腺エナメル上皮腫の1例

伊賀成知*・松本喜雄*・中野完次*・合田興世*
岡野博郎*・内海 潔**・安本元康**・島田惣四郎***

Adenoameloblastoma : Report of a case

Shigetomo IGA*・Yoshio MATSUMOTO*・Kanji NAKANO*
Kōsei GōDA*・Hakurō OKANO*・Kiyoshi UCHINOUMI**
Motoyasu YASUMOTO**・Sōshirō SHIMADA***

緒

言

症

例

腺エナメル上皮腫は、組織学的に歯系上皮細胞よりなる腺管様構造を示し、間質結合組織に乏しく、腫瘍内に無構造の石灰化粒を形成することを特徴とするもので、特殊な形のエナメル上皮腫として扱われている歯系良性腫瘍の一つである。1826年に Guzzack が病理組織学的にエナメル上皮腫に似た腫瘍を報告した¹⁾のに始まり、1907年に Dreibladd²⁾ が、Pseudoadenoma adamantinum として、1910 年に L'Esperance³⁾ が Glandular Adamantinoma として、1934年に Ghosh⁴⁾ が上顎エナメル上皮腫の名のもとに本腫瘍を報告しており、また1948年に Stafne⁵⁾ が Epithelial tumors として3種を報告しているように本腫瘍は、いろいろな名称で記載されている。しかし、今日の Adenoameloblastoma という名称は、1950年に Bernier と Tiecke⁶⁾ および、1955年に Thoma⁷⁾ の報告にもとづいているものである。本邦におけるこの腫瘍の報告は、最初1931年に正木⁸⁾ が上顎および下顎に発生した本腫瘍の2例を記載したのに始まり、われわれが渉猟したところでは、37例の報告がみられる。最近われわれは、44歳の男性の下顎正中中部歯肉の腫瘤を主訴として来院した患者で、臨床的に歯原性嚢胞と診断され、病理組織学的に腺エナメル上皮腫と診断された本腫瘍を経験したので報告する。

患者： 44歳 ♂

初診：昭和50年4月

主訴：下顎正中中部歯肉の腫瘤

家族歴：特記すべき事項はない

既往歴：著患は認められない

現病歴：49年5月に3¹が自然脱落したため、下顎前歯部に補綴処置を希望して昭和50年4月 某歯科医を受診した2¹は動揺し1¹は転位していたため抜去された。その際根尖部に異常が認められたのでレントゲン診断を受けたところ、4⁺2⁺部に透過像が認められたので本院を紹介され来院した。

現症：体格、栄養ともに中等度で、特記すべき全身疾患はなく、一般血液検査および血清化学的検査に特に異常を認めなかった(表1)。

口腔外所見：顔貌は左右対称で、開口障害はなく、右側顎下部に可動性の小指頭大のリンパ節を1個触知したが、圧痛はなかった。

口腔内所見：3⁺2⁺部唇側に約1.5×1.0cm 大の骨様硬の膨隆を認めたが、その部の粘膜の色は正常であった。3²1¹は欠除、5¹2³は骨植堅固で、4¹は近心にやや傾斜し、1¹には動揺が認められた。

X線所見：1¹根尖部から4¹根尖部に至る辺縁明瞭なcystic margin を有するレントゲン透過像が見られ、その内には、大小さまざまなレントゲン不透過粒の散在が見られた。また4¹は近心傾斜していたが、歯根の吸収は認められなかった(写真1, 2)。

処置及び経過：昭和50年5月 局所麻酔のもとに、4⁺3⁺部の唇側に粘膜骨膜弁をつくり、腫瘤をおおう菲薄な骨を除去し、腫瘤を一塊として摘出した。剥離は比較的容易で、周囲の骨との癒着はなかった。

摘出物所見：摘出物は表面滑沢で暗紫褐色の被膜に包

* 大阪歯科大学第二口腔外科学教室(主任:岡野博郎教授)

** 大阪歯科大学放射線学教室(主任:古跡養之真助教授)

*** 大阪国立病院歯科(医長:島田惣四郎)

* 2nd Dept. of Oral Surgery Osaka Dental University (chief: Prof. Hakurō Okano)

** Dept. of Oral Radiology Osaka Dental University (chief: Prof. Yōnoshin Koseki)

*** Clinic of Dentistry and Oral Surgery Osaka National Hospital (chief: Dr. Sōshirō Shimada)

受付:昭和51年10月2日

表 1 臨床検査成績

赤血球数	457×10 ⁴
白血球数	79×10 ²
血小板数	68×10 ³
ヘマトクリット	45%
血色素量	15.4 g/dl
赤沈(1時間値)	15mm
出血時間	2.5分
凝固時間	8.5分
Meulengracht	4
CoR	3
CdR	6
TTT	5.25
ZTT	15.9
GOT	43
GPT	40
AL-P	12.5 K. KU
総蛋白量	8.1 g/dl
A/G	1.80
AL	64.2%
GL---α ₁	2.8%
GL---α ₂	8.5%
GL---β	7.1%
GL---γ	17.1%
総コレステロール	139 mg/dl
尿素窒素	15 mg/dl
Na	141 mEq/l
K	4.7 mEq/l
Ca	4.5 mEq/l
Cl	103 mEq/l
ASLO	166 Todd
CRP	(-)
RA	(-)
梅毒血清反応	(-)

