下顎骨内に発生し Ameloblastoma を疑がわせた多形性腺腫の1例

黒柳錦也・武安一嘉・川端輝彦・枝 重夫*

Central pleomorphic adenoma in the mandible: report of a case

Kinya KUROYANAGI・Kazuyoshi TAKEYASHU・Teruhiko KAWABATA・Shigeo Eda*

緒 言

唾液腺に由来する腫瘍は、耳下腺と口蓋腺とに多く発生するが、口唇¹⁾、頬²⁾、歯肉³⁾などにおいてもまれにみられる。

すでに、私たち⁴⁾(1972)は上顎骨内か、あるいは鼻腔・副鼻腔粘膜に原発したと思われる2症例を報告したが、最近下顎骨において中心性に発育し Ameloblastoma を疑がわせた多形性腺腫を経験したので、その大要を報告する。

症 例

患者：58才の女子

初診：昭和47年3月■日

主訴：下顎前歯部およびオトガイ部の異和感

家族歴：特記事項はない

既往歴：特記事項はない

現病歴：3年前に、下顎前歯部の腫脹に気付いたが、痛みのないため放置していた。昭和47年2月■日頃、オトガイ部に発赤、腫脹を来とし、同月■日某外科において抗生物質の投与ならびに切開を受けた。その後経過良好であったが、3月■日再び発赤をあらわし、某歯科より本院に紹介された。

全身所見：多少貧血気味のほか、なんら特記すべき所見はない。

顔貌所見：オトガイ部に小鶏卵大の腫脹があり、オトガイ下および顎下リンパ節に腫脹、硬結、圧痛が認められる。

口腔内所見：下顎前歯部に比較的境界の不明瞭な小鶏

東京歯科大学口腔外科学教室（主任：高橋庄二郎教授）
東京歯科大学第2病理学教室（主任：山村武夫教授）
Department of Oral Surgery, Tokyo Dental College
(Chief: Prof. Shojiro Takahashi)

* Department of Pathology, Tokyo Dental College
(Chief: Prof. Takeo Yamamura)

受付 昭和48年5月12日

卵大の腫瘍があり、¹²³⁴は動揺が著しい。また腫瘍の表面は凹凸不平で、⁵³¹の圧痕が認められる。

X線所見：下顎前歯部は、下顎下縁を残してほとんど吸収され、¹²³⁴部も歯槽骨の一部を残すのみである。その骨吸収像は境界明瞭な多房性を示している（写真1）。

臨床検査所見：尿検査および肝・腎機能検査において異常はないが、血液検査では貧血があり、白血球が増加している。さらに、EKG 所見では軽度の心筋障害が認

写真1 骨吸収像は境界明瞭な多房性を示している。

められる。

臨床診断名：Ameloblastoma

手術ならびに経過：Josamycin 1日1200mgを投与し、消炎後、鼻腔挿管によりGO麻酔下に口内法により摘出した。唇・舌側の骨壁は吸収されて認められず、オトガイの切開部は皮膚と癒着していた。手術後の経過は良好で再発の傾向は認められない。

摘出物所見：腫瘍は、4.0×5.0cmで暗赤色を示し、充実性で弾性硬度を有していた。断面は大部分が灰白色で、一部暗赤色を呈していた。

病理組織所見：腫瘍の上皮成分は、大部分が多角形な

写真2 上皮成分と結合組織成分が入り乱れている。結合組織では腺維化の強い部分と弱い部分とがある。
H-E染色 (×75)

写真5 結合組織にも円形の空隙が認められた。H-E染色 (×150)

写真3 上は細胞には粘液変性により空胞化を示すものがある。H-E染色 (×150)

写真4 上皮細胞の空胞の部分は alcian blue にわずかに染色されるものもあるが、大部分は全く染色されない。結合組織は alcian blue に染まっている。
PAS-alcian blue 染色 (×150)

り小胞を形成している部があり(写真3), これはPAS-alcian blue 染色標本で alcian blue にわずかに染まるものもあったが、大部分は染色されなかった(写真4)。結合組織にも粘液変性が認められ、これは alcian blue に濃染した(写真4)。また、結合組織に空胞状の空隙が観察されたが(写真5), これにはalcian blue に一様に染色されるもの、周囲のみ染色されるものあるいは全く染まらないものなどがあった。さらに、一部に形質細胞を主とする軽度な円形細胞浸潤があった。なお、粘液腫様部や骨・軟骨の形成は発見できなかった。上皮細胞内の空胞および結合組織の円形の空隙はそれぞれ粘液変性によると考えられるが、alcian blue にはあまり染色性を示さなかった。これは固定が悪かったことならびにその後の標本作製過程において粘液が溶出したものと考えられる。

