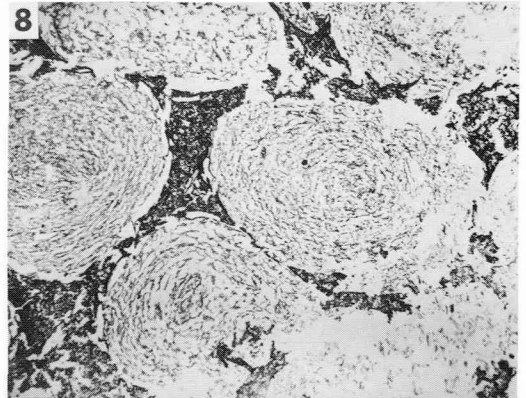
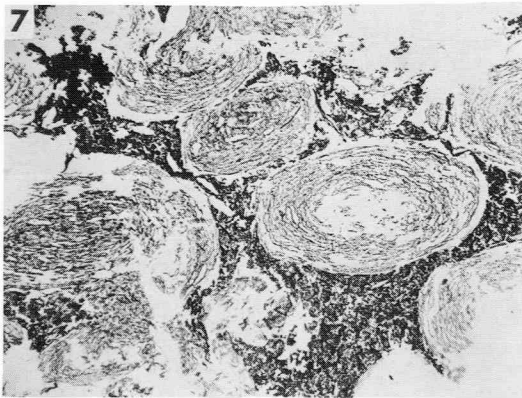
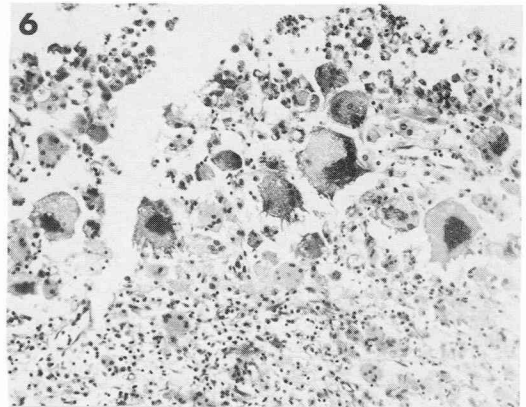
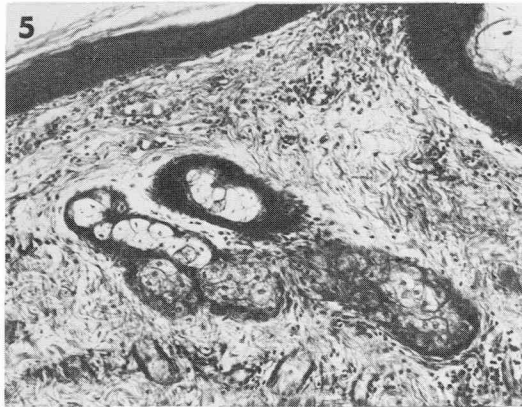
病理組織学的診断：dermoid cyst

嚢胞内球状物の生化学的所見：嚢胞内の球状物を乾燥し、水分の定量を行なった後、Folch溶液(Folch, et al. 1957⁴⁾)で抽出した。Folch溶液可溶性画分については、Franny-Amador法(Franny and Amador, 1968⁵⁾)で処理、コレステロールを定量し、シリカゲル2 g (1.3×2 cm)のカラムを用い、46 mgの試料に対してクロロホルム10 mlで溶出した画分を単純脂質画分、クロロホルム-アセトン(1:1)およびアセトン各5 mlで溶出した画分を糖脂質画分、ついでメタノール10 mlで溶出した画分をリン脂質画分とした。さらに、単純脂質画分、糖脂質画分よりコレステロール量を差し引き、各々中性脂肪・ワックス量、糖脂質量とした(表1)。

さらに得られたFolch溶液不溶性・生食不溶性物質をアセトン-エーテルで乾燥後、6 N-HClで105℃、24時間加水分解し、JEOL-6AH全自動アミノ酸分析装置およびJEOL-DK Digital In-

表1.

