上顎に発生した歯源性石灰化上皮腫の1例

梶 隆一・藤井敏郎・森本忠三・釜谷龍平
白数力也・山田隆造*・古跡孝和**・高須 淳***

A Case Report of Calcifying Epithelial Odontogenic Tumor of the Maxilla

Ryuichi KAJI・Toshiro FUJII・Chuzo MORIMOTO・Ryuhei KAMAYA
Rikiya SHIRASU・Ryuzo YAMADA*・Takakazu KOSEKI**・Jun TAKASU***

緒 言

歯源性石灰化上皮腫 (Calcifying Epithelial Odontogenic Tumor, 以下 C.E.O.T. と略す) は従来 エナメル上皮腫や歯牙腫の特殊型として報告されてきたが, Pindborg (1958)¹⁾ により, これらの腫瘍から区別されるべき疾患として分類された良性歯源性腫瘍である。以来, 臨床的および組織学的所見についていくつかの報告が行われてきた。

わたくしたちは最近, 大阪歯科大学附属病院第1口腔外科に来院した患者で, 上顎に発生した本症の1例を経験したので, 若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

患 者: [REDACTED] 53歳 男性。

初 診: 昭和56年1月[REDACTED]日。

大阪歯科大学口腔外科学教室第1講座
(主任: 白数力也助教授)

* 大阪歯科大学歯科麻酔学教室
(主任: 上田 裕教授)

** 大阪歯科大学歯科放射線学教室
(主任: 古跡養之進教授)

*** 大阪歯科大学口腔診断学教室
(主任: 高須 淳教授)

The First Department of Oral Surgery,
Osaka Dental University (Chief: Assistant
Prof. Rikiya Shirasu)

* Department of Dental Anesthesiology, Osaka
Dental University (Chief: Prof. Yutaka Ueda)

** Department of Dental Roentgenology, Osaka
Dental University (Chief: Prof. Yonoshin
Koseki)

*** Department of Oral Diagnostics, Osaka Den-
tal University (Chief: Prof. Jun Takasu)

受付日: 昭和57年1月25日

写真1 口腔外写真

主 訴: 左側上顎大臼歯部の無痛性の腫脹。

家族歴, 既往歴: 特記事項はなかった。

現病歴: 昭和55年12月末頃より左側上顎大臼歯部の腫脹に気付いたが放置していた。しかし, 腫脹が消退しないため昭和56年1月に某歯科を受診したところ, 本学を紹介され来院した。

全身所見: 体格は中等度, 栄養状態も良好であった。また血液一般, 生化学検査でも異常所見はなかった。

口腔外所見: 顔貌は左右非対称性で, 左側頬部にびまん性の腫脹を認めたが, 圧痛はなく皮膚の色調も正常であった(写真1)。また開口障害はなく領域リンパ節の腫脹も認めなかった。

口腔内所見: [3]部から[7]部にかけて頬口蓋側に及ぶ境界不明瞭で表面は凹凸不正の骨様硬の膨隆を認めた。圧痛はなく, 粘膜色も正常であった。また病変部に近接する歯牙に欠損はなかった(写真2)。

写真 2 口腔内写真

写真 3 エックス線写真(オルソパントモグラフィ)

写真 4 エックス線写真(頭部断層)

写真 5 摘出物写真

写真 6 摘出物の断面

エックス線所見：|2部から|7部にかけて境界不明瞭な透過像とその内部に雲海状に広がる不定型の不透過像を認めた。埋伏歯は存在しなかった(写真3)。矢状断頭

部断層撮影写真では、腫瘍の一部は上顎洞内へ突出していた(写真4)。

臨床診断：上顎部の腫瘍の疑い。

処置：局麻下にて、|4部頬側の骨を一部削除して組織検査を行ったところ、C.E.O.T.との組織診断を得、全麻下(NLA)にて|1部から|7部に至る上顎骨部分切除術を口内より施行した。

