腺様歯原性腫瘍の1例

小林 弘治・西嶋 克巳・高橋 利近・杉 英樹
白須賀直樹*・桑名 俊二*

A case of adenomatoid odontogenic tumor

Hiroharu KOBAYASHI・Katsumi NISHIJIMA・Toshichika TAKAHASHI
Hideki SUGI・Naoki SHIRASUGA*・Shunji KUWANA*

Abstract: Adenomatoid odontogenic tumor is characterized histologically by abundant epithelial parenchymal cells, containing ductlike structures surrounded by cylindric cells.

In this article we report on the experience of a case of this tumor. The patient is a female, 12 years old, from the end of February 1982 she noticed a swelling of the gingiva at $\overline{2-4}$ portion but left it alone at first. As the swelling did not disappear, she consulted a certain dentist, who introduced her to our clinic. Oral examination revealed that $\overline{23}$ were unerupted, a walnut-size, relatively clearly bordered swelling was shown at the labial side of gingiva at $\overline{2-4}$ portion and palpated like parchment in some parts. The surface was bluish without oppressive pain. X-ray examination showed that $\overline{23}$ were impacted and a monocular radiolucent area was noted containing the tooth crown of $\overline{12}$, and $\overline{55}$ was congenitally missing. On 2 April the tumor was enucleated together with impacted $\overline{12}$ under general anesthesia.

Histologically the tumor parenchyma was composed of cells similar to the enamel organ, showing ductlike structures in the parenchyma, composed of ovoid or short cylindric cells, as well as small calcifications. Histopathologically this case showed the initial developmental stage of adenomatoid odontogenic tumor. Further, the tumor parenchyma appeared and proliferated continuously with the epithelium of cystic wall, a transition picture was shown between the parenchyma and the epithelium of cystic wall. This tumor was considered to be follicular cystic origin.

Key words: adenomatoid odontogenic tumor, follicular cyst

緒 言

本腫瘍は、過去に腺エナメル上皮腫¹⁻⁴⁾あるいは腺様

エナメル上皮腫^{5,6)}の名称で呼ばれていたが、その病態がエナメル上皮腫とは異なる疾患^{7,8)}として、1971年、WHOで、Philipsen and Birn⁹⁾(1969)が提唱した腺様歯原性腫瘍の名称が採用され、現在ではこの名称が一般的に使用されている。

今回、われわれは本腫瘍の1例を経験したので、文献的考察を加えて概要を報告する。

症 例

患 者：12歳 女児。

初 診：昭和57年3月

主 訴： $\overline{2-4}$ 部の無痛性腫脹。

既往歴・家族歴：特記事項なし。

現病歴：昭和57年2月下旬頃より、 $\overline{2-4}$ 部歯肉の腫脹

岡山大学歯学部口腔外科学第1講座

(主任：西嶋克巳教授)

* 岡山大学歯学部口腔病理学講座

(主任：永井教之教授)

The First Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Okayama University Dental School (Chief: Prof. Katsumi Nishijima)

* Department of Oral Pathology, Okayama University Dental School (Chief: Prof. Noriyuki Nagai)

受付日：昭和59年7月23日

写真 1 初診時顔貌所見

写真 3 パノラマX線所見

写真 2 初診時口腔内所見

写真 4 咬合型X線所見

に気付いていたが無痛性のため放置。その後腫脹消退しないため、某歯科医院受診。当科紹介され来院した。

現 症

全身所見：体格中等度、栄養状態良好で、ほかに特記すべき事項を認めなかった。

口腔外所見：顔貌は左右対称で、所属リンパ節の腫脹圧痛は認めなかった（写真1）。

口腔内所見：23は未萌出で、24部唇側歯肉に、胡桃大の比較的境界明瞭な膨隆がみられ、一部に軽度の羊皮紙様感を触知した。表面は帯青色で、圧痛は認められなかった（写真2）。

X線所見：34部の下顎骨内に、12の埋伏および12の歯冠を含む単房性の比較的境界明瞭な透過像が認められた。さらに透過像に接して14根尖部付近に13の埋伏が認められ、55は欠如していた（写真3, 4）。

臨床検査所見：血液一般、生化学検査および尿検査において特に異常所見は認められなかった。

処置および経過：昭和57年4月、12濾胞性歯嚢胞の臨床診断のもとにGOF全身麻酔下にて、腫瘍摘出術を行った。腫瘍の唇側の骨は菲薄化し、一部吸収がみられた。腫瘍は被膜に覆われており周囲の骨と容易に剝離できた。18Cを抜歯し、12埋伏歯と腫瘍を一塊として摘出した。なお13とは骨を一層介しており、腫瘍との連続性はみられなかったが萌出不能と判断し抜歯を行った。術後の経過は良好で、現在まで再発は認められない。

