12歳、男子の下顎に生じた顎骨中心性扁平上皮癌の1症例

戸塚靖則・富田喜内・浜本淳二・工藤元義・井上農夫男
有末 真・雨宮 璋*・向後隆男*・東 富雄*

Central squamous cell carcinoma of the mandible
in child aged 12: Report of a case

Yasunori TOTSUKA · Kinai TOMITA · Junji HAMAMOTO · Motonori KUDŌ · Nobuo INOUE
Makoto ARISUE · Akira AMEMIYA* · Takao KOHGO* · Tomio AZUMA*

緒 言 症 例

悪性腫瘍、なかでも癌腫は中・高齢者に好発する疾患で、小児に生ずることは比較的まれなものである。平山¹⁾の報告によれば昭和49年の全癌死亡数 133,751 に対し、小児癌死亡数は 1,471 で、死亡数でみる限り小児の悪性腫瘍は全体のわずか 1.1% を占めるにすぎない。また小児悪性新生物全国登録²⁾によれば昭和49年の登録数は 1,000 例で、このうち口腔領域に生じたものはわずか 1 例のみであった。小児の悪性腫瘍の特徴の 1 つは肉腫の頻度の高いことであるが、口腔領域に生ずる場合も同様に肉腫の頻度が高いとされ、癌腫症例の報告はきわめて少ない。われわれが渉猟し得た限りでは本邦より 5 例、諸外国より 15 例の計 20 例が報告されているにすぎなかった。

われわれは 12 歳、男子の下顎に生じた扁平上皮癌を経験した。本症例は臨床的、病理組織学的に顎骨中心性に発生したものと考えられ、また歯原性上皮由来を示唆する所見を示した。われわれはこのようなきわめてまれな症例を経験したので、その概要を報告するとともに、その由来上皮に関して若干の考察を試みた。また、顎・口腔領域に生じた小児癌について文献的考察を行ったのであわせて報告する。

患 者：■■■■■ 12 歳 男性。

初 診：昭和 52 年 7 月 ■■■■■

主 訴：左側下顎骨体部の腫脹。

家族歴および既往歴：特記事項はない。

現病歴：当科初診の約 1 年前、左側下顎歯肉頬移行部に食物が停滞することに気づいた。左側下顎歯肉部は軽度発赤・腫脹し、また軽度の圧痛が認められたが、自発痛を欠き全身的にも異常が認められないため放置していた。その後、症状が改善しないため、昭和 52 年 3 月、某歯科医を受診し口内炎の診断にて約 2 か月間、同部の洗浄を受けていた。昭和 52 年 6 月中旬、左側下顎骨体部の腫脹に気づき、さらにその数日後、左顎下リンパ節の腫大が認められたため、他の歯科医を受診した。X 線検査により「15」ろ泡性歯嚢胞と診断され、精査と治療の目的で当科を紹介され、昭和 52 年 7 月 ■■■■■ 受診した。なお、初発より当科初診までの間、発熱、倦怠感、食欲不振などは認められていない。また「15」に関しては明らかな記憶がなく、自然脱落したものと思われた。

現 症：体格はやや小柄であるが、発育・栄養はともに中等度で、また全身所見には特記事項はない。

顔貌所見：顔色良好で、眼瞼結膜に貧血はない。顔貌は非対称で、左側下顎骨体部に骨様硬、びまん性の膨隆が認められる。同部の皮膚はほぼ正常であるが、左側オートガイ領域に軽度の知覚低下が認められる（写真 1）。左顎下部に小指頭大、弾性硬、可動性、無痛性のリンパ節 1 個、また左右顎下部に、米粒大より小豆大までの大きさの、弾性軟、可動性、無痛性のリンパ節を数個触知するが、顎部リンパ節は触知されない。

口腔内所見：開口度 48 mm で開口制限なく、下顎運動にも異常は認められない。「17」部より左側臼後三角部にわたる歯槽突起部に、表面やや不整で軽度の圧痛を伴う、弾性硬の腫脹が認められる（写真 2, 3）。被覆粘膜は一部暗赤色を呈し、また部分的に斑状の色素沈着がみ

北海道大学歯学部第 1 口腔外科学教室（主任：富田喜内教授）

* 北海道大学歯学部口腔病理学教室（主任：雨宮璋教授）

Department of Oral Surgery 1, School of Dentistry, Hokkaido University (Chief: Prof. Kinai Tomita)

* Department of Oral Pathology, School of Dentistry, Hokkaido University (Chief: Prof. Akira Amemiya)

受付日：昭和 54 年 8 月 20 日

写真 1 初診時顔貌所見

左側下顎部にびまん性の骨膨隆が認められる。

られる。14 はわずかに遠心傾斜し、また15 部粘膜には軽度の陥凹がみられるが、潰瘍はみられない。14 部より後方の歯肉頬移行部に浅い陥凹がみられ、周囲に軽度の硬結が触知される。口腔底、舌、前口蓋弓部には異常は認められない。14、16 はともに失活しており、軽度の動揺がみられる。8578 は未萌出である。

