

症 例 報 告

小唾液腺における偽上皮腫性過形成の2例

塚本 行雄* 工藤 啓吾* 武田 泰典**

岩手医科大学歯学部口腔外科学第一講座* (主任：藤岡幸雄教授)

岩手医科大学歯学部口腔病理学講座** (主任：鈴木鍾美教授)

〔受付：1984年9月18日〕

抄録：われわれは小唾液腺の腺体全体にわたって著明な偽上皮腫性過形成を呈する扁平上皮化生のみられた2症例について報告した。症例1は32歳の女性で、舌下部に生じた粘液瘤周囲の小唾液腺に、また症例2は64歳の男性で、上顎癌の術後経過観察中に軟口蓋に出現した潰瘍部に浸潤癌組織と混在してこれらの所見が認められた。2症例はいずれも生検材料中に偶然に認められたものであるが、その病理組織像は、necrotizing sialometaplasia として報告されているものと同様であった。

Key words :

結 言

唾液腺における化生的変化としては脂腺細胞の出現、オンコサイト化、純漿液腺における粘液細胞の出現、扁平上皮化生などがみられる。これらの化生的変化のなかでも、とくに扁平上皮化生は唾液腺の種々の障害に際して導管および腺房の一部に認められるが、ときには腺組織のかなり広い範囲にわたる扁平上皮化生と、その偽上皮腫性過形成のみられることがある。Abramsらは、このような唾液腺腺体全域におよぶ著しい扁平上皮化生とその過形成をきたす病変を、necrotizing sialometaplasia として記載している¹⁾。この necrotizing sialometaplasia の如き高度の扁平上皮化生とその偽上皮腫性過形成がみられる場合、その組織所見が扁平上皮癌あるいは粘表皮腫に酷似することがあ

る。そのために悪性腫瘍と誤診されることがあるので、病理組織診断にあたっては慎重を要する所見の一つである。今回、筆者らは舌の小唾液腺に著明な扁平上皮化生と偽上皮腫性過形成のみられた2症例を経験したので、それらの病理組織所見を中心に報告する。

症 例

症例1：32才、女性。舌下面の腫脹を主訴として来院した。舌下面に小豆大の軟らかい腫瘤が認められたので、粘液瘤の臨床診断のもとに周囲組織を含めて切除した。切除材料の病理組織所見では、粘液状物質が粘膜上皮下にびまん性に多数の泡沫細胞を含む炎症性肉芽組織と混在してみられ、溢出型の粘液瘤と診断された。さらに摘出材料には多くの小唾液腺が認められたが、これらのうちの一部に著明な扁平上皮化

Pseudoepitheliomatous hyperplasia in the minor salivary glands : Report of two cases.

Yukio TSUKAMOTO*, Keigo KUDO* and Yasunori TAKEDA**

(Department of Oral Surgery I* and Oral Pathology**, School of Dentistry, Iwate Medical University, Morioka 020, Japan)

*岩手県盛岡市中央通り1-3-27 (〒020)

**岩手県盛岡市内丸19-1 (〒020)

Dent. J. Iwate Med. Univ. 9 : 238-242, 1984

生がみられた。扁平上皮化生の最も著しいものでは、小唾液腺の腺体全体が偽上皮腫性過形成を呈する化生上皮により置換されていた (Fig. 1 a)。化生上皮過形成巣の中央部の細胞は多核形であったが、辺縁の細胞は立方形ないし扁平であった (Fig. 1 b)。個々の細胞は比較的染色質に富んだ大型で類円形の核を有し、その核の細胞に対する大きさの比 (N/C 比) も大きかった。しかしながら細胞の異型の所見には乏しかった。化生上皮過形成巣の一部には、残存した腺房細胞や管腔形態のみられるものもあった (Fig. 1 c)。このような腺体全体に扁平上皮化生のみられた小唾液腺に近接している他の小唾液腺には、腺実質の著しい退行性変化、すなわち腺房部のいわゆる *canalicular regression* あるいは *tubular metaplasia* と呼ばれる所見が数多く見られた (Fig. 1 d)。

