辺縁性エナメル上皮腫の1例

木下 帆彦・王 朝駿・井上 聡
下里 誠・島崎能理子・志村 介三

Peripheral ameloblastoma: Report of a case

Yukihiko KINOSHITA・Chōshun Ō・Satoshi INOUE
Makoto SHIMOZATO・Noriko SHIMAZAKI・Kaizo SHIMURA

緒 言

まれに、エナメル上皮腫が顎骨内に存在せずに、粘膜部にのみ認められることがあり本症は通常、辺縁性エナメル上皮腫(peripheral ameloblastoma, extraosseous ameloblastoma)と呼ばれているがその由来、本態については種々の論議のあるところである。今回われわれは68歳男性の下顎無歯顎歯槽堤部に生じた本症の1例を経験したので文献例の検索を加え、その概要を報告する。

症 例

患 者：68歳 男性。

初 診：昭和54年11月■日。

主 訴：左側下顎臼歯部歯肉の腫脹。

既往歴：昭和48年、左側顔面神経麻痺のため近医にて1か月間入院加療。数年前より高血圧症のため内科にて通院加療中。

家族歴：特記事項なし。

現病歴：3年前、某開業医にて上下顎の義歯を装着した。約1年前より義歯の適合が悪く、左下顎歯肉の発赤、腫脹に気づいていたが放置していた。1か月前より咬合痛が生じてきたため近医を受診し、当科を紹介され来院した。

現 症：全身所見では、体格、栄養状態は良好であり、顔貌はわずかな顔面神経麻痺の後遺症がみられるほかは異常はなかった。

口腔内所見では、445が動揺歯で、そのほかは欠損歯だが17相当部の歯槽堤部に、直径1.2cmの円形、広基性の腫瘤が認められた。腫瘤表面の粘膜はやや赤味を帯び、易出血性であった(写真1)。硬さは弾性軟で、圧

写真1 口腔内所見

痛は認められなかった。

X線所見：顎骨には特に異常はみられず、腫瘤部下部の歯槽骨にも病的变化はみられなかった(写真2)。

血液・尿検査所見：一般血液、血清学的検査値および尿検査値はいずれも正常範囲内であった。

臨床診断：下顎歯肉部良性腫瘍。

処置および経過：局所麻酔下にて、腫瘤を周囲の健康歯肉および骨膜とともに一塊として摘出した。露出骨面は平滑で、骨吸収などの異常は認められず、術後、アクロマイシンガーゼと義歯で保護された。摘出後の治癒は良好で、2年後の現在、臨床所見、X線所見などにも異常は認められない。

病理組織所見：摘出物の被覆粘膜上皮は非薄化あるいは上皮脚の不規則な延長がみられ、その直下にさまざまな上皮胞巣から成る腫瘍組織が認められる。腫瘍組織は部分的に上皮脚と連絡し、その境界が不明瞭となっている(写真3、4)。上皮胞巣は島状、叢状ないし歯堤状を呈し、間質と接する部分は立方状あるいは円柱状の細胞が配列し、円柱状細胞の核は胞巣中心部に向かって偏在している。胞巣内部はエナメル髓様を呈するものや、棘細胞あるいは角化した扁平上皮細胞がみられ、小嚢胞の形成も認められる。しかし核の多形性や核分裂像はほとんど認められない。間質は粘膜上皮に近い部分で

神奈川歯科大学口腔外科学教室

(主任：志村介三教授)

Department of Oral Surgery, Kanagawa Dental College (Chief: Prof. Kaizo Shimura)

受付日：昭和56年11月25日

写真 2 X線所見

A: オルソパントモ撮影

B: 左側下顎臼歯部デンタル撮影

写真 4 組織弱拡大像

腫瘍組織と口腔粘膜上皮が直接連絡している。

写真 3 最大断面の組織像

はリンパ球を主とする炎症性細胞を伴い、比較的密な膠原線維よりなるが、深部では炎症性細胞浸潤はほとんど認められず、疎な線維性の結合組織から成っている(写真5)。

病理組織学的診断: エナメル上皮腫のⅠないしⅡ型(宮崎・荒井の分類), acanthomatous type ないし pleomorphic type.

