上顎に発生したエナメル上皮腫の5例

中村重治・植野 茂・田伏 信・島岡成和
森本忠三・虫本浩三・白数力也

The Maxillary Ameloblastoma: Report of Five Cases

Shigeharu NAKAMURA・Shigeru UENO・Makoto TABUSHI
Narikazu SHIMAOKA・Chuzo MORIMOTO・Kozo MUSHIMOTO
Rikiya SHIRASU

Abstract: Clinical reports were made on five cases that arose in the maxilla within 104 cases of the ameloblastoma which were diagnosed in the First Department of Oral and Maxillofacial Surgery of Osaka Dental University during 16 years from 1968 to 1983. Age of the patients ranged from 30 to 79 years old. Mean age was 53.4 years and significantly higher than the mean age of the ameloblastoma in the mandible (32.3 years old). Three cases were male and two were female. Two cases involved maxillary tuberosity and a case in anterior region. Two cases included the border between the anterior and molar region. Histologically, tumors showed the atypical form of ameloblastoma like acanthomatous metaplasia. Stroma was the dense fibrous tissue. Radiographic examination disclosed varied appearance types (three unilocular, one multilocular, and one soap bubble-like). Concerning three operated cases, two cases of partial maxillary resection had good clinical courses but a case of enucleation of the tumor recurred two years later.

Key words: ameloblastoma, maxilla, clinical report

緒 言 症 例

エナメル上皮腫は代表的な歯原性腫瘍で、下顎に好発する。上顎に生ずるものはまれとされており、発生頻度は欧米では15~20%であるが¹⁻⁸⁾、本邦ではそれよりも少なく5%前後といわれている⁹⁻²⁰⁾。上顎のエナメル上皮腫は下顎のそれと比較して臨床的かつ病理学的に異なった所見を呈する場合が多い。

わたくしたちは昭和43年から58年までの16年間に、大阪歯科大学附属病院第1口腔外科を受診しエナメル上皮腫と診断された104例のなかから、上顎骨に発生した5例の臨床所見ならびに組織学的所見について報告する。

症例1: 41歳 男性。

主 訴: 左側上顎歯肉内部腫脹。

X線所見: 上顎結節部に境界明瞭な単胞性X線透過像(写真1)。

組織学的所見: 棘細胞型エナメル上皮腫。上皮の扁平上皮化生が強く、角化を伴う。間質は密な線維性結合組織よりなる(写真2)。

治 療: 上顎骨部分切除術。

経 過: 術後8年を経過して再発なし。

症例2: 60歳 女性。

主 訴: 右側上顎臼歯部に潰瘍(写真3)。

X線所見: 上顎結節部に境界明瞭な単胞性X線透過像(写真4)。

組織学的所見: 濾胞型および叢状型が混在してみられるエナメル上皮腫。一部に基底細胞型の部分をみる(写真5)。

治 療: 患者の都合により他院へ転医した。

大阪歯科大学口腔外科学教室第1講座

(主任: 白数力也教授)

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

受付日: 昭和60年4月5日

写真 1 デンタルX線写真(症例1). 上顎結節部に単胞性、境界明瞭な透過像が認められる。病巣は一部第三大臼歯歯根膜空隙と連続しているが、根の吸収はない。

写真 4 咬合型X線写真(症例2). 上顎結節部に境界明瞭な透過像が認められる。根の吸収はない。

写真 2 病理組織学的所見(症例1). 棘細胞型エナメル上皮腫で、角化傾向は強い。間質は密な結合組織である。H-E染色, $\times 40$

写真 5 病理組織学的所見(症例2). 濾胞型と叢状型の入り混じった像を呈する。円柱状細胞の増殖が著明で、一部基底細胞型エナメル上皮腫の所見が認められる。H-E染色, $\times 40$

写真 3 初診時口内写真(症例2). 上顎結節部歯肉から口蓋にかけて腫脹および潰瘍がみられる。

写真 6 初診時口内写真(症例3). 左上前歯部から小臼歯部にかけて歯肉部の腫脹がみられる。

写真 7 パナグラフィ(症例3) 境界不明瞭な泡沫状透過像を呈する。歯根の離開がみられる。

写真 10 パナグラフィ(症例4)。境界明瞭な多胞性透過像。上顎洞底は一部上方に挙上されている。

写真 8 病理組織学的所見(症例3)。棘細胞型エナメル上皮腫。腫瘍間質は細胞成分に乏しく、密な膠原線維からなる結合組織である。H-E 染色, $\times 40$

