

# AMCoR

Asahikawa Medical University Repository <http://amcor.asahikawa-med.ac.jp/>

日本口腔外科学会雑誌 (2010.06) 56巻6号:365～368.

上顎歯肉に発生した粘液腫の1例

竹川政範, 松本章, 吉田将亜, 近藤英司, 松田光悦, 三代川齊之

## 上顎歯肉に発生した粘液腫の1例

竹川政範<sup>1)</sup>・松本章<sup>1)</sup>・吉田将垂<sup>1)</sup>  
近藤英司<sup>1)</sup>・松田光悦<sup>1)</sup>・三代川斉之<sup>2)</sup>

### A case of myxoma arising in the upper gingiva

TAKEKAWA Masanori<sup>1)</sup>・MATSUMOTO Akira<sup>1)</sup>・YOSHIDA Masatsugu<sup>1)</sup>  
KONDOH Eiji<sup>1)</sup>・MATSUDA Mitsuyoshi<sup>1)</sup>・MIYOKAWA Naoyuki<sup>2)</sup>

**Abstract:** Oral myxoma usually arises in the jawbone and rarely occurs in soft tissue. A case of myxoma in the gingiva of the upper jaw is reported. The patient was a 75-year-old man, who had noticed a tumor in the right molar gingiva 40 years ago. The tumor became larger after extraction of an upper molar. A mushroom-shaped elastic hard tumor (20 × 20 × 15 mm) was noted in the upper molar gingiva. Radiographic and computed tomographic examinations showed a tumor in the maxilla, but extensive bone resorption was not observed. An incisional biopsy was done, and the diagnosis was myxoma. Partial maxillectomy including the tumor was performed with the patient under general anesthesia. Histopathological examination showed that the tumor was composed of spindle-shaped cells in a myxoid matrix. The tumor was situated mainly in the gingiva, but slight pressure-related bone resorption was observed on the surface of the alveolar bone. Four years after treatment, there was no evidence of recurrence.

**Key words:** myxoma (粘液腫), gingiva (歯肉)

### 緒言

口腔に発生する粘液腫は間葉系組織由来のまれな良性腫瘍で、顎骨中心性に生じることが多く軟組織に発生することは少ないとされている<sup>1)</sup>。Elzayら<sup>2)</sup>の報告では口腔軟組織に発生する粘液腫は、緩慢な発育傾向をしめす浸潤性の腫瘍で顎骨に生じた粘液腫と比較して骨の吸収が少ないことを特徴としている。今回われわれは、右側上顎臼歯部歯肉に発生した粘液腫の1例を経験したのでその概要を報告する。

### 症例

**患者:** 75歳, 男性。

**初診:** 2004年1月。

**主訴:** 右側上顎臼歯部歯肉の腫瘍。

**既往歴:** 塵肺および高血圧のため投薬加療中。呼吸器疾患患者の予備能力を示す指標としてのHugh-Johnesの分類ではⅡ度であった。胃癌のため2000年に手術治療。

**家族歴:** 特記事項なし。

**現病歴:** 30歳代から右側上顎大臼歯部歯肉の腫瘍に気づいていたが放置していた。2000年頃、歯周疾患のため近隣の歯科において「7.6」の抜歯を受けた。その後、腫瘍が徐々に増大するため近隣の病院歯科を紹介されて2003年7月受診した。同院より上顎腫瘍を疑い当科に紹介されたが放置し、2004年1月当科を初診した。

**現症:**

**全身所見:** 体格は中等度、栄養状態は良好であった。

**口腔外所見:** 顔貌は左右対称であり、眼窩下神経領域の知覚鈍麻感はなかった。所属リンパ節に異常所見は認めなかった。

**口腔内所見:** 右側上顎臼歯部歯肉に弾性硬・有茎性を呈する20 × 20 × 15mmの腫瘍を認めた。腫瘍表面は正常歯肉粘膜色で中央部には下顎歯による圧痕がみられた(写真1)。

**臨床検査所見:** 動脈血液ガス分析ではPaO<sub>2</sub> 68.6mmHg(正常値75 - 99mmHg)と軽度低下を認めた。肺機能検査および、その他の臨床検査において異常値はみられなかった。

<sup>1)</sup> 旭川医科大学医学部歯科口腔外科学講座  
(主任: 松田光悦教授)