X線所見：15 相当骨体部に中央に埋伏歯を有する類円形の透過像が認められる。167 の歯根膜腔は軽度に拡大しており、また同部歯槽骨にわずかながら骨硬化像が認められるが、明らかな骨破壊像は認められない(写真4)。

胸部X線所見には特記事項はない。

臨床検査所見：アルカリ性フォスファターゼ値29.7単位と軽度上昇を認める以外は、すべて正常範囲内である(表1)。

臨床診断：下顎腫瘍、ろ胞性歯嚢胞(15)。

処置：歯槽突起部および頬粘膜硬結部より採取した組織片は、病理組織学的に癌腫と診断されたため、左顎下リンパ節の試験切除を行った。病理組織学的検索の結果、同リンパ節への転移が確認され、病理組織学的に扁平上皮癌と診断された。昭和52年7月入院し、Betatronにて、2,500 rads/10回の術前照射を行った。9月、全身麻酔下にて左側全顎部廓清術、下顎連続離断術および腫瘍摘出術を施行した。下顎は3部および左側上行枝部で切断し、骨欠損部は1次的にチタニウム板にて架橋した。口腔粘膜は硬結部より最小限10 mmの健康部を含んで切除し、創は1次的に縫合閉鎖した。

摘出物の肉眼的所見およびX線所見：3部および下

写真 2 初診時口腔内所見

歯肉・歯槽部に腫脹が認められるが潰瘍は認められない。

写真 3 同上

写真 4 初診時X線所見

中央に埋伏歯15を有する境界の明らかな類円形透過像が認められる。また、167部歯槽骨に軽度の骨硬化像が認められる。

顎上行枝部の骨切断面は健康で、また軟組織切開部にも異常はみられなかった。下顎骨は13~6相当部で頬舌的に、びまん性に膨隆していた。顎下部、頸静脈周囲に多数のリンパ節が認められたが、いずれも弾性軟で、周囲

表 1 初診時臨床検査成績

血液一般検査		ALP	28.2 U
赤血球数	451×10 ⁴ /ml	GOT	35 U
血色素量	12.6 g/dl	GPT	25 U
ヘマトクリット値	39%	LDH	305 U
血小板数	19.5×10 ⁴ /dl	BUN	12.6 mg/dl
白血球数	4,600/dl	電解質	
Eos.	1.5%	Na	142 mEq/l
Baso.	0	K	4.6 mEq/l
Mon.	3.0%	Cl	104 mEq/l
Seg.	49.0%	Ca	9.6 mg/dl
St.	2.5%	無機燐	3.5 mg/dl
Lympho.	44.0%	その他の検査	
生化学検査		W氏反応	(-)
総蛋白	8.2%	尿蛋白	(-)
ZTT	3.6 KU	尿 糖	(-)
TTT	0.1 KU	CRP	0
総ビリルビン	0.6 mg/dl	ASLO	160 U
総コレステロール	169 mg/dl	γ-gl.	19.4%
Ch-E	0.71 ΔpH		

との着着なく、肉眼的に転移を疑わせるものはなかった(写真5)。Softex による摘出物の X線所見は、初診時のX線所見とほぼ同様であったが、垂直方向の撮影像において17部の頰側骨皮質に放射状の骨新生像が認められた。囊胞様骨透過像を示した部分の骨皮質は、頰舌的にかなり膨隆希薄化していたが、連続性で骨欠損を示す所見は得られなかった(写真7, 8)。

病理組織学的所見：

生検標本(歯肉および歯槽粘膜)：粘膜上皮下に、部位により多少異なる増殖形態を示す癌組織がみられた。一般に明瞭な核小体と均質な核質を有する、円形ないしは卵円形の大きな核をもつ腫瘍細胞が比較的充実に増殖していた(写真9)。細胞質は淡明なものも多く、角化の傾向には乏しいが、一部では好酸性の境界明瞭な細胞質を有するものもみられた。核分裂像はほとんど認められなかった。間質には多数の好酸球を含む著明な炎症性細胞浸潤がみられ、癌胞巣の基底膜は明かではなかった。このような部位に近接して、明瞭な棘をもち、角化の傾向を示す腫瘍細胞よりなる多数の小さな類円形増殖巣もみられた。また一部に2, 3列の、類円形の濃染する核と好酸性の胞体を有する腫瘍細胞よりなる短い索状の増殖巣もみられたが、胞巣の一部は太さを増し、表皮様を呈していた。このような部位では、比較的緻密な線維性組織よりなるかなり多量の間質がみられた(写真10)。一般に被覆上皮の基底膜は明瞭であったが、一部で腫瘍との境界が不鮮明な部位もみられた。

