蜂巣状ならびに嚢胞状 X 線像を呈した下顎骨 desmoplastic ameloblastoma の 1 例

高山 優・根岸 明秀・笹岡 邦典
中曽根良樹・山口 徹

A case of desmoplastic ameloblastoma of the mandible with foamy and cystic radiographic findings

TAKAYAMA Yu · NEGISHI Akihide · SASAOKA Kuninori
NAKASONE Yoshiki · YAMAGUCHI Toru

Abstract: Desmoplastic ameloblastoma (DA) is classified as a rare variant of ameloblastoma. Foamy or cellular radiolucency or radiopacity is thought to be characteristic on radiographic examination. We report a case of mandibular DA with unusual radiographic findings. A 60-year-old man was referred to our department in October 2004 because of a large growing mass in the left anterior region of the mandible. Radiography and computed tomography revealed a poorly-defined mass with a mixed radiolucent-radiopaque lesion anteriorly and cystic radiolucent areas posteriorly. Histopathological examination of a biopsy specimen suggested that the lesion might comprise two different lesions, with squamous odontogenic tumor anteriorly and inflammatory cyst posteriorly. A treatment plan for extirpation of the lesion followed by curettage of the underlining intact bone under general anesthesia was established, and surgery was performed. The surgical specimen was examined histopathologically, and DA was diagnosed. No signs of local recurrence have been seen as of 3 years after surgery.

Key words: desmoplastic ameloblastoma (類腱型エナメル上皮腫), mandible (下顎骨)

緒 言

エナメル上皮腫は口腔外科領域ではしばしば遭遇する歯原性良性腫瘍の一つである。WHO 分類による組織型としては solid/multicystic type, unicystic type の頻度が高く, desmoplastic type はまれとされている^{1, 2)}。

今回、筆者らは下顎骨前歯部から小臼歯部に発生し、蜂巣状および嚢胞状 X 線像を呈した desmoplastic ameloblastoma (以下 DA) の 1 例を経験したので、その概要を報告する。

症 例

患 者：60 歳，男性。
初 診：2004 年 10 月。

主 訴：下顎歯肉の膨隆。

現病歴：1995 年頃より下顎前歯部から左側下顎小臼歯部唇側の膨隆を自覚するも放置していた。2002 年頃より増大傾向を示したため、近医歯科受診。紹介により当科へ来院した。

既往歴：高血圧症，椎間板ヘルニア。

家族歴：特記事項なし。

現 症：

全身所見：体格中等度，栄養状態良好。

口腔外所見：顔色良好，顔貌は左側オトガイ孔部を中心とするびまん性の腫脹を認め，非対称性を示した。同部に発赤，疼痛はなく，骨様硬の境界明瞭な非可動性腫瘍を触知した。左側オトガイ神経支配領域の知覚異常は認められなかった。左側顎下リンパ節は触知されなかった。

口腔内所見：2+5 の唇・頬側歯槽部から下顎骨体部にかけて，クルミ大の腫瘍が認められ，被覆粘膜に発赤，潰瘍などは認められなかった。腫瘍近心部には独立した小指頭大の膨隆が存在した。触診所見では無痛性，非可動性，骨様硬の腫瘍であった。2+5 に齶蝕はなく，1~3 は舌

群馬大学大学院医学系研究科顎口腔科学分野
(主任：横尾 聡教授)
Department of Stomatology and Oral Surgery, Gunma University Graduate School of Medicine
(Chief: Prof. YOKOO Satoshi)
受付日：2007 年 7 月 23 日
採択日：2008 年 11 月 25 日

写真1 口腔内写真 左側下顎唇・頬側面観

下顎骨正中から左側下顎臼歯部にかけて、腫瘍を認め、腫瘍近心部には独立した小指頭大の膨隆（矢印）を認めた。

写真2 パノラマX線写真

2] から 6] 遠心部にかけてX線透過像を認めた。

写真3 X線CT写真

A：骨モード所見 B：軟組織モード所見

A：2] から 4] 相当部、下顎唇・頬側に境界明瞭な骨膨隆がみられ、内部は蜂巣状像を呈した。これに接する後方病変は、頬側に突出した境界明瞭な嚢胞状像を呈し、同部の下顎骨頬側皮質骨には肥厚が認められた。

