

[症例] 松本歯学 28: 75~78, 2002

key words: 貯留型粘液嚢胞—口蓋—裏装上皮

口蓋に生じた貯留型粘液嚢胞の稀な1例

堀尾 哲郎, 木村 晃大, 沈 發智, 長谷川博雅

松本歯科大学 口腔病理学講座

樽沼 修二

樽沼歯科医院

A Rare Case of Retention Cyst Arising in Soft Palate

TETSURO HORIO, AKIHIRO KIMURA, FA-CHIH SHEN and HIROMASA HASEGAWA

Department of Oral Pathology, Matsumoto Dental University School of Dentistry

SYUJI KURENUMA

Kurenuma Dental Clinic

Summary

We reported a rare case of retention cyst arising in soft palate. The patient was a 25-years-old, Japanese female who visited Kurenuma dental clinic with her chief complaint of a swelling in the soft palate. Histopathologically, the cyst cavity was lined with single or double-layered epithelium with macroapocrine secretion in part.

緒 言

粘液嚢胞は極めて発生頻度の高い唾液腺病変でその多くが下口唇に好発する。またその大半は外傷等による導管外溢型であり、上皮による裏装はない。

一方、軟口蓋腫瘍の多くが多形性腺腫に代表される良性腫瘍で、嚢胞性疾患は極めて稀である。今回われわれは軟口蓋に生じ、上皮の裏装を伴う貯留型の稀な1症例を経験したので、その概要を報告する。

症 例

患者: 25歳, 女性

初診: 平成14年5月16日

主訴: 軟口蓋部の腫脹

家族歴: 特記すべき事項なし

既往症: 特記すべき事項なし

現病歴: 数年前より軟口蓋部に大豆大の腫脹を自覚していたが、自発痛等を認めないため放置していた。しかし次第に同部の違和感を自覚するようになったため、平成14年5月、精査を目的として樽沼歯科医院を受診した。

現症

全身所見: 全身的には特記すべき事項はなく、体格は中等度で栄養状態は良好であった。

口腔外所見: 顔貌左右対称性で、発赤、腫脹など

は認められなかった。

口腔内所見：硬口蓋後方からやや左側に、大豆大で半球型の比較的境界明瞭な腫脹が認められ、その色調は透明感を伴う暗紫色で、硬度は弾性軟であった (Fig. 1-a)。

臨床診断：口蓋腫瘍

処置ならびに経過：上記診断のもと、局所麻酔下にて腫瘍切除術が施行された。病変部周囲約2 mmを電気メスにて切除・剥離し、一塊にて切除したところ、病変相当部に軽度の骨吸収を認めた。

切除物所見：切除物は12×10×4 mmの構造物で、腫瘍は滑沢な正常粘膜で被覆され、その表面の一部は陥凹していた (Fig. 1-b)。

病理組織学・免疫組織化学的所見

ルーベ像では粘膜上皮下に腺組織が散在し、その中央部に不規則な腔がみとめられた (Fig. 1-c)。腔周囲の腺組織では腺房が減少し、周囲には形質細胞主体の炎症性細胞浸潤がみられ、線維化していた (Fig. 1-d)。腔はほとんどが単層から二層性の扁平、立方或いは円柱形の上皮で裏装され、上皮下は著明に硝子化していた。また一部の上皮はマクロアポクリン分泌像を呈していた (Fig. 1-e)。抗ヒトサイトケラチンである AE-1/AE-3 抗体 (Dako Japan, Kyoto) による免疫組織化学的染色では内腔を覆う上皮が明らかに陽性を示し (Fig. 1-e)、嚢胞全体が上皮で裏装されていることを確認した。