写真 11 病理組織学的所見(症例4)。棘細胞型エナメル上皮腫。間質の線維化は著しく、島状または索状の上皮が認められる。H-E 染色, $\times 100$

写真 9 初診時口内写真(症例4)。前歯部から小臼歯部にかけて歯肉部の腫脹および潰瘍がみられる。

写真 12 初診時口内写真(症例5)。前歯部歯肉腫脹がみられる。

写真 13 パナグラフィ (症例 5). 左上側切歯と犬歯の間に境界明瞭な単胞性透過像がみられる。側切歯の遠心の白線は消失しているが、根の吸収は認められない。

写真 15 パナグラフィ (症例 5). 再発時所見。初発部位と同部位に境界不明瞭な泡沫状透過像が認められる。

写真 14 病理組織学的所見 (症例 5). 緻密な結合組織中に濾胞状の上皮組織がみられる。濾胞内部の星状細胞は一部で認められるものの著明ではない。H-E 染色, $\times 100$

症例 3 : 30歳 女性。

主 訴 : 左側上顎前歯部から同側小臼歯部の歯肉部腫脹 (写真 6)。

X線所見 : 辺縁不明瞭な泡沫状透過像。左側上顎犬歯と第 1 小臼歯の間に歯根離開がみられる (写真 7)。

組織学的所見 : 一部に角化を伴う棘細胞型エナメル上皮腫。腫瘍間質は緻密な線維性結合組織である (写真 8)。

治 療 : 上顎骨部分切除術。

経 過 : 術後 5 年をへて再発なし。

症例 4 : 79歳 男性。

主 訴 : 右側上顎前歯部から同側小臼歯部歯肉の腫脹および潰瘍 (写真 9)。

X線所見 : 境界明瞭な多胞性透過像を呈し、上顎洞底の一部は上方に挙上されている (写真 10)。

組織学的所見 : 棘細胞型エナメル上皮腫。間質の線維化は著しい (写真 11)。

治 療 : 患者の都合により治療を中断。

症例 5 : 57歳 男性。

主 訴 : 左側上顎前歯部歯肉の腫脹 (写真 12)。

X線所見 : 境界明瞭な単胞性透過像。腫瘍に隣接する歯根の離開が認められる (写真 13)。

組織学的所見 : 濾胞型エナメル上皮腫。間質の線維化は著しい (写真 14)。

治療および経過 : 歯源性嚢胞の診断で摘出術を行ったが、病理組織診断はエナメル上皮腫であった。腫瘍は 2 年後に再発した。再発時の X 線所見では、同部に泡沫状の透過像がみられ (写真 15)、左側側切歯および犬歯を含めて上顎骨部分切除術を行った。再発した腫瘍の組織像は発初時のものと同様であった。

考 察

エナメル上皮腫は歯堤の残存上皮、歯胚、マラッセの残存上皮などから発生する歯源性腫瘍であり、下顎骨の犬臼歯部から下顎角にかけて好発する。この部位に多い理由として、歯堤の後方への延長が最も活発なために上皮細胞の増殖が著明で、腫瘍が発生しやすい環境にあることが考えられる²¹⁾。また腫瘍の発生には局所刺激が大きな要因になることが一般的に認められており、しばしば第 3 犬臼歯が萌出困難を伴うためにこの部位に多く発生すると考えられている²²⁾。また、この部位にしばしば過剰な歯胚がみられることに関連があるとする意見もある²³⁾。上顎に発生する頻度が少ない理由は不明であるが、New (1929)²²⁾ は歯の萌出に関連があることを示唆している。すなわち上顎には萌出困難な歯牙の少ないことが本腫瘍の発生が少ない理由のひとつと考えられる。またエナメル上皮腫は濾胞性歯嚢胞の上皮から発生する

場合のあることは広く知られている²⁴⁻³²⁾。この嚢胞は下顎智歯部同様、上顎犬歯部にも好発するにもかかわらず、エナメル上皮腫は下顎に圧倒的に多い。Forsberg (1954)²³⁾はこの理由について、嚢胞の上皮が腫瘍化するには持続的刺激が必要であり、しばしば慢性炎症を伴う下顎臼歯部の嚢胞にエナメル上皮腫がより発生しやすいと述べている。

現在までに発表された報告をみると、上顎エナメル上皮腫の発生年齢は下顎に比較して高く分布する。年齢の記載のあった本邦での症例13例³³⁻³⁹⁾の平均年齢は51.7歳であったが、われわれの症例でも年齢は30歳から79歳まで分布し平均53.4歳ではば一致していた。これは、当科における97例の下顎エナメル上皮腫の平均年齢32.5歳に比較して有意に高かった。

