下顎前歯部に発生した腺様歯源性腫瘍の1例

大山 茂・福地康浩・藤原康次・古賀正章
副島 渉・嘉村壽人・後藤昌昭・香月 武

A case of adenomatoid odontogenic tumor in the anterior portion of the mandible

Shigeru OHYAMA・Yasuhiro FUKUCHI・Kouji FUJIWARA・Masaaki KOGA
Wataru SOEJIMA・Hisato KAMURA・Masaaki GOTO・Takeshi KATSUKI

Abstract: The adenomatoid odontogenic tumor is a very rare epithelial odontogenic neoplasm. This lesion occurs most frequently in the second decade of life and affects females more frequently than males. This tumor tends to appear more often in the maxilla than the mandible, and the anterior portion of the jaw is the most common site.

This report deals with the detailed description of a case of adenomatoid odontogenic tumor in the mandible of a 16-year-old female.

Key words: Odontogenic tumor, mandible, adenomatoid odontogenic tumor

緒 言

腺様歯源性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つわめてまれな歯源性腫瘍である。

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：16歳 女性。

初 診：昭和60年2月■日。

主 訴：4～11部の無痛性腫脹。

既往歴・家族歴：特記事項なし。

現病歴：昭和59年春、下顎前歯部の叢生および同部の唇側歯肉の腫脹に気付いた。同年10月頃より4～11部唇側歯槽部の腫脹を自覚したが疼痛がないため放置していた。昭和60年2月に入り腫脹の消退がみられないため学校の保健医に相談し、2月■日某歯科を受診したところ

当科を紹介され来院した。

現 症

全身所見：体格、栄養ともに中等度で他に特記すべき事項は認められなかった。

口腔外所見：顔貌は左右非対称で右オトガイ部にび漫性の腫脹を認めた。同部の被覆皮膚には発赤、知覚麻痺

写真1 初診時顔貌所見

佐賀医科大学歯科口腔外科

(主任：香月 武教授)

Department of Oral Surgery, Saga Medical School

(Chief: Prof. Takeshi Katsuki)

受付日：昭和60年9月24日

写真 2 口腔内所見 (生検後)

写真 3 オルソパントモグラフィ所見

写真 4 咬合法X線写真所見

写真 5 デンタルX線写真所見

写真 6 摘出時所見 (唇側皮質骨の膨隆)

り歯列不正が認められた。また、3211に動揺が認められ、電気歯髄診断では43211は陽性であった(写真2)。

X線所見：オルソパントモグラフィでは41部の下顎骨内に単房性の比較的境界明瞭な透過像が認められ、21間の歯根離開が認められた(写真3)。41部の咬合法X線写真では41の唇側に向かって半球状に膨隆したX線透過像が認められた(写真4)。デンタルX線写真ではX線透過像内に不定形の点状不透過像が多数認められた(写真5)。

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

臨床診断：腺様歯原性腫瘍の疑い。

処置および経過：昭和60年2月■日、局麻下にて生検を行い、腺様歯原性腫瘍の病理診断を得た。昭和60年3月22日、全麻下にて腫瘍摘出術および31抜歯術を行った。41部の唇側皮質骨は菲薄化し半球状に膨隆していた(写真6)。腫瘍は被膜に覆われており、周囲の

等の異常は認められなかった(写真1)。

口腔内所見：41部唇側歯槽部に比較的境界明瞭な膨隆が認められ、一部に羊皮紙様感を触知したが圧痛は認められなかった。同部の被覆粘膜の表面は滑沢で、わずかに発赤を認めた。41部舌側歯槽部にも軽度のび慢性の腫脹を認めたが羊皮紙様感等は認められなかった。11は遠心傾斜、321は近心および舌側に傾斜してお

写真 7 摘出時所見 (腫瘍の表面)

写真 10 摘出物断面所見

写真 8 摘出後の骨欠損部への多孔質ハイドロキシアパタイト補填

写真 11 病理組織学的所見 (H-E 染色, 弱拡大)

