

## 上唇口角部粘膜下に生じた貯留型粘液嚢胞の1例

青山 祐紀<sup>1</sup>, 木村 晃大<sup>2</sup>, 中村 雅明<sup>3</sup>, 古澤 清文<sup>3</sup>, 長谷川博雅<sup>1,2</sup>

<sup>1</sup>松本歯科大学 大学院歯学独立研究科 口腔病理学専攻

<sup>2</sup>松本歯科大学 口腔病理学講座

<sup>3</sup>松本歯科大学 口腔顎顔面外科学講座

A case of retention cyst arising in submucosa of upper-labial commissura

YUKI AOYAMA<sup>1</sup>, AKIHIRO KIMURA<sup>2</sup>, MASAOKI NAKAMURA<sup>3</sup>,  
KIYOFUMI FURUSAWA<sup>3</sup> and HIROMASA HASEGAWA<sup>1,2</sup>

<sup>1</sup>Oral Pathology, Matsumoto Dental University Graduate School of Oral Medicine

<sup>2</sup>Department of Oral Pathology, Matsumoto Dental University School of Dentistry

<sup>3</sup>Department of Oral & Maxillofacial Surgery, Matsumoto Dental University School of Dentistry

### Summary

We reported a case of retention cyst arising in the submucosa of upper-labial commissure. The patient was a 65-year-old Japanese female who visited Matsumoto Dental University Hospital with her chief complaint of a swelling of the cheek. Histopathological examinations revealed some epithelial cysts with mucinous material, accompanied by chronic sialadenitis, in the muscular tissue.

### 緒 言

粘液嚢胞は、唾液の流出障害によって生じる嚢胞で、内面を上皮で覆われた明瞭な嚢胞腔を有するもの（貯留型）と、内面に上皮の見られないもの（溢成型）とがある。その多くは溢成型で口唇、特に下唇に好発し、上唇ないし口角部に貯留型が発現することはほとんど無い。

今回われわれは上唇口角部粘膜下の腫瘍を主訴に来院した貯留型粘液嚢胞の1症例を経験したので、その概要を報告する。

### 症 例

患者は65歳の女性で、左上唇の腫脹を主訴として、平成17年6月24日に某歯科医院を受診した。上顎左右犬歯のみ残存し、同部にレスト付きクラスプを備えた部分床義歯を装着していたが、病変部との明らかな関連は認めなかった。

そこで平成17年6月27日、精査目的で本学口腔外科を紹介されて来院した。

家族歴に特記すべき事項はなかったが、全身的には高血圧症にて降圧剤を服用中であるが、その他には特記すべき事項はなく、体格は中程度で栄養状態は良好であった。来院の約1週間前から左

側口角上部の腫瘍を自覚していたが、自発痛はなく、明らかな増大傾向もなかった。顔貌は左右対称で、左側上唇口角部の粘膜にびまん性の腫脹を認め、その内部に比較的境界明瞭で弾性硬、小豆大の丘状腫瘍を触知した。抗菌剤の投与によって腫脹はやや縮小したものの、その後も約1か月間経過を観察したが腫瘍は消退しなかった。そこで、粘液嚢胞の臨床診断のもと、局所麻酔下に腫瘍摘出術を施行した。腫瘍の周囲約5mmに電気メスにて切開を加え、腫瘍を鈍的に剥離・摘出した。腫瘍と周囲組織とは一部癒着し、嚢胞壁を剥離した際、帯黄白色の内容物の流出を認め、嚢胞を塊として摘出できなかった。