考 察

一般に唾液腺腫瘍の好発部位は、大唾液腺においては耳下腺であり、小唾液腺においては口蓋腺である。Foote and Frazell⁵⁾(1953) の大唾液腺腫瘍の自験例877例では耳下腺766例であり、Fine, et al.⁶⁾(1960) は小唾液腺腫瘍の1312例(文献上の症例を含めて)のうち1179例が口蓋腺であったと報告している。

私たちの教室において、昭和42年より47年までの小唾液腺腫瘍をまとめると表1に示すとおりである。52例のうち口蓋に発生したもの38例、頬腺に由来したと考えられるもの3例、上唇に発生したもの4例、さらに顎間皺襞部に発生したもの2例である。このように、本腫瘍の発生部位は小唾液腺の存在部位とほぼ一致するが、その発生頻度は前舌腺に由来するものが一般に少なく、さらに口唇腺のうち特に下唇に発生するものが少ない。ところが通常唾液腺が存在しない骨内に本腫瘍が発生することもあり、私たちは5例を経験し、そのうち上顎骨内に発育した2症例をすでに報告している⁴⁾。このような唾液腺腫瘍の歯槽骨ならびに顎骨内発生のほかに、正常唾

いし立方形の細胞からなり、大きな胞巣の中心部には紡錘形の細胞も認められた。また結合組織の部では、線維成分に富む部と、鬆粗になっている部とが存在した(写真2)。詳細に観察すると、上皮細胞内に粘液様物がたま

表 1 東京歯科大学口腔外科における小唾液腺腫瘍

		42年	43年	44年	45年	46年	47年	計
口	蓋	8	7	7	4	6	6	38
	頰	1	1		1			3
上	唇		1		1	1	1	4
顎 間 皺 襞			2					2
歯槽骨・顎骨		1*	1*			1**	2***	5

*上顎骨 **下顎智歯遠心部 ***上顎前歯部歯槽骨
下顎前歯部骨体
(昭和42年～47年)

液腺組織が顎骨内に迷入することも知られている。そこで、これらの異所発生について考察を加えてみたい。

1960年以降において、私たちが調べた骨内発生の唾液腺腫瘍の症例を表2にまとめた。これによると、発生頻度は下顎大白歯部骨体と下顎枝とが高く、ついで上顎大白歯部である。一方、Smith, et al.²⁰⁾(1968)は、顎骨内に発生した mucoepidermoid carcinoma の自験9例を報告し、上顎6例、下顎3例であったと報告し、Dhawan, et al.²¹⁾(1970)も自験9例のうち、上顎5例、下顎4例であったと述べている。これらが唾液腺の骨内迷入によって生ずると考えるならば、上顎大白歯部の発生は口蓋腺によるものであり、下顎大白歯部骨体ならびに下顎枝は顎下腺か耳下腺のためと考えなければならない。しかしながら、これらの腫瘍が唾液腺によるものであるか、口腔粘膜上皮が迷入し分化した結果であるかは、すべての症例において臨床的確証がえられていない。そこで、これについて顎骨内の正常唾液腺の迷入から調べることは大変有意義なことと思われる。Static bone

defect について、Stafne²²⁾(1942)が初めて報告したが、これらの発生部位がほとんど下顎大白歯部骨体および下顎角部であり、その組織学的検索により、唾液腺であることが多い。そこで唾液腺であった症例を表3にまとめた。

それを見ると、年齢は30～50才代が多く、唾液腺腫瘍が若年者にもみられるのと異なる傾向にある。発生部位はほぼ同じであるが、上顎には1例も認められない。大きさは、小豆大から胡桃大で、腫瘍より一般に小さい。本組織の由来については、Seward²³⁾(1960)が唾液腺造影を用い、2例の本症において顎下腺と交通していることを証明し、さらに手術に際して殆どの術者が舌側の骨壁に欠損を認め^{23), 25)~27), 26), 36)}、舌側軟組織と密接な連りを有していることを確かめており、さらにこれを追及して顎下腺に連なっていることを確認しえた症例もある^{24), 29), 34), 37)}。さらに、その組織学的検索ですべてが混合腺であった。ただし、犬歯・小白歯部の症例をは舌下腺と連なっていることを確認しえたもの^{30), 33)}もあり、大白歯部においてもやや上方に存在した1例は耳下腺組織²⁹⁾を証明した。