確定診断: 以上の臨床所見と病理組織所見から辺縁性エナメル上皮腫と考えた。

考 察

1. 文献報告例について

辺縁性エナメル上皮腫の報告例はまれであり、われわれがこれまで文献を渉猟し得た範囲では、欧米においては1949年、Braunstein が extraosseous adamantinoblastoma なる名称のもとに本症を報告して以来、20例、本邦においては1967年、柘植らの報告以来9例である(表1)^{1)~27)}。これらの文献報告例から本症の病態像をまとめてみると以下のごとくである。

1) 臨床像について

性 別: 男性18例, 女性11例で男女比は1:0.61と男性に多く、特に本邦では9例中女性はずか1例である。これは性差のほとんどみられない骨内性エナメル上皮腫に比べ特徴的である。

年 齢: 最低23歳¹⁰⁾, 最高92歳²³⁾, 平均51.5歳で年代別では60歳代に最も多く、40歳以後が全体の72.4%を占めている。骨内性エナメル上皮腫が20~30歳に多いのに比べ対照的である。

発生部位: 下顎歯肉が15例(51.7%)と最も多く、次いで上顎歯肉10例(34.5%), 軟口蓋, 頬粘膜は各2例(それぞれ6.9%)である。歯肉の中では臼歯部が多く、舌側あるいは口蓋側に多い(図1)。このことは歯胚形成部位と上皮遺残がこの部位に多いことと関係しているのかもしれない。本例では歯牙が欠損しており、臼歯部

写真5 腫瘍組織強拡大像

- A: 間質と接する部分の細胞は立方形あるいは円柱形を呈している。胞巣内部はエナメル髓様所見を呈す (H-E, $\times 100$).
- B: 腫瘍実質は歯堤状を呈し、角化した扁平上皮細胞が認められるが、核の多形性、核分裂像は認められない (H-E, $\times 100$).
- C: 腫瘍深部組織像。腫瘍実質は束状に増殖し、間質は疎な線維性結合組織よりなり、炎症性細胞浸潤は認められない (H-E, $\times 200$).

歯肉歯槽頂部に生じていた。

臨床症状: 一般に無痛性、限局性の腫瘍として認められ、エプーリス様を呈するものが多い。病悩期間は最短3週¹⁾、最長14年¹¹⁾とかなり幅がみられるが、大きさは最小0.5cm¹⁵⁾、最大が拇指頭大^{16,26)}で1~2cmのものが多い。本例も大きさは直径1.2cmで、腫瘍に気づいてから来院まで約1年経過しており、腫瘍の発育はかなり緩慢と思われる。

図1 辺縁性エナメル上皮腫の発生部位

X線所見: 記載の明確な27症例中^{1,3-14,16-27)}、骨の明らかな吸収像を呈するものは5例^{4,11,16,21)}(18.5%)だが、それも骨内性エナメル上皮腫のような高度な骨吸収はみられていない。本例においても病的な骨吸収はほとんどみられず、これは発生部位のほかに腫瘍の増殖能や発生年齢の相違が関与しているものと思われる。

2) 病理組織像について

骨内性エナメル上皮腫では follicular type (宮崎, 荒井のⅢ型) が最も多いのに対し、本症は acanthomatous type もしくは、plexiform type で宮崎, 荒井の分類によれば、Ⅰ, Ⅱ型に属するものが多いのが特徴的である。本例でも、acanthomatous type と plexiform type を示す部分がみられた。

