Peripheral ameloblastoma の 1 症例

小森 康雄・松本 正明・菊田 敬三・竹内 弘
久代 秀郎・金沢 正英・鈴木 国夫
西田 紘一・成田 令博・内田 安信

Peripheral ameloblastoma: Report of a case

Yasuo KOMORI・Masaaki MATSUMOTO・Keizo KIKUTA・Hiroshi TAKEUCHI
Hideo KUSHIRO・Masahide KANAZAWA・Kunio SUZUKI
Koichi NISHIDA・Yoshihiro NARITA・Yasunobu UCHIDA

緒 言

口腔内に発生するエナメル上皮腫のうち、顎骨外に発生するものは顎外性エナメル上皮腫、または周辺性エナメル上皮腫といわれ、その発生はきわめてまれとされている。本腫瘍の発生由来、本態については不明な点も多く、さまざまな論議がなされている¹⁻¹⁴⁾。
われわれは、55歳男性で、肝硬変症を基礎疾患に持ち歯肉出血を主訴として 当科受診した peripheral ameloblastoma と思われる 1 症例を経験したので報告する。

症 例

患 者： 55歳 男性。
初 診：昭和48年10月 日。
主 訴：上顎前歯部歯肉からの出血。
既往歴：昭和41年頃から全身倦怠感、食欲不振があり、近医により十二指腸潰瘍および肝障害と診断されて通院治療を受けていた。しかし肝障害は軽快せず、昭和48年7月頃、全身倦怠感が強くなり、嘔気、嘔吐を生じるようになったので、本学内科に紹介された。昭和48年9月 日入院したが、その後も症状はあまり好転せず、一進一退の状態を続けていた。
家族歴：特記事項なし。
現病歴：初診2日前より、上顎前歯部歯肉からの出血に気づいたが軽度のため放置していた。しかし出血が持続するため入院中の本院内科より当科へ紹介されて受診した。
現 症
全身所見：体格は中等度で顔貌は対称的であるが、顔
東京医科大学口腔外科学教室（主任：内田安信教授）
Department of Oral Surgery, Tokyo Medical College (Chief: Prof. Yasunobu Uchida)
受付日：昭和54年6月20日

表 1 末梢血液検査、血液生化学検査所見

赤血球数	310×10 ⁴	総蛋白量	7.6 g/dl
白血球数	4,700	LDH	193 u
血小板数	9.1×10 ⁴	GOT	400 u 以上
ヘモグロビン量	11.4 g/dl	GPT	86 u
ヘマトクリット値	34%	Al-ph	41 u
出血時間	1 分	総コレステロール	136 mg/dl
血餅収縮	55%	A/G 比	0.47
PTT	45.6秒	ビリルビン	
PT	12.8秒	総ビ	3.23 mg/dl
	50%	直ビ	1.66 mg/dl
フィブリノゲン量	200 mg/dl	間ビ	1.57 mg/dl
FDP	80 μg/ml	血清鉄	181 r/dl

面、その他の皮膚は、やや黄色を帯びた土色で眼瞼結膜は貧血性であり、一見して全身障害のある様相を呈していた。血液生化学的検査は、表1に示すとおりであり、肝硬変によると思われる赤血球減少、血小板減少が認められた。
また、凝血学的検査では、プロトロンビン時間は12.8秒(50%)と延長しており、FDPも80 μg/mlと上昇し、血液生化学的検査では、LDH 193単位、GOT 400単位以上、GPT 86単位と高度の肝障害が示された。
局所所見：口腔内は上顎の左側側切歯近心部より、右側側切歯遠心部にかけて唇側歯肉に、帯赤色の周囲歯肉よりやや隆起増殖した組織を認め、組織は歯頸部よりやや遊離しており、一部は潰瘍を呈し、易出血性であった(写真1)。病変は、同部位の口蓋側の歯肉乳頭部にも及んでいた(写真2)。
触診では、弾力性やや硬であり、自発痛、圧痛は訴えなかった。上は開面冠冠が装着されており、正中離開のため金属冠に隙がロウ着されていた。罹患部歯牙は骨植良好であった。

写真1 唇側歯肉

写真2 口蓋側歯肉

写真3 X線所見

写真4 病理組織所見, 弱拡大

写真5 病理組織所見, 強拡大

X線所見；腫瘍部の歯槽突起にやや軽度の水平吸収が認められるのみで、骨梁構造その他には異常所見は認められなかった(写真3)。

病理組織所見；被覆上皮下には、やや大型の高円柱状細胞群があり、内側にはしばしば星型の細胞が認められた。また、この高円柱状細胞層は諸所に嚢胞やろ胞様構造を示し、typicalなameloblastの配列を呈している部分もみられた(写真4, 5)。