写真 5 摘出物所見

15 相当部の歯槽に陥凹が認められる。

生検標本(顎下リンパ節)：リンパ節は充実に増殖した癌組織でほとんど置き換えられ、リンパ組織は周辺部にわずかに認められるにすぎなかった。腫瘍実質は1, 2個の明瞭な核小体と網状に分布する核質をもち、円形、卵円形あるいは多角形で、異型性の著明な核を有する細胞よりなっていた。一般に細胞質は少なく不整形で、角化の傾向はほとんど認められなかったが、ところどころに、境界明瞭な好酸性の胞体をもち、わずかながら角化の傾向を示す細胞もみられた。核分裂像はほとんど認められなかった。間質は少なく、鬆疎な線維がわずかに認められる程度であったが、多数の好酸球を含む著明な細胞浸潤が認められた(写真11)。また一部には壊死巣もみられた。

摘出物標本：埋伏歯(15)を中心に近遠心的には14から16遠心部に及ぶほぼ球状の骨吸収がみられ、15歯冠を包むように癌組織が認められた(写真12)。骨吸収は著明で、下縁部では骨皮質はほとんど認められなかった。15は、根尖部で頰側への屈曲を示していたが、それ以外は形態はほぼ正常で、また歯髄腔への癌の浸潤は認められなかった。15のエナメル・セメント境からエナメル質の外形に一致する形で1, 2層の退縮エナメル上皮がみられたが、これは舌側咬頭部で陥凹している口腔粘膜上皮と癒合し、連続性を示していた。この部の退縮エナメル上皮は肥厚し、扁平上皮様を呈していた。歯頸部には太い膠原線維が束をなして付着し、外側に向かって放射状に配列しており、癌組織は主としてこの線維束より歯冠側に認められた。

15 歯冠上部に最も著明な癌の浸潤がみられた(写真12~14)。この部では、一般に未分化な異型性の強い腫瘍細胞が比較的びまん性の増殖を示していた。このような胞巣は角化の傾向に乏しかったが、一部は表皮様で、大きな好酸性胞体を有する細胞もみられた。間質内にはリンパ球、形質細胞、好中球また部位によってはかなり多数の好酸球の浸潤がみられた。一部には褐色色素を食

写真 6 手術後1年7か月経過時の口腔内所見

食した大食細胞や大きな明るい胞体をもつ泡沫細胞も認められた。その他の部位では腫瘍実質は比較的小さな類円形の胞巣を形成していた。癌細胞は明瞭な核小体を有する大型の核と好酸性胞体を有する細胞で、その一部は明瞭な棘をもち、また癌真珠状を呈していた(写真14)。核の大小不同はみられたが、核分裂像はほとんど認められなかった。間質は疎な線維性組織よりなり、好酸球を含む炎症性細胞浸潤が著明で、胞巣の基底膜は不鮮明であった。なおこのような部位では、腫瘍細胞は一部変性傾向を示し、多核巨細胞による食食像も認められた。癌胞巣の一部は退縮エナメル上皮ときわめて近接していたが、連続する像は明らかではなかった(写真12, 15)。頰側の粘膜上皮は薄く、その一部は陥凹部を被覆していたが、底部付近では上皮は欠如しており肉芽組織および癌組織が露出していた。舌側の粘膜上皮はやや厚かったが、陥凹部の一部は同様に上皮が欠如しており、癌組織が露出していた(写真12)。

歯槽粘膜上皮下にも癌胞巣は認められたが、小唾液腺への癌細胞の浸潤はみられなかった。癌細胞は、主として小さな胞巣を作って浸潤し、その浸潤範囲は「J」から「7」遠心側に及んでいた(写真16)。「6」舌側歯肉部には比較的未分化な充実性の胞巣がみられた。「7」遠心根部では歯根膜内にも癌胞巣が認められた。「67」部顎骨、特に下縁部および頰側部に外骨膜性の著明な骨新生がみられ、この新生骨梁間にも癌胞巣が認められた(写真17)。「7」歯冠の頰側上方に歯牙様硬組織の小塊が存在し、それに近接して歯原性石灰化上皮腫を思わせる上皮の増殖巣がみられたが、異型性などの悪性像はなく、周辺に存在する癌胞巣との直接の関係は認められなかった(写真18)。

顎下リンパ節および顎部リンパ節には転移巣は認められなかった。

経過：手術後の経過は良好であったが、術後2か月に顎下部に褥瘡性潰瘍を生じチタニウム板の露出がみられた。ただちにチタニウム板を除去し、創は一次的に

表 2 当教室における悪性腫瘍症例

全悪性腫瘍症例	255例
組織学的に明らかな新鮮症例	221
癌腫	196 (扁平上皮癌 169)
肉腫	25

小児悪性腫瘍	3例 (1.4%)
1. 12歳, 男 下顎 扁平上皮癌 (本例)	
2. 4歳, 女 下顎肉肉 リンパ肉腫	
3. 6歳, 女 上顎肉肉 リンパ肉腫	