腫瘍組織と口腔粘膜上皮との連絡については、腫瘍の組織発生や basal cell carcinoma (以下 BCC と略す) との関連性の面からしばしば問題にされているが、連絡のあるもの11例(37.9%)、連絡のないもの5例(17.2%)、記載のないもの13例(44.8%)であった。本例でもかなりの広範囲で腫瘍実質と口腔粘膜上皮との移行が認められたが、両者の2次的な連絡の可能性も考慮せねばならない。

3) 処置および予後について

記載の明らかな23症例中、骨の部分切除を行っているものは5例(21.7%)、腫瘍の摘出術のみを行っているものは18例(78.3%)である。また手島ら²²⁾は試験切除から悪性を疑い放射線治療等を試みているが、結果的にその必要性はなかったと考察している。予後については観察期間が4か月¹⁾より8年⁹⁾まで報告されているが、再発はわずか2例^{9,10)}で2か月後と1年後である。本例

表 1 辺縁性エナメル上皮腫報告例

	報告者	報告年代	年齢	性別	発生部位	病徴期間	大 き さ	上皮との連絡	骨 吸 収	手術内容
1	Braunstein ¹⁾	1949	63	男	右側頬部耳下腺開口部	3 週	3.0 cm		(-)	摘 出
2	Aisenberg ²⁾	1953	60	男	下顎犬歯部歯肉					
3	Pollack ³⁾	1955	56	男	軟口蓋側方				(-)	摘 出
4	Stanley ⁴⁾	1959	34	女	65 舌側歯肉		0.9×0.7 cm	(-)	(+)	摘 出
5	Russell ⁵⁾	1966	52	男	右側上顎結節部		0.5×0.2 cm	(+)	(-)	摘 出
6	柘 植 ⁶⁾	1967	37	男	32 口蓋歯肉	数 年	大豆大		(±)	摘 出
7	Klinar ⁷⁾	1969	68	男	右側頬部粘膜	3 か月	5.0×4.0×2.5 cm	(+)	(-)	摘 出
8	原 田 ⁸⁾	1969	64	男	54 舌側歯肉	1 年	5.0 cm		(±)	摘 出
9	Lee ⁹⁾	1970	35	男	34 口蓋歯肉	1 か月	1.0×0.7×0.5 cm	(+)	(-)	骨切除
10	Lee	1970	47	男	54 舌側歯肉	8 か月	1.5 cm	(-)	(-)	摘 出
11	Wertheimer ¹⁰⁾	1972	23	女	12 舌側歯肉	2 年	1.2×1.0×0.4 cm	(+)	(-)	摘 出
12	Mori ¹¹⁾	1972	66	女	7 頰側歯肉	14 年	2.0×1.0 cm		(+)	摘 出
13	Mori	1972	54	男	右側軟口蓋～上顎結節	1 年			(+)	摘 出
14	Wallen ¹²⁾	1972	82	男	右側上顎結節部	1 年	1.4 cm		(-)	骨切除
15	Balfaur ¹³⁾	1973	62	男	15 頰舌側歯肉		0.4×0.4 cm	(+)	(-)	摘 出
16	Gardner ¹⁴⁾	1973	50	女	左側下顎臼歯部舌側歯肉		1.5×1.0×0.8 cm	(-)	(-)	摘 出
17	Richardson ¹⁵⁾	1974	47	女	45 舌側歯肉		1.3×1.0×0.8 cm			摘 出
18	柴 田 ¹⁶⁾	1974	60	男	345 口蓋歯肉	数 年	拇指頭大		(+)	骨切除
19	Simpson ¹⁷⁾	1974	28	男	7 歯肉		1.0 cm	(+)	(-)	摘 出
20	Pansino ¹⁸⁾	1975	45	女	34 舌側歯肉			(+)	(-)	摘 出
21	右 田 ¹⁹⁾	1975	38	女	43 口蓋歯肉	5 か月	0.5×0.5 cm	(-)	(-)	骨切除
22	浅 田 ²⁰⁾	1976	40	男	45 舌側歯肉	2 年	1.5×1.5×0.2 cm	(+)	(-)	摘 出
23	Wesley ²¹⁾	1977	33	女	7 歯肉	1 年	2.0×1.5×1.0 cm	(-)	(+)	摘 出
24	手 島 ²²⁾	1977	58	男	45 舌側歯肉	3 年	1.7×1.0 cm	(+)	(-)	骨切除
25	Franke ²³⁾	1977	92	女	右側上顎無歯顎歯肉	3 か月	2.5×1.5×1.5 cm		(-)	摘 出
26	Greer ²⁴⁾	1978	43	女	左側上顎無歯顎歯肉		0.8×0.7×0.6 cm	(+)	(-)	摘 出
27	井 手 ²⁵⁾	1978	32	男	156 舌側歯肉	1 年 6 か月	小指頭大		(-)	摘 出
28	大 野 ²⁶⁾	1979	71	男	43 頰側歯肉	6 週	拇指頭大		(±)	摘 出
29	小 森 ²⁷⁾	1979	55	男	上顎前歯部歯肉		2+2 に至る	(+)	(±)	生検のみ

