周辺性（骨外性）エナメル上皮腫の1例

浅田 洸一・石橋 克礼・清水 正嗣・上野 正・岡田 憲彦*

A case of peripheral (extra osseous) ameloblastoma

Kouichi ASADA・Katsunori ISHIBASHI・Masatsugu SHIMIZU
Tadashi UENO・Norihiko OKADA*

緒 言

周辺性エナメル上皮腫はきわめて稀な疾患であり、著者らが渉猟しえたかぎりでは、欧米で数例、本邦では2例報告されているにすぎない。周辺性エナメル上皮腫の本態および発生由来に関しては議論の多いところであり、また口腔粘膜の基底細胞癌との組織類似性も問題となるところである^{5)14)15)17)~20)30)}。

今回、われわれは下顎小臼歯部歯肉に生じた周辺性エナメル上皮腫の1例を経験したので報告する。

症 例

患 者： 40歳男性
初 診：昭和50年6月

主 訴： 左下顎小臼歯部舌側歯肉の腫脹

既往歴： 昭和49年1月より同50年4月まで糖尿病で薬物療法と食事療法をうけ、軽快し現在は食事療法継続中である。

現病歴： 昭和48年夏頃に左下顎小臼歯部舌側歯肉に拇指頭大の腫瘍に気づき、近くの歯科医を受診するも、X線写真所見で異常なしといわれた。その後糖尿病の治療を開始すると腫脹は小さくなったように思われ、その後疼痛ないため放置していたが、昭和50年6月左下顎部に疼痛あり、近くの歯科医を受診したところ同部の腫瘍を指摘され、当科を紹介され来院した。

口腔外所見： 体格栄養中等度、眼瞼結膜などに貧血性の所見なし。左顎下リンパ節は拇指頭大のものを1個を

触れる。可動性で癒着なく軽度の圧痛があった。右顎下リンパ節は小指頭大のものが1個、可動性、軽度圧痛があった。

口腔内所見： 写真1のごとく、左下顎小臼歯部舌側歯肉に、15×15×2mmの境界明瞭、弾性軟の腫瘍あり、表面は凹凸不正で1部に白斑と紅斑があった。45674歯は健全歯であり、生活歯髄反応はすべて陽性で、打診痛も認められなかった。

写真1 初診時口腔内所見

X線写真所見： 写真2のごとく、456部に槽間中隔の水平性吸収が認められたが、骨梁構造に乱れはなく、オルソパントモグラムでも下顎骨に異常はみられなかった。

臨床検査結果： 6月の一般血液検査にて、白血球12,400/mm³を認めたが、術後1ヵ月後の7月ものでは、同4,600/mm³と正常範囲になった。他に異常はみられなかった。

処置および経過： 昭和50年6月試験切除をおこなった。Ameloblastomaの病理組織診断を得た。同6月局麻にて腫瘍全摘出をおこなった。電気メスにより腫瘍より約3mmはなれ歯槽部正常粘膜に切開を加え、骨膜まで切離し、骨面より剥離、摘出した。腫瘍下底の骨面

東京医科歯科大学歯学部第1口腔外科教室

(主任：上野 正教授)

* 東京医科歯科大学歯学部口腔病理学教室

(主任：石川悟朗教授)

Department of Oral Surgery I, School of Dentistry, Tokyo Medical and Dental University

(Chief: Prof. Tadashi Ueno)

* Department of Oral Pathology, School of Dentistry, Tokyo Medical and Dental University

(Chief: Prof. Goro Ishikawa)

受付：昭和51年9月14日

写真2 デンタルX線所見

は平滑で肉眼的に異常はみとめられなかった。骨露出面にアクロマイシンオリーブワゼリンガーゼをおき、レジンプレートにて保持した。同7月骨露出面上下方より上皮新生が認められ、同10月創部上皮化終了し、昭和51年6月現在、術後1年で再発はみられていない。