<sup>2)</sup> 旭川医科大学病院病理部  
(主任: 三代川斉之教授)

<sup>1)</sup> Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Asahikawa Medical College (Chief: Prof. MATSUDA Mitsuyoshi)

<sup>2)</sup> Department of Pathology, Asahikawa Medical College Hospital (Chief: Prof. MIYOKAWA Naoyuki)

受付日: 2008年10月3日

採択日: 2010年3月30日

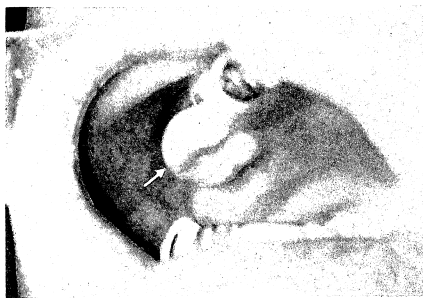


写真1 口腔内写真

右側上顎臼歯部歯肉に有茎性を呈する20×20×15mmの腫瘍(矢印)を認めた。



写真2 CT写真

右側上顎大白歯相当部に周囲との境界が明瞭な腫瘍性病変(矢印)を認めたが、上顎骨および上顎洞には異常はみられなかった。

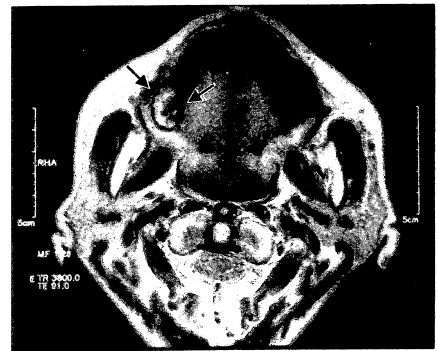


写真3 MRI写真

T2強調画像では辺縁が低信号で、内部が不均一な高信号を呈する腫瘍(矢印)を認めた。

**X線写真所見：**パノラマX線写真では、両側上顎骨および上顎洞に異常所見はみられなかった。

**CT所見：**右側上顎大白歯相当部に周囲との境界が明瞭な腫瘍性病変を認めたが、上顎骨の広範な吸収はみられず、上顎洞に異常はみられなかった(写真2)。

**MRI所見：**右側上顎臼歯部の病変部は、T1強調画像で低信号、T2強調画像で辺縁に低信号を伴う不均一な高信号を呈していた。Gd-DPTAによる造影では、T1強調画像で腫瘍外側に不均一な造影効果がみられた。腫瘍の明らかな周囲組織への浸潤所見はみられなかった(写真3)。

**臨床診断：**右側上顎歯肉腫瘍の疑い。

**処置および経過：**2004年1月、右側上顎歯肉腫瘍を疑い局所麻酔下に生検を行った。生検組織の病理組織学的診断は粘液腫で、歯原性上皮および神経軸索はみられなかった。2004年2月、全身麻酔下に右側上顎骨部分切除術を行った。切除範囲は腫瘍の外側1cmに切除域を設定して、4]から上顎結節を含む上顎歯槽突起部の切除を行った。腫瘍摘出後上顎洞が露出したが、粘膜は正常であったため切除域に含めた上顎洞底部以外の上顎洞粘膜は保存した。術後に一過性の肺炎および心不全を合併したが内科的治療で改善した。同年3月、顎義歯を装着し退院となった。手術後4年を経過した現在、再発の徴候はない。