(北大口外：S 42. 8～S 52. 7)

閉鎖した。その後の経過は良好で、手術後2年経過した現在、局所再発あるいは遠隔転移の徴候もみられず健在である。また下顎および顎部の運動制限も認められない(写真6)。

考 察

小児の悪性腫瘍は単に頻度が低いというばかりでなく、1) 肉腫の占める割合が大き、2) 種類がきわめて多い、3) 胎児性組織より生ずるものがあるなど、成人に生ずる悪性腫瘍とはかなりの相違がみられ、また臓器別発生頻度や病理組織像にも著しい差がみられる¹⁻³⁾。さらに悪性度が高い、主訴・症状が理解しがたい、成長期に発生するなど、診断・治療の面でも成人の場合とは異なった困難性を有している⁴⁾。

小児の悪性腫瘍のなかでも顎・口腔領域に生ずるものはきわめて少ないが、そのなかでは一般に肉腫の頻度が高いとされている⁴⁻⁸⁾。西嶋ら⁹⁾は口腔領域の小児悪性腫瘍13例中、癌腫はわずか1例(粘表皮癌)であったと報告している。山本ら⁹⁾は同じく6例中、癌腫は下顎に転移した Wilms 腫瘍1例のみであったと報告している。われわれの症例でも、昭和42年8月より昭和52年7月までの10年間に扱った小児悪性腫瘍3例中、癌腫は本症例1例のみで他の2例は悪性リンパ腫症例であった(表2)。顎・口腔領域原発の小児癌腫症例の報告はきわめて少ないが、岡ら¹⁰⁾は7歳女子の歯肉癌症例を報告し、あわせて内外文献より得られた16例の原発性小児口腔癌腫症例を検討している^{5, 11-19)}。われわれはさらに3例の追加症例^{4, 20, 21)}を渉猟し得たので、本症例を加えた21例について検討した(表3～5)。これによれば原発性小児口腔癌腫はいずれの年齢層にも発生しうるものであるが、他部位の小児悪性腫瘍が5歳以下の幼児に好発するのに比べ¹⁾、5歳以上の年長児に好発する傾向がみられる。男女比は2対1で男児に好発しており、成人の口腔癌腫症例と同様の結果である²²⁾。発生部位は、舌7例、下顎6例と両者で過半数を占めるが、その他、口唇、口腔底、上顎、歯肉にも発生しており、口腔諸臓器のどの

表 3 小児口腔癌腫の報告例

報告者 (年次)	部 位	種 類	年 齢	性	初発症状 (病期期間)	治 療	予 後
1 Frank, 他* (1936)	舌	扁平上皮癌	2 週	男	不 明	不 明	観察中
2 Saleeby* (1940)	舌	扁平上皮癌	15歳	女	不 明	不 明	死 (10か月)
3 New, 他* (1940)	舌	扁平上皮癌	13歳	男	不 明	不 明	不 明
4 New, 他* (1940)	下口唇	扁平上皮癌	13歳	男	不 明	不 明	不 明
5 Aisenberg (1942)	下顎	癌	9 歳	男	下顎腫脹, 抜歯後潰瘍 (6 週)	手 術	不 明
6 Campelia (1943)	下顎	未分化癌	9 歳	男	腫脹, 潰瘍 (7 週)	手 術	観察中 (再発あり)
7 Kapiloff (1952)	下口唇	扁平上皮癌	6 か月	男	腫瘤形成 (6 週)	手 術	観察中
8 Dowd (1954)	上顎歯肉	扁平上皮癌	10歳	男	PM 動揺, 腫脹 (3 週)	手 術	観察中 (6 か月)
9 Merrifield, 他 (1955)	舌・口腔底	扁平上皮癌	4 歳	女	腫脹, 潰瘍 (3 か月)	手術, 放射線	死 (4 か月)
10 Stiebitz (1963)	下顎	未分化癌	15歳	男	8 部腫脹	手術, 化学療法	死 (4 か月)
11 Jones (1966)	下顎	未分化癌	4 歳	女	43 変位, 腫脹	手術, 放射線	観察中 (1 年)
12 Marsden, 他* (1968)	口腔底	扁平上皮癌	3 歳	男	不 明	不 明	不 明
13 上野 (1969)	上顎歯肉	未分化癌	7 歳	男	不 明	不 明	死
14 太田 (1969)	舌	扁平上皮癌	7 歳	男	不 明	不 明	死
15 Lancaster, 他 (1969)	舌	扁平上皮癌	6 歳	男	腫脹, 潰瘍 (2 か月)	放射線	死 (9 か月)
16 Turner, 他 (1974)	舌	扁平上皮癌	12歳	男	疼痛, 潰瘍 (2 か月)	放射線, 手術	死 (11か月)
17 西嶋, 他 (1974)	上口唇	粘表皮癌	14歳	女	不 明	不 明	不 明
18 Caldwell, 他 (1974)	上顎洞	未分化癌	8 歳	女	腫脹 (10日)	手術, 化学療法	死 (10か月)
19 作田, 他 (1975)	上顎	未分化癌	3 か月	女	A 早期萌出, 腫脹 (20 日)	化学療法 (中断)	観察中 (3 年 3 か月)
20 岡, 他 (1975)	下顎歯肉	扁平上皮癌	7 歳	女	腫脹, 潰瘍 (17日)	手 術	観察中 (2 年 6 か月)
21 本例 (1979)	下顎	扁平上皮癌	12歳	男	腫脹 (1 年)	放射線, 手術	観察中 (2 年)

