歯肉に乳頭腫状増殖を呈した下顎骨エナメル上皮腫の1例

安居孝純¹⁾・鬼澤勝弘¹⁾・田中陽一²⁾
兵藤朋子¹⁾・小高利絵³⁾・岩崎良太郎³⁾

A case of mandibular ameloblastoma with papillomatous proliferations in the gingiva

YASUI Takazumi¹⁾・ONIZAWA Katsuhiko¹⁾・TANAKA Yoichi²⁾
HYODO Tomoko¹⁾・KODAKA Rie³⁾・IWASAKI Ryotaro³⁾

Abstract: Although ameloblastoma is a relatively common jaw tumor, it is rare for an intraosseous ameloblastoma to extend into the covering mucosa and thereby induce papillomatous changes. We report our experience with a 33-year-old man who had a mandibular ameloblastoma with papillomatous proliferations in the gingiva. The gingival mass had a papillary surface and extended across the right mandibular lingual gingiva from the canine region to the first premolar region. A diagnostic biopsy at initial examination revealed ameloblastoma. Marginal resection of the mandible and free iliac bone grafting were performed. Histopathological examination revealed that most of the tumor, a follicular ameloblastoma with papillomatous proliferations in the gingival epithelium, was in the jaw bone. As of 18 months since treatment, the patient remains well without recurrence.

Key words: ameloblastoma (エナメル上皮腫), papilloma (乳頭腫), intraosseous (顎骨中心性)

緒 言

エナメル上皮腫は顎骨腫瘍のなかで比較的頻度の高い腫瘍であるが、顎骨内に発生したエナメル上皮腫が被覆粘膜に進展し粘膜の形態変化を示すことはまれである。今回われわれは歯肉に乳頭腫状増殖を呈した下顎骨エナメル上皮腫の1例を経験したので報告する。

症 例

患 者：33歳，男性。

初 診：2006年8月。

既往歴：高血圧症，脂肪肝。

現病歴：2005年8月より下顎前歯部舌側歯肉に示指頭大の腫瘤を自覚した。同年12月，某病院口腔外科にて生検し乳頭腫との結果を得たが放置していた。その後，腫瘤の増大を認めたため当科受診した。

現 症：初診時，右下顎犬歯部から第一小臼歯部の舌側歯肉に25mm×15mm×13mm大の固着性，弾性硬で乳頭状を呈した腫瘤を認めた。腫瘤は，比較的境界明瞭で粘膜表面の色は健常であった（写真1）。自発痛および圧痛はなく，また，すべての歯に動揺を認めなかった。電気歯髓診にて歯髓生活反応は，腫瘍が存在する部位の歯のうち右下顎犬歯を除きすべて陽性であった。

画像所見：パノラマX線写真では，右下顎第一小臼歯から左下顎中切歯部に境界明瞭な多房性の骨吸収像を認め（写真2），咬合法X線写真では同部の舌側への骨膨隆を認めた（写真3）。CTでも同部下顎骨の骨吸収像と舌側への骨膨隆像を認めた（写真4）。

臨床診断：下顎腫瘍。

処置および経過：初診時に下顎歯肉腫瘍から生検を行い，エナメル上皮腫との診断を得た。2006年9月，全身麻酔下にて下顎骨辺縁切除術および遊離腸骨移植術を行った（写真5）。手術は，右下顎第二小臼歯から左下顎側切歯部の歯肉および下顎骨を歯を含め一塊として切除した。その際，オトガイ孔の直上の高さで下顎骨を切除し，オトガイ

¹⁾ 川崎市立川崎病院歯科口腔外科
(主任：鬼澤勝弘医長)

²⁾ 東京歯科大学市川総合病院臨床検査科病理
(主任：田中陽一教授)

³⁾ 慶応義塾大学医学部歯科・口腔外科
(主任：中川種昭教授)

¹⁾ Kawasaki Municipal Hospital, Dentistry and Oral Surgery
(Chief: ONIZAWA Katsuhiko)

²⁾ Division of Surgical Pathology Clinical Laboratory Tokyo
Dental College Ichikawa General Hospital (Chief: Prof.
TANAKA Yoichi)

³⁾ Department of Dentistry and Oral Surgery School of
Medicine, Keio University (Chief: Prof. NAKAGAWA
Taneaki)

