

## 症 例 報 告

## 歯肉に生じた疣贅型黄色腫の3症例

笹村 祐杜\*, 小川 淳\*\*, 武田 泰典\*\*\*, 矢菅 絵里香\*, 山田 浩之\*

\*岩手医科大学歯学部口腔顎顔面再建学講座口腔外科学分野

\*\*みきのがはら歯科医院

\*\*\*岩手医科大学歯学部口腔顎顔面再建学講座臨床病理学分野

(受付: 2022年6月10日)

(受理: 2022年9月6日)

## 和 文 抄 録

疣贅型黄色腫は被覆重層扁平上皮の乳頭状増殖と結合組織乳頭部に限局した泡沫細胞の集簇する良性の粘膜疾患であり、真の腫瘍ではなく反応性の変化と考えられている。一般的に生殖器や皮膚などにみられることが多いが、口腔内に認められることもある。われわれは、口腔内所見がそれぞれ: 左側下顎小白歯部舌側歯肉の帯状の表面粗造な白斑, 右側下顎小白歯部舌側歯肉の類円形で表面顆粒状の黄白色丘疹, 左側上顎小白歯部の頬側歯肉の表面顆粒状な帯黄色腫瘍を呈する疣贅型黄色腫の3例を報告する。3症例ともに切除を行い、経過良好である。

キーワード: 疣贅型黄色腫, 歯肉, 反応性変化, 良性腫瘍

## 緒 言

疣贅型黄色腫は1971年にShafer<sup>1)</sup>によって報告され、真の腫瘍ではなく反応性の変化と考えられている。本腫瘍は生殖器や皮膚など全身に発生するが、口腔内において、多くは歯肉・歯槽部粘膜に発生し、渉猟した範囲では、陰部で167症例<sup>2)</sup>、口腔領域で162症例<sup>3)</sup>の報告例がみられる。組織学的に本腫瘍は、被覆重層扁

平上皮の乳頭状増殖と結合組織乳頭部に限局した泡沫細胞の集簇する良性の粘膜疾患である。発生機序としては、局所的な機械的刺激、慢性炎症、感染によるものと考えられている<sup>4-6)</sup>。

今回われわれは、過去2年間に同一歯科医院で47件の生検がなされ、うち3症例の歯肉に生じた疣贅型黄色腫を経験したのでその概要を報告する。

Three cases of verruciform xanthoma occurs gingiva

Yuto SASAMURA\*, Atsushi OGAWA\*\*, Yasunori TAKEDA\*\*\*, Erika YASUGE\*, Hiroyuki YAMADA\*

\* Division of Oral and Maxillofacial Surgery, Department of Reconstructive Oral and Maxillofacial Surgery, School of Dentistry, Iwate Medical University

\*\* Mikinogahara Dental and Oral Surgery Clinic

\*\*\* Division of Clinical Pathology, Department of Reconstructive Oral and Maxillofacial Surgery, School of Dentistry, Iwate Medical University

19-1 Uchimaru, Morioka, Iwate 020-8505 Japan

## 症 例

### 症例 1

患 者：64 歳，男性。

初 診：2020 年 12 月。

主 訴：左側下顎小白歯部の帯状の白斑。

既往歴・家族歴：特記事項なし。

現病歴：数か月前に左側下顎小白歯部の歯肉の白斑形成に気付いた。経過をみていたが白斑は消退しないため、近在歯科医院を受診し、精査を希望して当院紹介となった。

現 症：

全身所見：体格は中等度で、栄養状態は良好であった。

口腔外所見：特記事項なし。

口腔内所見：左側下顎第二小白歯の舌側辺縁歯肉に帯状の表面粗造で境界明瞭な 13.0 × 3.0 mm の白斑が認められた（写真 1a）。

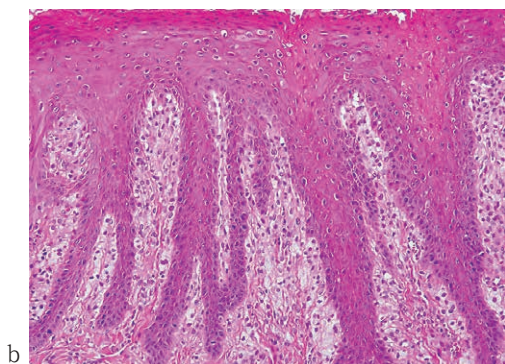


写真 1. a. 口腔内写真（ミラー像）：左側下顎第二小白歯の舌側歯肉に白斑を認める。

b. 病理組織像：粘膜上皮は角化亢進をきたすとともに、伸長した基底脚が基底脚間に泡沫状の細胞が密在している（HE 染色×100）

臨床診断：左側下顎歯肉白板症。

処置および経過：局所麻酔下に病変の切除を行った。上方では歯冠乳頭から歯肉溝切開，下方では 2.0 mm のマージンを設定し切除した。術後の経過は良好であり，8 か月後の現在，再発は認めていない。