写真 2 術前のX線像

写真 3 摘出物

写真 1 術前のX線像

写真 4 摘出物の剖面

まれた嚢胞状の腫瘤であり、大きさは $2 \times 1 \times 1.5$ cm 大で、重量は 3 g であった。摘出物の断面は、帯黄色のいちぢくの果実状で、その中に大小の出血巣が散在していた(写真 3, 4)。

顕微鏡所見：摘出物の全割切片を作り、H-E および PAS 染色を施行し検鏡した。腫瘍は厚い線維性結合組織に被覆され、腫瘍実質は、多角形ないし楕円形の上皮細胞よりなり、増殖の形としては sheet 状を呈していた。また本腫瘍の主成分をなす細胞は、vesicular な比較的大型の核をもった細胞と hyperchromatic な小型の核を有する細胞の二つであり、そのうち大型の核を有する淡明な細胞は、所々 rosetta 様構造を呈していた。また異形成は認められなかった。そして円柱状や立方状の細胞によって形づくられた腺管状構造が一部にみられ、その細胞の核は基底部に位置し、管腔内はエオジン好染の物質にみたされたものや、空虚なものなどが見られた。間質は比較的乏しく、拡張した血管および出血巣が見られた(写真 5, 6)。腫瘍周辺部には、散在性に石灰化巣が認められた(写真 7)。

写真 7 組織像
(H-E×200)

写真 5 組織像
(H-E×100)

写真 6 組織像
(H-E×200)

考 察

本腫瘍の特徴として Tchernikoff⁹⁾ (1967) によると初診時年齢は12~20歳が大部分を占め、男女比は2:3で女性に多く、下顎より上顎に発生しやすく、小臼歯から犬歯にかけて好発し、また埋伏歯を含むものが多いと述べている。最近では Gargiulo¹⁰⁾ (1974) は111例の adenameloblastoma を検索し、その中で初診時年齢の平均は17.8歳と述べ、中久喜¹¹⁾ および迫田¹²⁾ が報告した初診時平均年齢17.9歳と一致している。また Gargiulo は下顎と上顎の比は35:65で上顎に多く発生し、男女比36:64はで女性に多く、また未萌出歯を含んでいるものは74%であると述べ、その中で68%が埋伏犬歯を含んでいたと報告している。本邦における37例についてみると初診時年齢は8~36歳で、男女比は5:30であり上下顎の発生率は23:14で、埋伏歯を含んでいるものは64.9%であるが、本症例は男性にみられ、初診時年齢は44歳で最高年齢であり、下顎前歯部に発生し、埋伏歯は認められなかった。本腫瘍は前述のごとく厚い線維性の結合組織に被覆され、腫瘍実質の一部に腺管様構造や石灰化巣が認められた。この腺管様構造内およびその周囲細胞内には、エオジンに淡染する物質がみられ、PAS 陽性を示した。この PAS 陽性物質は、Gorlin と Chaudhry¹³⁾ (1961) および馬淵と牛島¹⁴⁾ (1960) は、Pre-enamel と考えているが、伊藤¹⁵⁾ (1957) は、pre-enamel と考えられないと述べており、また Shear¹⁶⁾ (1962) は pre-enamel でなく pre-dentine であると述べている。散在する石灰化物質については、馬淵と牛島¹⁴⁾ はエナメル質形成の不完全なものとして述べている。また Bhaskar¹⁷⁾ (1964) および伊藤¹⁵⁾ によれば、石灰化物質は壊死に陥った腫瘍細胞に石灰が沈着したものとし、中久喜¹¹⁾ はこの石灰化物質には、中性並びに酸性多糖類を含んでいると述べている。妹尾¹⁸⁾ は、歯原性腫瘍が本来もっている石灰化の potentiality によるものと考え