B：2] から 5] 部は骨様濃度を示し、下顎骨との境界は不明瞭で、内部に複数の小低濃度領域が存在した。5] 6] 部は下顎骨の頬側面に境界明瞭な均一な低濃度領域の嚢胞状像として認められた。

側傾斜を認めたが、動揺および打診痛はなかった（写真1）

パノラマX線写真所見：2] から 6] 遠心部にかけての下顎骨体内に比較的境界明瞭なX線透過像がみられ、2] から 4] 部ではX線透過像と不透過像の混在する像を呈していた。5] 6] 部の病変の境界は比較的明瞭で内部は正常な骨梁構造を認めた。2] 4] の歯根離開が認められたが、同歯の歯根吸収はなかった。6] 歯冠部には齶蝕が認められ、近心根根尖にはX線透過像が認められた（写真2）。

X線CT写真所見：2] から 4] 相当部にかけての下顎骨体部には、唇・頬側へ突出する境界明瞭な膨隆がみられ、その内部には低濃度領域と高濃度領域の混在する病変を認めた。また 5] 6] 部では前方部病変から独立した境界明瞭、

内部は均一な低濃度領域を示す病変が存在した（写真3A、B）。

臨床診断：骨形成線維腫（前方部）、および下顎骨嚢胞（後方部）の疑い。

処置および経過：2004年11月、前方の腫瘍様病変、お

写真4 腫瘍摘出後、口腔内写真
腫瘍摘出後の骨表面はやや粗造で、1～3 部には骨吸収が認められた。

写真5 摘出標本写真
摘出標本は表面粗造な充実性腫瘍であった。矢印はX線 CT 写真所見にて嚢胞状像を示した後方部病変を示す。

写真6 病理組織像

- A：豊富な線維性結合組織中に腫瘍胞巣が認められた (H-E 染色, ×40)。
- B：実質は扁平な細胞の密な配列からなっていた (H-E 染色, ×100)。
- C：前方部病変の間質中には骨形成像が認められた (矢印) (H-E 染色, ×100)。

よび後方の嚢胞様病変の生検を施行した。後方部病変の生検時の試験穿刺により漿液性の内容液を確認した。生検材料の病理組織学的検索から前方部は squamous odontogenic tumor, 後方部は非特異的な線維性の嚢胞壁と診断された。

2004 年 12 月, 全身麻酔下にて下顎骨腫瘍および嚢胞摘出術を施行した。1～6 の唇・頬側歯肉にかけて, 歯頸部よりやや下方に切開線を設定して粘膜骨膜弁を剥離翻転した。骨表面に膨隆を認めたが表面性状に異常はなく, 骨内の病変を唇側皮質骨とともに摘出した (写真4)。画像所見

で嚢胞状像を呈した後方部病変は, 前方部病変と明らかな境界がなく, 一塊として摘出できた。摘出後, 周囲の骨面を一層削除し, 抗菌薬含有軟膏ガーゼを填入し, 開放創と

して処置した。[23]は腫瘍に含まれていたため抜歯した。術後約3年間経過したが、再発等はみられず、病変部には新生骨の形成がみられた。

摘出標本所見：病変表面は、白色、粗造で弾性硬の充実性腫瘍を示した。画像所見で嚢胞状像を呈した後方部病変は、前方部病変と同様、弾性硬の充実性腫瘍で内容液は認められなかった（写真5）。

病理組織学的所見：細胞成分の少ない密な線維性結合組織から成る間質内に比較的小な腫瘍胞巣が散在していた（写真6A）。腫瘍胞巣内側の細胞は扁平で密に配列し、辺縁の細胞配列も不規則となっているものの、全体的にはエナメル器に類する組織構造がうかがわれた（写真6B）。また、前方部病変では内部に骨細胞を認める骨形成像が認められた。一方、後方部病変ではそのような変化は少なかった（写真6C）。

病理組織学的診断：Desmoplastic ameloblastoma.

