上顎に発生した Odonto- Ameloblastoma の 1 例

中谷 俊彦・高橋 健一・荒井 英爾*
伊藤 和也・河本 和友**

Report of a Case of Odonto-Ameloblastoma of the Maxilla

Toshihiko Nakaya, Kenichi Takahashi and Eizi Arai
(Sendai Hospital)

Kazuya Ito and Kazutomo Kawamoto
(Tohoku University)

A case of odonto-ameloblastoma of the maxilla is reported. A 11-year-old girl complained of swelling of the right cheek. The tumor was surgically removed, and histological examination of the tumor revealed odonto-ameloblastoma.

は じ め に

odonto-ameloblastoma はエナメル上皮腫類似の歯源性上皮と、エナメル質、象牙質、すなわち歯牙硬組織の形成に特徴づけられる比較的稀な腫瘍で、特に耳鼻咽喉科日常の診療で遭遇することは稀である。

われわれは最近、11才の女子の右側上顎に発生した本腫瘍を経験したので報告する。

症 例

患 者：11才，女性
主 訴：右側頬部腫脹
初 診：昭和53年6月8日
既往歴：特記すべきことなし
家族歴：特記すべきことなし
現病歴：昭和53年6月1日頃，姉より右側頬部が腫脹しているのではないかと指摘され，6

月8日当院耳鼻咽喉科外来を訪れた。

現 症：初診時全身所見として，体格中等度，栄養状態良好，全身的に特に異常所見は認められなかった。局所所見としては右側頬部に軽度の腫脹を認め，触診すると骨様硬の腫瘤がふれた。しかしこの腫瘍は皮膚との癒着はなく，発赤も圧痛も認められなかった。口腔内で

* 国立仙台病院耳鼻咽喉科

**東北大学医学部耳鼻咽喉科学教室

は、腫瘤による腫脹は右側上顎歯齦頬移行部から硬口蓋までおよび、鼻腔内では、この腫瘤により右側下鼻甲介の偏位と下鼻道側壁の膨隆がみられた。

しかし、頸部リンパ節は触知せず、又他の耳鼻咽喉科領域の異常は認められなかった。

レントゲン検査：副鼻腔単純撮影で右上顎洞の拡大とそれに一致して、鶏卵大の不透過像を認め、さらにその外上方に歯牙様陰影を認めた（図1）。ついで断層撮影およびオルソパントモグラムで見ると、上顎洞は著しく拡大しているが、骨壁の欠損は認められなかった。腫瘍と上顎洞壁とのあいだに間隙がみられたが、上顎洞底の右第1大臼歯の歯根部との境界だけは不鮮明であった。本腫瘍は石灰化が均一ではなく、石灰化は周辺部に向って放射状を呈し、一見スピクラ様に見えた。歯牙を見ると、左側

図1 単純撮影

図2 オルソパントモグラム

上顎は第3大臼歯まで正常に萌出していたが、右側上顎では第1大臼歯まで萌出し第2、第3大臼歯は欠損していた（図2）。

R I 検査： $^{99m}\text{TeMDP}$ を使用した骨シンチでは右上顎洞へ著しい取り込みがみられた（図3）。

図3 $^{99m}\text{TeMDP}$ シンチ

手術所見：全身麻酔のもとに、上顎洞根本手術（Caldwell-Luc 法）に準じ、右犬歯窩より上顎洞を開放すると、まずそこには中等度に肥厚した軟部組織を認め、その内側には表面が凹凸不整で鶏卵大の石様硬の腫瘍が存在していた。腫瘍塊は一部上顎洞底と癒着はしていたが、剝離摘出に際しては一塊として摘出することが出来た。その腫瘍塊の上端に歯牙が接合していた。腫瘍摘出後、上顎洞を精査したところ上顎洞底の一部に凹凸不整がみられ、上顎洞は全体に拡大し骨は菲薄化していたが、明瞭な骨壁の破壊欠損は認めなかった。