受付日：2008年3月25日

採択日：2009年5月26日

写真1 初診時口腔内写真

右下顎犬歯から第一小白歯部の舌側歯肉に 25mm × 15mm × 13mm 大の固着性、弾性硬で乳頭腫状の腫瘤を認めた。

写真3 咬合法 X 線写真

下顎骨舌側への骨膨隆を認める (矢印)。

写真2 パノラマ X 線写真

右下顎第一小白歯から左下顎中切歯部に多房性で境界明瞭な骨吸収像を認める (矢印)。

写真4 CT 写真

下顎骨の骨吸収像と舌側への骨膨隆像を認める (矢印)。

神経は温存した。その後、腸骨をブロック状に採取し、下顎骨切除部に移植しチタンミニプレートにて固定した。術後 10 日目にあらかじめ作製しておいた義歯を装着した。術直後、下唇の知覚鈍麻が出現したが、術後 3 か月時には消失した。術後 1 年 6 か月経過した現在、腫瘍の再発や移植骨の感染を認めず経過良好である。咀嚼に関しても義歯の使用で支障はなく、患者の満足度は良好である (写真 6)。

摘出標本所見：摘出標本の舌側歯肉に乳頭腫状を呈した 28mm × 17mm × 13mm 大の有茎性腫瘤を認めた (写真 7)。

病理組織学的所見：腫瘍の表層に歯肉上皮の乳頭状増殖を呈する部分を認め、深部に円柱上皮に縁取られるようにして星芒状から基底細胞様の細胞が胞巣状に増殖する濾胞型のエナメル上皮腫を示す部分を認めた (写真 8)。腫瘍の大部分は顎骨内に存在していた。

考 察

顎骨内に発生したエナメル上皮腫において歯肉腫瘍として出現し周辺性エナメル上皮腫様を呈することは、Stevenson ら¹⁾の報告をもとに 2005 年の WHO 分類²⁾に記載されているが、われわれが渉猟し得た限りこの報告のみであった。

また、粘膜に乳頭腫状を呈したエナメル上皮腫は、われわれが渉猟し得た限り顎骨内に発生した症例での報告はなく、周辺性エナメル上皮腫における 9 例の報告^{3~11)}のみであった。

これらの 9 例の報告 (表 1) では、年齢は 23 歳から 76 歳で平均 48.2 歳であった。性別は男女比 8 : 1 と男性に多くみられた。発生部位は下顎小白歯部で舌側歯肉に多く認め、大きさは 7 mm から 25 mm であった。本症例はそれらにほぼ一致していた。

臨床診断は、被覆粘膜が乳頭腫状を呈している場合には、

写真 5

- A：術中写真（下顎骨辺縁切除後）
右下顎第二小臼歯から左下顎側切歯部の歯肉および下顎骨を歯を含め一塊として切除した。
- B：術中写真（腸骨移植後）
腸骨をブロック状に採取し、下顎骨切除部に移植しチタンミニプレートにて固定した。

写真 6 術後1年6か月時

腫瘍の再発や移植骨の感染を認めず経過良好である。

A：パノラマX線写真 B：口腔内写真

写真 7 摘出標本（舌側面観）

舌側歯肉に乳頭腫状を呈した有茎性腫瘤を認める。

過去の報告例において臨床所見よりエナメル上皮腫と診断した症例はなく、臨床所見からだけではエナメル上皮腫と診断するのは難しいと思われる。Wertheimer ら³⁾ および池田ら⁹⁾ は乳頭腫の診断のもと腫瘍摘出を施行した結果、病理組織検査にてエナメル上皮腫と診断し追加切除を行っている。本症例においても前医での生検では、乳頭腫との診断であった。これは生検にて表層の乳頭状部分のみ採取し、深部の組織を採取していなかった可能性が考えられる。

本症例は腫瘍の大部分が下顎骨内にあり、皮質骨の内側からの骨吸収と舌側への骨膨隆を認め、顎骨内に発生した腫瘍が増大し骨外の軟組織に進展したと考えられた。一方、周辺性エナメル上皮腫は軟組織に発生し骨吸収をほとんど起こさず、ときに腫瘍直下の骨表面にわずかな erosion や圧迫吸収を生じるのみとされる²⁾。過去の乳頭腫状を呈し

写真8 病理組織像 (H-E 染色)