写真 9 摘出物所見

写真 12 病理組織学的所見 (H-E 染色, 強拡大)

骨との癒着はなく容易に剥離摘出できた(写真7)。骨欠損部へは多孔質ハイドロキシアパタイトを補填した(写真8)。

摘出物所見：腫瘍は球状を呈し、表面は滑沢で結合繊維被膜で覆われ比較的弾性軟であった(写真9)。断面では、充実性で黄褐色を呈し、ところどころに小囊胞腔が認められた(写真10)。

術後の経過は良好で、現在まで再発は認められない。
病理組織学的所見：腫瘍はわずかの線維性間質を伴った円柱状、紡錘形あるいは多角形の上皮細胞の増殖よりなっていた。円柱状細胞は大小の腺管様、あるいは2列に向き合って配列した帯状ないし花冠様の胞巣を形成しており、それらの胞巣を紡錘形あるいは多角形の細胞がとり囲むように増殖していた。腺管様構造内は空虚に見えるものが多いが、ときには内壁に沿ってエオジン好性の薄い膜様物がみられ、なかに液状の内容物を入れてい

るものもみられた。さらにそれらを取り囲む紡錘形あるいは多角形の細胞間にも、類円形の硝子様物質あるいは石灰化物が認められた(写真11, 12)。摘出組織には一部骨組織が含まれていたため、切片作製時に脱灰操作を加えており、上記の硝子様物質と石灰化物とは H-E 染色では明確な区別が付きがたく、硝子様物質あるいは石灰化物質として一緒に取り扱った。

以上の所見より腺様歯原性腫瘍と診断した。

腺管様構造内の膜様物、内容物、帯状ないし花冠状の胞巣内の硝子様物質、紡錘形あるいは多角形の細胞間の硝子様あるいは石灰化物の組織化学的特性を調べるために H-E 染色以外に、PAS, Alcian Blue, Toluidine Blue (pH 4.1), Azan Mallory, 鍍銀などの特殊染色を行った。

1) 腺管様構造内の膜様物、および内容物はエオジン好性で PAS 反応陽性、Alcian Blue, Toluidine Blue, Azan Mallory で青染し、鍍銀染色で好銀性を示した。

2) 帯状ないし花冠状の胞巣内の硝子様物質はエオジン好性で、PAS 反応陽性、Toluidine Blue, Azan Mallory で青染したが Alcian Blue 染色では陰性であった。鍍銀染色では好銀性を示した。

3) 紡錘形あるいは多角形の細胞間の硝子様あるいは石灰化物は大部分がエオジン好性であったが一部ヘマトキシリンに染まる部分も認められた。PAS 反応には強陽性を示し、Alcian Blue では陰性であった。Toluidine Blue では青染され、特に周辺部で強く濃染された。Azan Mallory では青あるいは紅色に染まり鍍銀染色では好銀性を示した。

考 察

本腫瘍は1907年に Dreibladt によって pseudoadenoma adamantinum として報告されて以来¹⁾、長年エナメル上皮腫の亜型として取り扱われてきたが、その病態がエナメル上皮腫とは異なることが明らかになり1969年に Philipsen & Birn¹⁶⁾の提唱した腺様歯原性腫瘍の名称が1917年の WHO¹⁾で採用され、現在ではこの名称が一般に使用されている。

本腫瘍の発現頻度はエナメル上皮腫の1~4%程度といわれ、歯原性腫瘍のうちエナメル上皮腫が8~20%であることからきわめてまれな腫瘍と考えられる^{6,24,25,32,37)}。Regezi ら²¹⁾は706例の歯原性腫瘍のうち22例、約3%が本腫瘍であったと報告している。