水分	33.4%
Folch溶液可溶性物質	54.5%
コレステロール	31.4%
糖脂質	14.0%
中性脂肪・ワックス	6.9%
リン脂質	1.1%
未同定	1.1%
Folch溶液不溶性物質	10.2%
生食可溶性タンパク質	0.5%
生食不溶性物質	9.7%
	(Biuret反応陽性)



- 図5：上皮突起をもたない重層扁平上皮，その下に皮脂腺が認められる．（H-E）（×110）
- 図6：上皮は欠損し，好中球や多核巨細胞が多数認められる．（H-E）（×110）
- 図7：嚢胞内球状物はパラフィン切片においてもなお同心円状に排列する線維様物を残存させている．（H-E）（×17）
- 図8：球状物の線維様物はPAS反応に弱陽性で，周囲の壊死細胞などは陽性である．（×17）
- 図9：球状物の線維様物のチオグリコール酸前処理後のDDD反応はわずかに陽性である．一方裏装上皮の角質層に強く反応している（矢印）．（×17）
- 図10：球状物はSudan Black Bに濃染する．（×17）

表 2. Folch 溶液・生食不溶性画分のアミノ酸組成

アミノ酸	本検体	口腔粘 膜上皮 ²⁾	表皮 ¹⁾
ヒドロキシリジン	0	0	—
リジン	103	71	50
ヒスチジン	28	19	12
アルギニン	49	86	88
ヒドロキシプロリン	0	0	—
アスパラギン酸	94	88	73
トレオニン	58	51	34
セリン	84	62	165
グルタミン酸	128	152	123
プロリン	14	35	32
グリシン	92	59	99
アラニン	83	57	—
1/2 シスチン	12	10	31
バリン	65	60	49
メチオニン	14	24	18
イソロイシン	33	50	68
ロイシン	88	104	83
チロシン	8	42	46
フェニルアラニン	45	48	28

数値は 残基数/1,000残基 を示す。

tegrator でアミノ酸組成分析を行なったところ表 2 の如き成績を得た。すなわち、脂質成分としてはコレステロールが最も多く、Folch 溶液不溶性・生食不溶性物質のアミノ酸組成では、グルタミン酸含量が多く、シスチンおよびリジンもわずかに含まれていた。しかしヒドロキシリジン、ヒドロキシプロリンは全く検出されず、コラーゲンの存在は否定された。

考 察

口腔領域に発生する dermoid cyst (皮様嚢胞, 類皮嚢胞), epidermoid cyst (表皮様嚢胞, 類表皮嚢胞) は他の領域に発生するものと同様に、胎生期に迷入した外胚葉によるものであるといわれ、異論のないところである。

病理組織学的には、嚢胞内面が重層扁平上皮により被われ、上皮下に皮脂腺、汗腺、毛髪、毛嚢など皮膚付属器官を有する dermoid cyst (皮様嚢胞, 類皮嚢胞) と、皮膚付属器官を全く有しない

epidermoid cyst (表皮様嚢胞, 類表皮嚢胞) および中胚葉あるいは内胚葉成分の混在する teratoma (奇型腫) との 3 種に分ける Mayer (1955⁹⁾) の分類が一般に支持されている。また臨床診断においては、皮様嚢胞と表皮様嚢胞とは区別せずに皮様嚢胞と総称することが多い(高橋・大西, 1952¹⁵⁾)。今回の症例は重層扁平上皮の下に皮脂腺を有していたことから dermoid cyst と診断したが、かつて戸塚・塚野, (1939¹⁷⁾) は、皮脂腺のみで、毛髪、毛嚢、汗腺を有しないものは中間型皮様嚢胞と呼ぶことを提唱しており、本症例はまさにそれに相当する。