摘出標本所見：摘出物は $4.5 \times 3 \times 3 \text{ cm}$ 長楕円形を呈し、全体の重量は約 50 g であった。摘出物の表面は肥厚した軟部組織よりなり、その一部に歯冠の形態から、第2大臼歯とおもわれ

る歯牙が歯冠部を腫瘤の方にむけて癒着していた。表面を覆っている軟部組織を取りのぞくと、非常に硬い凹凸不整の球状の石を思わせる石灰化物を認めた(図4)。

病理組織学的所見：硬い石灰化物をとりかこんでいた表面の軟部組織をH-E染色で観察すると、高円柱状の上皮細胞成分が管腔様構造を形成し、その内側は星状細胞からなる粗な網状構造を呈し、強拡大にて観察すると、上皮細胞

図4 摘出物所見

図5 病理組織学的所見

成分はエナメル器細胞に類似しており、いわゆる ameloblastoma の組織像を呈していた(図5)。さらにこの ameloblastoma の周囲に円形細胞浸潤と扁平上皮化生を伴った上顎洞粘膜を認めた。X線像にて著しい不透過像として認められた石灰化物は歯牙硬組織よりなるもので、主に象牙質とエナメル質からなり、象牙質には象牙細管を、エナメル質にはエナメル小柱を明瞭に認めた。その他に類骨象牙質の形成や歯髓様構造の形成を認め、いわゆる complex odontoma の組織像を示していた(図6)。すなわち、この腫瘍の中心には巨大な complex odontoma があり、その周囲を ameloblastoma がおおっていたことになる。以上の所見より、WHO の国際腫瘍組織分類に従って odonto-ameloblastoma と診断した。

経過：術後の経過は良好で、同年8月12日退院した。現在、顔貌の変形はなく術後約3年を経過しているが、再発、悪性化を認めていない。

図6 病理組織学的所見

考

本邦において、耳鼻咽喉科領域からの歯原性腫瘍の報告は稀で、1965年以降腺エナメル上皮腫¹⁾やエナメル上皮腫²⁾³⁾などの報告はあるが、本症例のごとく ameloblastoma の中に odontoma が形成されている歯原性腫瘍の報告は見当らない。

1946年 Thoma⁴⁾ らが報告した歯原性腫瘍の

察

分類に基づき、1951年に American academy of oral pathology⁵⁾ は歯原性腫瘍を外胚葉性中胚葉性、更に混合性の三つに分類した。本症例のように ameloblastoma の中に odontoma が形成されている腫瘍は上記の分類に従えば混合性に属する。本腫瘍の名称のごときは、以前はかなり混乱しており種々の名称で呼ばれてい

たが, 近年に至り, もっぱら **ameloblastic odontoma** の名称が用いられおもに口腔外科領域で報告されてきた. わが国で **ameloblastic odontoma** の名称を用いて最初に報告したのは1959年に長尾⁶⁾ らによってである. 1971年に至り, Pindborg⁷⁾ らは WHO の国際腫瘍組織分類で歯系腫瘍の新分類を提唱した (表1).

表1 Pindborg らによる歯系腫瘍の分類

1. Ameloblastoma
2. Calcifying epithelial odontogenic tumour
3. Ameloblastic fibroma
4. Adenomatoid odontogenic tumour
(adeno-ameloblastoma)
5. Calcifying odontogenic cyst
6. Dentinoma
7. Ameloblastic fibro-odontoma
8. Odonto-ameloblastoma
9. Complex odontoma
10. Compound odontoma
11. Fibroma (odontogenic fibroma)
12. Myxoma (myxofibroma)
13. Cementomas
 - a. Benign cementoblastoma (true cementoma)
 - b. Cementifying fibroma
 - c. Periapical cemental dysplasia (periapical fibrous dysplasia)
 - d. Gigantiform cementoma (familial multiple cementomas)
14. Melanotic neuro-ectodermal tumour of infancy (melanotic progenoma, melano-ameloblastoma)

