下顎前歯部を中心に両側臼歯部にわたる巨大なエナメル上皮腫の1症例について

賀来 亨・藤田浄秀・新谷誠敏・北 進一・竹内太刀夫・佐々木元賢

A case report of large ameloblastoma extending to the bilateral mandible

Tohru KAKU・Kiyohide FUJITA・Masatoshi ARAYA・Shin ichi KITA
Tachio TAKEUCHI・Motomasa SASAKI

は し が き

口腔外科領域において、エナメル上皮腫はまれな腫瘍ではないが、しばしば再発しやすいことや、まれに悪性経過をとるので、重要な腫瘍とされている。この腫瘍の好発部位はその大半は下顎臼歯部～顎角部にみられ、下顎前歯部のみ、あるいは上顎の発生頻度は低率とされている。また広範囲にわたるものでも片側に限られているものが多く、病巣が広範囲でしかも、下顎骨体全般、両側にまたがるものは割に少ない。

われわれは20歳の女性で、下顎前歯部を中心に両側臼歯部にわたる巨大なる症例に遭遇したので報告する。

症 例

患者：20歳，女性。

初診：昭和45年11月。

主訴：右オトガイ部の腫脹。

家族歴：特記すべき事項なし。

既往歴：17歳の時，上顎洞炎。

現病歴：昭和42年頃より，5～3相当の歯槽突起部が多少腫脹し，同部歯肉縁より出血が認められた。当時，3は舌側に傾斜していたがそのまま放置していたところ，昭和45年4月頃，3は動揺が著しくなったので，某歯科医にて抜歯した。その時，3の歯根に吸収が認められた。その後，腫脹は消失せず，同年9月頃，その部に波動を触れ，その部の切開を受けたが，排膿は認められなかった。また某病院外科を受診したことがあるが，そのまま放置していたところ，急に右オトガイ部が腫脹してきたので，当科を受診した。

現 症

全身所見：体格中等大，栄養良好で，全身的になんら著変は認められない。

外貌局所所見：顔面は左右非対称で，3相当の顎骨骨体部（右オトガイ部）を中心に小児手拳大の腫瘍が認められる。腫瘍の外皮は正常の色沢を呈し，発赤などみとめない。その部を触診すると表面は平滑，卵円形の腫瘍で，弾力性硬で，波動は認めない。腫瘍の範囲は右下顎角部前方2横指より，左下顎角部前方3横指にかけて存在し，正常下顎骨体は殆んどふれないう，特にオトガイ部よりやや右の部分の突出が著明である（写真1，2）。左右ともに小豆大～小指頭大の顎下リンパ節を触知するが，

写真1 顔貌正面

写真 2 顔貌右側面

オトガイ下リンパ節は触れない。

口腔内所見：3] 相当の歯槽突起部を中心に、右臼歯部より左臼歯部にかけて膨隆が認められる。右小臼歯部よ

り3] にかけて、唇、頬側に羊皮紙様触感が認められ、同部舌側には認められない。歯肉の色調は正常である。歯牙所見としては43]が欠損し、6]6]はC₄、7]はC₃で5]はC₂、7]は近心に傾斜し、8]は粘膜下埋伏で、52]12]に著明な動揺が認められる（写真3）。

X線所見：下顎骨体部全体にわたり、境界鋭利な円弧状のいわゆる多房性のX線透過像が認められ、下顎骨正中部の下縁はわずかに不透過性を示す隔壁を有するのみである。病巣部に存在せる歯牙のほとんどに根尖部の吸収像が認められる。8]は埋伏しているが、腫瘍との関連は認められない（写真4）。

臨床診断：エナメル上皮腫。

処置ならびに経過：昭和45年12月[]に65]の抜歯を行ない、同時に抜歯窩より、生検を行なった（病理組織学的診断：エナメル上皮腫）。患者の都合により暫定的に開窓療法をおこない、その後経過を観察し、昭和46年6月[]日、入院。