は腫瘍の摘出術のみにとどめているが、2年後の現在全く異常を認めていない。したがって本症の処置に関しては骨内性エナメル上皮腫とは異なり腫瘍の完全な摘出を行ったのち、骨バーによる骨面削除程度にとどめ、十分な経過観察を行う方がよいと思われる。

2. 成り立ちについて

辺縁性エナメル上皮腫の発生由来は、Braunstein¹⁾, Pindborg²⁸⁾, Villa²⁹⁾, Vickers³⁰⁾らに代表される口腔粘膜上皮基底細胞説と、Stanley⁴⁾, Bhaskar³¹⁾らに代表される軟組織中の残遺歯原性上皮説に大別される。

前説は腫瘍と口腔粘膜上皮との連絡が根拠となっているが、これに関連して Schmidseider³²⁾は口腔粘膜上皮基底細胞の歯原性上皮への分化能を、Champion³³⁾は口腔粘膜上皮基底細胞のエナメル上皮腫への分化潜在能を指摘し、さらに Klinar⁷⁾は頬粘膜上皮にも abortive odontogenic potential が存在するものとしている。

後説は軟組織中に存在する dental lamina, Hertwing's sheath などの細胞遺残を由来とし、腫瘍と口腔粘膜上皮の連絡は2次的に癒合したのであろうとする考え方である^{34,35)}。また顎骨外の歯原性上皮について Bhaskar³¹⁾は50例の歯肉の検索の結果42例の高頻度に上皮遺残が認められたと報告し、Stoelting³⁶⁾は歯牙萌出とともに上皮遺残は被覆上皮側へと移動するとも報告している。本例に関しても腫瘍と口腔粘膜上皮との移行像が観察できるが、これが2次的か否かについては断定できない。しかしこれを1次的なものとして口腔粘膜基底細胞のエナメル上皮腫への潜在能力を考えるには、本例も含め一般的に発生年齢がかなり高い点からも無理があるように思われる。

一方、本症と BCC との組織的類似性から、とくに粘膜上皮との連絡をもつものを口腔内 BCC と考えるものもあり^{37,38)}、これまで文献上10数例の報告がみられる³⁹⁻⁴⁷⁾。これに対して Shafer⁴⁸⁾, Lucas⁴⁹⁾らは口腔内 BCC の存在に否定的であり、また Lever⁵⁰⁾は BCC を皮膚付属器とくに毛嚢に由来すると考え BCC の口腔内発生を否定している。また両腫瘍の間に、臨床的²⁰⁾、電子顕微鏡的^{24,25)}、組織化学的⁴⁴⁾な差異を指摘する報告もみられるが、明確な相違を見出すには至っていない。