これによると **ameloblastic odontoma** は **ameloblastic fibro-odontoma** と, **odonto-ameloblastoma** に分けられており, **ameloblastic odontoma** の名称は用いられていない. 我が国においても, 最近では, この分類に従って報告される傾向にある. 私共の症例を病理組織学的に詳細に検討を加えた結果, **odontoma** を主体とし, その周囲は **ameloblastoma** がとりかこ

んでいたが, 線維性結合組織の腫瘍化は一切認めず, 本症例を **odonto-ameloblastoma** と診断した. 新分類における組織学的診断基準が明確になって以来, 本疾患の報告例は徐々にではあるが増加してきているが, 上顎洞内にみられた **odonto-ameloblastoma** の報告は稀である. しかし新分類が提唱されて以来いまだ日が浅く, 藤波⁸⁾ らは今後新分類法が一般化するよう, その推移をみる必要があることも指摘している. いずれにしても Pindborg は最近まで用いられてきた **ameloblastic odontoma** なる名称をすて, これを **ameloblastic fibro-odontoma** と **odonto-ameloblastoma** に分けて, 組織学的基準を決めたことは今までの混乱を多少なりとも減少させるであろう.

以上, 分類法からの意見を述べたが, 本症例の腫瘍について見ると, 大部分が **complex odontoma** からなっており, その周囲に被膜様に **ameloblastoma** がおおっていた. この腫瘍の本態について Gorlin⁹⁾ らは, **ameloblastic odontoma** と **complex odontoma** とは, 同じ腫瘍性変化であると記載しており, また Riddett¹⁰⁾ は **ameloblastic fibro-odontoma** から **complex composite odontoma** に変化した症例を報告している. すなわち **ameloblastic odontoma** は成熟すると **complex** または **compound odontoma** に変化していくと考えられるなら, 本症例の場合は大部分が形成不全を示す象牙質とエナメル質よりなる **complex odontoma** の組織像を示しており, より成熟した状態のものと思われる.

本腫瘍と埋伏歯牙との関係については明らかではないが, 森¹¹⁾ らの報告では, 本腫瘍と埋伏歯牙との関係について文献例26例中22例に埋伏歯を認めていると報告している. 本症例においても, 第2大臼歯と思われる歯牙が **odontoma** の辺縁にくい込むように埋伏して接合していたし, 又第3大臼歯の欠損がみられた. 埋伏歯牙及び歯牙の欠損と腫瘍の発生についてはなお不明な点が多いが, 本症例の場合, 第3大臼歯

の歯胚から腫瘍が発生したと考えられなくもない。末永¹²⁾らは ameloblastic fibro-odontoma の報告において、歯牙の欠損について述べているが、腫瘍との因果関係については今後の研究課題としている。

生化学検査では血清アルカリフォスファターゼの上昇が報告されているが¹³⁾、本症例においても術前と比較して術後の血清アルカリフォスファターゼが著しく低下した。しかし腫瘍自体との関連は不明である。

上顎洞または上顎骨に発生する腫瘍でX線写真上、石灰化を示す疾患として osteoma, osteofibroma, osteosarcoma 等があり鑑別上問題となるが、本症例はX線写真にて歯牙と同程度の極めて著しい不透過像を呈していること、オルソパントモグラムのにて上顎洞底にある第1大臼歯の歯根部を除き、上顎洞壁と腫瘍とのあい

だに間隙の存在していたこと、および腫瘍の一部に大臼歯が認められたことが歯源性腫瘍を疑わせる大きな要因となり、前記疾患との鑑別点ともなった。

本腫瘍の初発症状ないし主訴は大部分が無痛性腫脹であり、年令的には ameloblastoma より若い人に多く、10才から15才に多いといわれている¹³⁾¹⁴⁾。

