

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

瀧田正亮^{1,2} 木下昌毅² 西川典良²
京本博行² 高橋真也² 仙崎英人³

大阪府済生会中津病院患者支援相談室¹ 歯科口腔外科² 病理診断科³

和文抄録

63歳女性に見られた下顎歯肉歯槽粘膜Verruciform Xanthoma (VS; 疣贅型黄色腫)・白板症併発の1例を報告した。病変は右側下顎 $\overline{6}$ ポンティック相当舌側歯肉歯槽粘膜に発生し径5-6mm程度の類円形軽度隆起状の白色病変を呈していた。切除組織の病理組織学的所見にはVSと良性白板症の2つの病変の併発が観察された。口腔VSの生物学的性質について考察した。

Key Words : 口腔粘膜病変, 口腔粘膜上皮, 泡沫細胞, ICD-10

緒 言

Verruciform Xanthoma (VS; 疣贅型黄色腫)は皮膚, 生殖器粘膜および口腔粘膜に発生する特異な組織像を示す疾患と考えられ, 口腔VSの初めての記載は1971年Schaferによる^{1,2}。その後36年間を経ての口腔VSの報告件数は概算では本邦97例, 欧米178例³とされているが, 自験例⁴として2例目を経験したので, その特異な組織像ゆえに記録として報告したい。

症 例

患者: 63歳女性

主訴: 歯科医院に受診した際に右側下顎 $\overline{6}$ 部舌側歯肉の粘膜異常を指摘され精査依頼のため来院された。患者の自覚症状はなし。

既往歴: 子宮ポリープ。

現症: 口腔内所見としては $\overline{5}$ および $\overline{7}$ を支台歯とするブリッジが装着され $\overline{6}$ ポンティックの舌側歯槽粘膜に径5-6mm程度の類円形軽度隆起状の白色病変が見られた。顎下リンパ節は有意には触知しなかった。全身的には特記事項は見られなかった。

治療: 歯肉・歯槽粘膜白板症の臨床診断下に細胞診を行ったところ異型扁平上皮が認められたため切除生検を行った。術後経過は良好で1週間後に抜糸を行い紹介元に帰院された。

病理組織学所見: 切除組織には2つの異なった組織

像が観察された。一つは重層扁平上皮の角化が顕著に亢進しており, 上皮突起は棍棒状でその先端は一律性(均等伸長)を呈し結合織乳頭部には泡沫細胞の集簇がみられた(図2-A a b)。もう一つは軽度な角化亢進と有棘層の肥厚のみられる重層扁平上皮が観察され(図2-B), 上皮化には軽度のリンパ球浸潤がみられ, 上皮組織の異型は軽度であった。

最終診断: Verruciform Xanthoma (疣贅型黄色腫)・白板症併発

考 察

口腔VSは臨床的には単純切除で治癒するため臨床



図1 右側下顎 $\overline{6}$ 舌側歯肉・歯槽粘膜の軽度隆起状病変を示す。

上よりも、特異な病理組織学的所見ゆえに組織発生的な追究に視点が注がれてきた。その病理組織学的特徴は、結合組織乳頭部に局限して見られる泡沫細胞の集簇と上皮突起先端の発育の一律性（均等伸長）にある^{1, 2}。本疾患の組織発生に関しては須賀の学位論文³に詳しいが、慢性炎症による組織障害にマクロファージやTIA-1陽性Tリンパ球が関与し、①変性上皮に由来する膜脂質にせよ、②局所の代謝異状に由来し漏出した脂質にせよ、これら脂質が本症の特徴的な病態に関与すると考えられる。泡沫細胞はCD68陽性を示すことからマクロファージに起源しているとの見解が一般化されている³ことは、臨床医の立場からも病態を理解しやすい。脂質の由来については上述の如く①の慢性刺激による上皮の乳頭状増殖が先行して、変性上皮から生じた膜脂質をマクロファージが貪食するという説⁵に対して、②は脂質代謝異状の結果上皮乳頭部に泡沫化が発生し、その反応として上皮の増殖が誘発される⁶、という2つの相反する説が見られることは興味深い。これは病理組織所見が静的所見でありダイナミックな経過を完全には読み取ることができないことによるもので、過去報告された説は本疾患の組織像

を検鏡する際には現在でも各々に意義のあるものと思われる。いずれにせよ、今ひとつの注目点は本症における特徴的な上皮突起の発育の一律性（均等伸長）である。この機序については解明されていないが、集簇した泡沫細胞が関与する上皮成長因子が上皮形態に影響を及ぼしているという可能性を示す記載⁷に注目したい。