* 文献10) より転載

表 4 小児口腔癌腫の病理組織別および性別発生頻度

扁平上皮癌	13例 (62%)	男	14例
未分化癌	6例 (29%)	女	7例
粘表皮癌	1例	(2 : 1)	
癌	1例		
計	21例		

表 5 小児悪性腫瘍の年齢別頻度

年 齢 (歳)	0~1	1~4	5~9	10~15
小児悪性腫瘍死亡数 ¹⁾	107	584	430	350
小児口腔癌	3	3	7	8

田ら²¹⁾は十分な治療を行い得なかったにもかかわらず腫瘍の消失をみた興味ある1例を報告し, 自然退縮したものであろうと推論している。埴⁸⁾も新生児期においては腫瘍の自然寛解をみることがあると述べている。

本症例は臨床的・病理組織学的に顎骨内より発生した, いわゆる顎骨中心性癌の所見を示した。顎骨の癌腫は, 一般に口腔粘膜ないしは顎骨周囲組織に生じた癌腫の顎骨浸潤によるものが多いとされ^{23, 24)}, また顎骨中心性に発生したと考えられる場合でも, 他領域に生じた原発巣よりの転移巣であることが多いとされ²⁴⁾, 顎骨中心性癌と診断する場合, これらの可能性が否定されなければならない。本症例は下顎歯肉部の腫脹を初発症状としていたが, 初診時口腔粘膜に潰瘍は認められず, また下顎骨体部の腫脹に比べ, 歯肉部の腫脹は軽度であった。

表 6 顎骨の病腫における上皮成分の由来

1. 口腔粘膜ないしは顎骨周辺諸臓器に生じた病腫の顎骨への連続性浸潤
2. 遠隔臓器に生じた病腫よりの顎骨への転移
3. 顎骨中心性癌（原発性顎骨癌）
 - 1) 歯源性上皮
 - a. 歯堤の残遺上皮
 - b. 歯根膜内の残遺上皮
 - c. 退縮エナメル上皮
 - d. 歯堤上皮・歯胚上皮成分
 - e. 歯源性腫瘍の上皮成分
 - f. 歯性嚢胞の上皮成分
 - 2) 胎生期の諸突起融合部の残遺上皮
 - 3) 顎骨内迷入上皮（胎生期上皮，唾液腺上皮，粘液腺上皮等）

X線所見でも下顎骨体部に、中央に埋伏歯（15）を有する円形の嚢胞様透過像が認められたのみで、歯肉腫脹部に一致した歯槽突起部に明らかな吸収破壊像は認められなかった。病理組織学的にも腫瘍の大部分は下顎骨骨髓内に存在していた。摘出物標本の一部に歯肉上皮を欠き腫瘍の露出している部分が認められたが、これは組織片採取による二次的なものと考えられる。また歯肉上皮と退縮エナメル上皮とが密接に関係している部分がみられたが、これは16脱落后、歯槽窩に増殖した歯肉上皮と退縮エナメル上皮とが二次的に接触癒合したものと考えられる。同部の退縮エナメル上皮は軽度の肥厚を示していたが、異型性は認められなかった。

本症例が転移症例である可能性については、治療前後の全身精査および現在までの経過上、原発巣と考えられる腫瘍が認められていないこと、口腔転移癌は一般に腺癌が多いこと²⁵⁾、さらに後述するごとく病理組織学的に歯源性由来を示唆する所見が得られていることなどから、その可能性は少ないと考えられる。