症例 2 : 64 歳, 男性。1 年前に右上顎臼歯部に腫脹と潰瘍が出現し、生検により分化型扁平上皮癌と診断された。化学療法と放射線療法後に上顎骨切除術が施行された。その後 2 度の局所再発がみられ、経過観察が続けられていた。今回、軟口蓋部に潰瘍形成が認められたため、この部より生検材料が採取された。生検材料の病理組織所見では、潰瘍面に近接して多くの上皮小塊が認められた (Fig. 2 a)。これらの上皮小塊巣は類円形あるいは不定形を呈していた。これらを形成する細胞は症例 1 と同様に小唾液腺の扁平上皮化生に由来するものと思われたが、そのほかに異型的な細胞よりなる上皮巣も多数認められた。すなわち、化生上皮細胞と思われる細胞より構成されている上皮巣では、胞体ならびに核の形態は比較的均一で、また、一部には管腔状の構造も明瞭であった (Fig. 2 b)。しかしながら角化傾向は乏しかった。これに対し異型的な細胞よりなる上皮巣では、細胞形態が不揃いで、ところどころに細胞異型の明らかなものや、著明な角化傾向、あるいは変性像も認められた (Fig. 2 c, d)。このような異型上皮細胞巣と偽上皮腫性過形成を呈する上皮巣とは、ところにより混在していたものの、この二つの

間には明らかな移行像はみられなかった。また、異型上皮細胞巣は腫瘍原発部と連続してみられたことから、これらは浸潤癌組織と考えられた。したがって本症例は、偽上皮腫性過形成を呈する扁平上皮化生をきたした小唾液腺組織と浸潤癌組織とが混在していたものと考えられる。

考 察

扁平上皮化生は唾液腺における化生的変化のなかでも、しばしばみられるものの一つであるが、扁平上皮化生が唾液腺全体にわたってみられることはまれである。とくに唾液腺では、病理学的に高度の扁平上皮化生とその偽上皮腫性過形成がみられ、かつ臨床的に潰瘍形成あるいは腫脹などの所見がある場合に *necrotizing sialometaplasia* と呼ばれている¹⁾。このような唾液腺における広汎な扁平上皮化生とその偽上皮腫性過形成の成り立ちについて、Arquelles ら²⁾ は種々の誘因によって血液供給が障害され、その結果、唾液腺実質の虚血性壊死を生じ、その修復過程で高度の扁平上皮化生が生ずると述べている。この考え方はその後多くの支持を受けている。さらに Standish ら³⁾ は実験的にラットの舌下腺および顎下腺に分布する動脈を結紮し、これらの唾液腺に著明な扁平上皮化を生ぜしめている。誘因としては、喫煙、飲酒、不適合義歯、放射線照射、手術的侵襲、歯科治療時の局所麻酔、外傷、腫瘍などがあげられている⁴⁾。また高度の唾液腺の扁平上皮化生とその偽上皮腫性過形成は、同時に扁平上皮癌、粘表皮腫、腺様嚢胞癌、基底細胞癌、*carcinoma in pleomorphic adenoma*、平滑筋腫などの腫瘍や嚢胞に混在したり、あるいはこれらの外科的処置後や放射線照射後に耳下腺部、口蓋、鼻腔、頬部、舌などに *necrotizing sialometaplasia* がみられている^{6, 9, 10-14)}。

一方、*necrotizing sialometaplasia* は腺実質の虚血性壊死後の修復に伴う変化であるとする見解に対して、周囲結合組織の変化がみられないこと、血管病変との一致をみないこと、および両側性の病変があることなどより、その原

因を虚血性壊死に求めることには否定的な見解もある。すなわち、Nilsenら¹⁵⁾は免疫もしくはアレルギー説を、Gavron¹⁶⁾は唾液腺排泄管の閉塞説を、また Phillipsenら¹⁷⁾は leukokeratosis nicotina palati との同一疾患説をそれぞれ考えている。今回、筆者らが報告した2症例のうち、症例2は潰瘍部に浸潤癌組織が混在してみられた。なおこれら2症例にみられた necrotizing sialometaplasia と同様の所見を呈する化生扁平上皮の偽上皮腫性過形成については、その原因を明確に捕えることはできなかつ

た。しかし、症例1では唾液腺の排泄障害、症例2では放射線照射あるいは外科的侵襲が誘因となったものと推測される。

結 論

化生扁平上皮の高度偽上皮腫性増殖のみられた小唾液腺の2症例を報告した。これらの組織像は necrotizing sialometaplasia として報告されているものと同様であった。今回の症例では唾液腺の排泄障害、放射線照射あるいは外科的侵襲が誘因となったことが推察された。