手術所見：腫瘍は下鼻道側壁を圧迫し、上方は上顎洞へ突出していた。上顎洞下部を切除し、上顎洞は開放した状態としてガーゼタンポンを挿入し手術を終了した。

摘出物所見：大きさは鶏卵大で、明らかな被胞組織を認めず、表面は凹凸不正であった(写真5)。摘出物の断面は黄白色充実性で、全面に石灰化物を認めた(写真6)。

組織所見：H-E染色で、腫瘍実質は円形の核を有する多角形の上皮性腫瘍細胞が敷石状に増殖した大小多数の

写真 7 組織所見 (H-E, 弱拡大)

腫瘍胞巣内に大小不同の石灰化物が認められる。

写真 8 組織所見 (H-E, 強拡大)

石灰化物は同心円状に層状をなす、いわゆる Liesegang ring 様を呈する。

充実性胞巣よりなる。一部多角形細胞は淡エオジン好性の細胞質を多く含み、核の周辺への圧排を呈していた。多角形細胞間には明瞭な細胞間橋も認められた (写真 7)。胞巣内の大小不同の多数の石灰化物は、小さいものは同心円状に層状をなす、いわゆる Liesegang ring 様を呈し、大きなものは石灰化物の融合した塊状となって観察された。また間質においても石灰化物が散在して

みられた。塊状の石灰化物の周囲に無構造なエオジン好性の物質が認められた (写真 8)。石灰化物はエオジン好性、PAS 反応、Congo red 染色陽性であり、ひとつの塊状の石灰化物内でも染色性に違いがあった。特に Congo red 染色は石灰化物の中央や石灰化物の融合部で反応が著明であった (写真 9, 10)。以上の所見から C.E.O.T. と診断した。

写真 9 組織所見 (PAS 反応, 弱拡大)
石灰化物は PAS 反応陽性である。

写真 10 組織所見 (Congo red, 弱拡大)
石灰化物は Congo red 染色陽性で、染色性に違いが認められる。

経過：術後約10か月を経過するが、経過は良好で再発を疑う所見は認められない。

考 察

C.E.O.T. はエナメル芽細胞様細胞を有さず、象牙質やエナメル質の歯牙様構造物が存在しないことから、Pindborg (1958)¹⁾ により表記のように命名された腫瘍である。

本邦では林ら(1965)²⁾ が初めて報告し、わたくしたちが渉猟し得た本邦における報告数は本症例も含めて23例²⁻²²⁾であった。これに欧米での報告数を加えると約200例程度になると思われる。わたくしたちは本邦における報告例について臨床的に検討を加え、表1にまとめて記載した。

Franklin (1976)²³⁾ の報告では本症の発現年齢は8歳から92歳と広範囲にわたり、その平均年齢は約40歳であったと述べている。また20歳代が最も多く、次いで30歳代と40歳代が同数で続くとしている。本邦では11歳から55歳の範囲にみられ、その平均年齢は約33.5歳であり、30歳代に多く、次いで40歳代が多かった。本症の好発年齢は30歳代、40歳代と考えられた(表2)。また性差について、石川 (1975)²⁴⁾ は男性に多いと述べているが、Franklin (1976)²³⁾ は性別に差はないとしている。本邦では男性10例、女性12例で性差は認められなかった(表3)。

C.E.O.T. は下顎に多くみられるとされているが、本症例のように上顎に発生した例も少なくはない。本邦では上顎に発生した例は12例、下顎では11例でほぼ同数(表4)であり、森 (1974)¹⁵⁾ や Franklin (1976)²³⁾ が約2/3が下顎に発生しているとしていることとはかなり異なった結果を得、過去の報告でいわれているほど、上顎と下顎との発生頻度に差はないと思われた。また、発生部位別頻度では臼歯部が多く、これは文献的に一致する

結果であった。

本症はしばしば埋伏歯を伴っていることが臨床の特徴のひとつであるが、顎骨外に発生した C.E.O.T. も報告されている^{25,26)}。Wertheimer ら (1977)²⁶⁾ は顎骨外に発生した8例について臨床的検討を加えており、歯肉部に発生した例が多かった。本邦では顎骨外に発生した例の報告はないようであるが、本症例のように埋伏歯が存在しなかった例は6例あった(表5)。