発現年齢は10歳代に圧倒的に多く、青壮年期以降ではきわめて少ない。性別では女性が男性の約2~4倍近くを占めている。発生部位は上顎に比較的多く、高橋ら¹²⁾は55%、Giansanti ら¹⁹⁾は65%、Courtney ら³⁰⁾は53%が上顎であったと報告している。他の歯原性腫瘍が臼歯部に多くみられるのに対して本腫瘍は前歯部に多く、従

来の報告では70%以上が上下顎の前歯部に認められている^{18,19,30)}。きわめてまれではあるが本腫瘍の軟組織発生例の報告^{8,30)}もあり、また上顎洞内に発生した例の報告¹⁴⁾もある。

X線所見では境界明瞭な類円形の透過像を呈し40~74%に埋伏歯を有するといわれ、含歯性嚢胞ときわめて類似する場合が多い^{8,12,19,20,30)}。しかし、Giansanti ら¹⁹⁾は含歯性嚢胞の場合ほとんどが歯頸部まで透過像内に存在するのに対し、本腫瘍は歯根部、あるいは歯牙全体が透過像内に存在する例が多いと指摘している。また、透過像内に石灰化物を含む点が本腫瘍の特徴的なX線像としてあげられている。高橋ら¹²⁾は記載が明らかな報告で93%、Giansanti ら¹⁹⁾は65%、Courtney ら³⁰⁾は24%に石灰化像が認められたと報告している。

以上述べたように、臨床所見としては他の歯原性腫瘍に比較し特徴的な相違点が多く、鑑別診断を行うには比較的容易なように思われる。しかし、透過像内の石灰化像がすべてに認められるわけではなく、また埋伏歯を伴わない場合など鑑別は困難であり^{12,13,15)}、好発部位の点からも球状上顎嚢胞ときわめて類似する場合もあり^{17,30,33)}、最終的には病理組織学的診断が必要となる。

病理組織学的には、本腫瘍は線維性結合組織で被覆された腫瘍で、腫瘍実質内に腺管様構造を有し、石灰化組織の形成を伴う特徴をもっている。しかし、腫瘍実質細胞の由来、腺管様構造、好酸性物質および石灰化物などの本態については不明な点が多く、従来より多くの検討がなされている^{2-6,9-11,13,22,27,29,31,32)}。

腫瘍実質細胞については、口腔粘膜上皮^{10,30)}、含歯性嚢胞の上皮^{8,23,36,40)}、エナメル器^{5,7,22,34-36)}などがその由来としてあげられ、特にエナメル器の構成細胞に類似することから、エナメル器由来とするものが多い。本症例においてもエナメル器類似の組織よりなる腫瘍実質が認められた。小林ら⁴⁰⁾は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、微細構造的にも腫瘍細胞は未分化な歯原性上皮であることを指摘し、嚢胞壁上皮が連続して発現増殖し、本腫瘍を形成したのではないかと推定している。Stanley ら¹⁸⁾は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を報告しており、小林らはこのことを含めて本腫瘍の細胞が嚢胞上皮に由来し、若年者および前歯部に好発するのはこのためではないかと報告している。石川³⁾は本腫瘍の発生部位に歯牙の先天欠如や、埋伏歯のエナメル質形成異常がないことは、エナメル器由来とする考えに矛盾するとし、エナメル器まで想定する必要はなく、歯胚上皮としての分化能をよく保存している上皮を芽細胞とするのであろうと述べている。