Simpson¹³⁾(1965)は、臨床的に Stafne's mandibular defect を疑ったが、組織学的検索によって、pleomorphic adenoma であった興味ある1例を報告し、Day and Cawson¹⁸⁾(1969)は cyst-like lesions of the mandible と題し、4例を報告し、それぞれ ameloblastoma, ameloblastoma を含んだ骨組織, primordial cyst, salivary adenoma であったと述べている。このように static bone defect と思われた症例であっても、腫瘍で

表 2 顎骨内に発生した唾液腺腫瘍

Investigator	Sex	Age	Location	Size	Diagnosis
Hoffer and Vogel ⁷⁾ (1960)	F	32	下 顎 枝	鷲 卵 大	Papillary cystic mixed tumor
Chaudlhry, et al. ⁸⁾ (1961)	F	16	上顎大白歯部	胡 桃 大	Mucoepidermoid tumor
Rhymes and Hardin ⁹⁾ (1963)	M	12	上顎大白歯部	小指頭大	Mucoepidermoid carcinoma
Bhaskar ¹⁰⁾ (1963)	M	33	下顎大白歯部	鷄 卵 大	Mucoepidermoid tumor
	F	1	下顎臼歯部	胡 桃 大	Benign mucoepidermoid tumor
加藤, 坂上 ¹¹⁾ (1963)	F	25	下 顎 枝	鷄 卵 大	混合腫瘍
Attenson, et al. ¹²⁾ (1964)	M	48	下顎大白歯部・下顎枝	鷲 卵 大	Mucoepidermoid carcinoma
Simpson ¹³⁾ (1965)	F	45	下 顎 角 部	小指頭大	Pleomorphic adenoma
Brown and Lucchesi ¹⁴⁾ (1966)	M	?	下 顎 枝	鷲 卵 大	Mucoepidermoid tumor
Weinstein, et al. ¹⁵⁾ (1967)	F	50	上 顎 骨	鷄 卵 大	Mucoepidermoid tumor
Silverglade, et al. ¹⁶⁾ (1968)	M	77	下顎大白歯部	示指頭大	Mucoepidermoid tumor
Schultz and Whitten ¹⁷⁾ (1969)	M	45	下顎大白歯部	鷄 卵 大	Mucoepidermoid carcinoma
Day and Cawson ¹⁸⁾ (1969)	F	40	下顎臼歯部・下顎枝	鷲 卵 大	Salivary adenoma
黒 柳, 他 2 名 ⁴⁾ (1972)	M	45	上 顎 骨	手 拳 大	多形性腺腫
	F	56	上 顎 骨	鷄 卵 大	多形性腺腫
三 好, 他 4 名 ¹⁹⁾ (1972)	M	50	下顎大白歯部	胡 桃 大	多形性腺腫

表3 唾液腺組織が証明された Static bone defect

Investigator	Sex	Age	Location	Size
Slavin ²³⁾ (1950)	M	35	下顎大臼歯部	胡桃大
Fordyce ²⁴⁾ (1956)	M	48	下顎大臼歯部	示指頭大
	M	40	下顎大臼歯部	拇指頭大
Richard and Ziskind ²⁵⁾ (1957)	M	46	下顎犬歯・小臼歯部	拇指頭大
Araiche and Brode ²⁶⁾ (1959)	M	55	下顎犬歯部	小指頭大
Choukas and Toto ²⁷⁾ (1960)	M	60	下顎大臼歯部	示指頭大
Hayes ²⁸⁾ (1961)	M	56	下顎大臼歯部	示指頭大
Amaral and Jacobs ²⁹⁾ (1961)	M	50	下顎大臼歯部	拇指頭大
Camilleri ³⁰⁾ (1963)	F	31	下顎切歯部	小豆大
Palladino, et al. ³¹⁾ (1965)	M	40	下顎犬歯・小臼歯部	小豆大
Abramson ³²⁾ (1966)	F	26	下顎犬歯部	示指頭大
千野, 他 3名 ³³⁾ (1969)	M	37	下顎犬歯部	小指頭大
西嶋, 他 2名 ³⁴⁾ (1969)	M	57	下顎角部	示指頭大
Miller and Winnick ³⁵⁾ (1971)	M	48	下顎正中歯槽部	小豆大
Boerger, et al. ³⁶⁾ (1972)	M	47	下顎角部	拇指頭大
Choukas ³⁷⁾ (1973)	M	47	下顎大臼歯部	示指頭大
	F	36	下顎大臼歯部	示指頭大