C.E.O.T. の由来について、Pindborg (1958)¹⁾ は埋伏歯の退縮エナメル器より由来すると述べ、Gon (1965)²⁷⁾ は含歯性嚢胞から由来する可能性もあるとしている。また顎骨外に発生したものについては口腔粘膜上皮に由来するといわれている²⁵⁾。しかし埋伏歯が存在しない C.E.O.T. の由来については、Killy ら (1980)²⁸⁾ が歯堤の上皮遺残から起こると推察しているが、十分には明らかにされていない。

C.E.O.T. の特徴的な組織所見は、腫瘍実質で多角形細胞が敷石状に増殖した充実性胞巣をなすこと、腫瘍細胞間に細胞間橋が認められること、細胞質内、あるいは間質組織において無構造な硝子様物が多くみられること、石灰化物が同心円状に層状をなすいわゆる Liesegang ring 様を呈することなどがあげられる^{20,24,25,29)}。Chaudhry³⁰⁾ は象牙質に類似する細管構造が石灰化部に観察されたと報告しているが、本症例では歯牙様構造物は認めず、森 (1965)¹⁵⁾ は C.E.O.T. の石灰化物と象牙質との関係を否定している。Vicker (1965)³¹⁾ は組織化学的に本症にアミロイドを証明しており、このアミロイド様物質を基盤として石灰化が起こるといわれている⁸⁾。本症例でもエオジン好性で、PAS 反応、Congo red 染色陽性である部分はアミロイドを強く示唆する所見と考えられた。一方、Solomon (1975)³²⁾ は組織化学的所見からアミロイドの存在を否定している。また本症例の石灰化部に染色性の違いのある部分もみられたが、これは石灰化の程度に違いがあるためと思われた。

表 1 本邦における報告例

No.	報告者	報告年	年齢	性別	部位	埋伏歯の有無	臨床診断名	処置方法	備考
1	林ら ²⁾	1965	23	男性	6-3 部	有(5)	濾胞性歯嚢胞・歯牙腫・エナメル上皮腫	摘出	再発例(12年)
2	林ら ³⁾	1967	34	女性	5-8 部	無	線維性骨異形成症・化骨性線維腫	下顎骨部分切除	
3	増田ら ⁴⁾	1967	44	女性	7-3 部	有(6)	エナメル上皮腫の疑い	下顎骨半側切除・骨移植	
4	小幡ら ⁵⁾	1969	35	女性	2-4 部	有(13)	混合性歯牙腫・嚢胞性歯牙腫	一塊摘出	
5	杉森ら ⁶⁾	1969	43	男性	右側上顎大臼歯部	有(大臼歯)	扁平上皮癌の疑い(組織検査より)	放射線療法・摘出	
6	田代ら ⁷⁾	1071	30	男性	78 部	有(17)		全摘出	
7	松村ら ⁸⁾	1971			左側上顎大臼歯部	有		一塊摘出	
8	額賀ら ⁹⁾	1972	24	男性	2-5 部	有(14)	濾胞性歯嚢胞	摘出	
9	尾崎ら ¹⁰⁾	1972	35	男性	7-1 部	有(前歯)	良性下顎腫瘍(C.E.O.T.,石灰化エナメル上皮腫,石灰化を伴う歯原性嚢胞の疑い)	摘出	
10	松川ら ¹¹⁾	1972	55	女性	4-7 部	無	化骨性線維腫	一塊摘出	
11	中島ら ¹²⁾	1972	40	女性	左側下顎小臼歯部	有(14)	齒原性顎嚢胞	一塊摘出	
12	宮里ら ¹³⁾	1973	36	女性	2-5 部	有(13 4)	C.E.O.T.	一塊摘出	
13	清水ら ¹⁴⁾	1973	18	男性	7-5 部	無	エナメル上皮腫・濾胞性歯嚢胞	一塊摘出	
14	森ら ¹⁵⁾	1974	21	女性	3+2 部	有(2)	嚢胞性歯牙腫	一塊剔出	
15	久野ら ¹⁶⁾	1974	13	男性	1 2 部	有(過剰歯)	濾胞性歯嚢胞	摘出	
16	久野ら ¹⁶⁾	1974	19	女性	7 6 部	有	多形性腺腫・骨線維腫	一塊摘出	開窓を行い組織検査によりC.E.O.T.と診断した。
17	大西ら ¹⁷⁾	1974	11	女性	8-5 部	有(5)	エナメル上皮腫	開窓,後に完全摘出	
18	小守林ら ¹⁸⁾	1976	31	女性	8-6 部			全摘出	
19	伊賀ら ¹⁹⁾	1979	39	女性	2-8 部	有	C.E.O.T.(組織検査より)	上顎骨部分切除	
20	田上ら ²⁰⁾	1980	36	男性	6-1 部	無	下顎骨良性腫瘍	下顎骨部分切除	
21	沢熊ら ²¹⁾	1980	49	女性	5-3 部	無	エナメル上皮腫	下顎骨部分切除	
22	加藤ら ²²⁾	1981	48	男性	4 部		良性腫瘍	一塊摘出	
23	著者ら	1981	53	男性	2-7 部	無	上顎部腫瘍の疑い, C.E.O.T.(組織検査より)	上顎骨部分切除	