- A：歯 (★) の舌側に腫瘍 (☆) を認め、腫瘍の上部と下部に菲薄な骨 (→) を認める (ルーペ像)。
 B：歯肉上皮の乳頭状増殖部とエナメル上皮腫の境界部 (×2)。
 C：歯肉粘膜の乳頭状増殖を呈する部分を認める (×4)。
 D：円柱上皮に縁取られるようにして星芒状から基底細胞様の細胞が胞巣状に増殖する濾胞型のエナメル上皮腫を示す部分を認める (×4)。

表1 乳頭腫状を呈したエナメル上皮腫の報告例

症例 No.	報告者	報告年	性別	部位	サイズ	骨吸収	臨床診断	治療法	経過
1	Wertheimerら ³⁾	1972	23 F	下顎前歯部舌側歯肉	12×10×4mm	なし	乳頭腫	切除	再発例, 術後再発なし
2	手島ら ⁴⁾	1977	58 M	下顎小白歯部舌側歯肉	17×10mm	あり	乳頭腫 (悪性変化の疑い)	放射線治療, 動注化学療法後, 切除	再発なし
3	Moskowら ⁵⁾	1982	57 M	下顎小白歯部舌側歯肉	10mm	なし	膿原性肉芽腫	切除	再発なし
4	Kanekoら ⁶⁾	1986	42 M	下顎小白歯部歯肉	8×10×12mm	なし	乳頭腫	骨膜を含め切除	再発なし
5	芝ら ⁷⁾	1988	44 M	下顎小白歯部舌側歯肉	7×5mm	なし	基底細胞癌 (前医)	歯肉および歯槽骨を含め切除	再発例, 術後再発なし
6	秋葉ら ⁸⁾	1995	58 M	下顎小白歯部歯肉	7mm	あり	歯肉腫瘍の疑い	骨を含め切除	再発なし
7	池田ら ⁹⁾	2000	48 M	下顎小白歯部舌側歯肉	12×6×2mm	なし	乳頭腫の疑い	周囲歯, 骨膜を含め切除	再発なし
8	宮嶋ら ¹⁰⁾	2001	76 M	上顎前歯部口蓋側歯肉	18×14×6mm	なし	乳頭腫	骨膜を含め切除	再発あり
9	Ideら ¹¹⁾	2002	28 M	下顎小白歯部舌側歯肉	25mm	あり	記述なし	切除	再発なし
10	本症例	2008	33 M	下顎前歯小白歯部舌側歯肉	25×15×13mm	あり	下顎腫瘍	下顎骨辺縁切除術	再発なし

たエナメル上皮腫^{3~12)}においても9例中6例は骨吸収を認めず、残りの3例に骨表面のわずかな骨吸収を認めるのみであった。このことから、本症例は周辺性エナメル上皮腫ではなく、顎骨内に発生した一般的なエナメル上皮腫であると考えた。粘膜に乳頭腫状を呈したエナメル上皮腫の過去の報告はすべて周辺性エナメル上皮腫であったが、本症例のように顎骨内に発生した場合にも腫瘍が表層粘膜にまで及んだ場合に乳頭腫状を呈することが示唆された。

本症例では、病理組織学的所見にて腫瘍の表層に歯肉上皮の乳頭状増殖を呈する部分を認め、深部に円柱上皮に縁取られるようにして星芒状から基底細胞様の細胞が胞巣状に増殖する濾胞型のエナメル上皮腫を示す部分を認めた。表層の歯肉上皮の乳頭腫状部分と深部の濾胞型のエナメル上皮腫の特徴を有する部分との間に境界はなく連続性を認めた。以上の所見から乳頭腫状を呈した部分は、拡大した腫瘍本体である可能性と腫瘍の存在による反応性の増殖である可能性とが考えられた。顎骨内に発生したエナメル上皮腫は増殖するにつれて骨を破壊し被覆粘膜に達すると、被覆粘膜上皮と腫瘍実質とが二次的に接し、両者が移行状となっている所見をみることがしばしばある。もちろん、これは粘膜上皮基底細胞からエナメル上皮腫が生じたことを示唆するものではない。