7月[]日に全身麻酔（気管内麻酔、経鼻的挿管 GOP）下に下顎骨体部全摘出を行なった。手術はKocher氏皮膚切開線により、唇頬側より腫瘍を露呈すると共に、7-7]の骨体部全域におよぶ腫瘍を一塊として、両下顎上行枝部を残して、骨体部全摘出を行なった。この際、右顎下リンパ節（小指頭大1個、小豆大2個）、左顎下

3

5

写真 3 口腔内、右側小臼歯部に開窓療法を施行し、ゴムチューブを設置した。

写真 5 摘出腫瘍

写真 4 下顎骨体全体にわたる多房性のX線透過像が認められる。

写真 6 摘出物X線写真

リンパ節(小豆大3個)を摘除した。腫瘍摘出後は一次的に縫合し、2本のドレーンを設置した。舌根沈下防止のため網糸により舌を牽引し、手術を終った。骨移植は行なわなかった。

術後第1日ならびに2日目にそれぞれ1本ずつドレーンを除去し、術後6日間鼻腔栄養を行なった。鼻腔栄養を中止した時点で、舌牽引を除去した。その後、順調な経過をとり、昭和46年8月■日、退院し、現在まで経過良好で、再発は認められていないが、目下経過観察中である。

摘出腫瘍の病理学的所見

肉眼的所見：腫瘍は唇頬側に膨隆して、大きさ小児拳大、約 $13 \times 7 \times 5$ cm、重さは約220gであった。下顎骨皮質は菲薄にして紙状を呈し、羊皮紙様触感をふれ、凹凸不平、結節状を呈していた。剖面肉眼所見は大小多数の嚢胞形成が認められ、色は灰白色、一部赤褐色を呈していた。これらの嚢胞内には淡黄褐色の粘稠な液が認められた(写真5)。

X線所見：境界鋭利な円弧状のいわゆる多房性のX線透過像が認められ、病巣部に存在せる歯牙の根尖部の吸収像が認められ、18は埋伏しており、腫瘍との関連は認められなかった(写真6)。

病理組織学的所見：腫瘍組織が被膜結合織中に樹枝状に入りこんでいる部分も認められるが、腫瘍組織と被膜結合織との境界は比較的明瞭である。唇側ならびに舌側の骨質はほとんど吸収されている。腫瘍組織は、口腔粘

膜上皮と直接連絡している部分が認められるが、その部分では扁平上皮細胞と腫瘍細胞とが明瞭な境を作ることなく移行している。腫瘍組織の実質は多角形ないし星状の細胞からなる部分が多く、間質に接する細胞は立方形である。嚢胞の形成はわずかに認められる程度である。上皮球ないし角質球あるいは石灰化物は認められない。間質は膠原線維に富む結合織からなり、ところどころに拡張した血管も認められる。細胞の異型性、ミトーゼはみられない。左右顎下リンパ節は非特異性慢性炎症像のみであった(写真7, 8, 9, 10)。

写真8 写真6の一部拡大。口腔粘膜上皮と腫瘍組織とが直接連絡している部分。H-E染色, $\times 200$ 。

写真9 写真6の一部拡大。腫瘍組織部分。H-E染色, $\times 200$ 。

写真10 腫瘍組織の拡大像。H-E染色, $\times 250$ 。

写真7 右側小臼歯部分の組織像。右半分は腫瘍部分。左半分は被膜部分。H-E染色, $\times 80$ 。

考 按

現在までエナメル上皮腫に関する症例報告は多数にのぼっているが、腫瘍の範囲は多くは局所的であり、また、広範囲にわたっても顎片側である。われわれが経験した症例は下顎前歯部を中心に両側大臼歯部までわたる巨大な症例で、このように両側にわたるものは比較的まれとされている。

本腫瘍の発生部位は Small & Waldron¹⁾(1955)によれば925例中下顎752例 (81%)、上顎173例 (19%) で、下顎に発生したもののうち70%は下顎大臼歯部・上行枝部に発生したものであり、10%が前歯部であった。また平出²⁾(1958)によれば115例中上顎6例、下顎109例で、下顎では臼歯・上行枝部が79例で最も多く、小臼歯・臼歯部27例、前歯部はわずかに3例であった。その他諸家の報告^{3)~12)}をみても下顎大臼歯・上行枝部に発生したものが圧倒的に多い。

