Keratinizing and calcifying Ameloblastoma の1例について

A case report of keratinizing and calcifying ameloblastoma

河合 幹・伊藤 弘・北山誠二・山田裕敬・笹屋通子・富田力夫

Tsuyoshi KAWAI・Hiromu ITO・Seiji KITAYAMA・Yutaka YAMADA・
Michiko SASAYA・Rikio TOMITA

1. 緒 言

Keratinizing and Calcifying Ameloblastoma は、本部においてまだその報告例をみないが、外国においては、Gorlin ら¹⁾が、始めて Calcifying Odontogenic Cyst の15 症例の内3例に Keratinizing and Calcifying Odontogenic Cyst に類似した組織所見を呈したので報告して以来、数例をみるのみである。

今回、私達は、上顎骨前歯部に発生した稀有なる病理組織学的所見を呈した Keratinizing and Calcifying Ameloblastoma と思われる症例を経験したので報告する。

2. 症 例

患者： 22 才，男性

初診：昭和 43 年 8 月 日

主訴：上顎骨前歯部の腫脹と疼痛

家族歴、既往歴：ともに特記すべき事項なし

現病歴：来院 2 カ月前頃より、上顎右側犬歯に冷水痛を覚え、1 カ月前頃より、上顎右側犬歯、第 1、2 小臼歯附近の歯肉に腫脹を生じ、冷水痛も著明になったので、某歯科医院に受診し、腫脹部の切開を受けたが、腫脹は消退しなかった。

全身所見：体格、栄養は中等度で、全身的に異常所見を認めず、血液、尿検査にも特に異常は認められなかった。

顔貌所見：右側上唇部から頬部にかけて、軽度の腫脹がみられ、右鼻唇溝がやや浅くなっている他は、顔貌の左右非対称性は、認められない。

口腔内所見：上顎右側犬歯、第 1、2 小臼歯部の唇側歯肉は発赤し、特に上顎右側犬歯根尖部附近は小指頭大位に暗赤色に腫脹し、その中央部附近に切開創の痕跡

をみとめ、その歯肉を圧迫すると、圧痛は著明であった上顎右側中切歯、側切歯、犬歯、第 1 小臼歯は、外観上は健全で、自覚痛もなかったが、上顎右側犬歯と小臼歯に、軽度の打診痛を認めた。

X線所見：上顎右側中切歯、犬歯、第 1 小臼歯の根尖部は吸収され、同部に指頭大位の境界明瞭なる多房性の X線透過像を認めた（写真 1）。

臨床診断：以上の所見から顎嚢胞と診断した。

手術所見ならびに経過：昭和 43 年 8 月 日入院し、通法のごとく眼窩下孔伝達麻酔および局所の浸潤麻酔のもとに、口腔内より摘出手術を施行した。腫瘍塊は、一塊として摘出、右側中切歯、側切歯、犬歯、第 1 小臼歯を抜去し、手術部を縫合して手術を終った。

経過はきわめて良好で、術後 2 カ年近くを経過した現在でも再発の徴候はまったく認められない。

摘出物所見：摘出腫瘍部は 3×2×2 cm の大きさで、

写真 1 4321 の根尖部は吸収され、同部に指頭大の多房性透過像がみられる。

愛知学院大学歯学部第2口腔外科学教室（主任 河合 幹教授）2nd Department of Oral Surgery, School of Dentistry Aichi-Gakuin University
（Chief: Prof. Tsuyoshi Kawai）
受付 昭和 45 年 12 月 14 日

写真 2 摘出物(右端)は、 $3 \times 2 \times 2$ cm の大きさで淡赤色充実性である。4321 の根尖は著明に吸収されている。

写真 5 PAS 陽性の粘様物を認める。(PAS 染色)

写真 3 腫瘍実質は Ameloblastoma の像を呈する部分もあり、間質との間に骨様組織と思われるところもあり Keratinizing したところもある。(H・E 染色)

写真 6 アルシアン青, PAS 重染色に明青色の粘様物を認める。(Alcianblue-PAS 染色)

写真 4 一層にならんだ高円柱上皮は腺腔様に排列し、糸状膜様の Eosin に淡染した粘液様物を認める。(H・E 染色)

写真 7 Schmorl 染色では、セメント質様又は骨様石灰化物又は硝子様物が多数認められる。(Schmorl 染色)

淡赤色を呈し、充実性で、歯牙の根尖は、著明に吸収している(写真 2)。

病理組織学的所見：腫瘍実質は一層に配列した高円柱状上皮細胞とその細胞間を埋めて網状に配列した紡錘形

細胞層より成り Ameloblastoma の像を呈し(写真 3)、一層に並んだ高円柱上皮は腺腔様に配列し、基底膜側に糸状膜様の Eosin に淡染(写真 4)、PAS 陽性(写真 5)、アルシアン青, PAS 重染色に明青色に染色される、粘様物を認める(写真 6)。実質内には、Keratinizing した上皮真珠様物を認める。さらに Eosin に淡染し、Schmorl でセメント質様または骨様石灰化物または、