最近、Gardner⁵¹⁾らは未発表の辺縁性エナメル上皮腫7例と文献報告された辺縁性エナメル上皮腫9例、さらに口腔内 BCC 5例について臨床病理学的に検討した結果、両者は本質的に同一のものであり歯原性上皮の遺残か、口腔粘膜上皮のいずれかから生じたものであろうと述べている。本例については歯堤様あるいはエナメル髄様のかかなり特徴的な所見から一応辺縁性エナメル上皮腫と診断されたが、その発生由来とともに、かかる腫瘍が全く BCC を否定しうるかどうかについては、さらに症例の集積と詳細な観察、検討が必要と思われる。

結 語

68歳男性、左側下顎臼歯部歯槽堤部に生じた辺縁性エナメル上皮腫を経験し、腫瘍摘出により良好な結果を得たので報告し、同時に本症の文献報告29例について検討した。

稿を終るにあたり、病理組織学的診断に関してご教授戴きました東京医科歯科大学口腔病理学教室石川梧朗教授に深く感謝致します。

本論文の要旨は第118回日本口腔外科学会関東地方会において発表した。

引 用 文 献

- 1) Braunstein, E.: Case report of an extraosseous adamantinoblastoma. *Oral Surg* 2: 726 1949.
- 2) Aisenberg, M.S.: Histopathology of ameloblastoma. *Oral Surg* 6: 111 1953.
- 3) Pollack, R.S.: Extraosseous adamantinoma. *Arch Surg* 70: 353 1955.
- 4) Stanley, H.R., et al.: Peripheral ameloblastoma. *Oral Surg* 12: 760 1959.
- 5) Russell, A.: Ameloblastoma of mucosal origin. *N Z dent J* 62: 116 1966.
- 6) 拓植精一, 他: 歯肉に発生したエナメル上皮腫の1例. *口科誌* 16: 395 1967.
- 7) Klinar, K.L., et al.: Peripheral ameloblastoma. *Oral Surg* 28: 226 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. *日口外誌* 15: 269 1969.
- 9) Lee, K.W., et al.: Peripheral ameloblastoma. *Brit J Oral Surg* 8: 150 1970.
- 10) Wertheimer, F.W., et al.: Peripheral ameloblastoma in a papilloma with recurrence. *J Oral Surg* 30: 47 1972.
- 11) Mori, M., et al.: Histochemical observation of soft tissue ameloblastoma. *J Osaka Univ Dent Sch* 12: 109 1972.
- 12) Wallen, R.S., et al.: Multicentric peripheral ameloblastoma. *J Oral Surg* 34: 95 1972.
- 13) Balfaur, R.S., et al.: Multicentric peripheral ameloblastoma. *J Oral Surg* 31: 535 1973.
- 14) Gardner, D.G.: An ameloblastoma and a hamartoma of the dental lamina in two siblings. *J Oral Surg* 31: 697 1973.
- 15) Richardson, J.F.: Ameloblastoma of mucosal origin. *Arch Otolaryngol* 100: 174 1974.
- 16) 柴田寛一, 他: Peripheral ameloblastoma と思われる1例. *岐歯学誌* 1: 130 1974.
- 17) Simpson, H.E.: Basal-cell carcinoma and peripheral ameloblastoma. *Oral Surg* 38: 233