あることが報告されている。

そこで、これらの正常唾液腺組織と顎骨内唾液腺腫瘍とを結びつけて考えると、私たちの教室で経験されたもののうち、上顎前歯部と下顎智歯遠心との症例は、いずれも歯槽骨またはそれに近い部位であったので小唾液腺由来と考えられ、それぞれ口唇腺、臼後腺の迷入による可能性が大きい。今回、私たちが報告した症例は、唇舌側ともに骨壁が吸収されていたものの、口唇腺、舌下腺との連係を見出せなかった。しかし、下顎正中に位置することから、下唇の口唇腺の迷入が最も考えられるのではなかろうか。

いずれにしても、舌下腺と下唇の口唇腺との腫瘍は頻度が少なく、Foote and Frazell⁵⁾(1953) は自験877例中舌下腺腫瘍はわずかに4例であったと報告し、Fine, et al.⁶⁾(1960) は小唾液腺腫瘍1312例中下唇は11例であったと述べている。これらの報告によっても、下顎大臼歯部骨体に比較して、下顎前歯部における顎骨中心性唾液腺腫瘍の発生頻度の低いことが推察できる。

しかし、本症例の発生については、口腔粘膜上皮の迷入²⁰⁾、歯系上皮⁸⁹⁾も考えられるので、これらについて、なお十分な検討が必要と思われる。

結 論

私たちは、58才女子の下顎前歯部に発生し、Ameloblastoma を疑がわせた顎骨中心性多形性腺腫を経験したので、その由来について考察を加えた。

参 考 文 献

1) 高橋庄二郎, 氏家英峰, 黒柳錦也, 石井秀人, 田辺晴康: 上口唇に発生した多形性腺腫の3例. 歯科学報 69: 264~270 1969.

2) 高橋庄二郎, 森内 護, 斎藤季夫, 白須賀二郎: 頬部に発生した内皮腫の1例. 口外誌 1: 50~52 1952.

3) 阿部本晴, 山本 忠, 普山田寛, 横田正巳, 吉田正彦, 江崎民夫: 下顎智歯部肉内に発生した多形性腺腫の1例. 口外誌 18: 380~383 1972.

4) 黒柳錦也, 夫馬嘉明, 氏家英峰: 著明な顎骨吸収を伴った口蓋部多形性腺腫の2例. 口外誌 18: 347~351 1972.

5) Foote, F.W., Jr. and Frazell, E.L.: Tumors of the major salivary glands. Cancer (Philad.) 6: 1065~1133 1953.

6) Fine, G., Marshall, R.B. and Horn, R.C., Jr.: Tumors of the minor salivary glands. Cancer (Philad.) 13: 653~669 1960.

7) Hoffer, O. and Vogel, G.: Mixed tumor of the salivary glands of the mandible—report of a case. Oral Surg 13: 519~522 1980.

8) Chaudry, A.P., Dedolph, T.H., Jr. and Vickers, R.A.: Muco-epidermoid tumor arising from ectopic minor salivary glands in the maxilla—report of case. J Oral Surg Anesth 19: 521~523 1961.

9) Rhymes, R., Jr. and Hardin, J.C., Jr.: Mucoepidermoid carcinoma—report of case. J Oral Surg Anesth 21: 239~242 1963.

10) Bhaskar, S.N.: Central mucoepidermoid tumors of the mandible—report of 2 cases. Cancer (Philad.) 16: 721~726 1963.

11) 加藤智至, 坂上千代子: 下顎骨に発生せる唾液腺混合腫瘍の1例. 耳鼻咽喉科 35: 641~644 1963.

12) Attenson, M., Kaufman, M. and Brown, S.: Mucoepidermoid carcinoma of the mandible—report of case. J Oral Surg 22: 350~354 1964.

13) Simpson, W.: A Stafne's mandibular defect containing a pleomorphic adenoma—report of case. J Oral Surg 23: 553~556 1965.