顎骨中心性癌における上皮性細胞の由来については、一般に、歯堤の残遺上皮、歯根膜内の残遺上皮、退縮エナメル上皮、胎生期の諸突起融合部に残存した上皮および顎骨内嚢胞の上皮成分などが考えられている^{12,16,23,24,26-32)}。その他、歯源性腫瘍の上皮成分³³⁾、顎骨内に迷入した胎生期上皮ないしは腺上皮などからも発生しうるものとされている³⁴⁻³⁶⁾（表6）。いずれにしてもきわめてまれなものであるが、そのなかでは顎骨内嚢胞の上皮成分より生じたとする報告が多い³⁷⁻⁴¹⁾。Eversole ら³³⁾は顎骨中心性に生じた扁平上皮癌症例36例および粘表皮癌症例27例の報告例を検討し、前者の75%が歯性嚢胞と、また後者の48%が歯性嚢胞ないしは埋伏歯と関係していたと報告している。その他の報告でも歯性嚢胞との関係を強調しているものが多いが、他方 Morrison ら²⁶⁾

のごとく顎骨中心性癌9例中、歯性嚢胞に関係したものはわずか3例であったとする報告もみられる。本症例はX線所見上、ろ泡性歯嚢胞に類似した像を呈し、手術前、嚢胞との関係が考えられていた。しかし、摘出物剖面は充実性で、病理組織学的にも骨欠損部はすべて腫瘍組織で置き換っており、嚢胞壁上皮成分とみなされる所見は得られなかった。さらに15歯冠の外形に一致して退縮エナメル上皮が存在することから、15に直接関連したろ泡性歯嚢胞に由来したという可能性は少ないと考えられる。Nolan²⁹⁾によれば嚢胞以外の顎骨内上皮成分より発生した顎骨中心性癌においても、緩徐な発育を示す場合、辺縁平滑な、境界の明瞭な骨透過像を呈するとされ、本症例はこれに相当するものと考えられる。

腫瘍細胞の増殖形態は主として小胞巣状を呈していたが、一部には索状の増殖も認められた。腫瘍細胞の増殖・浸潤の主体は埋伏15歯冠周囲に認められ、そのなかでも退縮エナメル上皮に近接する部に特に著明であった。またこの部の腫瘍細胞は比較的未分化で、異型性が強く、比較的びまん性の増殖形態を示しており、これらの所見は腫瘍細胞と退縮エナメル上皮との密接な関係を示唆するものと考えられる。前述した小児口腔癌腫症例中、顎骨中心性に生じたとされている症例は4例で、いずれも歯源性由来とされている。Aisenberg¹¹⁾は著明な骨新生を伴う症例を報告し、発生部位および腫瘍細胞の増殖形態より歯源性由来が示唆されると述べ malignant adamantoblastoma と命名している。Campelia¹²⁾は17の早期萌出および骨髄の広範な破壊を示す症例を報告し、腫瘍細胞が未分化なことより歯源性上皮に由来した embryogenic carcinoma であろうと推論している。Stiebitz¹⁶⁾は8歯冠周囲にろ泡性歯嚢胞に類似した骨透過像を呈する症例を報告し、8周囲の歯源性上皮に過形成および小嚢胞形成が認められることより同上皮由来の可能性が高いと述べている。これらは腫瘍と埋伏歯ないしは歯源性上皮との密接な関係および腫瘍細胞の増殖形態などより歯源性由来と考えられているものであるが、Jones¹⁷⁾は腫瘍細胞と退縮エナメル上皮とが直接連続性を示す症例を報告し、エナメル上皮腫の malignant variant であろうと述べている。本症例は前述したごとく、顎骨の広範な破壊、15埋伏歯および退縮エナメル上皮との密接な関係、腫瘍細胞の多形性および小胞巣状増殖が認められたことなどより歯源性上皮、そのなかでも退縮エナメル上皮より由来した可能性が高いと考えられた。しかしながら腫瘍細胞と退縮エナメル上皮との間に、明らかな連続性は認められておらず、腫瘍の浸潤部位より歯堤の残遺上皮より生じた可能性も否定できない。また未萌出の17歯冠上部の歯肉粘膜下に認められた歯源性石灰化上皮腫を思わせる像は、本腫瘍との直接的な関係は明らかではないが、本症例の歯源性組織の異常を示唆する所見と考えられる。

摘出物骨膜下に明らかな放射状の新生骨が認められたが, Aisenberg¹¹⁾, Campelia¹²⁾ も同様の所見を認めており, 腫瘍増殖に伴う反応性のものであろうと推論している。一般に成人の下顎癌症例では認められないことより, 成長期の小児に生ずる悪性腫瘍に特徴的な所見と考えられる。

結 語

1. 12歳, 男子の下顎に, 顎骨中心性に生じた扁平上皮癌の1例について報告した。

2. 本症例は臨床的所見およびX線所見より, 手術前, 口腔性歯嚢胞との関係が強く疑われていたが, 摘出物の病理組織学的検索ではX線像で骨欠損を示した部位はすべて腫瘍組織で満たされており, 嚢胞の存在は認められなかった。