下顎骨両側にまたがっている症例の報告を渉猟した範囲では佐藤ら¹³⁾(1953)、藤井ら¹⁴⁾(1956)、森沢ら¹⁵⁾(1956)、滝川ら¹⁶⁾(1957)、小泉¹⁷⁾(1958)、河島ら¹⁸⁾(1972)の報告があるのみである。われわれの症例も下顎前歯部を中心に両側臼歯部にわたる症例であった。

腫瘍の大きさは石井⁹⁾(1928)によれば、76例中直径3~6cmのものが28例、直径7cm以上のものが48例で、48例の内訳は鵜卵大12例、小児手拳大5例、大人手拳大16例、リンゴ大3例、初生児頭大1例、小児頭大8例、大人頭大3例であった。品川ら⁴⁾(1934)は34例のうち雀卵大3例、鳩卵大4例、小鶏卵大3例、鶏卵大6例、大鶏卵大3例、手拳大6例、鰐鳥卵大1例で、平出²⁾(1958)は鶏卵大45例、鵜卵大28例、手拳大12例、乳児頭大が3例、その中の1例は970gであったと報告している。寺崎⁷⁾(1959)は雀卵大4例、鳩卵大10例、鶏卵大34例、鵜卵大9例、鰐鳥卵大2例、小児頭大1例で、小児頭大の1例は増山ら¹⁹⁾(1956)が報告した症例で、重さは1200gであったと報告している。柴崎⁹⁾(1960)によれば乳児頭大9例、手拳大14例、鵜卵大16例、鶏卵大50例、鳩卵大12例であった。清水¹²⁾(1963)によれば54例中最大のものは成人手拳大で、2例にみられ、大多数は鶏卵大であった。

現在まで報告せられた本腫瘍の巨大なものとしては欧米では Bryk²⁰⁾(1880)が3ポンド(約1500g)に達するものを報告し、その後さらに Schmuziger²¹⁾(1930)、Dodt²²⁾(1935)、Jaulain²³⁾(1937)、Champion et al²⁴⁾(1951)、Friedberg et al²⁵⁾(1962)などの報告がある。わが国においてはわれわれが文献を渉猟した範囲内では、広瀬²⁶⁾(1932)は $\overline{2}$ より同側下顎枝全体に及ぶ腫瘍を、渡辺²⁷⁾(1939)は210gの腫瘍を、佐藤ら¹³⁾(1953)は下顎前歯部から両側臼歯部にまでわたる巨大なる腫瘍を、藤井ら¹⁴⁾(1956)は下顎前歯部から両側臼歯部さらに口腔底部にまで及ぶ腫瘍を報告している。増山ら¹⁹⁾(1956)は

1200gの腫瘍を、森沢ら¹⁵⁾(1956)は下顎骨体部ほとんど全体にわたる腫瘍を、滝川ら¹⁶⁾(1957)は小児頭大の腫瘍を、小泉ら¹⁷⁾(1958)は下顎骨体部ほとんど全般にわたる腫瘍を、安田ら²⁸⁾(1959)は手拳大、約200gの腫瘍を、花田ら²⁹⁾(1968)は小児頭大の腫瘍を、木村ら³⁰⁾(1968)は330gの腫瘍を、安本ら³¹⁾(1970)は545gの腫瘍を、河島ら¹⁸⁾(1972)は小臼歯部より上行枝上部に及ぶ腫瘍、下顎骨体全般にわたる腫瘍を報告している。われわれの症例は下顎前歯部を中心に $\overline{7}$ ~ $\overline{7}$ に及ぶ、小児手拳大の約220gの腫瘍であった。