表 2 年 齢 分 布

10 歳 未 満	0例
10 ～ 19	4例
20 ～ 29	3例
30 ～ 39	8例
40 ～ 49	5例
50 ～ 59	2例
60 歳 以 上	0例
記 載 な し	1例
計	23例

表 3 性 別

男 性	10例
女 性	12例
記 載 な し	1例
計	23例

表 4 発 生 部 位

上顎に発生した例	12例
・前歯部	1例
・臼歯部	6例
・前歯部から臼歯部に及ぶもの	5例
下顎に発生した例	11例
・前歯部	1例
・臼歯部	5例
・前歯部から臼歯部に及ぶもの	5例

表 5 埋伏歯の有無

埋伏歯が存在していた例	15例
埋伏歯が存在していなかった例	6例
記載なし	2例
計	23例

(注) 埋伏歯が存在していなかった例のなかには再発例(症例 No. 2)を含んでおり、この症例では第1回目の手術時には埋伏歯が存在していた。

本邦23例の臨床診断名はエナメル上皮腫や濾胞性歯嚢胞、歯牙腫などが多かったが、このほかに炎症性骨疾患、良性線維性骨病変などとの鑑別が必要である³³⁾。C.E.O.T. は良性腫瘍であるにもかかわらず局所浸潤性の発育傾向があるといわれている。林ら(1967)³⁾は第1回目の手術で搔爬摘出したものが、12年後に同じ部位に再発し下顎骨部分切除を行った例を報告している。本症例でも周囲骨髓内に腫瘍細胞を認め、周囲の骨線維化と

骨梁の吸収を思わせる所見を得ており、これは局所浸潤傾向を示す所見と考えられた。したがって、C.E.O.T. に対する処置は周囲健康組織を含めた切除術が適当と考えられる。処置から再発までの期間は1年から10年以上^{23,24)}にわたり、さらに30年以上に及んでいるもの³⁵⁾が報告されており、長期にわたる経過観察が必要であると思われた。

結 論

53歳、男性で上顎に発生し、埋伏歯が存在しなかったC.E.O.T. の1例を経験したので、臨床所見、組織所見、および本邦における文献的考察を加えて報告した。本症例の組織所見では、石灰化物質においてPAS反応、Congo red染色陽性であり、アミロイド様物質の存在が考えられた。

本論文の要旨は、第7回日本口腔外科学会近畿地方会(昭和56年12月5日、大阪)において発表した。

引 用 文 献

1) Pindborg: A Calcifying Epithelial Odontogenic Tumor. Cancer 11: 838 1958.
2) 林 一, 他: Calcifying epithelial odontogenic tumor の1例. 口科誌 14: 393 1965.
3) 林 一, 他: 再びCalcifying epithelial odontogenic tumor の1例. 口科誌 16: 78 1967.
4) 増田 屯, 他: Calcifying epithelial odontogenic tumor の1例. 日口外誌 13: 223 1967.
5) 小幡幸男, 他: Calcifying epithelial odontogenic tumor (Pindborg) の1例. 口科誌 18: 108 1969.
6) 杉森久一, 他: Calcifying epithelial odontogenic tumor の1例. 耳喉 41: 863 1969.
7) 田代英雄, 他: 比較的稀な歯系腫瘍の4例. 日口外誌 17: 575 1971.
8) 松村智広, 他: Calcifying epithelial odontogenic tumor (特に酵素組織化学的所見). 口科誌 20: 274 1971.
9) 額賀大文, 他: Calcifying epithelial odontogenic tumor の1例. 口科誌 21: 404 1972.
10) 尾崎登喜雄, 他: Calcifying Epithelial Odontogenic Tumor: 症例報告と文献的考察. 口科誌 21: 709 1972.
11) 松川公敏, 他: 歯源性石灰化上皮腫の1例. 口科誌 21: 270 1972.
12) 中島徹治, 他: Calcifying epithelial odontogenic tumor と思われる1例. 口科誌 21: 810 1972.
13) 宮里 修, 他: 歯源性石灰化上皮腫と考えられる1症例. 口科誌 22: 264 1973.
14) 清水 徹, 他: 上顎に発生した Calcifying ep-