腺管様構造の本態については、管腔内を腫瘍実質の変化とするものと、間質の変化とするものの二つに大きく分かれ、組織化学的検索および電顕的観察が多く行われ

ている。Spouge⁷⁾や Schlosnagle ら³⁰⁾は腫瘍実質細胞の分泌の活性が空洞を生ずると考え、一方、Ishikawa ら⁹⁾、Bhaskar⁶⁾は管腔の内壁に基底膜と考えられるものがあることを指摘し、管腔より間質への移行を認めることなどからこれを一種の間質嚢胞と考えている。また、Hatakeyama ら³⁰⁾、Moro ら³⁾、Takagi³²⁾、Lee ら¹¹⁾も電顕的観察結果から管腔内の basal lamina や細線維様構造に注目し、管腔を間質としている。加えて、Hatakeyama ら³⁰⁾は管腔内の内容物と腫瘍細胞間の硝子様物質について光顕的に染色性が異なることから、この両者は区別できると報告している。本症例においても管腔内の内容物は Alcian Blue, および Toluidine Blue 染色に陽性で、腫瘍細胞間の硝子様物質は Toluidine Blue 染色では陽性であったが、Alcian Blue 染色では陰性で同様に染色性は異なっていた。

好酸性物質については、これをアミロイド様物質とみなし、その起源をエナメル蛋白由来ではないかと推測する報告が多い^{11, 22, 32, 33)}。腫瘍実質内に存在する石灰化物の本態に関しては単なる異所性石灰化物とするもの^{6, 22, 23, 34)}と、エナメル質あるいは象牙質に類似し積極的に腫瘍細胞が関与するとする意見^{3, 11, 22, 23, 31)}があり、明らかにはされていない。以上のように本腫瘍には不明点が多く、今後さらに検討が必要であろう。

治療法としては従来の報告によれば大部分は摘出術が行われており、再発はきわめてまれである。しかし、術後12年目に再発した報告例³⁶⁾もあり、長期間の経過観察が必要であると考ええる。

結 語

われわれは16歳、女性の下顎に発生した腺様歯源性腫瘍の1例を経験したので、その概要と若干の文献的考察を加えて報告した。

引 用 文 献

- 1) Pindborg, J.J. and Kramer, I.R.H.: Histological Typing of Odontogenic Tumors, Jaw Cysts, and Allied Lesions. Geneva, World Health Organization, 1971, p 27-28.
- 2) Leon, B.: Surgical Pathology of the Head and Neck. Marcel Dekker, Inc, New York, 1985, p 1349-1352.
- 3) 石川 悟朗: 歯源性腫瘍について. 口病誌 49: 555-567 1982.
- 4) 石川 悟朗, 秋吉正豊: 口腔病理学Ⅱ. 改訂版, 永末書店, 京都, 1982, 481-486頁.
- 5) Moro, I., Okamura, N., et al.: The eosinophilic and amyloid-like materials in adenomatoid odontogenic tumor. J Oral Path 11: 138-150 1982.

- 6) Bhaskar, S.N.: Adenameloblastoma; its histogenesis. J Oral Surg 22: 218-226 1964.
- 7) Spouge, J.D.: The adenameloblastoma. Oral Surg 23: 470-482 1967.
- 8) Abrams, A.M., Melrose, R.J., et al.: Adenameloblastoma; A clinical pathologic study of ten new cases. Cancer 22: 175-185 1968.
- 9) Ishikawa, G. and Mori, K.: A histopathological study on the adenomatoid ameloblastoma. Acta Odont Scand 20: 419-432 1962.
- 10) Thoma, K.H.: Adenameloblastoma. Oral Surg 8: 441-444 1955.
- 11) Lee, K.W.: A light and electron microscopic study of the adenomatoid odontogenic tumor. Int Oral Surg 3: 183-193 1974.
- 12) 高橋浩二, 吉田 広, 他: 上顎前歯部に発生した腺様歯源性腫瘍の1例およびその文献的考察. 日口外誌 31: 1893-1904 1985.
- 13) 木下 毅彦, 志村 介三, 他: 腺様歯源性腫瘍の1例——組織化学・電顕的検索を加えて——. 日口外誌 31: 1775-1785 1985.
- 14) 能沢忠躬, 本庄 敏, 他: 上顎洞 Adenameloblastoma の1症例. 耳鼻臨床 67: 569-573 1974.
- 15) Bedrick, A.E., Solomon, M.P., et al.: The adenomatoid odontogenic tumor; An unusual clinical presentation. OS OM OP 48: 143-145 1979.
- 16) Philipsen, H.P. and Birn, H.: The adenomatoid odontogenic tumor. Acta Path Microbiol Scand 75: 375-398 1969.
- 17) Glickman, R., Super, S., et al.: An adenomatoid odontogenic tumor. Simulating globulomaxillary cyst. J Oral Medicine 38: 26-30 1983.
- 18) Stanley, H.R. and Diehl, D.L.: Ameloblastoma potential of follicular cysts. Oral Surg 20: 260-268 1965.
- 19) Giansanti, J.S., Someren, A., et al.: Odontogenic adenomatoid tumor (adenameloblastoma). Survey of 111 cases. OS OM OP 30: 69-86 1970.
- 20) Courtney, R.M. and Kerr, D.A.: The odontogenic adenomatoid tumor. A comprehensive study of twenty new cases. OS OM OP 39: 424-435 1975.
- 21) Regezi, J.A., Kerr, D.A., et al.: Odontogenic tumors; analysis of 706 cases. J Oral Surg 36: 771-778 1978.
- 22) 枝 重夫, 山根 隆, 他: Adenomatoid odontogenic tumor (いわゆる Adenameloblastoma) の1症例. 日口誌 20: 834-841 1971.
- 23) 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的観察および文献的考察. 日口外誌