病理組織所見：角化亢進をきたした粘膜上皮は疣贅状にやや隆起するとともに，基底脚が伸長していた。伸長した基底脚間には泡沫細胞が密にみられ，同時に膠原線維も混在していた（写真 1b）。これら泡沫状の細胞は免疫組織化学染色で CD68 抗体に陽性であった。

病理組織診断：疣贅型黄色腫。

### 症例 2

患 者：73 歳，女性。

初 診：2021 年 2 月。

主 訴：右側下顎小白歯部歯肉の丘疹。

既往歴・家族歴：特記事項なし。

現病歴：特に自覚症状はなかったが，約 3 か月毎の歯周病のメンテナンス時に右側下顎小白歯部舌側歯肉の丘疹を指摘された。

現症：

全身所見：体格は中等度で栄養状態は良好であった。

口腔外所見：特記事項なし。

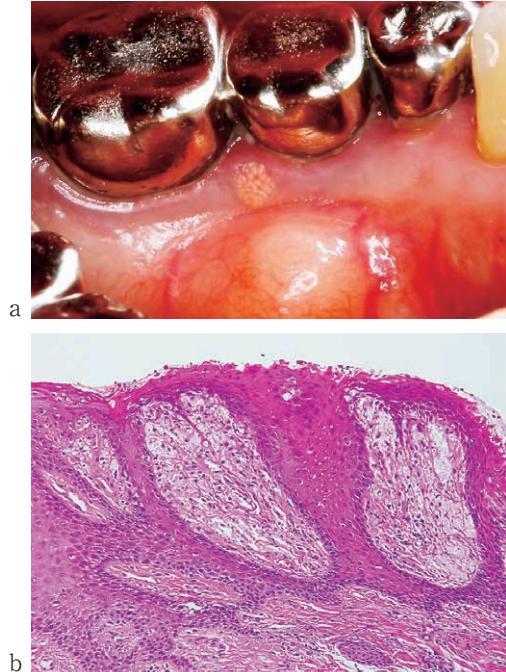
口腔内所見：右側下顎第二小白歯と第一大臼歯との間の舌側歯肉に長径 4.0 mm の類円形で境界明瞭な表面顆粒状の黄白色を呈する丘疹が認められた（写真 2a）。

臨床診断：右側下顎歯肉白板症。

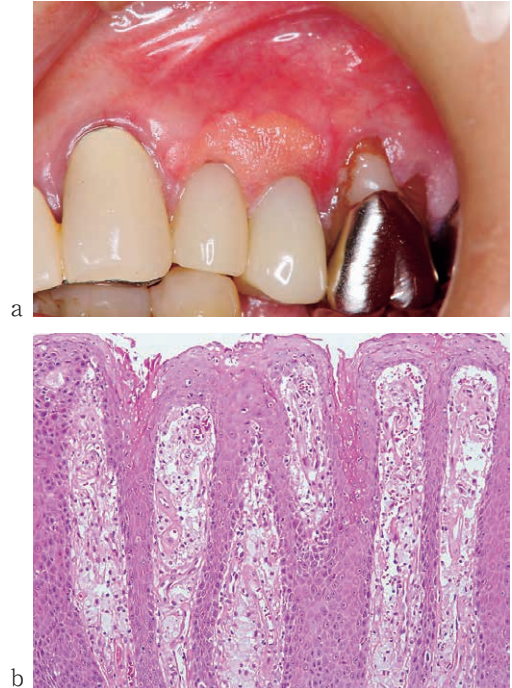
処置および経過：局所麻酔下に丘疹の周囲 2.0 mm のマージンを設定し切除した。術後 5 か月が経過し，再発は認めていない。

病理組織所見：角化粘膜上皮の基底脚が限局性に多少とも不規則に伸長しており，基底脚間には泡沫状の細胞が密在していた（写真 2b）。これらの泡沫細胞は免疫組織化学染色で抗 CD68 抗体に陽性であった。