病理組織学的所見

生検所見：写真3のごとく、腫瘍実質の一部は口腔粘膜上皮と連絡し、エナメル器に類似した実質は、間質に接して円柱状の細胞が配列し、その内方には星状の細胞があり、エナメル髓に似た構造を示している。以上の所見より、本学口腔病理学教室石川梧朗教授により Ameloblastoma (No. 68676) と診断された。

摘出物所見：写真4のごとく、口腔粘膜上皮から直接腫瘍上皮巢の増殖が真皮に向けておこっているように見える。上皮巢の基底部に円柱形の細胞が配列し、内方は

写真4 摘出物病理組織所見
H-E 染色. ×50

星状網様にやや疎になり、また扁平上皮を示す所もある。また真皮の深部では、上皮巢は細い索状をなしている。この下方の骨膜相当部には腫瘍の浸潤はみられない。以上の所見により Peripheral ameloblastoma (Extra osseous ameloblastoma) (No. 68967) と診断された。

考 察

エナメル上皮腫はふつう顎骨中心性であるが、本例のごとく粘膜部にのみ腫瘍組織が認められることがあり peripheral ameloblastoma⁵⁾¹⁷⁾と呼ばれる。周辺性エナメル上皮腫 peripheral ameloblastoma はきわめて稀な疾患であり、われわれが渉猟しえたかぎりでは、表1のごとく欧米で12例、本邦で2例報告されているにすぎない。これらの報告例をみると、男性10例、女性2例、不明2例、20歳代1例、30歳代3例、40歳代2例、50歳代1例、60歳代以上5例、不明2例と高齢男性に比較的多くみられる。部位別では、下顎歯肉6例、上顎歯肉4例、上下顎歯肉1例、頬部2例、不明1例と圧倒的に歯肉に多くみられる。大きさは頬部のものが比較的大きく30mm⁸⁾、50mm⁷⁾径であった。歯肉のものは最大は前歯部より臼歯部にわたるもの¹⁾、最小は4mm径¹²⁾であった。腫瘍の形態は境界明瞭な腫脹としてあらわれることが多く、嚢胞様¹¹⁾、有茎状⁸⁾¹⁰⁾のものもみられた。潰瘍形成は頬部のもの⁷⁾に1例みられた。

来院までの経過は記載されていないものが多いが、2週より2年までと時間的に幅がみられた。本例は左下顎小白歯部の腫瘍に気づいてから来院まで約2年であるが、初診時の腫瘍の大きさは15×15×2mmで腫瘍発育は緩慢と思われる。

治療法は周囲口腔粘膜を含めて切除したものが多いが、なかには顎骨をふくめて切除したものがみられた。本例においては、X線写真所見ならびに手術時所見とを考えたあわせ、骨に変化が認められなかったため、骨への外科的侵襲は行わなかった。

写真3 試験切除病理組織所見
H-E 染色. ×300

表 1 周辺性エナメル上皮腫報告例

		性 年 令	部 位	来院まで	治 療 法	口腔上皮 との連絡	経 過 観 察
Gullifer ¹⁾	1936	49 男	左上下顎歯肉	?	切除、骨整形	(一)	2 年
Ch'in ²⁾	1938	不 明	不明	?	"	?	?
Braunstein ³⁾	1949	63 男	左頬部	3 週	切除	?	4 月
Villa ⁴⁾	1953	不 明	3 部歯肉	?	新生物に準じる	(+)	?
Stanley ⁵⁾	1959	34 女	6 5 部歯肉	?	切除	(一)	?
Russel ⁶⁾	1966	52 男	右上顎結節部	?	切除	(+)	2 月後再発
Klinar ⁷⁾	1969	68 男	右頬部	3 月	切除	(+)	?
原田 ⁸⁾	1969	64 男	5 4 部歯肉	1 年	切除	?	?
Lee ⁹⁾	1970	35 男	3 4 部歯肉	1 月	骨切除	(+)	8 年
"	"	47 男	5 4 部歯肉	8 月	切除	(一)	4 年
Wertheimer ¹⁰⁾	1972	23 男	1 2 部歯肉	2 年	切除	(+)	1 年後再発
Wallen ¹¹⁾	1972	82 男	右上顎結節部	1 年	切除	?	4 年
Balfour ¹²⁾	1973	62 男	5 部歯肉	?	骨切除	(+)	6 月
右田 ¹³⁾	1975	38 女	4 3 部歯肉	5 月	骨切除	(一)	1 年半