病理組織学的診断：エナメル上皮腫。

経過：以上のような諸検査の結果、高度の肝障害およびそれに伴う出血傾向がみられたため、腫瘍摘出手術は全身状態の回復をまってから行うこととした。患者はその後2～3日出血が持続したが、局所処置ならびに止血剤の投与によって止血した。その後患者は、約1年9か月間内科で肝硬変に対する治療を受けていたが効果がなく、昭和50年9月死亡した。

歯肉の腫瘍は、この間外来で経過を観察していたが、出血傾向は軽度で腫瘍の発育もきわめて緩慢であった。

考 察

エナメル上皮腫の発生由来は歯胚の上皮成分であるエ

ナメル器、ないしは歯堤がその源とされている。

また、エナメル上皮腫は通常顎骨内に発生するが、まれに顎骨外に原発したと考えられるものがあり peri-

peripheral ameloblastoma¹⁻¹⁰⁾, extraosseous ameloblastoma¹¹⁾, soft tissue ameloblastoma^{12,13)} など種々な名称で報告されている。本疾患の発症はまれであり、本邦では現在まで 柘植 (1967)¹⁴⁾, 原田 (1969)¹⁵⁾, 右田ら (1975)⁹⁾, 浅田ら (1976)⁷⁾, 手島ら (1977)⁹⁾, 大野ら (1979)¹⁰⁾ の報告をみるにすぎない。また、諸外国においても、12例の報告がされているのみである。

今回報告した症例は上顎前歯部の唇側および口蓋側歯肉に連続して存在し、X線では軽度の歯槽突起の吸収がみられるのみで骨梁構造に特に変化はみられず Lee¹⁾, Stanley²⁾, Wertheimer³⁾, その他が述べている peripheral ameloblastoma, と同一疾患と考えられた。現在までの報告を集計すると、それらの発生部位は上顎歯肉4例 (本邦1例), 下顎歯肉12例 (本邦4例), 頬部粘膜2例, 不明1例であり、下顎歯肉に多く報告がみられる。本症例は、上顎正中部を中心に前歯部唇側、口蓋側にわたって腫瘍の増殖がみられ、ほかの報告とは発生部位が異なっていた。

性別では、男性11例 (本邦4例), 女性6例 (本邦1例), 不明1例と男性に多く、本症例も男性であった。

年齢別では20歳代1例, 30歳代4例, 40歳代4例, 50歳代2例, 60歳代4例, 70歳代1例, 80歳代1例, 不明1例であり、中高年齢者に多いことは、一般の顎骨内エナメル上皮腫が若年者に多いことと比べると特異な点である。本症例も55歳であった。

主訴は本症例では、歯肉出血であったが、現在まで報告されているほかの症例では、同様の主訴で受診したケースはみあたらない。すなわち本症例の歯肉出血は peripheral ameloblastoma そのものが原因するものではなく、基礎疾患である肝硬変に由来するもので、検査値 (表1) に示してあるとおり、血小板の減少 (9.1万) プロトロンビン時間の延長 (12.8秒, 50%), FDP の増加 (80 $\mu\text{g/ml}$) が出血の主要因をなしているものと考えられた。肝硬変の際の血小板の減少は、肝障害の増悪につれ脾機能亢進が起これ、そのため血小板の破壊が亢進し減少するものとされている。また、プロトロンビン時間の延長は、肝で産生されるといわれている凝固因子、すなわち第II, 第VII, IX, X因子の産生不良によるものである^{15,16)} さらにフィブリン分解産物 (FDP) は、フィブリンおよびフィブリノーゲンが線溶亢進により分解されたものであり、FDP の増加は線溶亢進の程度を示すものである¹⁷⁾。正常肝組織中には、通常線溶系因子である組織アクチベーターは存在しないとされている。しかし本症例のような肝硬変組織中には高度に存在し、これが線溶亢進の引き金となると考えられる。また、これら線溶による分解産物は、網内系で処理されるが、肝障害のため十分に処理機構が働かないため FDP の蓄積が起こることも十分考えられる。いずれにしろこれら諸因子が本症例における出血傾向の原因となっており、さら

に組織がいわゆる深い盲嚢状を呈し、その炎症と相まって刺激により比較的容易な出血の発現となったものと考えられた。全身状態が悪くこのように出血傾向を有する患者であったため、本症例では1回の試験切除のみで、根治手術を施行できず、腫瘍の全摘出標本の病理組織検査は行い得なかったが、試験切除標本では顎骨との関係は認められなかった。同部のX線所見でも、歯槽骨における吸収破壊像など特に変化がみられなかったことから、顎骨外に発生したものと判断した。本腫瘍は、口腔粘膜上皮との関連を有するもの、有しないものが報告されているが、本症例は写真1, 2にみられるように口腔粘膜上皮との関連性が認められた。このように口腔粘膜上皮と関連性のあるエナメル上皮腫が存在することは、エナメル上皮腫が口腔粘膜上皮に由来するとする考え方の根拠にもなっており、Aisenberg (1953)¹⁸⁾, Villa (1953)ら¹⁹⁾によっても支持されている。しかし一般的にはこの関連は2次的なものであるとの考えが多い^{20,21)}。