病理組織診断：疣贅型黄色腫。



**写真 2.** a. 口腔内写真（ミラー像）：右側下顎第二小臼歯の舌側歯肉に黄白色で顆粒状の病変を認める。  
b. 病理組織像：角化扁平上皮の基底脚が不規則に伸長しており、基底脚間には泡沫状の細胞が密在している（HE 染色×100）。



**写真 3.** a. 口腔内写真：左側上顎第一、第二小臼歯の頬側歯肉に帯黄色の病変を認める。  
b. 病理組織像：粘膜上皮の基底脚が延長し、基底脚間には泡沫の細胞が密にみられる（HE 染色×100）。

### 症例 3

患者：72歳、女性。

初診：2021年6月

主訴：左側上顎小臼歯部歯肉の腫瘍。

既往歴・家族歴：特記事項なし。

現病歴：特に自覚症状はなかったが、受診中の近在歯科医院での定期検診で左側上顎小臼歯部の腫瘍を指摘され、精査を希望して当院を受診した。

現症：

全身所見：体格は中程度。

口腔外所見：特記事項なし。

口腔内所見：左側上顎第一と第二小臼歯の頬側歯肉に13.0×6.0mmの境界明瞭な表面顆粒状でわずかに隆起した帯黄色で無痛性の腫瘍が認められた（写真3a）。

臨床診断：左側上顎歯肉腫瘍。

処置および経過：局所麻酔下に丘疹の切除を行った。切除は下方では歯冠乳頭から歯肉溝切開、上方では2.0mmのマージンを設定した。術後1か月経過したが再発は認めていない。

病理組織所見：粘膜上皮は基底脚が延長し、基底脚間には泡沫状の細胞が密にみられた（写真3b）。これら泡沫状の細胞は免疫組織化学染色で抗CD68抗体に陽性であった。また、上皮下層には炎症性細胞が浸潤していた。

病理組織診断：疣贅型黄色腫。

### 考 察

口腔疣贅型黄色腫の好発部位は歯肉、口蓋、舌、頬粘膜であり、そのうち歯肉は約55%を占めている<sup>5)</sup>。われわれの3症例はいずれも角化



歯肉に発生していた。文献的に腫瘍の大きさは17症例で3.0 mm～30.0 mm<sup>5-16)</sup>であり、平均は17.7mm, われわれの症例では4.0 mm～13.0 mmであった。一方, 50.0 mmを超える大きさの症例<sup>4)</sup>や林ら<sup>3)</sup>の17年間放置された症例など, 経年的に増大, または長期的な病悩期間を有した報告例<sup>4)</sup>もみられる。臨床診断としては乳頭腫とされることが多いが<sup>6, 8, 10, 12, 13, 15)</sup>, 大きさによっては良性腫瘍, 白板症, 悪性腫瘍, 乳頭状過形成などと診断されており<sup>4, 7, 10, 12, 16)</sup>, 臨床所見のみでは疣贅型黄色腫と診断するのは難しい。また, 疣贅型黄色腫と関連する全身疾患としては糖尿病, 原発性胆汁性肝硬変, 高脂血症があげられるが, これらの疾患と疣贅型黄色腫の直接的因果関係は明確ではない<sup>13)</sup>。一般的に疣贅型黄色腫の表面性状は疣状, 顆粒状あるいは乳頭状を呈し, 広基性であることが多く, 色調は白色, 灰白色, 赤色あるいは帯黄色とさまざまである<sup>3)</sup>。木村ら<sup>17)</sup>によると赤色調の強い症例ほど組織学的に真皮上層の血管拡張とうっ血が高度で, 林ら<sup>3)</sup>によると白色調が強いものは表皮の角化傾向が強い。われわれの症例においては, 全例が広基性で顆粒状を呈しており, 色調としては白色が1症例, 黄色が2症例であった。病理所見としては, 3症例ともに粘膜上皮が角化亢進をきたし, 基底脚が伸長しており, 膠原線維が混在していることでも確認できた。また, 基底脚間には泡沫細胞が密にみられ, これらの泡沫細胞は脂肪を貪食したマクロファージであることが知られており<sup>3)</sup>, 免疫組織学的にCD68陽性を示していた。CD68抗体は細胞内のライソゾームにある糖タンパクに対する抗体で, 単球-マクロファージ系細胞に陽性を呈する<sup>11)</sup>。Nowparastら<sup>9)</sup>は, 疣贅型黄色腫を組織像より3つに分類しており, ①境界明瞭な隆起性腫瘍で, 上皮角質層は薄く, 錯角化, 棘細胞層肥厚, かつ上皮脚の伸長を特徴とする疣贅型, ②粘膜上皮には錯角化層の肥厚, 上皮の外向性樹枝状増殖を特徴とする乳頭型, ③上皮脚は平坦で, 上皮が一定深度に増殖するが, 錯角化はほかの2つの型より軽度な平板型としてい