3. 本症例は顎骨の広範な破壊, 埋伏歯および退縮エナメル上皮との密接な関係, 腫瘍細胞の多形性および増殖形態などより, 歯源性上皮に由来したものと考えられた。

4. 本症例は術前照射 (2,500 rads/10回) 後, 左側全顎部廓清術および下顎連続離断術が行われ, 術後2年経過した現在, 特に異常は認められず健在である。

5. 現在までに報告されている小児口腔癌腫症例に, 本例を加えた21例について検討した結果では, 小児口腔癌腫は顎・口腔領域のいずれの部位にも発生しうるものであるが, 特に舌, 下顎に好発する傾向がみられた。下顎に生ずる場合は成人の癌腫とは異なり顎骨中心性に生ずる頻度が高い。また, 他領域の小児悪性腫瘍に比べて比較的年長児に好発する傾向がみられた。

引 用 文 献

- 1) 平山 雄: 予防ガン学1977. 新宿書房, 東京, 1977, 118頁。
- 2) 財団法人がんの子供を守る会, 小児悪性新生物全国登録委員会: 小児悪性新生物 全国登録—1974年成績. 日本医師会誌 75: 1285 1976.
- 3) 境 嘉之: 小児の悪性腫瘍. 第1版, 医学書院, 東京, 1973, 1頁。
- 4) 西嶋克己, 他: 小児の悪性腫瘍. 歯界展望 43: 538 1974.
- 5) 上野 正: 小児の口腔外科的疾患. 日本歯科医師会誌 18: 3 1965.
- 6) Gaisford, J.C.: Symposium on cancer of the head and neck. vol 2, Mosby Co, St Louis, 1969, p 162.
- 7) Dehner, L.P.: Tumors of the mandible and maxilla in children I. Cancer 31: 364 1973.
- 8) 松浦 鎮: 小児の頭頸部悪性腫瘍. 癌の臨床 14: 750 1968.

- 9) 山本悦秀, 他: 小児の口腔腫瘍に関する臨床統計的研究. 日口外誌 24: 83 1978.
- 10) 岡 達, 他: 7歳女子にみられた歯肉原発扁平上皮癌症例. 日口外誌 25: 457 1976.
- 11) Aisenberg, M.S.: Malignant epithelial tumor of mandible in child aged 9. Am J Orthodont Oral Surg 28: 736 1942.
- 12) Campelia, C.M., Boyle, P.E.: Embryonal carcinoma primary in the mandible of a child with involvement of tooth pulp. Am J Orthodont Oral Surg 29 299 1943.
- 13) Kapiloff, B.: Squamous cell carcinoma in children. Plast Reconstr Surg 10: 50 1952.
- 14) Dowd, J.F.: A case of squamous cell carcinoma of the oral cavity in a ten year old boy. Plast Reconstr Surg 13: 109 1954.
- 15) Merrifield, J.W., Dalitsch, W.W. and Steiner, M.: Epidermoid carcinoma of tongue and floor of mouth in infancy and childhood. Am J Dis Child 89: 281 1955.
- 16) Stiebitz, R.: Zentrale Kieferkarzinome bei Kindern und Jugendlichen. Deutsche Zahn-, Mund-und Kieferheilkunde 40: 109 1963.
- 17) Jones, J.H.: Soft Tissue Oral Tumours in Children: Their Structure, Histogenesis and Behaviour. Proc R Soc Med 59: 5 1966.
- 18) Lancaster, L., Fournet, L.F.: Carcinoma of a tongue in a child; Report of case. J Oral Surg 27: 269 1969.
- 19) Turner, H., Snitzer, J.: Carcinoma of the tongue in a child. Oral Surg 37: 663 1974.
- 20) Caldwell, R.D., Morrow, L. and Gold, L.: Carcinoma of the maxillary antrum in an 8-year-old child. Part 1, Part 2. J Oral Surg 32: 278, 367 1974.
- 21) 作田正義, 他: 自然治癒した小児癌の1例. 癌の臨床 21: 296 1975.
- 22) 石川梧朗, 秋吉正豊: 口腔病理学Ⅱ. 改裝版, 永末書店, 京都, 1970. 1010頁。
- 23) Gorlin, R.J., Goldman, H.M.: Thoma's Oral Pathology II. ed 6, Mosby Co, St Louis, 1970, p 846.
- 24) Lucas, R.B.: Pathology of Tumours of the oral tissues. ed 2, Churchill Livingstone, Edinburgh & London, 1972, p 137.
- 25) 尾崎登喜雄, 他: 口腔転移癌 (腺癌) の2例並びに文献の考察. 日口外誌 27: 173 1978.
- 26) Morrison, R., Deeley, T.J.: Intra-alveolar carcinoma of the jaw treatment by supervoltage radiotherapy Br J Radiol 35: 321 1962.
- 27) Pindborg, J.J., Kramer, J.R.: Histological Typing of Odontogenic Tumours, Jaw Cysts, and Allied lesions. International Histological Classification of Tumours No 5. Geneva, Switzerland, WHO, 1971.