摘出物の肉眼的所見：摘出物は23×23×20 mm、茶褐色で、表面は滑沢な結合繊維被膜で覆われ、12の根尖が露出していた。断面では、周囲は結合組織で囲まれており、内部に嚢胞腔が認められた。嚢胞内壁に数個の灰白色の小乳頭状ないし疣状の隆起が認められた（写真

写真 5 摘出物所見

写真 8 病理組織所見 (H-E 染色, ×230)

写真 6 摘出物 (断面) 所見

写真 9 病理組織所見 (H-E 染色, ×230)

写真 7 病理組織所見 (H-E 染色, ×33)

写真 10 電子顕微鏡所見 (×6,000)

5, 6).

病理組織学的所見：摘出物をホルマリンで固定後，通常に従って H-E 染色し，光学顕微鏡にて観察した。腫瘍は線維性結合組織で囲まれており，中央部に嚢胞腔が認められた。腫瘍実質は，嚢胞腔に向かって隆起状または結節状に増殖しており，充実性に増殖した実質内に小石灰化物が認められた（写真7）。また細胞成分に富む

実質内に類円形または短円柱形細胞よりなる腺管様構造が散在性に認められた（写真8）。管腔内には細胞に接してエオジンに淡染する薄い膜状の均質な組織があり，これは PAS 反応に陽性で，Alcian blue に染まり，Mucicarmine 染色，Azan-Malloy 染色および鍍銀染色に陽性を示した。また充実性増殖部に隣接して，腫瘍細胞が索状増殖している部分もみられた。間質は水腫性で

写真 11 電子顕微鏡所見 (×14,000)

この部分の血管は拡張し、一部に出血もみられた(写真9)。以上の所見より腺様歯原性腫瘍と診断した。

電子顕微鏡での観察では、索状増殖を示す部分は、立方細胞が基底細胞様に配列し、間質との境界部には基底板がみられる。実質細胞の間隙はやや広く、微絨毛が多数みられる。間隙の一部には、やや電子密度の高い柔毛状物質が認められた(写真10)。核は胞体の中央に位置し、狭い細胞質内には多数のポリゾームが全体に分布し、ミトコンドリアや小顆粒も認められる。トノフィラメントは比較的良好にみられ、ところどころにハーフデスメゾームもみられる。細いコラーゲン線維が錯走している間質との間には基底板や係留細線維が明瞭に認められた(写真11)。

考 察

本腫瘍は組織学的にも臨床的にも通常のエナメル上皮腫とは異なった特徴的な所見を呈するもので、比較的稀な腫瘍である。過去にはエナメル上皮腫の変種、亜型と考えられ、腺エナメル上皮腫¹⁻⁴⁾、腺様エナメル上皮腫^{5,6)}などの名称を用いた報告が多い。しかし近年では、その病態がエナメル上皮腫とは異なる疾患^{7,8)}として、1971年 WHO で Philipsen & Birn⁹⁾ の提唱した腺様歯原性腫瘍の名称が採用され、現在ではこの名称が一般的に使用されている。

本腫瘍は線維性結合組織で被覆された限局性の腫瘍で、組織学的には腫瘍実質内に明瞭な腺管様構造を有し、石灰化組織の形成を伴うなどの特徴をもっている。

本腫瘍の報告例は、欧米では Giansanti ら⁹⁾ (1970) が自験例3例を含む111例について報告し、本邦では下野ら¹⁰⁾ (1978) によると1939年から1978年までに自験例1例を含め63例である。下野ら¹⁰⁾ によると発現年齢は10歳台に圧倒的に多く、平均年齢で17.9歳となっている。性別では女性に多く82%、部位別では上顎59%、前歯部70%に好発している。また埋伏歯を伴ったものが72%で

ある。本症例も下顎に発現したことを除けば、典型的な症例と思われる。

また本腫瘍は、臨床的にしばしば濾胞性歯嚢胞状を呈し、下野ら¹⁰⁾は70%、Philipsen and Birn⁹⁾ (1969)は75%が濾胞性歯嚢胞と臨床診断されていたと述べている。両者の鑑別はX線像で不透過性の微細な石灰化像の有無が有力な手掛りとなる。Giansanti ら⁹⁾はX線像で石灰化物に相当する不透過像を65%の症例に認めたと述べているが判読は容易でないと思われる。本症例も¹²⁾に由来する濾胞性歯嚢胞と診断されたもので、X線像で石灰化物をあらわす不透過像は認められなかった。

本腫瘍の病理学的な問題点は多数の報告¹⁰⁻¹³⁾で述べられている。すなわち腫瘍実質細胞の由来、腺管様構造の本態、腺管腔内の好酸性物質、ならびに石灰化物の本態があげられる。