- ithelial odontogenic tumor の 1 例. 日口外誌 19: 174 1973.
- 15) 森 昌彦, 他: 下顎前歯部に発生した Calcifying Epithelial Odontogenic Tumor の 1 例—腫瘍組織の石灰化基質に関する組織化学的考察—。口科誌 23: 680 1974.
 - 16) 久野吉雄, 他: Calcifying epithelial odontogenic tumor の 2 症例について. 歯学 62: 649 1974.
 - 17) 大西正俊, 他: 小児下顎骨の歯源性石灰化上皮腫 (Calcifying epithelial odontogenic tumor) の 1 例. 口病誌 41: 286 1974.
 - 18) 小守林尚之, 他: Calcifying Epithelial Odontogenic Tumor の 1 例. 口科誌 25: 185 1976.
 - 19) 伊賀成知, 他: Calcifying epithelial odontogenic tumor の 1 例. 日口外誌 25: 356 1979.
 - 20) 田上洋三, 他: 歯源性石灰化上皮腫の 1 例. 日口外誌 25: 1199 1980.
 - 21) 沢熊芳生, 他: Calcifying epithelial odontogenic tumor の 1 例. 口科誌 29: 605 1980.
 - 22) 加藤久幸, 他: Calcifying epithelial odontogenic tumor の 1 例. 口科誌 30: 575 1981.
 - 23) Franklin and Pindborg: The calcifying epithelial odontogenic tumor. A review and analysis of 113 cases. Oral Surg 42: 753 1976.
 - 24) 石川梧朗, 秋吉正豊: 口腔病理学Ⅱ. 永末書店, 京都, 1975, 930頁.
 - 25) Pindborg: The Calcifying Epithelial Odontogenic Tumor. Review of literature and report of an extra-osseous case. Acta odont scand 24: 419 1965.
 - 26) Wertheimer, et al.: Extraosseus calcifying epithelial odontogenic tumor (Pindborg tumor). Int J Oral Surg 6: 266 1977.
 - 27) Gon: The calcifying epithelial odontogenic tumor. Report of a case and a study of its histogenesis. Brit J Cancer 19: 39 1965.
 - 28) Killy, Kay, 河野庸雄 (訳): 上顎洞—その歯科学的意義—. 医歯薬出版, 東京, 1980, 136頁.
 - 29) Chaudhry, et al.: Calcifying epithelial odontogenic tumor. A histochemical and ultrastructural study. Cancer 30: 519 1972.
 - 30) Chaudhry, et al.: Calcifying Epithelial Odontogenic Tumor, Report of a Case. Oral Surg 15: 843 1962.
 - 31) Vickers, et al.: Amyloid-containing odontogenic tumors. Oral Surg 20: 476 1965.
 - 32) Solomon, et al.: Calcifying epithelial odontogenic tumor, A histologic, histochemical, fluorescent, and ultrastructural study. Oral Surg 40: 522 1975.
 - 33) Smith, et al.: Atypical calcifying epithelial odontogenic tumor of the maxilla. JADA 100: 706 1980.
 - 34) Franklin, et al.: The Calcifying Epithelial Odontogenic Tumor—Report of Four Cases; Two with Long-Term Follow-up. British J Oral Surg 13: 230 1976.
 - 35) Gaudner, et al.: Calcifying epithelial odontogenic tumor: An amyloid-producing neoplasm. Oral Surg 26: 812 1968.