- 28) Looser, K.G., Kuehn, P.G.: Primary tumors of the mandible. A Study of 49 cases. *Am J Surg* 132: 608: 1976.
- 29) Noran, R., Wood, K.N.: Central Squamous cell carcinoma of the mandible. *J Oral Surg* 34: 260 1976.
- 30) Shear, M.: Primary intra-alveolar epidermoid carcinoma of the jaw. *J Pathol* 97: 645 1968.
- 31) De Lathouwer, C., Verhest, A.: Malignant primary intraosseous carcinoma of the mandible. *Oral Surg* 37: 77 1974.
- 32) Sirsat, M.V., et al.: Primary intra-alveolar squamous-cell carcinoma of the mandible: Report of case. *Oral Surg* 35: 365 1973.
- 33) Eversole, L.R., Sabes, W.R. and Rovin, S.: Aggressive growth and neoplastic potential of odontogenic cysts. *Cancer* 35: 270 1975.
- 34) Bhaskar, S.N.: Central mucoepidermoid tumors of the mandible; Report of cases. *Cancer* 16: 731 1963.
- 35) Brawand, B.C., et al.: Central mucoepidermoid tumors of the jaws. *Oral Surg* 40: 631 1975.
- 36) 虫本浩三, 他: 下顎骨にみられた中心性腺様嚢胞癌の1例について, *日口外誌* 24: 973 1978.
- 37) Gorlin, R.J., Goldman, H.M.: *Thoma's Oral Pathology* I. ed 6, Mosby Co, St Louis, 1970. p 451, 846.
- 38) Bradfield, W.J., Broadway, E.S.: Malignant change in a dentigerous cyst. *Br J Surg* 45: 657 1958.
- 39) Banerjee, S.C.: Squamous-cell carcinoma in a maxillary cyst. *Oral Surg* 23: 193 1967.
- 40) Gardner, A.F.: The odontogenic cyst as a potential carcinoma: a clinicopathologic appraisal. *J Am Dent assoc* 78: 746 1969.
- 41) Lapin, R., et al.: Squamous cell carcinoma arising in a dentigerous cyst. *J Oral Surg* 31: 354 1973.

写真7 摘出物 Softex 所見

骨皮質は頬舌側とも膨隆希薄化しているが，連続性である（矢印）。|67 頬側骨皮質に放射状骨新生が認められる。

写真8 同 上

写真 9 | 5 部頬側歯肉部からの生検標本

比較的大きな核と淡明な細胞質をもつ腫瘍細胞が、小胞巣を作って充実性に増殖している。角化の傾向はほとんど示していない。間質には多数の好酸球が認められる。(H-E, $\times 170$)

写真 10 | 5 部頬側歯肉部から生検標本

濃染する核と好酸性の細胞質をもつ腫瘍細胞が短い索状の胞巣を作って増殖している。比較的緻密な線維性組織よりなる多量の間質がみられる。(H-E, $\times 170$)

写真 11 リンパ節転移巣の生検標本

異型性の比較の著明な腫瘍細胞が充実性に増殖している。間質には多数の好酸球が認められる。(H-E, $\times 340$)

写真 12 手術標本， $\overline{5}$ を通る頬舌の断面

$\overline{5}$ は根尖部で頰側へ屈曲しているが、歯冠部はほぼ正常の形態を示している。癌組織 (C) は主として歯冠周囲に増殖している。(H-E, $\times 3.3$)

E : 脱灰により溶出したエナメル質の空隙 S : $\overline{5}$ の歯槽に一致する陥凹部

写真 13 | 5 歯冠上方部の癌組織

びまん性に一部は小胞巣を作って増殖している。(H-E, $\times 34$)

EE: 口腔粘膜上皮と癒合して肥厚した退縮エナメル上皮 D: 象牙質 E: エナメル質の空隙

写真 14 | 5 歯冠上方部の癌組織

癌真珠様を呈する小胞巣を形成している。間質には好酸球の浸潤が認められる。(H-E, $\times 170$)

写真 15 「5」 歯冠舌側部の癌組織 (C)

退縮エナメル上皮 (EE 矢印) と密に接している。(H-E, $\times 34$)

D: 象牙質 E: エナメル質の空隙

写真 16 「4」 歯肉への浸潤

小さな癌細胞を作って増殖している (矢印)。間質には好酸球を含む炎症性細胞浸潤がみられる。(H-E, $\times 170$)

D: 象牙質 E: エナメル質の空隙 EA: 上皮付着

写真 17 17 部舌側の外骨膜性骨新生と新生骨内の癌胞巣 (H-E, $\times 68$)

写真 18 17 歯冠上方にみられた歯源性石灰化上皮腫を思わせる増殖巣。悪性像はみられない。(H-E, $\times 340$)