Abstract : Two cases of squamous metaplasia in the minor salivary glands with pseudoepitheliomatous hyperplasia were reported. Case 1 was 32-year-old female who had been suffering from mucocele of anterior lingual gland, and Case 2 was 64-year-old male who had been suffering from carcinoma (squamous cell carcinoma) of the maxillary sinus. In the excised specimens taken from both cases, marked squamous metaplasia of the salivary gland epithelia with pseudoepitheliomatous hyperplasia which showed same histological appearance of necrotizing sialometaplasia was found. Especially in Case 2, islands of pseudoepitheliomatous hyperplasia co-existed with invading cancer nests.

The possible mechanism of pseudoepitheliomatous hyperplasia of squamous metaplastic cells in the salivary glands was discussed.

文 献

- 1) Abrams, A. M., Melrose, R. J., and Howell, F. V. : Necrotizing sialometaplasia. A disease simulating malignancy. *Cancer* 32 : 130-135, 1973.
- 2) Arquelles, M. T., Vilorio, J. B. Jr., Talens, M. C., and McCrory, T. P. : Necrotizing sialometaplasia. *Oral Surg.* 42 : 86-90, 1976.
- 3) Standish, S. M., Shafer, W. G. : Serial histologic effects of rat submaxillary and sublingual salivary gland ducts and blood vessel ligation. *J. Dent. Res.* 36 : 866, 1957.
- 4) 向後隆男, 進藤正信, 東 富男, 阿部 智, 小野木正章, 兩宮 璋, 井上農夫男, 河村正昭, 富田喜内 : necrotizing sialometaplasia の1例 日口外誌, 28 : 755-760, 1982.
- 5) Lynch, D. P., Crago, C. A., and Martinez, M. G. Jr. : Necrotizing sialometaplasia. A review of the literature and report of two additional cases. *Oral Surg.* 47 : 63-68, 1979.
- 6) Samit, A. M., Mashberg, A., and Greene, G. W. Jr. : Necrotizing sialometaplasia. *J. Oral Surg.* 37 : 588-602, 1979.
- 7) Willén, H., Willén, R., and Ekman, L. : Necrotizing sialometaplasia of the bucca. *Acta Pathol. Microbiol. Scand. [A].* 81 : 199-201, 1981.
- 8) Forney, S. K., Forney, J. M., Sugg, W. E. Jr., and Oatis, G. W. Jr. : Necrotizing sialometaplasia of the mandible. *Oral Surg.* 43 : 720-726, 1977.
- 9) Donath, K. : Pathohistologie des Parotisinfarctes (necrotizing sialometaplasia). *Laryng. Rhinol. Otol. (Stuttg.)* 58 : 70-85, 1979.
- 10) Martiani, R. D., and Sabes, W. R. : Necrotizing sialometaplasia. Report of three cases. *J. Oral Surg.* 34 : 722-726, 1976.
- 11) Martilla, A., Flores, T., Nogales, F. F. Jr., and Galera, H. : Necrotizing sialometaplasia affecting the minor salivary glands. *Oral Surg.* 47 : 161-163, 1979.
- 12) Maisel, R. H., Johnston, W. H., Anderson, H. A., and Cantrell, R. W. : Necrotizing sialometaplasia involving the nasal cavity. *Laryngoscope* 87 : 429-434, 1977.
- 13) Johnston, W. H. : Necrotizing sialometaplasia involving the mucous gland 2 of the nasal cavity. *Human Path.* 8 : 589-592, 1977.
- 14) Marwin, G. E., Duckert, L. G., and Pollak, K. : Necrotizing sialometaplasia of the nasopharynx. *Ann. Otol.* 88 : 348-351, 1979.
- 15) Nilsen, R., Bernhoft, C. H., and Gilhuus-Moe, O. : Necrotizing sialometaplasia. *Int. J. Oral Surg.* 7 : 580-584, 1978.
- 16) Gavron, J. P. : Necrotizing sialometaplasia.

Laryngoscope 91 : 1176-1180, 1981.

17) Philipsen, H. P., Petersen, J. K., and Simo-

nson, B. H. : Necrotizing sialometaplasia of the
palate. Int. J. Oral Surg. 5 : 292-299, 1976.