組織学的に、本研究の5例に共通した所見として、全例とも間質の結合組織の線維化が著明にみられた。また上皮胞巣は典型的なエナメル器に類似した組織を形成することは少なく、症例1, 3, 4のように棘細胞型あるいは症例2のように基底細胞型を呈する非典型的なものが多かった。また濾胞型に分類した症例5も上皮胞巣のエナメル髓様構造は乏しかった。さらに腫瘍の辺縁部は境界不明瞭で、小さな上皮巣が周囲の結合組織中に散在するいわゆる局所浸潤性の組織像を呈する場合が多かった。これらの組織像は宮崎ら³³⁾のいうように上顎に発生するエナメル上皮腫は異型的なものが多く、扁平上皮にきわめて近い性格を有する場合が多いという所見と一致した。

角化傾向のある棘細胞型エナメル上皮腫は浸潤性が強いといわれている²⁾。また上顎骨の解剖学的な特徴として皮質骨が薄く周囲の抵抗が弱いため、腫瘍が容易に周囲に浸潤しやすい。そのため洞内に侵入したり、頭蓋底にまで達することがある⁴⁰⁾。このように上顎エナメル上皮腫は下顎エナメル上皮腫に比較してより局所浸潤性が高い⁴¹⁾、保存的手術は選択されず、健康組織を含めた上顎骨部分切除が行われる。

X線所見では、本研究では5例のうち単胞性が3例、多胞性が1例、泡沫状が1例で、上顎エナメル上皮腫は単胞性のものが多いとする従来の報告⁴²⁾とは一致しなかった。

結 語

1. 昭和43年から58年までの16年間に当科を受診したエナメル上皮腫104例のうち、上顎に発生した5例について報告した。上顎の発生頻度は4.8%であった。
2. 上顎エナメル上皮腫5例の平均年齢は53.4歳で、下顎に発生したものに比較して有意に高かった。
3. X線的にはとくに一定の所見は得られなかった。
4. 病理組織学的には典型的なエナメル上皮腫の所見は示さず、扁平上皮に近い分化度の低い像が多くみられ

た。また腫瘍間質は高度に線維化した結合組織で形成されているものが多かった。

5. 手術を行った3例のうち、上顎骨部分切除術を行った2例には再発はなかったが、摘出術を行った1例は2年後に再発した。

引 用 文 献

- 1) McFarland, J., Patterson, H.M.: Adamantinomata. *Dent Cosm* 72: 656-670 1931.
- 2) Georgiade, N., Masters, F.: The ameloblastoma (adamantinoma) and its surgical treatment. *Plast Reconstr Surg* 15: 6-14 1955.
- 3) Small, I.A., Waldron, C.A.: Ameloblastoma of the jaws. *Oral Surg* 8: 281-297 1955.
- 4) Masson, J., McDonald, J.R., et al.: Adamantinoma of the jaws: A clinicopathologic study of 101 histologically proved cases. *Plast Reconstr Surg* 23: 510-525 1959.
- 5) Gorlin, R.J., Chaudhry, A.P., et al.: Odontogenic tumors. *Cancer* 14: 73-101 1961.
- 6) Sehdev, M.K., Huvos, A.G., et al.: Ameloblastoma of maxilla and mandible. *Cancer* 33: 324-333 1974.
- 7) Regezi, J.A., Kerr, D.A., et al.: Odontogenic tumors: analysis of 706 cases. *J Oral Surg* 36: 771-778 1978.
- 8) Shafer, W.G., Hine, M.K., et al.: A Textbook of Oral Pathology. 4th Ed, Saunders, Philadelphia, 1983, p 279.
- 9) 平出経布: エナメル上皮腫の臨床的ならびに病理学的研究. *日口外誌* 4: 214 1958.
- 10) 寺崎太郎: エナメル上皮腫に関する臨床病理学的研究. *阪大歯誌* 4: 1277-1297 1959.
- 11) 柴崎佐平: 珪瑯上皮腫の臨床的ならびに病理組織学的研究. *歯科学報* 60: 978-999 1960.
- 12) 伊藤秀夫, 曾田忠雄, 他: エナメル上皮腫の臨床的研究, 第一報, 上顎のエナメル上皮腫について (抄). *口科誌* 15: 180 1966.
- 13) 伊藤輝夫, 曾我宏世, 他: エナメル上皮腫の自験例について (抄). *口科誌* 23: 240 1974.
- 14) 山本浩嗣, 高木 実, 他: エナメル上皮腫の臨床病理学的検討. *日大歯学* 49: 81-91 1975.
- 15) 久保田文良, 本間 学, 他: エナメル上皮腫36症例の臨床病理学的研究. *日口外誌* 24: 609-613 1978.
- 16) 横林敏夫, 横林康男, 他: エナメル上皮腫41症例の臨床病理組織学的検討. *日口外誌* 27: 417-421 1981.
- 17) 堂原美義, 杉原一正, 他: エナメル上皮腫の臨床病理学的検索. *日口外誌* 27: 435-441 1981.
- 18) 茅野照雄, 石川梧朗: 上顎のエナメル上皮腫について (抄). *口病誌* 48: 188 1981.
- 19) 石川梧朗, 秋吉正豊: 口腔病理学Ⅱ. 改訂版,