現在、術後3か月経過しているが、再発は認められない。

#### 病理組織学的所見

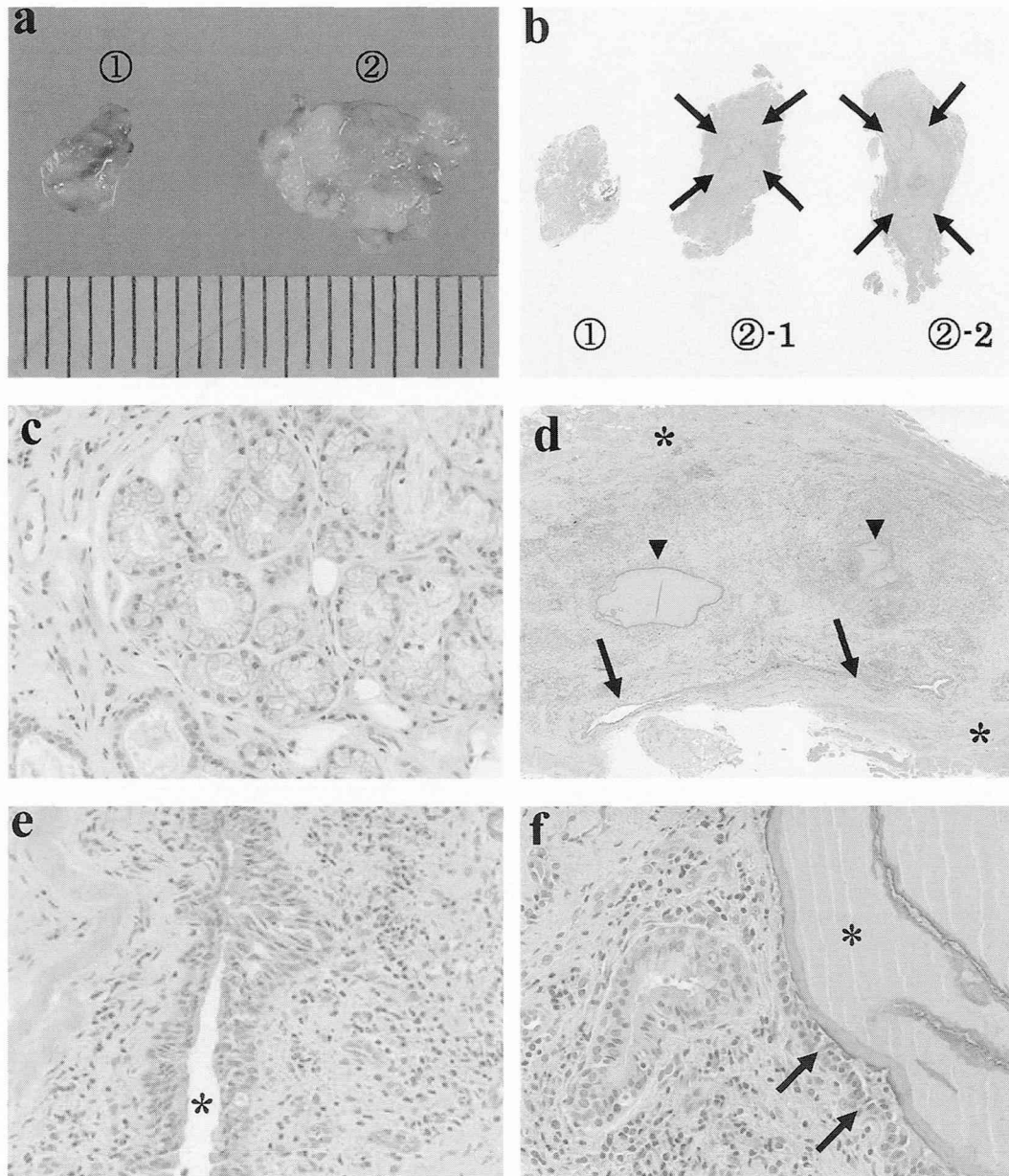
摘出物は $3 \times 3 \times 2$  mm および $8 \times 6 \times 3$  mm の2片の軟組織で、淡褐色を呈していた (Fig. 1-a-①, ②)。大きな検体 (Fig. 1-②) は2分割後にパラフィン包埋し、通法に従って、H-E染色、各種の特殊染色およびDako Envision + kit (Dako, Glostrup, Denmark) を用いて、免疫染色を行った。組織学的には、2片の摘出物の内、小切片は病変がなく (Fig. 1-b-①)、大切片には病変の存在が確認できた (Fig. 1-b-②)。小切片は概ね筋組織であったが、一部には多数の粘液腺房からなる小唾液腺を認めた。小葉内には線維化がみられたが、明らかな炎症性細胞浸潤はなかった (Fig. 1-c)。また大切片は、周囲が筋組織で囲まれた炎症性病変で、この中には比較的大きな圧排された嚢胞様構造と2か所に好酸性の粘液様物質の塊状物が存在していた (Fig. 1-d)。圧排された嚢胞様構造は、重層円柱ないし立方上皮からなり、小葉導管の構造を呈していた。管腔内には内容物は存在していなかった。このような比較的太い導管構造周囲には線維化とリンパ球・形質細胞を主体とした慢性炎症細胞浸潤を認め、終末部や介在部などの腺組織は残存していなかった (Fig. 1-e)。粘液様物質周囲の一部では、単層ないし2層程度の重層上皮がみられ、一部の上皮は著しく扁平化していた (Fig. 1-f)。この粘液様物質は、比較的均一に好酸性に染色されていた (Fig. 2-a)。上皮の有無を確認するために、抗