考 察

Desmoplastic ameloblastoma は1984年 Eversole ら³⁾によって初めて報告された疾患であり、WHO 分類¹⁾では solid/multicystic type, extraosseous/peripheral type, desmoplastic type, unicystic type の4亜型のなかの一型とされている。DAの発生頻度は、Waldron ら⁴⁾はエナメル上皮腫116例中14例（12%）、Reichart ら⁵⁾は3,677例中23例（1.4%）、また Beckley ら⁶⁾はエナメル上皮腫全体の0.9～12.1%としており、本腫瘍はエナメル上皮腫のまれな組織亜型と考えられた。

自験例において発症年齢は60歳であった。DAの発症年齢について、Philipsen ら²⁾は平均42.9歳、Beckley ら⁶⁾は平均41.2歳と報告している。Solid/multicystic type や unicystic type は20、30歳代の若年層に多いとされているのに対し、DAは比較的高年齢層に生じると思われた。その理由について、松尾ら⁷⁾は他の亜型のエナメル上皮腫が長期間、顎骨内に存在し、細胞が化生、もしくは退行性変化したことにより desmoplastic type へ変化するものと推測し、そのため DA は高い年齢層にみられるものとしている。

DAの発生部位は、自験例では下顎前歯部から小臼歯部にかけての発生であった。DAの発生は上下顎ではほぼ同頻度、顎骨のなかでは特に前歯部から小臼歯部に多いと報告されており、自験例と一致していた^{2, 5, 6, 8)}。すべての亜型を含めたエナメル上皮腫の発生部位について、松尾ら⁷⁾は30歳台までは下顎臼歯部に多く、40歳台以降は前歯部に多いと報告している。DAは比較的高年齢層に生じることにより前歯部に好発するものと考えられた。

自験例のX線写真所見は、前方部はX線透過像と不透過

像が混在する蜂巢状像、後方部は均一な嚢胞状透過像であった。後藤ら⁹⁾はDAの特徴的なX線写真所見は、蜂巢状ないし抱沫状のX線透過像、または bone-related lesion に類似した境界不明瞭なX線不透過像と報告している。X線不透過像を呈する理由としては、腫瘍内に骨梁が残存するためとしている⁹⁾。一方、自験例と同様の二病変の併発のようなX線写真所見を呈したDAは、後藤ら⁹⁾、金子ら¹⁰⁾、小林ら¹¹⁾、によっても報告されている。この点について、DAは、一部の嚢胞化や小嚢胞の形成、退行性変化、他のエナメル上皮腫との混在（hybrid DA）などが少なくないものと推測している^{9～11)}。自験例において、上記のようなX線写真所見が認められた理由は、病理組織学的な相違、すなわち前方病変部では後方病変部より多くの骨形成像が認められたためではないかと考えられた。

歯根の状態については、自験例においては[24]の歯根離開が存在したが、歯根吸収は認められなかった。森田ら¹²⁾は歯根離開の理由として、DAは根尖周囲や歯根間より発生し、歯槽突起部を中心に成長するためと報告している。エナメル上皮腫により歯根吸収を生じる頻度について、伊賀¹³⁾は120症例中92例（72.6%）と高頻度であるとの報告もある一方で、森田ら¹²⁾は約20%、Higuchi ら¹⁴⁾は認められないとし、一致していない。Philipsen のDA症例100例についての検討では、術後比較的早期の再発が多いことから、腫瘍発育が速やかであると考えており、そのため骨吸収が先行し、歯根吸収は生じにくいと推測している²⁾。したがって、DAによる歯根吸収の発生頻度はエナメル上皮腫の他の亜型と比べ低いものと考えられた。しかし、本腫瘍の発症年齢が通常のエナメル上皮腫より高いことは、腫瘍の成長発育が緩慢であることも考えられ、更なる検討が必要とされる。

DAの特徴的な病理組織学所見は、多量の線維性結合組織の増生のなかにエナメル髓様の腫瘍胞巣がみられるものとされている¹⁵⁾。自験例では、生検により squamous odontogenic tumor と診断された。しかし、全割標本では、多くの腫瘍胞巣において扁平上皮よりも紡錘状細胞が優勢であったため、最終的に前・後方部共にDAと診断した。したがって、エナメル上皮腫の診断には全割標本における詳細な検討が必須と思われた。