硝子様物が多数認められ、このものの中に細胞、血管の埋入を認める(写真7)。間質は非常に少なく、石灰化物または硝子様物間に鬆粗に浮腫状に散見され多くは間質嚢胞状となって消失している。間質血管成分も少なく、ところにより著しい拡張を認める。周囲は鬆粗なる結合組織に囲まれている。

3. 考 案

顎、口腔領域の歯源性腫瘍に関する症例報告は、しばしばみられるが、腫瘍組織の石灰変性は比較的まれなる現象であり²⁾、1958年に Pindborg³⁾が石灰化の著明な歯源性腫瘍を記載し、Adamantinoma および Odontoma と区別して、Calcifying epithelial Odontogenic Tumor と命名した。しかし、Pindborg が命名する以前には、Adamantinoma あるいは Odontoma の1型と考えられ⁴⁾、Adenoid Ameloblastoma⁵⁾、Ameloblastoma of Unusual type with Calcification⁶⁾、Malignant Odontoma⁷⁾、Cystic Odontoma⁸⁾などの種々な名称で呼ばれてきた。しかし、Pindborg が報告した上皮成分は、Adamantinoma にみられる上皮成分とは異なり、さらに特徴ある石灰化物は、歯牙硬組織や骨組織のいずれにも類似した点はなく、この腫瘍が埋伏歯の退縮エナメル上皮から発生したものと考えて1つの独立した腫瘍の分類に入れ、Calcifying epithelial Odontogenic Tumor とした。その後、1962年に Gorlin ら¹⁾によって、Calcifying Odontogenic Cyst の15症例を報告し、その内3例に、Pindborg の報告した上皮より発生し、しかも実質の異常な角質化変性や石灰化変性した物質があることに着目し、その嚢胞が、1) 萌出あるいは未萌出の歯牙の歯源性上皮に起因し、2) 嚢胞上皮はエナメル上皮に類似した細胞成分や dentin に似た物質を含有していること、3) 顎領域に多発することによって、Gold⁹⁾が報告した Keratinizing and Calcifying Odontogenic Cyst に類似の症例であると述べている。1965年になって、Bhasker¹⁰⁾は腺エナメル上皮腫に類似して、実質の角化変性と ghost 細胞の硝子性好塩基性構造物や好塩基石灰化の病巣をもった症例を2例経験し、Keratinizing Ameloblastoma と報告したが、その後これは、Keratinizing and Calcifying Ameloblastoma と命名され、この腫瘍は、Gold の報告した Keratinizing and Calcifying Cyst と類似の組織所見を呈したと述べている。

本邦において、Pindborg の症例にあたるものとして、林ら^{11), 12)}の2例、伊藤ら¹³⁾の1例、Gorlin の報告にあたるものとして、小宮ら¹⁴⁾の1例で、Gold の報告した症例にあたるものは、中山ら¹⁵⁾の1例、Bhasker の報告した症例にあたるものは、新国ら¹⁶⁾の1例にすぎない。

私達の経験した症例において、病理組織学的所見からみると、腫瘍実質は Ameloblastoma の組織像を呈し、

実質内に角化変性した上皮真珠様物をみとめ、さらに骨様の石灰化物や硝子様物を、多数みとめるので、Bhasker の報告した Keratinizing and Calcifying Ameloblastoma の範疇に入るものと思われる。

本腫瘍のこれまでの報告例は少なく、その詳細については、未だ不明な点が多いが、現在までの報告例からその特徴的な所見を挙げると、年齢や性差には余り差異はないが、顎骨や歯槽、軟組織にも発生し、特に下顎に多いといわれる。臨床的には、顎骨の無痛性の腫脹、埋伏歯や周囲正常組織と区別されるレントゲン不透過像と、その中にみられる不規則なレントゲン不透過像からして、臨床的に Adamantinoma, Odontoma と診断されることが多いが、病理組織学的な特徴として、本腫瘍は、その病巣は上皮の増殖巣で被われ、末梢層ではエナメル芽細胞を含み、その中心層では Keratinizing した上皮を含み、その一部は、Calcification して、さらに硝子様変性がみられることを特徴としているので、本腫瘍の上皮細胞の性状と Ameloblastoma の上皮性状と著しく異っており、Ameloblastic Odontoma は、Ameloblastic epithelium が著明であり、石灰化構造物に歯牙硬組織像がみられること、また Calcifying epithelial Odontogenic tumor は充実性の胞巣を作って増殖しているが、その上皮成分は、Ameloblastoma の上皮成分と違うことにより、さらに Calcifying Odontogenic Cyst では、あくまでも嚢胞であるのに対し、嚢胞壁に角質化および石灰化物がみとめられる点で区別することができる。本腫瘍の組織由来については、Pindborg³⁾、Gorlin¹⁾によると、埋伏歯の退縮エナメル上皮から発生するものと考えられている。さらに最近 Pindborg¹⁷⁾ Richard¹⁸⁾らは、埋伏歯を伴わない歯肉に発生した症例を報告し、口腔粘膜上皮から本腫瘍が発生し得るのであろうと考察されている。さらに Vickers¹⁹⁾らは Calcifying epithelial Odontogenic Tumor を7症例報告し、その中で粒状物にアミロイドの存在をみとめ、このアミロイドは腫瘍細胞に由来するものであると考えて、この粒状物が石灰沈着の基質になると述べている。本症例においては、埋伏歯を伴わないが、おそらく、退縮エナメル上皮から発生したものか、または、胎生期の原始口窩上皮成分が、発育期の顎骨内に迷入して増殖して、腫瘍状を呈し、その上皮細胞の変性がおこり、これを基盤として、石灰塩が沈着したり硝子様物が沈着したのではないかと考えられる。