例経過については4カ月より4年までの報告があるが2例に再発がみられ、2カ月後⁶⁾と1年後¹⁰⁾である。本例は術後1年で再発はみられていない。また転移についての報告はないが、本例は初診時左右顎下リンパ節は、拇指頭大、小指頭大に触知可能なるも、術後1年で変化みられず、腫瘍との関係を否定しうるものと考えた。

peripheral ameloblastoma の既報告例の組織所見は、acanthomatous type または石川の分類でⅡ型に属すると報告するものが多く、他に石灰化物を含むもの¹⁾, cystをもつもの⁵⁾がみられた。

既報告例において、口腔粘膜上皮と腫瘍組織との関係については、連絡のあるもの6例、連絡のないもの4例、記載のないもの4例であった。本例は写真3、写真4のごとく、粘膜上皮と連絡がみられ、組織像は石川の分類のⅡ型に近い組織像を呈している。

エナメル上皮腫の成り立ちに関して、エナメル器あるいは歯堤を腫瘍芽とするものであろうことは多くの人々に承認されるところである¹⁵⁾²⁰⁾。一方、Braunstein³⁾, Pindborg¹⁷⁾ らのごとく、口腔粘膜とくに顎骨部粘膜上皮の基底細胞からエナメル上皮腫が発生するという説があり、口腔粘膜上皮と直接連絡のある peripheral ameloblastoma の存在は、エナメル上皮腫の口腔上皮由来説の根拠の1つになっている²⁰⁾²¹⁾。

またエナメル上皮腫(とくに基底細胞型)と基底細胞癌とは組織学的に類似する点が多いので、エナメル上皮腫を広い意味で基底細胞腫(癌)とみなす人もいる²¹⁾²²⁾²³⁾。

エナメル上皮腫と基底細胞癌とをX線感受性の高低、すなわち生物学的性状で差異があるとする説¹⁹⁾がある一方、口腔内の基底細胞癌の感受性も低いとする説¹⁹⁾もある。

り、生物学的性状からの鑑別も問題があると思われる。

Anderson¹⁶⁾によれば基底細胞癌は高齢者の顔面皮膚に好発し、平滑な丘疹としてはじまり、隆起したワックス様潰瘍を形成し、周辺は表皮の下をひろがるとされている。緩徐に発育するが、治療せずに放置すると骨、軟骨まで広がるという。切除または放射線療法が有効な、悪性度の低い、予後の良い腫瘍といわれる。

口腔内の基底細胞癌の存在に関し、Shafer¹⁸⁾, Lucas¹⁹⁾ らのごとく、まったく認めないとする人もいるが、きわめて稀であるが、口腔内の基底細胞癌の報告があり、欧米で9例、本邦で4例みられた。これらの報告をまとめみると表2のごとく、年齢別では20歳代1例、40歳代1例、50歳代1例、60歳代以上9例と高齢者に偏向しており、男性8例、女性4例と性差はみられなかった。なお不明が1例あった。部位別では下口唇2例、歯肉8例、舌2例、口腔底1例と歯肉に多くみられた。大きさは最大が口底部の小鶏卵大³⁰⁾で最小は口唇の4mm²⁴⁾であった。来院までの期間は記載のないものが多いが、2月～4年と幅がみられた。