- 24: 1217-1227 1978.
- 24) 小川 卓, 大久保滋郎, 他: 腺様歯源性腫瘍の3症例. 日口外誌 27: 722-728 1981.
 - 25) 伊藤秀夫, 川上英世, 他: 腺——エナメル上皮腫の1例. 口外誌 3: 89-91 1957.
 - 26) 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: 155-159 1971.
 - 27) 堂原義美, 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.
 - 28) 白敷力也, 森村正良, 他: 多形性腺腫を疑った Adenomatoid odontogenic tumor の1例. 日口外誌 28: 1207-1210 1982.
 - 29) 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.
 - 30) 小金澤一美, 石井保雄, 他: 球状上顎嚢胞が疑われた adenomatoid odontogenic tumor ——組織化学的考察——. 日口外誌 31: 1185-1190 1985.
 - 31) 国分征二: 口腔領域における腫瘍ならびに腫瘍性病変の病理形態学的研究. 日大歯学 53: 390-395 1979.
 - 32) Takagi, M.: Adenomatoid ameloblastoma. An analysis of nine cases by histopathological and electron microscopic study. Bull Tokyo Med Dent Univ 14: 487-506 1967.
 - 33) 高橋庄二郎, 服部考範, 他: Adenoameloblastoma の3例. 歯科学報 64: 120-127 1961.
 - 34) Hatakeyama, S. and Suzuki, A.: Ultrastructural study of adenomatoid odontogenic tumor. J Oral Path 7: 295-310 1978.
 - 35) Smith, R.R.L., Olsen, J.L., et al.: Adenomatoid odontogenic tumor. Cancer 43: 505-511 1979.
 - 36) Schlosnagle, D.C. and Someren, A.: The ultrastructure of the adenomatoid odontogenic tumor. OS OM OP 52: 154-161 1981.
 - 37) 小守 昭: 口腔領域における腫瘍——腫瘍の病理——. 歯科ジャーナル 14: 545-555 1981.
 - 38) Khan, M.Y., Kwee, H., et al.: Adenomatoid odontogenic tumor resembling a globulo-maxillary cyst; light and electron microscopic studies. J Oral Surg 35: 739-742 1977.
 - 39) Swinson, T.W.: An extraosseous adenomatoid odontogenic tumor; A case report. Brit J Oral Surg 15: 32-36 1977-1978.
 - 40) 小林弘浩, 西嶋克巳, 他: 腺様歯源性腫瘍の1例. 日口外誌 30: 1745-1750 1984.