- 永末書店, 京都, 1982, 463頁.
- 20) 久保田文良: エナメル上皮腫の病理学的研究. 北関東医学 32(1): 15-39 1982.
- 21) Spouge, J.D.: Odontogenic tumors: a unitarian concept. Oral Surg 24: 392-403 1967.
- 22) New, G.B.: Surg. Clinics of N.A. 9: 80 1929. 1) から引用.
- 23) Forsberg, A.: A contribution to the knowledge of the histology, histogenesis and etiology of adamantinomas. Acta Odonto Scand 12: 39-64 1954.
- 24) Cahn, L.R.: The dentigerous cyst is a potential adamantinoma. Dent Cos 75: 889-893 1933.
- 25) Bailey, J.W.: Dentigerous cyst with ameloblastoma: Report of a case. Oral Surg 4: 1122-1126 1951.
- 26) Madan R.: Ameloblastoma developing from a dentigerous cyst. Oral Surg 13: 781-786 1960.
- 27) Castner, D.V., McCully, L.C., et al.: Intracystic ameloblastoma in the young patient: report of a case. Oral Surg 23: 127-134 1967.
- 28) Young, D.R., Robinson, M.: Ameloblastomas in children: report of a case. Oral Surg 15: 1155-1162 1962.
- 29) Dresser, W.J., Segal, E.: Ameloblastoma associated with a dentigerous cyst in a 6-year-old child. Oral Surg 24: 388-391 1967.
- 30) Stanley, H.R., Diehl, D.L.: Ameloblastoma potential of follicular cysts. Oral Surg 20: 260-268 1965.
- 31) Vickers R.A., Gorlin, R.J.: Ameloblastoma: delineation of early histopathologic features of neoplasia. Cancer 26: 699-710 1970.
- 32) Robinson, L. and Martinez, M.G.: Unicystic ameloblastoma: a prognostically distinct entity. Cancer 40: 2278-2285 1977.
- 33) 宮崎吉夫, 荒井元正: 斑珥上皮腫ノ組織由来ニ就テ 口病誌 13: 350-366 1939.
- 34) 義川伸一, 上橋陸海, 他: 口腔側粘膜に潰瘍を形成した上顎前歯部エナメル上皮腫の一例. 日口外誌 28: 260-263 1982.
- 35) 梅 平進, 真館修一郎, 他: 上顎に発生したエナメル上皮腫の一例. 日口外誌 22: 53-56 1976.
- 36) 横林敏夫, 中島民雄, 他: 上顎臼歯部に発生した残留嚢胞と考えられたエナメル上皮腫の一例. 新潟歯学会誌 4: 27-31 1974.
- 37) 滝川富雄, 田中 博, 他: 上顎に生じた4例のエナメル上皮腫について. 日大歯学 41: 552-561 1967.
- 38) 滝川富雄, 松本光彦, 他: エプーリス状の増殖を示した上顎エナメル上皮腫の一例. 日大歯学 55: 920-924 1981.
- 39) 斉藤 彰, 高橋廣臣: 上顎エナメル上皮腫の一例. 耳喉 51: 61-65 1979.
- 40) Tsaknis, P.J. and Nelson, J.F.: The maxillary ameloblastoma: an analysis of 24 cases. J Oral Surg 38: 336-342 1980.
- 41) Zegarelli, E.V. and Kutscher, A.H., et al.: Diagnosis of the Mouth and Jaws, 1st Ed, Lea & Febiger, Philadelphia, 1969, p 258.
- 42) Mehlich, D.R., Dahlin, D.C., et al.: Ameloblastoma: a clinicopathologic report. J Oral Surg 30: 9-22 1972.