さて、口腔VXとして報告されているものには扁平苔癬⁸、白板症⁹、疣贅性角化症¹⁰、上皮内癌¹¹等の一般的にみられる口腔粘膜病変との併存例があり、本例でも切除組織に白板症の病理組織学的所見が併存していたことが看過できない。しかも口腔VXのみならず生殖器粘膜のVXについても他の粘膜病変との併存が報告されている¹²。このようにVXの他疾患との併存例の報告頻度を考えると、前述の須賀が研究論文³中の「口腔VXの位置付」の項で指摘しているように、口腔VXは遅延化した炎症や機械的刺激による粘膜上皮の変性と上皮性脂質によるマクロファージの泡沫化が主たる病態像をなすものではあるが、他の粘膜病変を基盤とする2次的な反応性変化としての病態像を示す例も含まれる可能性がある。従って本例の最終診断

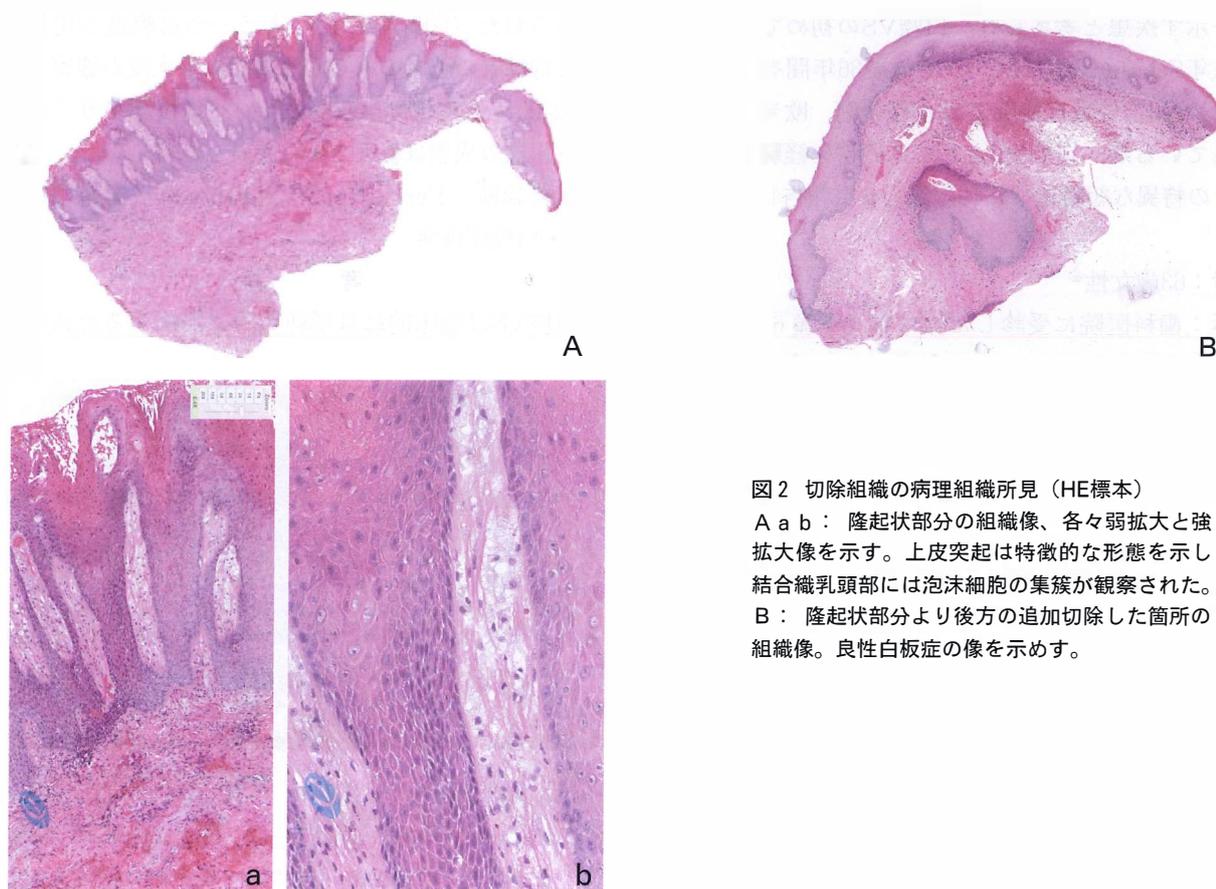


図2 切除組織の病理組織所見（HE標本）

A a b：隆起状部分の組織像、各々弱拡大と強拡大像を示す。上皮突起は特徴的な形態を示し結合組織乳頭部には泡沫細胞の集簇が観察された。
B：隆起状部分より後方の追加切除した箇所の組織像。良性白板症の像を示めす。