腫瘍に気づいてから受診までの期間は他の良性腫瘍と同様に一般に長い。元来、本腫瘍の発育は緩慢でほとんど障害がないために、腫瘍がかなり大きくなり、顎骨の膨隆があらわれるにいたって、初めて患者は顔の変形に気づきそれが受診の動機となることが多いが、また本腫瘍の経過中に二次的感染がおこって化膿性炎症を併発し、これが受診の動機となることも少なくない。それゆえ、受診までの期間は長短様々である。石井⁹⁾(1928)によれば64例中5年以上38例で、最長は28年で品川⁴⁾(1935)によれば平均期間約5年で最長は15年であった。Robinson⁵⁾(1937)によれば平均期間8.5年であり、Small & Waldron¹⁾(1955)によれば平均期間5.8年であった。平出²⁾(1958)は平均期間5.42年で最長は35年、寺崎⁷⁾(1959)は平均期間5.1年で、最長は30年、柴崎⁹⁾(1960)は平均期間4.5年で、最長は28年、古本¹⁰⁾(1962)は平均3年4カ月で、最長は28年であつたと報告している。清水¹²⁾(1963)によれば40例中6カ月以内11例、5年以上10例で、最長は27年であった。

エナメル上皮腫が巨大になるためには1つは長期にわたって発育するか、あるいは短期間に急速に発育するかどちらかが考えられる。巨大なエナメル上皮腫のわが国の報告例^{13)~19)}、^{26)~31)}の腫瘍に気づいて初診までの期間をみると約6ヵ月より約33年と不定であるが、平均約10年で受診までの期間が上記の諸家の報告^{1)~5)}、⁷⁾、⁹⁾、¹⁰⁾、¹²⁾した一般のエナメル皮腫より長いように思われる。われわれの症例は初発症状より受診までの期間は3年で、比較的短期間に増大した症例ではなからうか。

近年、早期に加療を受けるために巨大なものは稀で、近年としては大きな部類に属するものと思われる。

エナメル上皮腫が埋伏歯をとともうことがまれではないといわれているが²⁾、⁷⁾、⁹⁾、¹⁰⁾、われわれの症例では、 $\overline{8}$ は欠如し、 $\overline{8}$ は粘膜下に埋伏していたが、腫瘍との関連は認められなかった。

エナメル上皮腫の発生母地については、歯堤ないしエナメル器由来説、Malassez 上皮遺残由来説、原始口窩上皮由来説、口腔粘膜上皮由来説などがある。われわれの症例の組織像において、小野³²⁾の報告にもあるように腫瘍組織と口腔粘膜上皮とが移行している部分が認められたが、われわれの症例のように、腫瘍組織が顎骨内に

広く増殖し、また処置として開窓療法を行なっているの
で、顎骨内部に増殖したエナメル上皮腫が表面に向って
増殖した結果口腔粘膜と2次的に接触連絡したとも考え
られ、エナメル上皮腫の口腔粘膜上皮由来については明
らかでなかった。

結 語

われわれは20歳の女性で、下顎前歯部を中心に両側臼
歯部にわたる巨大なエナメル上皮腫を経験した。

文 献

- 1) Small, I. A. and Waldron, C. A. : Ameloblastoma of the jaws. OS OM & OP 8 : 281~297 1955.
- 2) 平出経布 : エナメル上皮腫の臨床的ならびに病理学的研究. 口外誌, 4 : 214~228 1958.
- 3) 石井 正 : 歯系腫瘍に関する研究. 大日本耳鼻咽喉科学会報 33 : 1036~1100 1928.
- 4) 品川 頤, 逸見 稔 : アダマンチノームの34例に就て. 大日本歯科医学会会誌 73~76 : 54~65 1934.
- 5) Robinson, H. B. : Ameloblastoma. Arch Path 23 : 831~843 1937.
- 6) 新国俊彦, 小土肥信良, 滝川富雄 : エナメル上皮腫に就いての2, 3の観察. 口外誌 1 : 29~32 1955.
- 7) 寺崎太郎 : エナメル上皮腫に関する臨床病理学的研究. 大阪大学歯学雑誌. 4 : 1277~1297 1959.
- 8) 小野史郎 : 口腔領域の腫瘍および嚢胞に関する統計的組織学的観察. 口外誌 5 : 38~43 1959.
- 9) 柴崎佐平 : 珪瑯上皮腫の臨床的ならびに病理組織的研究. 歯科学報 60 : 978~999 1960.
- 10) 古本克麿 : 歯系腫瘍に関する臨床的並びに病理組織学的研究 第1編 エナメル上皮腫. 九州歯科学雑誌 15 : 69~102 1962.
- 11) Rockoff, H. M. : A statistical analysis of Ameloblastoma. OS OM & OP 16 : 1100~1101 1963.
- 12) 清水正嗣 : 北西ドイツ顎外科学教室におけるエナメル上皮腫54例の臨床的および病理学的研究 第1報 臨床統計的観察およびX線学的所見について. 口腔病学会雑誌 30 : 122~127 1963.
- 13) 佐藤 精, 坂本成男, 三ヶ島和彦 : 下顎前歯部を中心に両側臼歯部に亘る巨大なアダマンチノームの一例. 歯界展望 10 : 742~744 1953.
- 14) 藤井隆太郎, 吉田光行, 小泉善一ほか : 両側臼歯部に互るア