また peripheral ameloblastoma は、その組織学的類似性から、広義の基底細胞癌に含まれるとする見解もある²²⁾。井上ら²³⁾は、この基底細胞癌の solid type のものとエナメル上皮腫の基底細胞型との組織学的に類似しており、生物学的性格、発生病理などにも類似性があることを報告している。しかし基底細胞癌では、特徴的な星状構造を有せず、放射線に対してもエナメル上皮腫と異なり感受性を有するなどの点で鑑別可能であると述べている。

本症例における発生起源は、口腔粘膜上皮との関連性が認められることから、口腔粘膜上皮をその発生由来とする考え方も可能であるが、現状ではその正確な由来を解明するには至らず、今後のこの方面の研究を待つ以外はない。

結 論

上顎正中部に発生し、出血を主訴として当科受診した peripheral ameloblastoma と思われる症例を経験したので報告した。また同時に出血の原因と考えられる肝硬変における出血傾向についての考察もあわせて行った。

稿を終えるにあたり、病理組織学的所見についてご教示を頂いた本学第2病理学教室外野正己教授に謝意を表します。なお本論文の要旨は、第20回日本口腔外科学会総会 (1975年) において発表した。

引用文献

- 1) Lee, K.W., et al.: Peripheral ameloblastoma. Brit J Oral Surg 8: 150 1970.
- 2) Stanley, H.R. Jr., et al.: Peripheral amelo-

- blastoma; report of a case. *Oral Surg* 12: 760 1959.
- 3) Wertheimer, F.W., et al.: Peripheral ameloblastoma in a papilloma with recurrence, report of a case. *J Oral Surg* 30: 47 1972.
 - 4) Balfour, R.S., et al.: Multicentric peripheral ameloblastoma. *J Oral Surg* 31: 535 1973.
 - 5) Simpson, H.E.: Basal-cell carcinoma and peripheral ameloblastoma. *Oral Surg* 38: 233 1974.
 - 6) Richard, K., et al.: Peripheral ameloblastoma: report of case and review of the literature. *J Oral Surg* 35: 670 1977.
 - 7) 浅田洗一, 他: 周辺性 (骨外性) エナメル上皮腫の 1 例. *日口外誌* 22: 417 1976.
 - 8) 右田信行, 永井晴彦: Peripheral ameloblastoma の 1 例. *日口外誌* 21: 85 1975.
 - 9) 手島貞一, 他: Peripheral ameloblastoma の 1 例. *日口外誌* 23: 391 1977.
 - 10) 大野 均, 他: Peripheral ameloblastoma の 1 症例 (会). 第 33 回日本口腔科学会総会抄録, 1979, 42 頁.
 - 11) Wallen, N.G.: Extraosseous ameloblastoma. *Oral Surg* 34: 95 1972.
 - 12) Klinar, K.L. and Mcmanis, J.C.: Soft-tissue ameloblastoma; report of a case. *Oral Surg* 28: 266 1969.
 - 13) 原田雅博, 他: 下顎臼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.
 - 14) 柘植精一, 他: 歯肉に発生したエナメル上皮腫の 1 例. *口科誌* 16: 395 1967.
 - 15) Deykin, D., et al.: The Role of the Liver in serum-induced hypercoagulability. *J Clin Invest* 45: 256 1966.
 - 16) Johansson, S.A.: Studies on blood coagulation factors in a case of liver cirrhosis. *Acta Med Scand* 175: 177 1964.
 - 17) Hiros, J., et al.: Effect of fibrin and fibrinogen proteolysis products on clot physical properties. *Am J physiol* 209: 415 1965.
 - 18) Aisenberg, M.S.: Histopathology of ameloblastomas. *J Oral Surg* 6: 1111 1953.
 - 19) Villa, V.G.: A case of ameloblastoma derived from adult oral epithelium. *Oral Surg* 6: 1216 1953.
 - 20) 石川裕朗: 歯原腫瘍について, 特に病理学的方面から (その 1). *口病誌* 26: 462 1959.
 - 21) Small, I. Waldron, C.: Ameloblastoma of the jaws. *OS OM OP* 8: 281 1955.
 - 22) 上野賢一: 老年者の皮膚科診療, 近代医学社, 東京, 1975, 110 頁.
 - 23) 井上勝平, 他: 基底細胞腫 (2) ——とくに頭蓋咽頭腫, エナメル上皮腫との類似性——. *皮膚臨床* 16: 345 1974.