治療および経過については、顎骨内に発生し被覆粘膜に乳頭腫状を呈したエナメル上皮腫における報告は乏しいが、顎骨内に生じた腫瘍が拡大し骨外へ進展していることを考慮すると増殖能は高いと考えられた。さらに多房性のX線像を呈する症例、充実性を呈する症例、濾胞型の病理像を呈する症例では再発率が高いとされている^{13~19)}。また、本症例は顎骨内に発生したエナメル上皮腫であるが、芝ら⁷⁾は再発の少ないとされる周辺性エナメル上皮腫のなかで乳頭腫状を呈している場合は再発率が上昇するとし、過去の報告において9例中1例に再発を認め、2例は再発例であった。顎骨内に発生したエナメル上皮腫の手術法には、顎骨切除術および摘出搔爬術等がある。1990年以降の本邦における報告では^{13~18)}、摘出搔爬術は再発率が14.3%から19.0%と高く、顎骨切除術の再発率は0%から4.3%と低い。なかでも、畑田ら¹⁶⁾はすべてのエナメル上皮腫の症例のうち、1966年から1969年には81.4%の症例に摘出術を施行し25%に再発を認めたが、1990年から1994年には59.3%の症例に部分切除術を施行し再発は認めなかったとしている。また、初回の治療法が非常に重要であり、可及的に根治的に行うのが望ましいとしている¹⁶⁾。われわれは以上のことを考慮し、顎骨切除術(下顎骨辺縁切除術)を選択した。現在術後1年6か月経過したが、再発なく経過は良好である。

結 語

歯肉に乳頭腫状増殖を呈した下顎骨エナメル上皮腫の1例を経験したので報告した。

引 用 文 献

- 1) Stevenson, A.R. and Austin, B.W.: A case of ameloblastoma presenting as an exophytic gingival lesion. *J Periodontol* 61: 378-381 1990.
- 2) Barnes, L., Eveson, J., et al.: World Health Organization classification of tumours, pathology and genetics of tumours of the head and neck. International Agency for Research on Cancer, Lyon, 2005, p296-298.
- 3) Wertheimer, F.W. and Stroud, D.E.: Peripheral ameloblastoma in a papilloma with recurrence: report of case. *J Oral Surg.* 30: 47-49 1972.
- 4) 手島貞一, 田中広一, 他: Peripheral ameloblastoma の1例. *日口外誌* 23: 391-396 1977.
- 5) Moskow, B.S. and Baden, E.: The peripheral ameloblastoma of the gingiva. Case report and literature review. *J Periodontol* 53: 736-742 1982.
- 6) Kaneko, Y., Ueno, S., et al.: Peripheral ameloblastoma resembling a papilloma: report of case. *J Oral Maxillofac Surg.* 44: 737-739 1986.
- 7) 芝 良祐, 迫田隅男, 他: 乳頭腫様増殖を示した周辺性エナメル上皮腫. *口科誌* 37: 329-333 1988.
- 8) 秋葉正一, 関 睦弘, 他: 乳頭腫様の外観を呈したエナメル上皮腫の1例. *日口外誌* 41: 650-652 1995.
- 9) 池田善彦, 中西 徹, 他: 下顎歯肉に発生した乳頭腫様を呈した周辺性エナメル上皮腫の1例. *日口外誌* 46: 172-174 2000.
- 10) 宮嶋洋二郎, 柳川 徹, 他: 乳頭腫様の外観を呈したエナメル上皮腫の1例. *日口診誌* 14: 407-410 2001.
- 11) Ide, F., Kusama, K., et al.: Peripheral ameloblastoma is not a hamartoma but rather more of a neoplasm. *Oral Oncology* 38: 318-320 2002.
- 12) Buchner, A. and Sciubba, J.J.: Peripheral epithelial odontogenic tumors: A review. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 63: 688-697 1987.
- 13) 佐藤 明, 中島純一, 他: 下顎骨エナメル上皮腫の臨床・組織所見および治療法の検討. *口腔腫瘍* 8: 45-53 1996.
- 14) 森田章介: 下顎エナメル上皮腫の性状ならびに治療法に関する研究. *日口外誌* 39: 544-559 1993.
- 15) 針谷靖史, 関口 隆, 他: エナメル上皮腫79例の臨床病理学的検討. *口腔腫瘍* 9: 101-107 1997.
- 16) 畑田憲一, 野間弘康, 他: エナメル上皮腫の治療法に関する臨床統計的検討. *口腔腫瘍* 11: 143-150 1999.
- 17) 今村晴幸, 向井 洋, 他: エナメル上皮腫に関する臨床的・病理組織学的研究. *口科誌* 43: 95-100 1994.
- 18) 大亦哲司, 森田展雄, 他: エナメル上皮腫の臨床病理学的研究. *口腔腫瘍* 8: 12-24 1996.
- 19) 中村典史: 下顎エナメル上皮腫の発育に関する臨床的・病理組織学的研究. *日口外誌* 37: 1600-1609 1991.