発育は比較的緩慢で膨脹性に発育する傾向にある。腫瘍のこのような性格のため、本症例においても、腫瘍が増大し顔面が変形してきてから始めて腫瘍に気づいた次第である。

本腫瘍の治療法についてみると、どの報告も完全摘出をすすめている。比較的良性的経過をとり予後も一般に良好とされているが、再発、悪性化の報告¹⁵⁾¹⁶⁾¹⁷⁾¹⁸⁾もあり完全摘出と長期間の術後観察の必要は当然である。

結 語

11才女子の右上顎に発生した、きわめて稀な odonto-ameloblastoma の1例を経験して、その概要を報告すると共に、本腫瘍の病理組織学的分類およびその発生機転等について、若干の文献的考察を加えて報告した。本症例は術後3年1カ月を経過するも悪性化、再発は見られないが、現在なお経過観察中である。

本論文の要旨は第14回日耳鼻宮城県地方部会、第18回日本鼻副鼻腔学会総会などで発表した。

参 考 文 献

- 1) 金子豊, 他: 腺エナメル上皮腫の1例. 耳喉 37: 165~167, 1965,
- 2) 吉川由絵, 他: 上顎に発生した Ameloblastoma の1例. 耳鼻臨床 62: 197~220, 1967.
- 3) 斎藤彰, 他: 上顎エナメル上皮腫の1例. 耳喉 51: 61~65, 1979.
- 4) Thoma, K. H. et al.: Odontogenic tumors. A classification based on observations of the epithelial, mesenchymal, and mixed varieties. Amer. J. Path., 22: 433~471, 1946.
- 5) Robinson, H. B. G.: Proceedings of the Fifth Annual Meeting of the American Academy of Oral Pathology, Stevens Hotel, Chicago, February 4, 1951, Oral Surg., 5: 177~178, 1952.
- 6) 長尾喜景, 他: Ameloblasto-Odontoma の1例. 歯科学報 59: 1150~1153, 1959.
- 7) Pindborg, J. J., et al.: Histological typing of odontogenic tumors, jaw cysts, and allied lesions. W. H. O., Geneva, 1971.
- 8) 藤波好文, 他: Peripheral ameloblastic odontoma の1例. 日口外誌28: 301~305, 1979.
- 9) Gorlin, R. J., et al.: Odontogenic tumors. Classification, histopathology, and clinical behavior in man and domesticated animals. Cancer 14: 73~101, 1961.
- 10) Riddett, S. A.: A composite odontoma at a very early age. Brit. Dent. J., 77: 129~131 1944.
- 11) 森喜郎, 他: Odonto-ameloblastoma の2症例

- と文献的考察. 日口外誌 22 : 575~584, 1976.
- 12) 末永光, 他 : エナメル上皮線維歯牙腫の1例. 日口外誌 22 : 702~710, 1976.
- 13) 永井哲夫, 他 : Ameloblastic odontoma の1例と文献的考察. 日口外誌 22 : 711~717, 1976.
- 14) 河野信彦, 他 : Ameloblastic odontoma の1例. 日口外誌 21 : 449~453, 1975.
- 15) Frissell, C. T., et al. : Ameloblastic odontoma. Oral Surg., 6 : 1129~1133, 1953.
- 16) Jacobson, P. H., et al. : Ameloblastic odontomas. OS OM OP 26 : 829~836, 1968.
- 17) Howell, R. M., et al. : Malignant transformation of ameloblastic fibro-odontoma to ameloblastic fibrosarcoma. Oral Surg., 43 : 391~401, 1977.
- 18) 石本哲夫, 他 : 悪性転化を来たした下顎エナメル上皮歯牙腫の1例. 口科誌 14 : 239~240, 1965

原稿到着 : 昭和56年12月14日

別刷請求先 : 中谷俊彦

〒983 仙台市宮城野2丁目8番8号

国立仙台病院耳鼻咽喉科