ヒトサイトケラチンであるAE-1/AE-3抗体 (Dako, Glostrup, Denmark) による免疫組織化学的染色を行ったところ、内腔を覆う上皮が明らかに陽性を示し、嚢胞全体が上皮で裏装されていることを確認した (Fig. 2-b)。PH 1.0およびPH 2.5いずれのalcian blue染色でも粘液様物質のほとんどが陰性であったが、塊状を呈さない部分で陽性を呈した (Fig. 2-c)。しかし、PAS反応ではalcian blue陰性・陽性いずれの部分でも陽性反応を示し、中性粘液の存在が確認できた (Fig. 2-d)。また、コッサ反応とグラム染色を行ったところ、石灰化およびグラム陽性菌・グラム陰性菌は確認されなかった。

#### 考 察

粘液嚢胞は嚢胞腔内に唾液由来の粘液を包含するものと定義され<sup>1)</sup>、そのほとんどが下唇に出現し、好発年齢は20歳以下である<sup>2)</sup>。1985年から10年間のArmed Forces Institute of Pathology (AFIP)の症例によると、粘液嚢胞は全唾液腺疾患の9~10%を占めているが、本学では唾液腺疾患の約60%を占め、きわめて頻度の高い疾患である。しかしその好発部位を本学検査科病理の病理診断システムによって検討すると、過去30年間に病理診断された粘液嚢胞333例中、上唇口角部粘膜に発生したものは本症例1例のみであった。口唇粘膜に存在する口唇腺は口輪筋と口唇粘膜間に介在し、粘膜表在性の組織である<sup>3)</sup>ために、咬傷などの外傷による導管の破綻が生じやすいと考えられる。しかし、口唇腺の腺外側部すなわち、上唇口角部では、腺葉の一部あるいは全体が、頰筋、口角挙筋、下唇下制筋の筋束間に介在することから、導管破綻に起因する粘液嚢胞は発生しにくいと考えられる。

粘液嚢胞は組織学的に内面が上皮で覆われ、明瞭な嚢胞腔を有する貯留型と上皮を欠く溢出型とがあり、その多くは後者に属する。AFIPのデータによると貯留型は溢出型の約10分の1の発生頻度で<sup>1)</sup>、貯留型の嚢胞形式は導管の閉塞あるいは狭窄によって生じると考えられている<sup>3,4)</sup>。また上皮の裏装を伴う線維性嚢胞壁の内部に粘液を容れ、嚢胞壁には軽度の炎症所見がみられることもある<sup>1)</sup>。本症例では、2層ないし単層の裏装上皮を認め、一部の上皮は著しく扁平化していた。こ



**Fig.1**

- a : Two pieces (①, ②) of enucleated specimens were colored light brown. Larger one was divided into two pieces prior to paraffin embedding.
- b : Smaller specimens (①) was intact, but larger one was inflamed (②-1&2) in a loupe figure. (H-E staining, ×5.)
- c : Smaller sample (b-①) was composed of mucous salivary gland and muscular tissue. (H-E staining, ×400)
- d : Inflammatory reaction was noted in muscular tissue (asterisks), accompanied by retention of eosinophilic substance (arrowheads) and remained duct (arrows) in larger specimens (b-②). (H-E staining, ×15)
- e : Affected tissue showed chronic inflammatory cell infiltration and remained duct without secretion in a lumen (asterisk). No mucous acini were noted. (H-E staining, ×200)
- f : Mucinous material (asterisk) was surrounded by columnar epithelium in part (arrows). (H-E staining, ×200)

の変化は本来2層程度の上皮が、粘液の貯留で伸展したものと考えられた。貯留していた粘液が、均一な染色性を示したことから、貯留していた粘液の大部分がゲル状を呈していたと想像でき

る。また、病変部には粘液を容れない嚢胞様の導管構造もみられた。嚢胞の剥離・摘出中に内容物の流出が確認されているが、この嚢胞様の導管構造内の内容物が流出したのものと思われた。