- 1974.
- 18) Pansino, F.A., et al.: Peripheral ameloblastoma. J Mich Dent Assoc 57: 129 1975.
- 19) 右田信行, 他: Peripheral ameloblastoma の 1 例. 日口外誌 21: 463 1975.
- 20) 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: 832 1976.
- 21) Wesley, R.K., et al.: Peripheral ameloblastoma. J Oral Surg 35: 670 1977.
- 22) 手島貞一, 他: Peripheral ameloblastoma の 1 例. 日口外誌 23: 391 1977.
- 23) Frankel, K.A.: Soft tissue ameloblastoma in a 92 year-old woman. Arch Otolaryngol 103: 499 1977.
- 24) Greer, R.O.: Extraosseous ameloblastoma. J Oral Surg 36: 553 1978.
- 25) 井手文雄, 他: Peripheral ameloblastoma の 1 例. 口科誌 27: 353 1978.
- 26) 大野 均, 他: Peripheral ameloblastoma の 1 症例. 口科誌(会) 28: 571 1979.
- 27) 小森康雄, 他: Peripheral ameloblastoma の 1 症例. 日口外誌 25: 1204 1979.
- 28) Pindborg, J.J. and Kramer, I.R.: Histological typing of odontogenic tumors, Jaw cysts, and allied lesions. WHO Geneva, 1971, p 24.
- 29) Villa, V.G.: A case of ameloblastoma derived from adult oral epithelium. Oral Surg 6: 1216: 1953.
- 30) Vickers, R.A., et al.: Ameloblastoma, Deliniation of early histopathologic features of neoplasia. Cancer 26: 699 1970.
- 31) Bhaskar, S.N.: Gingival cyst and the Keratinizing ameloblastoma. Oral Surg 19:7961965.
- 32) Schmidseider, R., et al.: Mutiple odontogenic tumors and other anomalies. Oral Surg 39: 249 1975.
- 33) Champion, A.H.R., et al.: An ameloblastoma of the mandible. Brit Dent J 90: 143 1951.
- 34) Small, I.A., et al.: Ameloblastoma of the Jaws. Oral Surg 8: 281 1955.
- 35) 石川梧朗: 齒原腫瘍について, とくにその病理学的方面から(その 1), 口病誌 26: 462 1959.
- 36) Stoelinga, P.J.W.: Studies on the dental lamina as related to its role in the etiology of cysts and tumors. J Oral Path 5: 65 1976.
- 37) Siegmund, H., et al.: Pathologische Histologie der Mundhöhle. Hirzel s, Leipzig, 1926, p 330.
- 38) Mcwhirter, R., et al.: Symposium of the treatment of adamantinoma. Proc Roy Soc Med 45: 701 1952.
- 39) Saint, F.M.: The embryology of the stomodeum and its bearing on tumors of the tongue and salivary glands. S Afr J Clin Sci 2: 1 1951.
- 40) Thoma, K.H., et al.: Oral pathology. ed 5, Mosby Co, St Louis, 1960, p 1174.
- 41) Keen, R.R., et al.: Basal cell carcinoma from mucosal surface of lower lip. J Oral Surg 22: 453 1964.
- 42) Lawson, B.F., et al.: Basal cell carcinoma of the gingiva. Oral Surg 24: 648 1967.
- 43) Williamson, J.J., et al.: Basal cell carcinoma of the mandibular gingiva. Arch Dermatol 95: 76 1967.
- 44) Mori, M., et al.: Enzymatic histochemical demonstration of basal-cell carcinoma in the oral cavity. Oral Surg 25: 746 1968.
- 45) Weitzner, S., et al.: Multicentric basal-cell carcinoma of Vermilion mucosa and Skin of lower lip. Oral Surg 26: 269 1968.
- 46) Peters, R.A., et al.: Basal cell carcinoma of the oral cavity. J Oral Surg 30: 63 1972.
- 47) 田中誠考, 他: 口腔内基底細胞癌の 2 症例. 京大口科紀要 13: 13 1973.
- 48) Shafer, W.C., et al.: A textbook of Oral Pathology. 2 ed, Saunders Co, Philadelphia, 1958, p 95, p 211.
- 49) Lucas, R.B.: Pathology of tumors of the oral tissue. ed 2, Churchill Livingstone, Edinburgh, 1964, p 45.
- 50) Lever, W.F.: Histopathology of the skin. ed 4, Lippincott Co, Philaderphia, 1967, p 576.
- 51) Gardner, D.G.: Peripheral ameloblastoma. Cancer 39: 1625 1977.