現在までの統計的観察によれば、口腔領域では epidermoid cyst が多く、dermoid cyst は少ない^{1) 3) 8) 13) 16) 19)}。以下 dermoid cyst について述べると、発生部位については、口腔底に圧倒的に多いとされており^{8) 12) 19)}、その他顎骨、口唇等にみられる。さらに、口腔底に発生するものでは舌下部あるいは頤下部が多く、今回の症例のように顎舌骨筋をこえて舌下より頤下にわたる舌下-頤下型はきわめて稀である(西嶋ら, 1976)¹⁰⁾。発現年齢については一般に、16~30 歳が多いとされている^{1) 3) 8) 12) 16) 19)}が、Meyer (1955)⁹⁾ は、これはいわゆる皮脂腺、汗腺などの皮膚付属器官の発育の最も活発な時期に嚢胞が発育するためであろうと述べている。しかし、本症の発生学的な見地から考えて、新生児から高齢者まで存在するのは当然で、本邦においても、低年齢としては深谷ら (1970)⁶⁾ の生後 50 日の男児の症例や、円林ら (1976)³⁾ の 1 歳 8 ヶ月の女児の症例がみられ、また高齢者の症例としては、河合ら (1965)⁸⁾ の 52 歳男性、山下ら (1973)¹⁹⁾ の 62 歳女性の症例などがある。今回の症例は、47 歳であり比較的高年齢の症例であるといえることができる。

手術法については、口内法、口外法、さらに両者併用法があり、玉利 (1968)¹⁶⁾ によれば、大半が口内法によって行なわれていると記載されている。今回の症例では、N.L.A. 麻酔下にて口内法で行なったが、本症例の如く、舌下-頤下型においてはむしろ、口内法・口外法両者併用法を採用すれば、局所麻酔下にて充分手術を終ることができたのではないかと考える。

嚢胞の内容物については、一般に脂肪、表皮剝離層、コレステロール結晶、毛髪などが含まれた

黄白色のカニ状物(円林ら, 1976³⁾), 泥状物(下里ら, 1972¹²⁾), あるいはバター状物(上田ら, 1975¹⁸⁾)といわれており, 今回の症例の如く多数の球状物が充満しているものは珍しく, わずかに“顆粒状”として報告されたものを知るのみである(長谷川ら, 1972⁷⁾; 上田ら, 1975¹⁸⁾). また, 皮様嚢胞の内容物の生化学的性状については, 長谷川ら(1972)⁷⁾が行なっており, 生食可溶性タンパク質の含有とコレステロールの含有を推定し, 脂肪酸のガスクロマトグラフ分析によりパルミチン酸が約60%を占めることを確かめた. さらに表皮様嚢胞の内容液についても生化学的検索がなされている(鈴木ら, 1970¹⁴⁾). そして, コレステロールがもっとも多いことを認め, 赤外線吸収スペクトル解析も試みている. 今回著者らは, 生食可溶性タンパク質とコレステロールの定量を行ない, さらに生食不溶性タンパク質のアミノ酸組成の分析を行なったが, 球状物の内容は脂質成分としてコレステロールがもっとも多く, 不溶性タンパク質としてグルタミン酸が多いことやシスチンとリジンの含有量などから, 粘膜上皮あるいは表皮のアミノ酸と類似した軟ケラチンで構成されると考えられる結果を得た. さらにシスチンが少ないことは, 組織化学的所見で, チオグリコール酸で前処理した DDD 反応が弱陽性であったことに一致し, これらは球状物が角質変性物を主体とするものでないことを示唆している. つまりこの球状物は, 角質変性物を基質としてそれに多量の脂質とくにコレステロールが沈着したものであることができる.

結 語

1. 47歳女性の舌下-頤下部に発生した dermoid cyst の1症例を経験した.

2. 病理組織学的には, 嚢胞壁の裏装上皮は重層扁平上皮で, その直下に皮脂腺を有していたが, 毛嚢や汗腺などは認められなかった.

3. 嚢胞内に直径1~3mmの球状物が充満していたので, その組織化学的および生化学的検索を行ない, それが少量の角質変性物を基質とし, コレステロールを主成分とする脂質が多量に沈着したものであることを認めた.