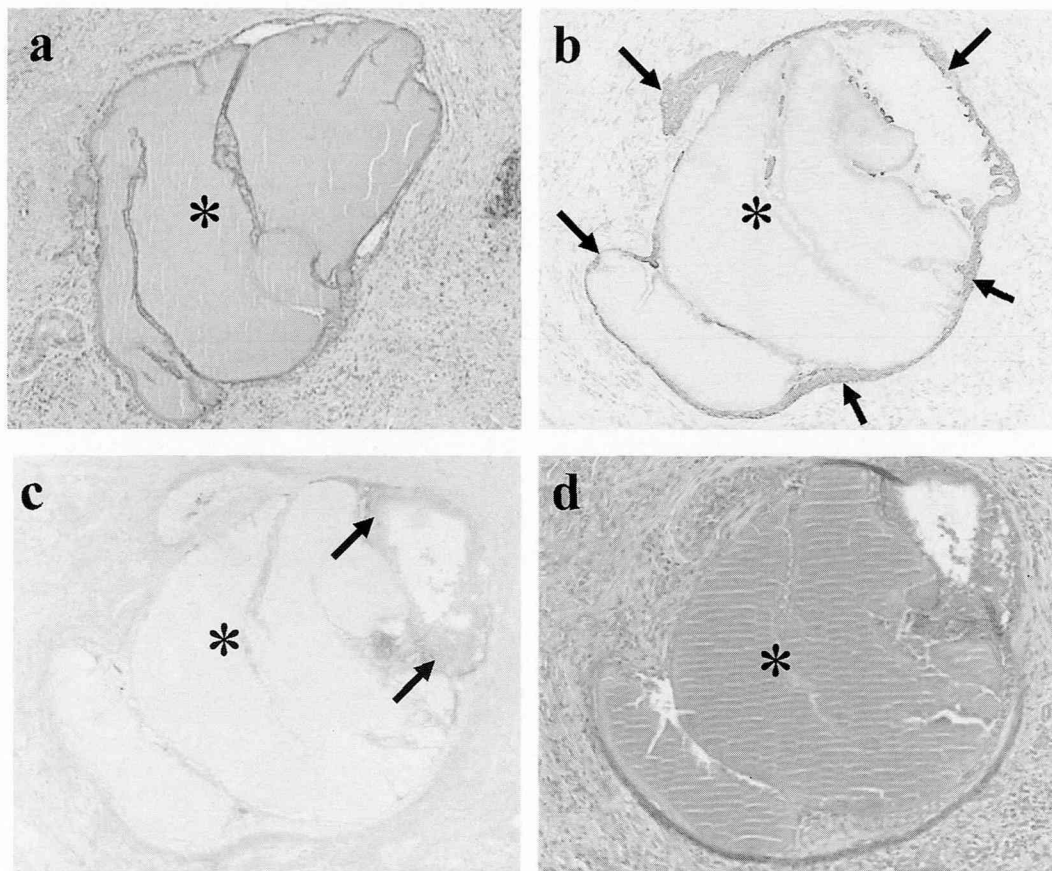


Fig.2

- a : Mucinous material (asterisk) was eosinophilic in H-E staining. (×100)  
 b : Mucinous material (asterisk) was surrounded by AE 1/AE 3-positive epithelium (arrows). (×100)  
 c : Mucinous material (asterisk) was almost negative for alcian-blue staining, but positive in part (arrows). (×100)  
 d : Mucinous material (asterisk) was entirely positive for PAS reaction. (×100)

貯留型粘液嚢胞の発生原因は、導管の狭窄などによる排出障害とされるが、本症例では線維化を伴う慢性炎症細胞浸潤がみられ、それらが密接に粘液嚢胞の成因に関わっていることが推測される。また、本症例では石灰化や細菌の存在を特殊染色で証明しえなかったが、粘液の性状の変化などによる排出障害や逆行性感染によって、二次的な慢性炎症が惹起された可能性も否定できない。本症例の様に経過が長く、線維化傾向があると弾性硬の腫瘤として触知されることが多いため、透明感のある青みを帯びたドーム状水疱性腫瘤で波動を触知する<sup>6)</sup>という典型的な臨床像を示さないことが多い。そのため、類皮嚢胞などの疾患との鑑別について十分留意しなければならないことも強調したい。

## 結 語

今回、われわれは比較的まれな疾患である貯留型粘液嚢胞が上唇口角部粘膜下に発生した1例を経験したので、特殊染色所見を加えて報告した。

## 文 献

- 1) Ellis GL (1996) Atlas of tumor pathology, tumors of the salivary glands. 3rd series : 421-5. Armed forces institute of pathology, Washington D.C.
- 2) Das S and Das AK (1993) A review of pediatric oral biopsies from a surgical pathology service in a dental school. *Pediatr Dent* **15** : 208-11.
- 3) 石川 梧朗編 (2001) 口腔病理カラーアトラス, 第2版, 124-25, 医歯薬出版株式会社, 東京.
- 4) 高木 實編 (1998) 口腔病理アトラス, 第2版,

- 206, 文光堂, 東京.
- 5) 上條雍彦 (1976) 図説口腔解剖学第5巻, 第5版, 1029, 1437-49, アナトーム社, 東京.
- 6) 宮崎 正監修 (2000) 口腔外科学, 第2版, 342, 医歯薬出版株式会社, 東京.