**病理組織学的検査所見：**腫瘍性病変の主体は上顎歯肉軟部組織にあった。腫瘍は上顎歯槽骨を圧排し、皮質骨の一部に菲薄化を認めた。腫瘍病変周囲には線維性結合組織がみられた。腫瘍の間質は粘液様の成分が主体でありそのなかに異型性に乏しい紡錘形細胞がみられた(写真4A, B)。腫瘍組織内には歯原性上皮は認めず、悪性所見は認めなかった。渡銀染色では腫瘍内部に、口腔以外の組織に発生する粘液腫と同様の細網線維の増殖を認めた。組織化学的検査ではAlician blue - PASの2重染色においては、粘液基質はAlician blueに陽性、PASには陰性を呈した(写真5)。

ヒアルロニダーゼ消化Alician blue染色では腫瘍の粘液基質は陰性であった。免疫組織化学的検査ではサイトケラチン免疫染色陰性であった。紡錘形の細胞はビメンチンのみ陽性で、S-100蛋白、 $\alpha$ -アクチン、PG-M1は陰性であった。以上から粘液腫と診断した。

## 考 察

粘液腫は結合組織から発生する良性新生物で、心臓などの筋肉内にしばしば発生し、皮膚では囊腫を形成し限局性ムチン沈着症や手関節背側のガングリオンとなるなど全身の多くの部位に発生する。顎口腔領域に発生する粘液腫は、その発生頻度が良性腫瘍の3-5.1%とされる<sup>3, 4)</sup>比較的多い腫瘍である。さらに口腔に生じる粘液腫は主に顎骨中心性であり、口腔軟組織に発生することはきわめてまれであるとされている<sup>1, 5, 6)</sup>。顎口腔領域の軟組織に生じる粘液腫は男性に多く、好発部位は口蓋および耳下腺、頬部、口底と報告されており<sup>2, 7)</sup>、本症例のように上顎歯肉に発生したものは少ない。軟組織に発生する粘液腫の臨床的な特徴は緩慢な発育をする腫瘤を形成し、特に歯槽部粘膜に生じた粘液腫はエプーリスと同様な外観を呈する<sup>7)</sup>。また画像所見では骨吸収が少ないとされている<sup>6, 8)</sup>。本症例は粘液腫の発生部位の歯を抜歯されているため、歯周組織との関係は明らかではないが有茎性でエプーリス様の外観を示していた。さらに臨床経過から非常に緩慢な発育をしており、骨の吸収が少ないなど歯槽部の軟組織に発生した粘液腫の特徴を有していた。

粘液腫の組織学的特徴は、主成分である多面状および星状の細胞が粘液様基質中に散在している原始間葉組織に類似した良性の腫瘍である<sup>1)</sup>。顎口腔の軟組織に生じる粘液腫は顎骨中心性のものと組織学的に同様であるとされており、粘液腫性組織が分葉状に増殖し、腫瘍周囲は成熟した膠原線維で囲まれている<sup>7, 9)</sup>。本症例においては、腫瘍の