本来、エナメル上皮腫は浸潤性の性格を有するため、DAにおいても、摘出の際、十分注意を払う必要があると考えられるWaldron ら⁴⁾は、DAは濾胞型や叢状型などのエナメル上皮腫と同等以上の再発の可能性があると報告している。Philipsen ら²⁾は、DAのX線写真所見において、境界が不明瞭、もしくは断裂している症例、病理組織学的検索から腫瘍が完全に被包化されていないか、被膜が一部断裂している症例は再発率が高いとしている。自験例では、術

前には DA との診断はできなかったが、X線写真所見により病変の辺縁がやや不明瞭な部位が存在したため、腫瘍摘出後、骨面を削除した。現在、術後約3年間、再発なく良好に経過しているが、今後も十分な経過観察を行う予定である。

結 語

特異な X 線像を呈する下顎前歯部から小臼歯部に生じたエナメル上皮腫のまれな組織型である desmoplastic ameloblastoma の 1 例を経験したので、文献的考察を加え、報告した。

謝辞

稿を終えるにあたり、貴重な御指導を頂きました群馬大学名誉教授茂木健司先生、また病理組織学的検索の際、ご教示頂いた東京医科歯科大学大学院口腔病態診断科学分野、岡田憲彦先生、群馬大学大学院医学系研究科医科学専攻臓器病態制御系病態腫瘍制御学応用腫瘍病理学講座、神谷 誠先生に厚く御礼申し上げます。

本論文の要旨は第 182 回日本口腔外科学会関東地方会 (2006 年 12 月、千葉県旭市) において口頭報告した。

引 用 文 献

- 1) Barnes, L., Eveson, J., et al.: World Health Organization Classification of Tumours. Pathology and Genetics of Tumours of the Head and Neck. IARC Press, Lyon, 2005, p283-328.
- 2) Philipsen, H.P., Reichart, P.A., et al.: Desmoplastic ameloblastoma (including "hybrid" lesion of ameloblastoma). Biological profile based on 100 cases from the literature and own files. Oral Oncol 37: 455-460 2001.
- 3) Eversole, L.R., Leider, A.S., et al.: Ameloblastomas

- with pronounced desmoplasia. J Oral Maxillofac Surg 42: 735-740 1984.
- 4) Waldron, C.A. and El-Mofty, S.K.: A histopathologic study of 116 ameloblastomas with special reference to the desmoplastic variant. Oral Surg Oral Med Oral Pathol 63: 441-451 1987.
- 5) Reichart, P.A., Philipsen, H.P., et al.: Ameloblastoma: biological profile of 3677 cases. Eur J Cancer B Oral Oncol 31B: 86-99 1995.
- 6) Beckley, M.L., Farhood, V., et al.: Desmoplastic ameloblastoma of the mandible: a case report and review of the literature. J Oral Maxillofac Surg 60: 194-198 2002.
- 7) 松尾 朗, 内田 稔, 他: エナメル上皮腫の臨床学的統計. 歯学 85: 110-114 1997.
- 8) Keszler, A., Paparella, M.L., et al.: Desmoplastic and non-desmoplastic ameloblastoma: a comparative clinicopathological analysis. Oral Dis 2: 228-231 1996.
- 9) 後藤秀之, 河野憲司, 他: 下顎骨前歯部に生じた desmoplastic ameloblastoma の 1 例. 日口外誌 47: 528-531 2001.
- 10) 金子勝彦, 佐藤宏憲, 他: 特異な X 線像を呈した Desmoplastic ameloblastoma の 1 例. 日大歯学 72: 269-273 1998.
- 11) 小林龍彰, 高木律男, 他: 高齢者の下顎に発生した desmoplastic ameloblastoma の 1 例. 口科誌 48: 356-359 1999.
- 12) 森田章介, 有家 巧, 他: Desmoplastic ameloblastoma に関する臨床的, X線学的ならびに病理学的検討. 日口外誌 40: 988-996 1994.
- 13) 伊賀成知: 顎骨内疾患による歯根吸収に関する研究. 日口外誌 32: 1121-1138 1986.
- 14) Higuchi, Y., Nakamura, N., et al.: Unusual ameloblastoma with extensive stromal desmoplasia. J Craniomaxillofac Surg 19: 296-300 1991.
- 15) 高木 實監修: 口腔病理アトラス. 第 2 版, 文光堂, 東京, 2006, 195-206 頁.