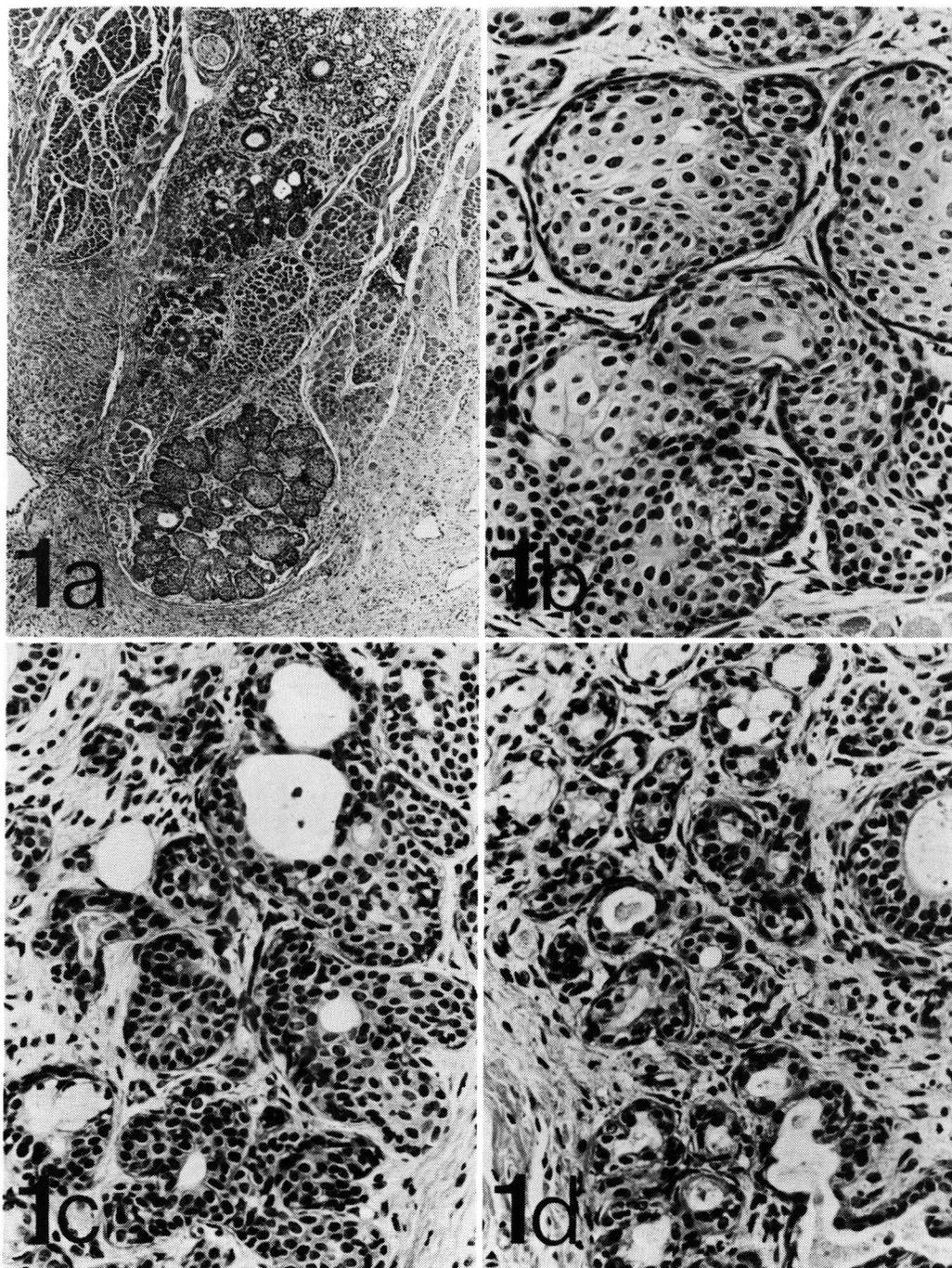


Fig. 1. Case 1 : Marked squamous metaplasia of the minor salivary glands with pseudoepitheliomatous hyperplasia. a : Low power view of the whole glands, b : Solid masses showing pseudoepitheliomatous hyperplasia, c : Mucous acinar cells and tubular structures in the squamous epithelial masses in part, d : Marked regressive changes of the salivary gland parenchyma. H. E., a, $\times 20$, b, c and d $\times 200$.