る。われわれの3症例は, いずれもNowparastらの分類<sup>9)</sup>の①に近似していた。

20年前には一般歯科医院の臨床における病理組織学的検査数はきわめて少ないのが現状であった<sup>18)</sup>。最近では, 患者の口腔に対する意識の向上に伴い, 一般歯科医院からの病理組織学的検査数が徐々に増加しており, 一般歯科医院にも病理組織学的検査が求められるようになってきた<sup>19)</sup>。一般歯科医院における口腔粘膜疾患の病理組織学的診断としては, 口腔白板症, 口腔扁平苔癬の占める割合が多い<sup>19)</sup>。一方, 疣贅型黄色腫は無痛性で粘膜の粗造感として自覚する例もあるが, 偶然に発見されることも多く<sup>13)</sup>, 比較的小さな病変では, 見過ごしや経過観察が選択される場合が多いものと推察される。自験例の大きさは4.0 mm～13.0 mmと, 比較的小さかった。今回, 同一歯科医院で過去2年間に47症例, 歯肉から13症例の切除生検がなされ, うち疣贅型黄色腫が3例(23.1%)であった。これはすべて疣贅型黄色腫を疑って切除生検が行われたわけではないが, 一般歯科医院においてもごく小さな粘膜異常に対して生検を行い病理組織学的診断を得ることが, 本症例のような臨床に広く周知されていないような疾患を含めた診断精度を高める手段となる。

本腫瘍に関して, 渉猟したほぼすべての症例において, 切除が行われており, 予後は良好である。しかしながら, 一部の疣贅型黄色腫は扁平上皮癌との関連性を有するとの報告<sup>4)</sup>もあり, 長期間の経過観察が必要であると考えられる。

## 結 語

過去2年間に同一歯科医院で47件の生検がなされ, うち3症例の歯肉に生じた疣贅型黄色腫を経験したので, その概要と文献的考察を報告した。一般歯科医院においてもごく小さな粘膜異常に対して生検を行い病理組織学的診断を得ることが, 本症例のような臨床に広く周知されていないような疾患を含めた診断精度を高める手段となる。