文 献

- 1) 土井 尚, 谷口幸治, 若山浩子, 兼松宣武 (1972) 頬部に発生した類表皮嚢胞の1例. 日口外誌, 18: 384—390.
- 2) Eastoe, J. E. (1963) The amino acid composition of proteins from the oral tissues—I. Arch. oral Biol. 8: 449—458.
- 3) 円林義一, 空閑祥浩, 向野明甫, 安西 学, 迫田隅男, 植村和子, 安藤慎一郎 (1976) 上唇正中部に発生した皮様嚢胞の1例. 日口外誌, 22: 842—846.
- 4) Folch, J., Lees, M. and Sloane Stanley, G. H. (1957) A simple method for the isolation and purification of total lipids from animal tissues. J. Biol. Chem. 226: 497—509.
- 5) Franey, R. J. and Amador, E. (1968) Serum cholesterol measurement based on ethanol extraction and ferric chloride-sulfuric acid. Clin. Chim. Acta, 21: 255—263.
- 6) 深谷昌彦, 大谷端夫, 西川原弘亜, 伊藤義澄, 大竹勝実 (1970) 新生児にみられた口腔底皮様嚢胞の1例. 日口科誌, 19: 213—215.
- 7) 長谷川 明, 東理十三雄, 上原 淳, 本多洋之, 比嘉実盛, 園山 昇 (1972) 乳児に見られた大きな口腔底皮様嚢胞の1例. 日口外誌, 18: 187—191.
- 8) 河合 幹, 服部孝範, 中島徹治, 北山誠二, 滝義孝 (1965) 口腔底皮様嚢胞の1例ならびに文献的考察. 日口外誌, 11: 244—250.
- 9) Meyer, I. (1955) Dermoid cysts (Dermoids) of the floor of the mouth. Oral Surg. 8: 1149—1164.
- 10) 西嶋克巳, 石田利広, 長島駿一郎, 前田健一郎, 和気和也, 元井 信 (1976) 嚥下障害を伴った巨大な口底類表皮嚢胞の1例. 日口科誌, 22: 217—220.
- 11) 清水正春 (1971) 押鐘 篤監修, 歯学生化学. 第4版, P651. 医歯薬出版, 東京.
- 12) 下里常弘, 石井 孝, 今井淳子 (1972) 類皮嚢胞の2症例について. 日口外誌, 18: 598—601.
- 13) 塩田重利, 志村介三 (1957) 口底皮様嚢胞の3例. 口病誌, 24: 385—388.
- 14) 鈴木 貢, 粟佐好尚, 佐藤順規, 石岡 隆, 木原俊, 桜田守利, 一戸惇一郎, 平間 智, 青木紀道, 宮川慶吾 (1970) 口腔底の類皮様嚢胞の1例—その病理像と内容液の性状について—. 日口科誌, 19: 638—647.
- 15) 高橋庄二郎, 大西栄蔵 (1952) 口腔底皮様嚢腫の2例ならびに本邦文献による統計的観察. 歯科学報, 52: 62—67.
- 16) 玉利尚之, 馬渡和夫 (1968) 左側頬部に発生した

- 類皮様嚢胞の1例. 付. 本邦文献(1957—1967)ならびに欧米文献の統計的観察. 日口外誌, 14: 106—112.
- 17) 戸塚善之助, 塚野多四郎(1939)口腔底皮様嚢腫の6例に関する臨床経験及び其組織像より観たる種類に就て. 大日齒医学会誌, 37: 150—162.
- 18) 上田 忠, 児玉園昭, 坂井 満, 青木道育, 犬塚隆雄, 田縁 昭(1975)発症時期を異にして舌下部ならびにおとがいが下部にあらわれた皮様嚢胞の1例. 日口外誌, 21: 457—462.
- 19) 山下佐英, 増田敏雄, 副島公生, 岡山秀昭, 伊東隆利, 登山 弘, 川平清透, 坂上 昇, 比嘉良有, 池田邦明(1973)皮様嚢胞の11例. 日口外誌, 19: 480—487.