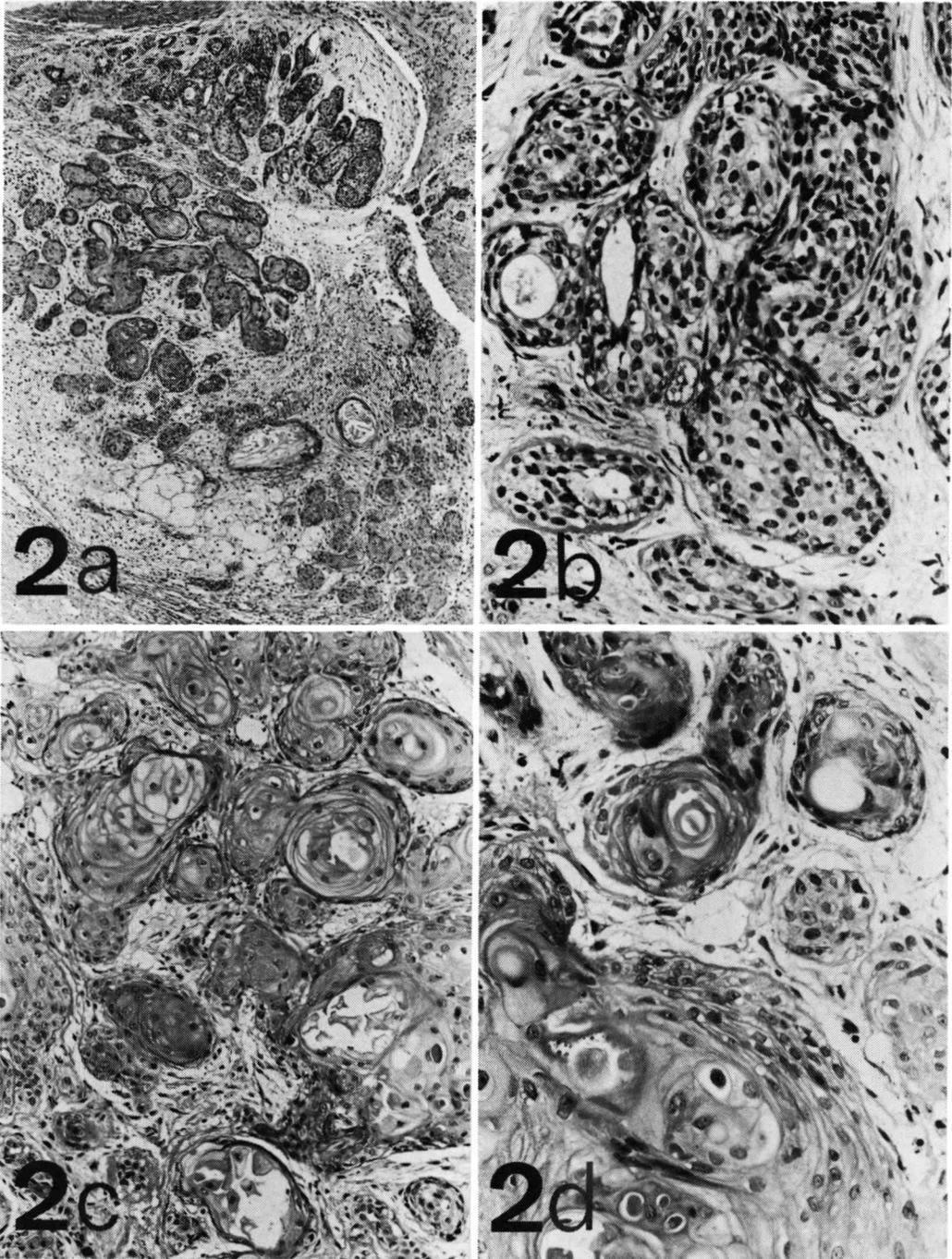


Fig. 2. Case 2 : Marked squamous metaplasia of the minor salivary glands with pseudoepitheliomatous hyperplasia, and infiltrating cancer tissue. a : Low power view of the whole area, b : Pseudoepitheliomatous hyperplasia of squamous metaplastic cells, c : and d : Cancer nests showing cellular atypia and keratinization. H. E., a $\times 20$, b and c $\times 200$, d $\times 300$.