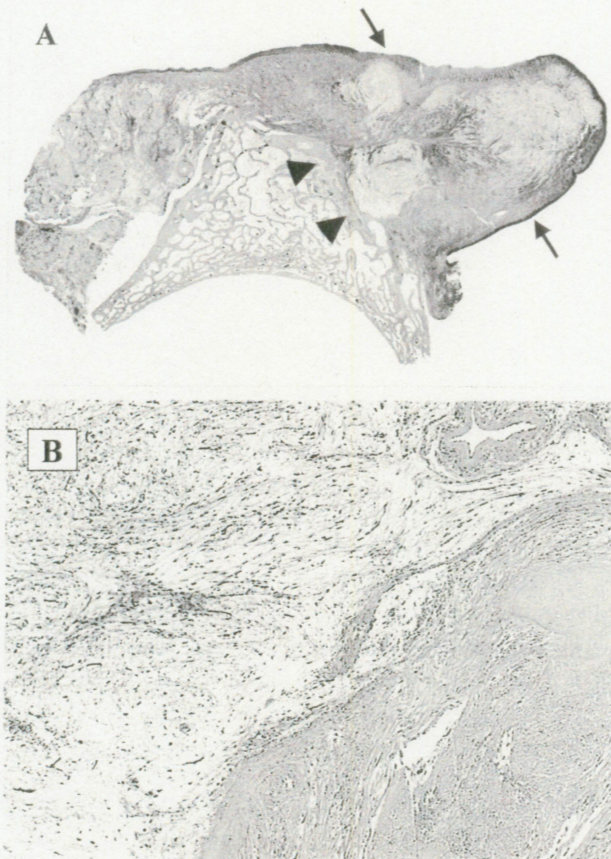


写真4 病理組織像

- A：腫瘍（矢印）は上顎歯肉槽頂から頬側の軟部組織にみられた。腫瘍周囲は線維性の組織で囲まれ、細胞成分の少ない組織が分葉状になっていた。腫瘍は上顎歯肉槽骨を圧排し皮質骨の一部に菲薄化がみられた（矢頭）。腫瘍の骨髓深部への浸潤は認めなかった（H-E染色，×1）。
- B：腫瘍病変周囲は線維性結合組織で囲まれ、腫瘍の間質は粘液様の成分が主体で、そのなかに異型性に乏しい紡錘形細胞がみられた（H-E染色，×40）。

間質は粘液様の成分が主体でありそのなかに異型性に乏しい紡錘形細胞がみられる粘液腫の特徴を示し、上皮成分、神経、唾液腺などの組織を含んでいなかった。さらに、腫瘍外側は線維性結合組織で囲まれていた。

粘液腫の発生由来に関しては胎生期の結合組織に類似した構造を有し粘液芽細胞の存在などから真の腫瘍であるとするもの<sup>10)</sup>や線維腫が粘液変性を起こしたものであるとする説<sup>11)</sup>がある。Barnesら<sup>9)</sup>は頭頸部の軟組織に発生する粘液腫の成因に関して、変性した線維芽細胞や筋線維芽細胞がムコ多糖類を過剰産生したためであり、線維、脂肪、血管、筋、軟骨、神経鞘組織などの腫瘍が粘液変性に陥ったものであると考えている。Tomich<sup>12)</sup>は口腔軟組織に生じた粘液変性病変の研究で軟組織に生じる粘液腫と報告さ

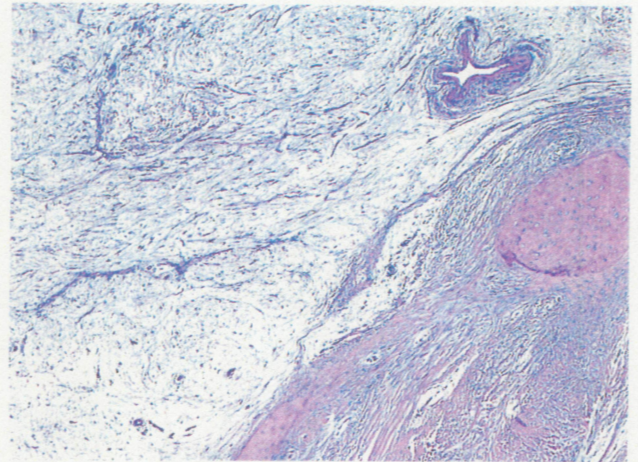


写真5 病理組織像

腫瘍内部は細胞が少なく線維と紡錘形細胞がみられ、細胞間質はAlician blueに陽性でPASには陰性を示す基質が認められた（Alician blue - PAS染色，×40）。