治療法は、局麻により周囲をふくめて切除したものが多く、中には顎骨切除、放射線療法³²⁾、化学療法のおこなわれたものもみられ、うち3例に再発がみられている。

組織学的所見は、腫瘍は上皮と連絡し、実質は卵円形または円柱状の細胞よりなり、濃染した核をもち、種々の大きさの島状、リボン状、胞巣状をなし、その周辺は放射状をなす一層の細胞がみられるものが多かったが、角質囊胞変性のみられるものもあった。

口腔内基底細胞癌の報告例中、顔面皮膚に基底細胞癌をもつもの3例²⁴⁾²⁶⁾²⁸⁾口腔内に扁平上皮癌をもつもの1

表 2 口腔内基底細胞癌報告例

	性・年齢	部 位	来院まで	治 療 法	経 過	そ の 他
Saint ²³⁾	1951	?	舌背	?	切除	?
Thoma ¹⁴⁾	1960	62 男	3 4 5 部歯肉	8 月	切除	?
Keen ²⁴⁾	1964	66 男	下口唇	?	切除	1 年
Lawson ²⁵⁾	1967	60 男	左上顎前歯歯肉	?	切除	10月再発
Williamson ²⁶⁾	1967	74 男	1 2 部歯肉	?	骨切除	2 年 4 月
Mori ²⁷⁾	1968	66 男	8 部歯肉	?	切除	再 発
"	"	41 女	M部歯肉	4 年	骨切除	?
Weitzner ²⁸⁾	1968	74 男	右下口唇	2 月	切除	6 月
Peters ²⁹⁾	1972	72 女	右上顎結節	?	切除	11月
"	"	55 女	左上顎結節	?	切除	5 年再発
田中 ³⁰⁾	1973	79 女	舌側縁	?	切除, 放射線, BLO	?
"	"	66 男	口腔底	4 月	?	?
Simpson ³¹⁾	1974	28 男	7 部歯肉	?	切除	8 月

△ epidermoid carcinoma
× basal cell carcinoma

1例¹⁴⁾みられた。

peripheral ameloblastoma と口腔内の基底細胞癌との前述した既報告例での臨床上的差異は、前者、後者とも高齢者に多くみられ、年齢別に差はみられない。性差は前者が男性に多いのに対し、後者に性差はみられない。部位別ではともに歯肉部に多くみられる。腫瘍の大きさは、前者が後者より比較的大きい。再発はほぼ同様の傾向であり、臨床上類似した所見を呈している。

今回の症例に関しては、下顎歯肉にみられた腫瘍を、その組織像からエナメル上皮腫と考えたが、これが粘膜部に存在した歯堤遺残より発生し二次的に口腔上皮と連絡したものか、口腔粘膜上皮から発生したものか、あるいは、基底細胞癌の可能性を完全に否定できるか否かについては議論もあると考えられる。このように組織所見も、臨床所見も類似している二つの疾患の鑑別のための基準は今後に残された問題であろう。

結 論

右下顎小白歯部舌側歯肉に周辺性エナメル上皮腫 peripheral ameloblastoma と思われる1例を経験し、外科的切除により良好な結果を得たので報告し、併せて既往文献について考察を加えた。

稿を終わるにあたり、御校閲頂いた本学歯学部口腔病理学教室、石川梧朗教授に感謝致します。

なお、本文の要旨は第105回日本口腔外科学会関東地方会にて発表した。

文 献

1) Gullifer, W. H. : Adamantinoma ?. Dent Cosmos 78 : 1256 1936.