ている。また三好¹⁹⁾は、石灰化粒は間質内にのみ認められ、その無構造を示す点より、牙質あるいは骨質の形成ではなく、石灰変性であると述べている。本症例においては、石灰化巣は腫瘍周辺部に見られ、その石灰化が著明なところは実質細胞に乏しく、間質が大部分を占めており、また間質中に多数みとめられる拡張した血管の一部の壁に石灰沈着が見られる。このことより石灰化巣は、間質部における退行性病変であると考えられる。本腫瘍の組織発生については、Gorlin と Chaudhry¹³⁾ (1958)および Spouge²⁰⁾ (1967)はエナメル器より発生するという説を支持し、また Lucas²¹⁾ はエナメル器またはその残遺上皮より発生すると述べており馬淵と牛島¹⁴⁾ は本腫瘍の腺様構造を構成する細胞を ameloblast の成熟分化型に近い性格を有するものと述べている。Oehlers²²⁾ (1956) は本腫瘍の由来を口腔粘膜上皮の基底細胞に求めている。また伊藤¹⁵⁾は摘出腫瘍の所見によりその組織発生を嚢胞上皮の腫瘍化によるものと考え、また小野²³⁾は、嚢胞上皮 (伊藤) および歯根膜の Malassez 氏遺残上皮 (Thoma) 由来の他に、未分化原始口窩上皮由来も考えられると述べている。

本腫瘍の摘出後の再発については Ward と Hendrick²⁴⁾ (1950) および深谷²⁵⁾ (1971) によって報告されているが、他のほとんどの症例は容易に全摘出されており、本症例も術後1年数カ月を過ぎた現在でも再発の傾向は認められない。

結 語

- 1) 44歳の男性の下顎正中部に発生した腺エナメル上皮腫の一症例を経験した。
- 2) 組織病理学的所見により、腺エナメル上皮腫と診断した。
- 3) 術後の経過は良好で、現在1年数カ月を過ぎた現在でも再発は認められない。

文 献

- 1) Robert L. Seymour : Adenoameloblastoma. Oral Surg. 38 : 860. 1974. より引用
- 2) Dreibladdt H. : Uber das Pseudoadenoma Adamantinum. Inaug.-Diss. Berlin 1907.
Takagi, M. : Adenomatoid ameloblastoma. An analysis of nine cases by histopathological and electron microscopic study. Bull Tokyo Med Dent Univ 14 : 487 1967. より引用
- 3) L'Esperance, E. : A preliminary report of eight cases of adamantinoma, Proc. N. Y. Path. Soc. 10 : 136 1910.

- 4) Ghosh, L. S. : Adamantinoma of the upper jaw : Report of case. Am J Pathol 10 : 773 1934.
- 5) Stafne, E. C. : Epithelial tumors associated with developmental cysts of maxilla. Oral Surg 1 : 887 1948.
- 6) Bernies, J. L. and Tiecke, R. W. : Adenoameloblastoma. J Oral Surg 8 : 259 1950.
- 7) Thoma, K. H. : Adenoameloblastoma. Oral Surg 8 : 441 1955.
- 8) 正木 正 : 顎腫瘍の病理的所見と其の臨床的意義. 臨床歯科 11 : 29 1939.
- 9) Tchertkoff V., Paino J. A. : Ameloblastic adenomatoid tumor. Oral Surg 27 : 72 1967.
- 10) Gargiulo, E. A. : Odontogenic adenomatoid tumor. J Oral Surg 32 : 286 1974.
- 11) 中久喜喬, 他 : Adenoameloblastoma の1例. 歯科学報 66 : 79 1966.
- 12) 迫田隅男, 他 : Adenomatoid odontogenic tumor の1例. 日口外誌 22 : 11 1976.
- 13) Gorlin, R. J. and Chaudhry, A. P. : Adenoameloblastoma. Oral Surg 11 : 762 1958.
- 14) 馬淵博, 他 : Adenoameloblastoma の1例. 癌の臨床 6 : 283 1960.
- 15) 伊藤秀夫, 他 : 腺エナメル上皮腫の1例. 日口外誌 3 : 29 1957.
- 16) Shear, M. : The histogenesis of the tumor of enamel organ epithelium. Br Dent J 112 : 494 1962.
- 17) Bhaskar, S. N. : Adenoameloblastoma: Its Histogenesis and report of new cases. J Oral Surg 22 : 218 1964.
- 18) 妹尾美孝, 他 : Adenomatoid ameloblastoma の1例. 口科誌 25 : 1 1976.
- 19) 三好慶信, 他 : 腺エナメル上皮腫の1例. 口科誌 19 : 1 1967.
- 20) Spouge, J. D. : The Adenoameloblastoma. Oral Surg 23 : 470 1967.
- 21) Lucas, R. B. : A tumor of enamel organ epithelium. Oral Surg 10 : 652 1957.
- 22) Oehlers, F. A. C. : An unusual pleomorphic adeno-like tumor in the wall of a dentigerous cyst, Report of a case. Oral Surg 9 : 411 1956 :
- 23) 小野史郎 : Adenoameloblastoma の1例. 日病会誌 47 : 1015 1958.
- 24) Ward, G. E., & Hendrick, J. W. : Diagnosis & Treatment of Tumors of the Head and Neck, Baltimore the Williams & Wilkins Co. 1950.
- 25) 深谷昌彦, 他 : 上顎に発生した Adenoameloblastoma の1例. 日口外誌 17 : 155 1971.