れた多くはoral focal mucinosisであり、真の腫瘍は少ないと報告している。粘液腫とoral focal mucinosisとの鑑別は、細網線維の存在によりなされている<sup>12)</sup>。本症例では細網線維の増殖が確認されていることから粘液腫と診断した。粘液腫の粘液基質はAlician blue染色では陽性を示し、PASには陰性を示すことが多く報告されている<sup>10, 11)</sup>。本症例の粘液基質はAlician blue - PASの2重染色でAlician blue染色に陽性、PAS染色には陰性であった。Alician blue染色は酸性ムコ多糖類に陽性、PAS染色は中性ムコ多糖類およびグリコーゲンに陽性を示すことから、本症例の粘液基質は酸性ムコ多糖類であることが示された。さらに、粘液腫の酸性ムコ多糖類の性状に関しては、ヒアルロン酸が多く含まれると報告されている<sup>10, 11)</sup>。本症例ではヒアルロニダーゼ処理後にAlician blue染色を行ったところ、染色性が著しく低下したことから、粘液の主成分はヒアルロン酸であることが示された。一方、Shimoyamaら<sup>6)</sup>は下顎前歯部歯肉の軟組織に発生した粘液腫に菌原性上皮を認めていることから菌原性組織が腫瘍の由来となっている可能性を示唆している。本症例では菌原性上皮、セメント質粒、埋伏歯などの菌原性由来の組織を含んでいないため、本腫瘍が菌原性組織由来である証拠を示す所見はなかった。本症例の粘液基質の本体は、ヒアルロン酸を主成分としたムコ多糖類であることが示されたがその成因に関しては不明である。顎骨中心性に発生する粘液腫と口腔軟組織に発生するものとは臨床所見、腫瘍の増殖様態、骨吸収様式などが同一ではないことから、発生由来および成因などが異なることが推測され、さらなる研究が必要と考えられる。

口腔の軟組織に発生する粘液腫と鑑別すべき疾患には、エプーリス、線維腫、軟骨腫、多形性腺腫、神経線維腫や神

経鞘粘液腫がある。Muzio ら<sup>13)</sup> は免疫組織学的な診断の有用性を報告しており、神経線維腫などの神経由来腫瘍との鑑別には S-100 蛋白を使用するが、粘液腫では陰性である。またサイトケラチンを用いた上皮性腫瘍と非上皮性腫瘍の鑑別においても粘液腫は陰性と報告している。それに対して間葉系組織の細胞骨格蛋白であるビメンチンには陽性であるとしている<sup>13)</sup>。本症例はビメンチンに陽性、S-100 蛋白、サイトケラチンには陰性であり粘液腫の免疫組織学的な特徴<sup>13, 14)</sup> がみられた。さらに、筋組織および筋線維芽細胞に特徴的にみられる  $\alpha$ -アクチン<sup>14, 15)</sup>、組織中のマクロファージなどの細胞と反応しエプーリスで陽性を示す PG-M1<sup>16)</sup> にも陰性であることから筋線維腫およびエプーリスは除外することができた。

顎口腔領域に生じた粘液腫の治療法について顎骨中心性のものである、搔爬を行った場合再発をきたすことが多いとされているため、通常は腫瘍と周囲組織をつけて切除を行う。Muzio ら<sup>13)</sup> は自らの症例で搔爬を行った例では 43% の再発があり、切除を行った例では再発がみられなかったと報告している。また、野村ら<sup>16)</sup> は文献的な調査から、搔爬を行った症例にのみ再発をきたしていることを報告している。口腔軟組織に生じる粘液腫は骨の吸収が少なく腫瘍外側は線維性の結合組織で囲まれていることから、顎骨中心性の粘液腫と比較して顎骨の広汎な切除は必要ないと考えられる。しかし頭頸部領域の軟組織に発生した粘液腫の治療に関しては文献的調査から、腫瘍のみの摘出を行った例に再発が多く、腫瘍を含む周囲組織を一塊とした切除を推奨するものもある<sup>17)</sup>。本症例では手術前には腫瘍の骨内への浸潤が否定できなかったこと、さらに高齢で塵肺などの基礎疾患を有しているため、腫瘍の再発による頻回の全身麻酔手術をさける必要から腫瘍の外側 1 cm に切除域を設定して、上顎骨部分切除により腫瘍を一塊として摘出した。術前に画像診断および病理組織学的診断等から軟組織に発生した粘液腫と診断可能であれば、腫瘍切除および圧迫性吸収の見られた骨の削除で留めておくことも可能であったと考えられた。