- ダマンチノームの一例について. 口外誌 2 : 128~130 1956.
- 15) 森沢峯夫, 菅沢 寛 : 3埋伏歯に起因すると思われる下顎骨体全体にわたるエナメル上皮腫の1例. 口外誌 2 : 11~13 1956.
 - 16) 滝川富雄, 八巻文信, 谷本英次 : 巨大なエナメル上皮腫の一例. 歯科月報 30 : 198~200 1957.
 - 17) 小泉善一, 松岡 博, 岡本源一ほか : 下顎骨両側にわたるエナメル上皮腫の1治験例. 歯科医学 21 : 1196~1199 1958.
 - 18) 河島正宜, 早坂慶晴, 田中宏一ほか : 巨大なエナメル上皮腫の2治験例. 第10回日本口腔外科学会北日本地方部会抄録 1972.
 - 19) 増山弥太郎, 塩田研次 : 巨大な下顎エナメル上皮腫. 口外誌 2 : 4~6 1956.
 - 20) Bryk : Quoted from Thoma, Oral Pathology 4th edition St. Louis, C. V. Mosby Co., 1954, p 1177.
 - 21) Schmuziger, P. : Quoted from Thoma, Oral Pathology 4th edition. St. Louis, C. V. Mosby Co., 1954, p 1177.
 - 22) Dodt, T. : Quoted from Thoma, Oral Pathology, 4th edition St. Louis, C. V. Mosby Co., 1954, p 1177.
 - 23) Jaulain, R. : Quoted from Thoma, Oral Pathology, 4th edition St. Louis, C. V. Mosby Co., 1954, p 1177.
 - 24) Champion, A. H. R., Moule, A. W., and Wilkinson, F. C. : Quoted from Thoma, Oral Pathology, 4th edition St. Louis, C. V. Mosby Co., 1954, p 1178.
 - 25) Friedberg, M. J., Serlin, O., and Orlean, S. L. : Ameloblastoma of the mandible Report of a Case. OS OM & OP 15 : 746~755 1962.
 - 26) 広瀬 清 : 巨大な顎骨珪瑯腫の一例. 歯科学報 37 : 34~45 1932.
 - 27) 渡辺 巖 : 珪瑯腫補遺. 口腔病理学会雑誌 13 : 470~472 1939.
 - 28) 安田昌秀, 甲斐雅喜, 高橋聰行 : 巨大な上顎エナメル上皮腫の一症例. 北海道歯科医師会誌 14 : 39~41 1959.
 - 29) 花田道成, 河野庫介, 山本正夫 : 巨大な Adamantinoma の1例. 口外誌, 14 : 227~228 1968.
 - 30) 木村邦武 : 巨大なエナメル上皮腫の1例. 口外誌 14 : 221 1968.
 - 31) 安本辰生, 石井保雄 : 30数年を経た巨大な悪性エナメル上皮腫の1例. 口外誌 19 : 436 1970.
 - 32) 小野史郎 : エナメル上皮腫の発育に関する形態学的研究. 福岡医学雑誌 51 : 991~1008 1960.