一方、本腫瘍は Adamantinoma の一型とも考えられ(Thoma and Goldman⁵⁾, Ivy⁶⁾)、再発することもあるので、その処置にあたっては、Adamantinoma と同様にするべきであると考えている。

4. 結 論

1) 22才の男性の上顎前歯部に発現した腫瘍で、組

組織的に Keratinizing and Calcifying Ameloblastoma と診断された一例を報告するとともに多少文献の考察を加えた。

2) 本例は臨床的には顎嚢胞と診断され、病理組織学的に Bhasker の報告した症例に近い組織像を呈していた。

3) 本腫瘍の発生機序に関して今日なお十分に判明していない。

本論文の要旨は、昭和 44 年 4 月、第 23 回日本口腔科学会総会(東京)において発表した。

(稿を終るにあたり病理組織所見につき種々御教示戴いた岩手医科大学口腔病理学教室鈴木鐘美教授、および本学病理学教室近藤三郎博士に深謝いたします。)

参考文献

- 1) Gorlin, R. J., Pindborg, J., Clausen, F. P. & Vickers, R. A. : The Calcifying Odontogenic Cyst ; a possible Analogue of the Cutaneous Calcifying Epithelioma of Malherbe. OS OM & OP 15 : 1235 1962.
- 2) 石川梧郎 : 歯原腫瘍について、とくに病理学的方面から(その1). 26 : 462 1959.
- 3) Pindborg, J. J. : A Calcifying Epithelial Odontogenic Tumor. Cancer 11 : 838 1958.
- 4) Lucas, R. B. : Pathology of tumors of the Oral tissues. J & A Churchill Ltd., 1964, p. 62.
- 5) Thoma, K. H. & Goldman, H. M. : Odontogenic tumors. A Classification based on observation of the epithelial mesenchymal and mixed Varieties. Am J Path 22 : 433 1946.
- 6) Ivy, R. H. : Unusual Case of ameloblastoma of man-

dible. Resection followed by restoration of Continuty by illac bone graft. OS OM & OP 1 : 1074 1948.

- 7) Wunderer, S. : Zur Frage maligner Odontome. Ost Z Stomatol 50 : 567 1953.
- 8) Stoopack, J. C. : Cystic Odontoma of the mandible. OS OM & OP 10 : 807 1957.
- 9) Gold, L. : The Keratinizing and Calcifying Odontogenic tumor. OS OM & OP 16 : 1414 1963.
- 10) Bhasker, S. N. : Gingival Cyst and the Keratinizing Ameloblastoma. OS OM & OP 19 : 796 1965.
- 11) 林 一, 他 : Calcifying epithelial odontogenic tumor の1例. 口科誌 14 : 393, 1965.
- 12) 林 一, 他 : 再び Calcifying epithelial odontogenic tumor の1例. 口科誌 16 : 78 1969.
- 13) 伊藤秀夫, 他 : Calcifying epithelial odontogenic tumor (Pindborg) の1例. 口科誌 18 : 108 1969.
- 14) 小宮義昭, 他 : Calcifying odontogenic Cyst. OS OM & OP 90 1969.
- 15) 中山栄雄, 他 : 上顎骨に発生した Calcified Epithelioma の1症例. 口科誌 14 : 174 1965.
- 16) 新国俊彦, 他 : A Clinical Case of Keratinizing and Calcifying odontogenic Epithelial Tumor in the upper Jaw. J Nihon University School of Dentistry 8 : 116 1966.
- 17) Pindborg, J. J. : The calcifying epithelial odontogenic tumor. Review of literature and report of an extraosseous Case. Acta Odont Scand 24 : 419 1966.
- 18) Richard, M. D. & Herbert, B. L. : Peripharal Calcifying epithelial odontogenic tumor. OS OM & OP 23 : 398 1967.
- 19) Vickers, R. A., Dahljn, D. C. & Gorlin, R. J. . Amyloid containing Odontogenic Tumor. OS O M & OP 20 : 476 1965.