まず腫瘍実質細胞の由来についてであるが、前述のごとく統計的にも本腫瘍は埋伏歯の歯冠部に好発することが歯原性腫瘍としての根拠の1つとなっている。文献的には、濾胞性歯嚢胞の上皮説^{4,14,15)}、エナメル器説^{3,7,11,12,16)}、さらに口腔粘膜上皮説^{2,17)}、などがあげられている。本症例では写真7にみられるように、エナメル器類似の細胞よりなる腫瘍実質と嚢胞壁上皮との間に移行像が認められた。

Hatakeyama and Suzuki¹²⁾ (1978) は、腫瘍細胞の微細形態を4型に分類し、各層をヒトエナメル器の構成細胞に相当するものとしている。今回の電子顕微鏡所見はHatakeyama and Suzuki¹²⁾のいう立方細胞層に一致し、またグリコーゲン顆粒の欠如を除けば、江川¹⁸⁾のいうヒトエナメル器の外エナメル上皮細胞や歯堤上皮とよく似ている。微細構造的にも本症例の腫瘍細胞は未分化な歯原性上皮であることが示唆される。以上のことから本症例は嚢胞壁上皮が連続して発現増殖し、本腫瘍を形成したものであることが推定される。伊藤ら¹⁴⁾ (1957)、Bhaskar⁴⁾ (1964) も、われわれと同様な所見を述べている。濾胞性歯嚢胞の上皮が、若年者においては歯原性上皮としての性格を保持していることはStanley & Diehl¹⁹⁾ (1965) によって述べられているところである。この考え方によれば、本腫瘍が比較的若年者に好発し、前歯部に好発する理由も理解しうる。

次に腺管様構造の本態について、Bhaskar⁴⁾ は腺腔を腫瘍実質の変性とし、Ishikawa and Mori²⁰⁾ (1962) は、管腔内壁に基底膜と思われるものが存在し、また管腔の間質への移行像を認めることから真の腺腔ではなく、実質に囲まれた間質の変性融解によって生じた一種の間質嚢胞としている。電子顕微鏡的にはTakagi⁶⁾ (1967) は管腔内に基底膜の存在を認め、下野ら¹⁰⁾も同様に腺腔側に基底膜の存在とヘミデスメゾームを認め、間質嚢胞と考えている。また井上²⁰⁾ (1963) は、鍍銀染色標本にて管腔腔に接して銀線維からなる膜状構造物を基底膜に

相当するものと考え、一種の間質嚢胞とし、さらに正常の腺組織においては管腔内に銀線維の存在を全く認めないことから本腫瘍の由来を、腺組織にも歯胚組織にも分化能をもつ口腔粘膜上皮由来説を否定している。一方、枝ら¹¹⁾ (1971) は、腫瘍細胞が腺形成能をもつように分化したものと考え、間質嚢胞とする説を否定している。本症例においては、この点について今後さらに検討したいと考えている。

腺管様腔内の好酸性物質について、Miles²¹⁾ (1951) はエナメル基質、Lucas⁷⁾ (1957)、Gorlin & Chaudhry³⁾ (1958) はエナメル前質とし上皮性の物質と考えているが、伊藤ら¹⁴⁾ は管腔を囲む高円柱上皮細胞の核は基底部にあり通常のエナメル芽細胞とは異なり、かつ種々の染色態度から、エナメル前質とは考えられないとしている。石川ら²²⁾ は間葉性のものとし、Shear²³⁾ (1962) は象牙前質の基質と報告している。

最後に石灰化物の本態について、下野ら¹⁰⁾、松本ら²⁴⁾ (1982) はそれぞれ電子顕微鏡的、染色態度よりエナメル質であると考え、さらに Yusuf Kahn ら¹⁷⁾ (1977) は象牙質に相当する部分も存在するとし、エナメル質と象牙質の両者であると述べている。また、Bhaskar⁴⁾ は異栄養性石灰化に相当するとしている。本症例における石灰化物には構造上特定の像はなく、この本態については明らかではなかった。

本腫瘍は病理組織学的に、解明されていない多くの問題を有しており、今後さらに症例をかさねて十分な検討が必要であろう。

治療法としては大部分が摘出術が行われている。本腫瘍は良性であり、一般に摘出後の再発はみられないが、長い年月後再発をみた報告²⁵⁾ もあり、今後長期にわたる経過観察が必要と思われる。

結 論

1) 12歳女児の下顎前歯部に発生した腺様歯原性腫瘍の1例を経験し、光学顕微鏡、電子顕微鏡的に観察し、文献的考察を加え報告した。

2) 本症例は線維性結合織で覆われた単房性の、埋伏歯を含む歯原性腫瘍で、腫瘍実質はエナメル器類似の細胞よりなっており、実質内に類円形または短円柱形の細胞で構成された腺管様構造がみられ、また小石灰化物も認められた。