考 察

粘液嚢胞は嚢胞腔の中に唾液由来の粘液を包含するものと定義されている¹⁾非腫瘍性病変である。1985年から10年間の Armed Forces Institute of Pathology (AFIP) の症例によると全唾液腺疾患の9から10%を占め、Hamburg大学のそれでは約4.5%を占めている²⁾。また好発年齢は20歳以下と報告されている³⁾。粘液嚢胞はその発生過程から導管外溢型と貯留型の2型に大別される。前者は口唇の咬傷などにより導管が破綻して周囲の結合組織に唾液の溢出をみるものであり、この型が粘液嚢胞のほとんどを占める、後者は裏装上皮を伴い、その内に粘液を容れ、著明な導管

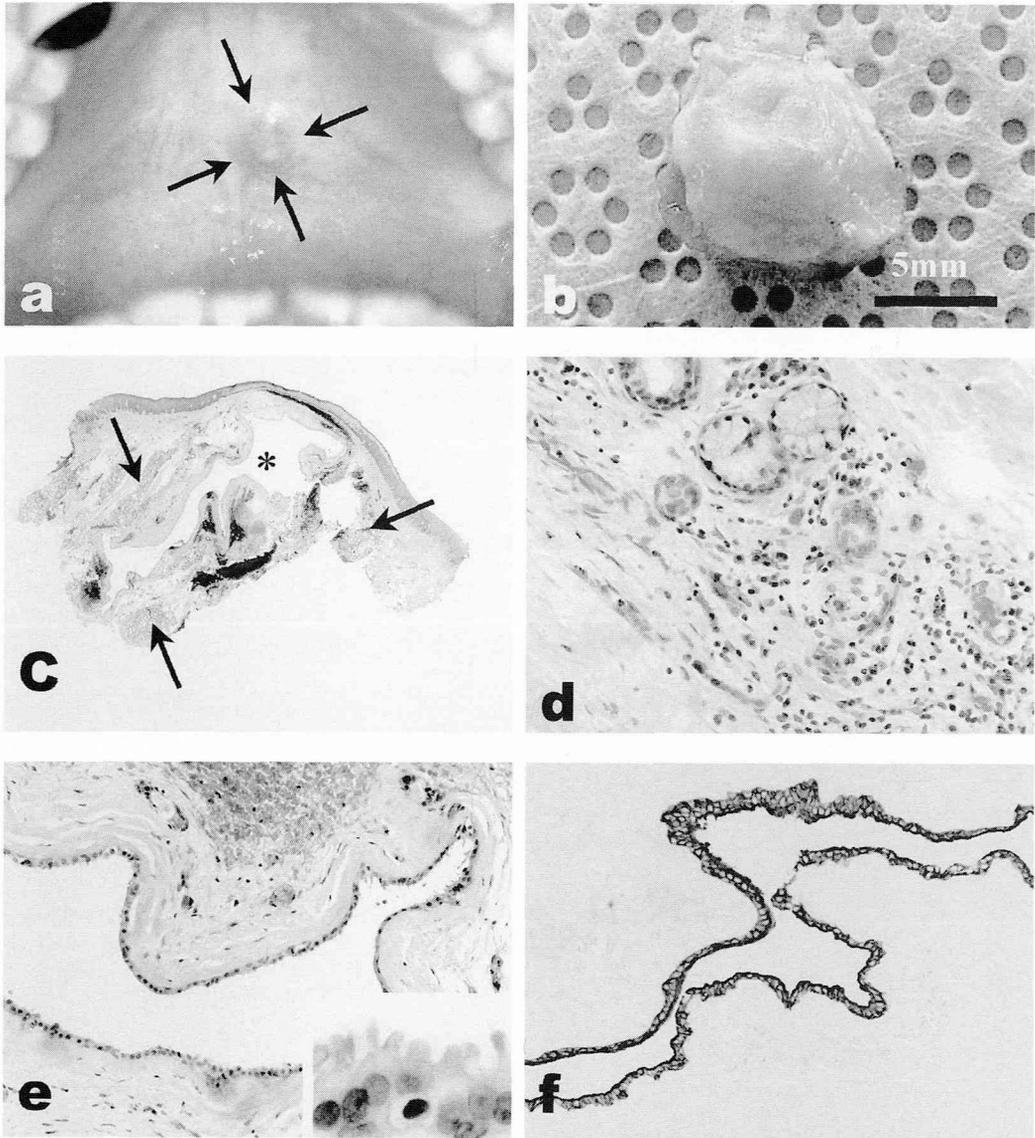
の拡張がみられるものである。その原因としては導管内圧の上昇、先天性要因、導管壁の脆弱化などが考えられている^{3,4)}。AFIPのデータによると¹⁾溢型の発生頻度は貯留型の10倍と圧倒的に多く、Hamburg大学のデータでも粘液嚢胞の85%が導管外溢型である²⁾。溢型約70%は下口唇に生じ、舌・口底部・口蓋・頬粘膜などの部位にも時に発生する。しかしながら、耳下腺・顎下腺にはほとんどみられない。それに対して、貯留型は溢型と同様に小唾液腺領域に加えて、大唾液腺領域にもみられる¹⁾。本学検査科病理の病理診断システムによると、唾液腺嚢胞272例中、