には須賀の見解によれば「VX様所見を伴う白板症」とすることへの妥当性も示唆される。これについては症例の蓄積を待ちたい。なお、ICD-10 version：2016でも口腔VXはK13.4としてコード化されているので、他の粘膜病変を伴うVXとのnomenclature（命名法）の検討も今後の課題と思われる。

最近、17年間放置され口蓋正中を超え発育して口蓋突起の垂直性圧迫性骨吸収を伴ったVXの例が報告されている¹³。口腔VXは予後が良好とは言え早期診断と十分な切除が必要であることを付記したい。VXのこのような生物学的潜在性に対しては皮膚科領域からも注目されている¹²。

結 語

下顎歯肉・歯槽粘膜に発生した特異な病理組織像を呈するVXと良性白板症の併発例を生物学的性質の面から考察した。

参考文献

1. Shafer WG: Verruciform xanthoma. Oral Surg Oral Med Oral Pathol, 1971.31:784-789
2. Shafer WG, Hine MK, Levy BM and Tomich CE: Benign and malignant tumours of the oral cavity, A Text book of Oral Pathology 4 ed. WB Saunders Co, Philadelphia, 1983, p86-229
3. 須賀則幸：疣贅型黄色腫の組織発生に関する研究. 明海歯学, 2007. 36: 74-89
4. 藤崎卓志, 富田幸伸, 瀧田正亮, 他：Verruciform Xanthoma の一症例. 第6回日本口腔外科学会近畿地方会講演抄録, 1980
5. Zegarelli DJ, Zegarelli-Schmidt EC, Zegarelli EV: Verruciform xanthoma. Further light and electron microscopic studies, with the addition of a third case. Oral Surg Oral Med Oral Pathol, 1975. 40: 246-256
6. Cobb CM, Holt R, Denys FR: Ultrastructural features of the Verruciform xanthoma. J Oral Pathol, 1976. 5: 42-51
7. Regazi JA, Sciubba J: Verrucal-papillary lesions; Oral Pathology Clinical-Pathological Correlations 2nd ed. WB Saunders Co, Philadelphia, 1993, 176-193
8. Polonowita AD, Firth NA, Rich AM: Verruciform xanthoma and concomitant lichen planus of the oral mucosa A report of three cases. Int J Oral Maxillofac Surg, 1999. 28: 62-66
9. Neville BW, Weathers DR: Verruciform xanthoma. Oral Sur Oral Med Oral Pathol, 1980.49: 429-434
10. Neville BW, Coleman PJ, Richardson MS: Verruciform xanthoma associated with an intraoral warty dyskeratoma. Oral Sur Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod, 1996. 81: 3-4
11. Drummond JF, White DK, Damm DD, et al: Verruciform xanthoma within carcinoma in situ. J Oral Maxillofac Surg, 1989. 47:398-400
12. Fite C, Plantier F, Dupin N: Vulvar verruciform xanthoma ten cases associated with lichen sclerosus, lichen planus, or other conditions. Arch Dermatol, 2011. 147: 1087-1092
13. 林 輝嘉, 山田耕治, 井関富雄, 他：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, 2015. 61: 277-281

Verrucous xanthoma and concomitant benign leukoplakia of lower gingival mucosa: A case report

Masaaki Takita^{1,2}, Masaki Kinoshita², Nishikawa Noriyoshi²
Kyomoto Hiroyuki², Shinya Takahashi² and Hideto Senzaki³

Division of Patient support consultation¹, Department of Oral Surgery²
Department of Pathology³, Saiseikai Nakatsu Hospital, Osaka

We presented a 63-year-old patient with verrucous xanthoma and concomitant benign leukoplakia of lower gingival mucosa under pontic. Her lesion is white well circumscribed 5-6 mm in diameter with a granular surface. Histological presence of verrucous xanthoma and benign leukoplakia was founded. We discussed on biological behavior of oral verrucous xanthoma.

Key words: Diseases of oral cavity, Oral epithelium, Foam cells, ICD-10