2) Ch'in, K. : Adamantinoma in Chinese. Chinese Med J (supp. II) : 91 1938. 5) より引用.
3) Braunstein, E. : Case report of an extraosseous adamantinoblastoma. Oral Surg 2 : 726 1949.
4) Villa, V. G. : A case of ameloblastoma derived from adult oral epithelium. Oral Surg 6 : 1216 1953.
5) Stanley, Harold R., and Krogh, H. W. : Peripheral ameloblastoma. Oral Surg 12 : 760 1959.
6) Russel, A. : ameloblastoma of mucosal origin. New Zealand dent J 62 : 116 1966.
7) Klinar, K. L. and McManis, J. C. : Soft-tissue ameloblastoma ; Report of a case. Oral Surg 28 : 266 1969.
8) 原田雅博, 他 : 下顎小白歯部舌側軟組織に発生したエナメル上皮腫の1例(会). 日口外誌 15 : 269 1969.
9) Lee, K. W., Chin, T. C. and Paul, G. : Peripheral ameloblastoma. Brit J Oral Surg 8 : 150 1970.
10) Wertheimer, F. W. and Stroud, D. E. : Peripheral ameloblastoma in a papilloma with recurrence ; report of a case. J Oral Surg 30 : 47 1972.
11) Wallen, N. G. Setauket. E. : Extra osseous ameloblastoma. Oral Surg 34 : 95 1972.
12) Balfour, R. S., Loscalo, L. J. and Sulka, M. : Multicentric peripheral ameloblastoma. J Oral Surg 31 : 535 1973.
13) 右田信行, 永井晴彦 : Peripheral ameloblastoma の1例. 日口外誌 21 : 463 1975.
14) Thoma, K. H. and Goldman, H. M. : Oral Pathology, ed 5, Mosby Co., St. Louis 1960, p. 1174, p. 1441.
15) Gorlin, R. J. and Goldman, H. M. : Thoma's

- gy, 6, ed Mosby Co. St. Louis 1970, p. 484, p. 845.
- 16) Anderson : Pathology II, 6, ed Mosby Co. St. Louis 1971, p. 1950.
 - 17) Pindborg, J. J. and Kramer, I. R. : Histological typing of odontogenic tumors Jaw cysts and allied lesions. WHO, Geneva, 1971, p. 24.
 - 18) Shafer, W. C., et al : A Textbook of Oral Pathology. 2. ed Saunders Co. Philadelphia, 1958. p. 95, p. 211.
 - 19) Lucas, R. B. : Pathology of tumors of the oral tissues. 2, ed Churchill Livingstone, Edinburgh, 1964 p. 45.
 - 20) 石川梧朗, 秋吉正豊 : 口腔病理学Ⅱ. 永末書店, 京都, 東京, 1969, p. 923.
 - 21) 石川梧朗 : 歯原腫瘍について, とくに病理学的方面から. 口病誌 26 : 2108 1959.
 - 22) Mathis, H. : Über das Adamantinom oder Ameloblastom. DZZ 9 : 1398 1954.
 - 23) Saint, F. M. : The embryology of the stomodeum and its bearing on tumours of the tongue and salivary glands. S Afr J Clin Sci 2 : 1 1951.
 - 24) Keen, R. R. Ken, F. R. and Elzay, R. P. : Basal cell carcinoma from mucosal surface of lower lip J Oral Surg 22 : 453 1964.
 - 25) Lawson, B. F., Griffin, J. W. and Waldron, C. A. : Basal cell carcinoma of the gingiva ; Report of a case. Oral Surg 24 : 648 1967.
 - 26) Williamson, J. J., Cohny, B. C. and Henderson, B. M. : Basal cell carcinoma of the mandibular gingiva. Arch Dermatol 95 : 76 1967.
 - 27) Mori, M., Morimoto, Y., et al : Enzymatic histochemical demonstration of basal-cell carcinoma in the oral cavity. Oral Surg 25 : 746 1968.
 - 28) Weitzner, S. and Hentel, W. : Multicentric basal-cell carcinoma of Vermilion mucosa and Skin of lower lip. Oral Surg 26 : 269 1968.
 - 29) Peters, R. A., Gingrass, R. P., Reyes, C. N. and Hintz, C. S. : Basal cell carcinoma of the oral cavity ; report of a case. J Oral Surg 30 : 63 1972.
 - 30) 田中誠孝, 他 : 口腔内基底細胞癌の2症例. 京大口科紀要 13 : 13 1973.
 - 31) Simpson, H. E. : Basal cell carcinoma and peripheral ameloblastoma. Oral Surg 38 : 233 1974.