(大唾液腺部に発生したもの30例、小唾液腺部に発生したもの242例)口蓋に発生したものは本症例1例のみである。組織学的には貯留型は上皮の裏装を伴う線維性嚢胞壁の内部に粘液を容れている、通常、上皮には著変はなく、嚢胞壁には軽度の炎症所見がみられることがある¹⁾。本症例では口蓋腺には慢性炎症像と線維化がみられたことから、炎症性変化によって導管の狭窄などが起こり、唾液の排泄障害が生じ、導管が拡張して生じた可能性も考えられる。しかし患者本人が自覚した後の経過年数は数年と長く、嚢胞上皮下の高度な硝子化などの組織学的所見もその経過の長さを示している、従って腺房の消失や慢性炎症像は嚢胞形成に対する反応性の二次的変化である可能性も極めて強い。導管内の微小な唾石や先天異常による排泄障害を示唆する所見もなく、病因と考えられる口腔内外傷の記憶もなく、本症例の成因は特定できなかった。

口蓋は小唾液腺の中でも多形性腺腫を中心とした腫瘍性病変の好発部位であり¹⁾、嚢胞性疾患については鼻口蓋管嚢胞がその代表的疾患であることは言うまでもない。しかしこの病変は口蓋乳頭部などの前方領域に発生するものであり、硬口蓋後方から軟口蓋にかけて発生することはない⁵⁾。前述した様に貯留型粘液嚢胞の発生頻度は極めて低く、しかもその発生は口唇に集中している。しかし、少ないながら口蓋もその発生部位として記載されており、口蓋腫瘍の臨床的鑑別疾患のひとつとして念頭におかれるべきものである。

結 語

今回、われわれは比較的稀な疾患とされている

**Fig.1**

- a : An intraoral photograph shows a relatively well-demarcated elevation (arrows) in the palate.
- b : An excised specimen is covered by normal mucosa colored pale.
- c : Microscopically, an irregular cystic space (asterisk) is noted in the submucosal tissue with salivary glands (arrows). (H-E stain, $\times 7$).
- d : Plasma cells infiltrates throughout glandular tissue, accompanied by stromal fibrosis. (H-E stain, $\times 200$).
- e : Single or double-layered epithelial cells line with a cystic cavity. (H-E stain, $\times 150$). Inset ; lining cells show macroapocrine secretion ($\times 800$).
- f : An immunostain for cytokeratin, using AE-1/AE-3 monoclonal antibody, highlights for lining epithelium ($\times 200$).

口蓋の貯留型粘液嚢胞の1例を経験したので若干の文献的考察を加えて報告した。

参 考 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) Seifert G (1992) Tumor-like lesions of the salivary glands, The new WHO classification. *Pathol Res Pract* **188** : 836-46.
- 3) 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.
- 4) Ellis GL, Auclair PL and Gnepp DR (1991) Surgical pathology of the salivary glands. 31-2. WB Saunders, Philadelphia.
- 5) 高木 實 (1998) 口腔病理アトラス, 1版, 198, 文光堂, 東京.