14) Brown, A.M. and Lucchesi, F.J.: Central mucoepidermoid tumor of the mandible—report of case. J Oral Surg 24: 356~364 1966.

15) Weinstein, I.R., Nagai, I. and Yamanaka, H.: Mucoepidermoid tumor of the maxilla—report of a case. Oral Surg 23: 1~11 1967.

16) Silverglade, L.B., Alvares, O.F. and Olech, E.: Central mucoepidermoid tumors of the jaws—review of the literature and case report. Cancer (Philad.) 22: 650~653 1968.

17) Schultz, W. and Whitten, J.B., Jr.: Mucoepidermoid carcinoma in the mandible—report of case. J Oral Surg 27: 337~340 1969.

18) Day, R.C.B. and Cawson, R.A.: Cyst-like lesions of the mandible—case histories. Brit dent J 126: 405~409 1969.

19) 三好慶信, 都橋伸江, 松本喜雄, 山崎 章, 石田 武: セメント質の形成を伴った顎中心性多形性腺腫の興味ある一例. 口科誌 21: 732~738 1972.

- 20) Smith, R.L., Dahlin, D.C. and Waite, D.E. : Mucoepidermoid carcinomas of the jawbones. *J Oral Surg* 26 : 387~393 1968.
- 21) Dhawan, I.K., Bhargava, S., Nayak, N.C. and Gupta, R.K. : Central salivary gland tumors of jaws. *Cancer (Philad.)* 26 : 211~217 1970.
- 22) Stafne, E.C. : Bone cavities situated near the angle of the mandible. *J Amer dent Ass* 29 : 1969~1972 1942.
- 23) Slavin, M.I. : Ectopically placed parotid gland in the mandible. *Oral Surg* 3 : 1372~1376 1950.
- 24) Fordyce, G.L. : The probable nature of so-called latent haemorrhagic cysts of the mandible. *Brit dent J* 101 : 40~42 1956.
- 25) Richard, E.L. and Ziskind, J. : Aberrant salivary gland tissue in mandible. *Oral Surg* 10 : 1086~1090 1957.
- 26) Araiche, M. and Brode, H. : Aberrant salivary gland tissue in mandible. *Oral Surg* 12 : 727~729 1959.
- 27) Choukas, N.C. and Toto, P.D. : Etiology of static bone defects of the mandible. *J Oral Surg* 18 : 16~20 1960.
- 28) Hayes, H. : Aberrant submaxillary gland tissue presenting as a cyst of the jaw. —report of a case. *Oral Surg* 14 : 313~316 1961.
- 29) Amaral, W.J. and Jacobs, D.S. : Aberrant salivary gland defect in the mandible—report of a case. *Oral Surg* 14 : 748~752 1961.
- 30) Camilleri, G. : Salivary gland inclusion in the mandible. *Brit dent J* 114 : 515~516 1963.
- 31) Palladino, V.S., Rose, S.A. and Curran, T. : Salivary gland tissue in the mandible and Stafne's mandibular 'cysts'. *J Amer dent Ass* 70 : 388~393 1965.
- 32) Abramson, A.S. : Ectopic submaxillary gland in the mandible—report of case. *J Amer dent Ass* 73 : 1114~1116 1966.
- 33) 千野武広, 藤井久弥, 松沢耕介, 定岡孝明 : Stafne's idiopathic bone cavity の1症例. *日口外誌* 15 : 124~127 1969.
- 34) 西嶋克巳, 友沢基, 大橋 茂 : いわゆる Latent bone cyst の1例. *日口外誌* 15 : 205~208 1969.
- 35) Miller, A.S. and Winnick, M. : Salivary gland inclusion in the anterior mandible—report of a case with a review of the literature on aberrant salivary gland tissue and neoplasms. *Oral Surg* 31 : 790~797 1971.
- 36) Boerger, W.G., Waite, D.E. and Carroll, G.W. : Idiopathic bone cavities of the mandible—a review of the literature and report of case. *J oral Surg* 30 : 506~509 1972.
- 37) Choukas, N.C. : Developmental submandibular gland defect of the mandible—review of the literature and report of two cases. *J oral Surg* 31 : 209~211 1973.
- 38) Seward, G.R. : Salivary gland inclusions in the mandible. *Brit dent J* 108 : 321~325 1960.
- 39) Gorlin, R.J. : Potentialities of oral epithelium manifest by mandibular dentigerous cysts. *Oral Surg* 10 : 271~284 1957.