3) 腫瘍実質は嚢胞壁上皮に連続して発現増殖し、移行像も認められた。

4) 本症例の病理組織像は、腺様歯原性腫瘍の発育初期像を示しており、濾胞性歯嚢胞起原と考えられた。

稿を終わるにあたり、病理組織学にご指導いただいた本学口腔病理学講座永井教之教授に深く謝意を表しま

す。

なお本論文の要旨は、第27回日本口腔外科学会総会(昭和57年9月30日)において発表した。

引 用 文 献

- 1) Bernier, J.L. and Tiecke, R.W.: Adeno ameloblastoma. *J Oral Surg* 8: 259-261 1950.
- 2) Thoma, K.H.: Adenoameloblastoma. *Oral Surg* 8: 441-444 1955.
- 3) Gorlin, R.J. and Chaudhry, A.P.: Adenoameloblastoma. *Oral Surg* 11: 762-768 1958.
- 4) Bhaskar, S.N.: Adenoameloblastoma: its histogenesis and report of 15 new cases. *J Oral Surg* 22: 218-226 1964.
- 5) Ishikawa, G. and Mori, K.: A histopathological study on the adenomatoid ameloblastoma. Report of four cases. *Acta Odontol Scand* 20: 419-451 1962.
- 6) Takagi, M.: Adenomatoid ameloblastoma. An analysis of nine cases by histopathological and electron microscopic study. *Bull Tokyo Med Dent Univ* 14: 487-506 1967.
- 7) Lucas, R.B.: A tumor of enamel organ epithelium. *Oral Surg* 10: 652-660 1957.
- 8) Philipsen, H.P. and Birn, H.: The adenomatoid odontogenic tumor. Ameloblastic adenomatoid tumor or Adeno-Ameloblastoma. *Acta Path Microbiol Scand* 75: 375-398 1969.
- 9) Giansanti, J.S., Someren, A., et al.: Odontogenic adenomatoid tumor (adenoameloblastoma). Survey of 111 cases. *Oral Surg* 30: 69-86 1970.
- 10) 下野正基, 森戸卓爾, 他: Adenomatoid Odontogenic Tumor の1例. 光学顕微鏡ならびに電子顕微鏡の観察および文献的考察. *日口外誌* 24: 1217-1227 1978.
- 11) 枝重夫, 山根 隆, 他: Adenomatoid Odontogenic Tumor (いわゆる Adenoameloblastoma) の1症例. *口科誌* 20: 834-841 1971.
- 12) Hatakeyama, S. and Suzuki, A.: Ultrastructural study of adenomatoid odontogenic tumor. *J Oral Pathol* 7: 295-310 1978.
- 13) 幸 雅樹, 松村智弘, 他: Adenomatoid odontogenic tumor の1例. 光顕, 電顕の観察および文献的考察. *日口外誌* 25: 862-867 1979.
- 14) 伊藤秀夫, 川上英世, 他: 腺-エナメル上皮腫の1例. *日口外誌* 3: 89-91 1957.
- 15) Tiecke, R.W.: *Oral Pathology*. McGraw-Hill Book Co, New York, 1965, p 213-225.
- 16) Spouge, J.D.: The adenoameloblastoma. *Oral Surg* 23: 470-482 1967.
- 17) Yusuf Khan, M., Kwee, H., et al.: Adenomatoid odontogenic tumor resembling a globulomaxillary cyst: light and electron micro-

- scopic studies. J Oral Surg 35: 739-742 1977.
- 18) 江川郁夫：ヒトほうろう器の電子顕微鏡的研究. 歯科学報 70: 803-836 1970.
- 19) Stanley, H.R. and Diehl, D.L.: Ameloblastoma potential of follicular cysts. Oral Surg 20: 260-268 1965.
- 20) 井上昌子：歯原腫瘍とくにエナメル上皮腫の基底膜に関する病理組織学的研究. 口病誌 30: 107-121 1963.
- 21) Miles, A.E.W.: A cystic complex composite odontome. Proc Roy Soc Med 44: 51-55 1951.
- 22) 石川梧朗監修：口腔病理学Ⅱ. 永末書店，京都，1982，481-486頁.
- 23) Shear, M.: The histogenesis of the 'tumor of enamel organ epithelium'. Br Dent J 112: 494-498 1962.
- 24) 松本康博，古沢正徳，他：Adenomatoid odontogenic tumor の1例. 組織化学的検討. 日口外誌 28: 1160-1164 1982.
- 25) 深谷昌彦，佐藤弘喜，他：上顎に発生した Adenoameloblastoma の1例. 日口外誌 17: 155-158 1971.
-