粘液腫の悪性型は非常に少ないと考えられているが上顎に発生した悪性菌原性粘液腫の報告もあり<sup>18)</sup>、さらに腫瘍の周囲に浸潤性発育して術後再発をきたすことがあるため慎重な経過観察が必要であると考えている。

本論文の要旨は第 23 回日本口腔腫瘍学会 (2005 年 1 月, 東京) において発表した。

## 引用文献

1) 石川吾朗: 口腔病理学 II. 改訂版, 永末書店, 京都,

- 1984, 491-494 頁.
- 2) Elzay, R.P. and Dutz, W.: Myxomas of the paraoral soft tissues. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 45: 246-254 1978.
  - 3) Daley, T.D., Wycoki, G.P., et al.: Relative incident of odontogenic tumors and oral and jaw cysts in a Canadian population. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 77: 276-280 1994.
  - 4) Regezi, J.A., Kerr, D.A., et al.: Odontogenic tumors: analysis of 706 cases. *J Oral Surg* 36: 771-778 1978.
  - 5) Curran, A.E., Damm, D.D., et al.: Pathologically significant pericoronal lesions in adults: Histopathologic evaluation. *J Oral and Maxillofac Surg* 60: 613-617 2002.
  - 6) Shimoyama, T., Horie, N., et al.: Soft tissue myxoma of the gingiva: report of a case and review of the literature of soft tissue myxoma in the oral region. *J Oral Sci* 42: 107-109 2000.
  - 7) 石川吾朗: 口腔病理学 II. 改訂版, 永末書店, 京都, 1984, 543-544 頁.
  - 8) Schmitseder, R., Groddeck, A., et al.: Diagnostic and therapeutic problems of myxomas (myxofibromas) of the jaws. *J Maxillofac Surg* 6: 281-286 1978.
  - 9) Barnes, L.: *Surgical Pathology of the Head and Neck*. 2nd Ed, Marcel Dekker, New York, 2001, p948-951.
  - 10) Harrison, J.D.: Odontogenic myxoma; ultrastructural and histochemical studies. *J Clin Pathol* 26: 570-582 1973.
  - 11) 永井隆雄, 岡田裕之: 粘液腫のレクチン組織化学的, 免疫組織化学的および電顕的研究. *日大口腔科学* 24: 219-229 1998.
  - 12) Tomich, C.E.: Oral focal mucinosis. A clinicopathologic and histochemical study of eight cases. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 38: 714-724 1974.
  - 13) Lo, Muzio, L., Nocini, P., et al.: Odontogenic myxoma of the jaws: a clinical, radiologic, immunohistochemical, and ultrastructural study. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 82: 426-433 1996.
  - 14) Lombardi, T., Lock, C., et al.: S100,  $\alpha$ -smooth muscle actin and cytokeratin 19 immunohistochemistry in odontogenic and soft tissue myxomas. *J Clin Pathol* 48: 759-762 1995.
  - 15) 渡辺二三雄, 土井田 誠, 他: 肉芽腫性および線維性エプーリスにおけるマクロファージの免疫組織化学的研究. *岐阜大医紀* 44: 237-245 1996.
  - 16) 野村城二, 田川俊郎, 他: 顎骨内粘液線維腫の 2 症例および本邦における文献的考察. *口科誌* 36: 226-238 1987.
  - 17) Tse, J.J. and Vander, S.: The soft tissue myxoma of the head and neck region-report of a case and literature review. *Head and Neck Surgery* 7: 479-483 1985.
  - 18) Pahl, S., Henn, W., et al.: Malignant odontogenic myxoma of the maxilla: case with cytogenetic confirmation. *J Larygol Otol* 114: 533-535 2000.