## 利益相反

本論文に関して、開示すべき利益相反はない。

## 参考文献

- 1) Shafer, W. G.: Verruciform xanthoma. *Oral Surg. Oral Med. Oral Pathol.*, 31: 784-789, 1971.
- 2) 松阪由紀, 堀 郁子, 中村吏江, 森本謙一, 米原修治: Verruciform xanthoma の1例. *臨床皮*, 66: 321-324, 2012.
- 3) 林 輝嘉, 山田耕治, 井関富雄, 辻 要, 安田典泰, 森田章介: 17年間放置され増大を認めた口蓋の疣贅型黄色腫の1例. *日口外誌*, 61: 277-281, 2015.
- 4) 山谷元気, 阿部亮輔, 小原瑞貴, 宮本郁也, 武田泰典, 山田浩之: 悪性腫瘍との鑑別を要した大きな口腔疣贅型黄色腫の1例. *岩医大歯誌*, 45: 82-87, 2020.
- 5) 山下雅子, 神部芳則, 野口忠秀, 槻木恵一, 森 良之: 口腔に生じた疣贅型黄色腫の2例ならびに本邦報告例に関する臨床的検討. *日口内誌*, 22: 29-35, 2016.
- 6) 松田耕策, 村山一郎: Verruciform xanthoma の2症例. *日口外誌*, 30: 406-410, 1984.
- 7) 清河年彦, 重松久夫, 奥 結香, 星野 都, 菊池健太郎, 坂下英明: 多発性口内炎と疣贅型黄色腫を併発した1例. *口科誌*, 63: 226-232, 2014.
- 8) 佐藤健一, 瀬川 清, 福田喜安, 山口一成, 長 浩臣, 奈良栄介, 藤岡幸雄, 武田泰典: 口蓋粘膜に生じた verruciform xanthoma の1例. *口腔腫瘍*, 3: 79-81, 1991.
- 9) Nowparast, B., Howell, F.V., and Rick, G.M.: Verruciform xanthoma. A clinicopathologic review and report of fifty-four cases. *Oral Surg. Oral Med. Oral Pathol.*, 51: 619-625, 1981.
- 10) 瀧田正亮, 木下昌毅, 西川典良, 京本博行, 高橋真也, 仙崎英人: 下顎歯肉歯槽粘膜に発生した Verruciform xanthoma (疣贅型黄色腫)・白板症併発の1例. *大阪済生会中津病年報*, 26: 209-212, 2015.
- 11) 柴田昌美, 高橋礼子, 小谷 勇, 片岡 聡, 上山吉哉, 領家利和: 口底部に生じた疣贅型黄色腫の1例. *口科誌*, 51: 273-276, 2002.
- 12) 服部吉幸, 古賀賢三郎, 長縄吉幸, 岸本 卓, 夏目長門, 堀田文雄, 溝畑正信, 亀山洋一郎: Verruciform xanthoma の1例. *日口外誌*, 28: 872-875, 1982.
- 13) 三宅正純, 井達岡陽一, 安井良一, 野村雅久, 田中浩二, 池本公亮, 深井直樹, 石川武憲, 下里常弘, 小川郁子, 高田 隆: 疣贅型黄色腫 - 自験4症例と文献151例からみた臨床病理学的検討 -. *日口外誌*, 34: 2430-2437, 1988.
- 14) 川田原幸司, 諏訪若子, 諏訪裕彦, 平野真人, 江原道子, 永山元彦, 村木智則, 谷口敬祐, 江原雄一, 武守道夫, 田沼順一: 下顎前歯部歯肉に生じた疣贅型黄色腫の1例. *岐歯学誌*, 40: 155-158, 2013.
- 15) Theofilou, V. I., Sklavounou, A., Argyris, P. P., and Chrysomali, E.: Oral verruciform xanthoma within lichen planus: A case report and literature review., *Case Rep. Dent.*, 2018, 1615086, doi: 10.1155/2018/1615086.
- 16) Shetty, A., Nakhaei, K., Lakkashetty, Y., Mohseni, M., and Mohebatzadeh, I.: Oral verruciform xanthoma: A case report and literature review., *Case Rep. Dent.*, 2013, 528967, doi: 10.1155/2013/528967.
- 17) 木村俊次, 鈴木明宏: Verruciform xanthoma の陰囊発症例. *臨床皮*, 37: 235-242, 1983.
- 18) 杉本是孝, 中村孝子, 宮崎佐喜子: 口腔領域疾患の病理組織検査125例の臨床的観察-17年間の病院勤務と37年間の歯科開業をふまえて病診連携を考える -. *日歯医史会誌*, 3: 155-165, 2006.
- 19) 明石良彦, 鷺見正美, 井上健児, 國分克寿, 橋本和彦, 村上 聡, 松坂賢一, 井上 孝: 開業医・病院歯科における組織診の統計的研究. *日口腔検学会誌*, 1: 28-33, 2017.

## Three cases of verruciform xanthoma occurs gingiva

Yuto SASAMURA \*, Atsushi OGAWA \*. \*\*, Yasunori TAKEDA \*\*\*\*,

Erika YASUGE \*, Hiroyuki YAMADA \*

\* Division of Oral and Maxillofacial Surgery, Department of Reconstructive Oral and Maxillofacial Surgery, School of Dentistry, Iwate Medical University

\*\* Mikinogahara Dental and Oral Surgery Clinic

\*\*\* Division of Clinical Pathology, Department of Reconstructive Oral and Maxillofacial Surgery, School of Dentistry, Iwate Medical University

[Received : June 10 2022 : Accepted : September 6 2022]

### Abstract

Verruciform xanthoma is a benign mucosal disease characterized by papillary proliferation of coated stratified squamous epithelium and aggregation of foam cells confined to the connective tissue papillae, and is considered a reactive change rather than a true tumor. It is generally found in the genital organs and skin, but it can also be found in the oral cavity. We report three cases of verruciform xanthoma, each with intraoral findings: a band of coarse surface whitish plaque on the lingual gingiva of the left mandibular premolar, a similarly round, surface granular yellowish-white papule on the lingual gingiva of the right mandibular premolar, and a granular surface pale yellow mass on the buccal gingiva of the left maxillary premolar. All three cases were resected and are doing well.

**Key words:** verruciform xanthoma, gingiva, reactive changes, benign tumor