上顎骨に発生した基底細胞型エナメル上皮腫の1例

松尾留美子・藤原康次・大山 茂・中川泰年
後藤昌昭・香月 武

Basal cell ameloblastoma of the maxilla

Rumiko MATSUIO・Kouji FUJIWARA・Shigeru OHYAMA・Hirotoishi NAKAGAWA
Masaaki GOTO・Takeshi KATSUKI

Abstract: Ameloblastoma is the most common tumor among odontogenic tumors and frequently occurs in the mandible. According to WHO classification, the majority of the tumors had follicular or plexiform histologic pattern, and basal cell type was relatively rare.

A case of maxillary ameloblastoma of basal cell type is presented. A 64 years-old man was referred to our clinic with a chief complaint of incomplete wound healing in 17 extraction socket. The socket was filled with soft tissue mass without covering epithelium. The mass was resected under general anesthesia and the diagnosis of ameloblastoma of basal cell type was established.

The tumor cell, resembling basal cells, were examined by electron microscopy and compared with ultrastructures of ameloblastoma by several authors.

Key words: ameloblastoma, maxilla, basal cell type

緒 言

エナメル上皮腫は歯源性腫瘍の中で、比較的高い頻度を占めているが、その好発部位は下顎である。組織学的には WHO の分類¹⁾によると、follicular, plexiform, basal cell, acanthomatous, granular cell, other various type の6型に分類され、また、石川ら²⁾によるとⅠ～Ⅲ型に分類される。組織学的発生頻度は、WHO の分類に従うと follicular あるいは plexiform type のものが多く³⁻⁵⁾、basal cell type のものは報告が少ない。今回わたしたちは、上顎に発生した basal cell type のエナメル上皮腫を経験したので電頭的考察を加えて報告する。

症 例

患 者：64歳 男性。

佐賀医科大学歯科口腔外科学教室
(主任：香月 武教授)
Department of Oral Surgery, Saga Medical School
(Chief: Prof. Takeshi Katsuki)
受付日：昭和63年5月18日

初 診：昭和60年7月■日。

主 訴：17抜歯窩治癒不全。

既往歴：昭和55年頃より糖尿病のため、食事療法を行っている。

家族歴：特記事項なし。

現病歴：17の動揺を主訴として昭和58年11月に某歯科を受診し、17の抜歯を受けた。その後、同医にて抜歯窩の治癒経過観察を行っていたが、抜歯窩治癒不全のため当科を紹介された。

現 症

全身所見：体格、栄養状態ともに良好であった。

口腔外所見：顔貌は左右対称であり、特記事項はなかった。

口腔内所見：17抜歯窩の上皮被覆はなく、抜歯窩内には肉芽様の軟組織塊が充満していた。同部の歯槽部は膨隆しており、硬さは骨様硬であった(写真1)。抜歯窩中央よりゾンデを挿入すると約2cm進めたところで骨に触れ、上顎洞との交通は認められなかった。

X線所見：オルソパントモグラフィーおよび断層撮影にて、178相当部に比較的境界明瞭な単胞性のX線透過像を認めた。上顎洞との交通はなかった(写真2, 3)。

CT 所見：左側上顎大臼歯部に類円形の腫瘍陰影像を

写真1 初診時口腔内所見

写真4 初診時 CT 所見

写真2 初診時オルソパントモグラフ所見

写真5 手術終了時の口腔内所見

写真3 初診時断層X線写真所見

認め、上顎結節の一部に骨吸収が認められた。上顎洞への浸潤は認められなかった(写真4)。

臨床所見：血液生化学検査において、空腹時血糖が130 mg/dlを示した。その他、血液一般検査、血清学校

査、胸部X線写真および心電図において異常は認められなかった。

臨床診断：左上顎腫瘍。

処置および経過：局所麻酔下にて、17抜歯窩の組織を生検したところ、エナメル上皮腫と診断された。昭和60年9月■日、全身麻酔下にて腫瘍切除を行った。腫瘍周囲の口腔粘膜および頰側歯槽骨を共に一塊として切除した後、露出した骨面を球状バーにて十分に削合した。創は開放創とし(写真5)、術後、義歯を装着させ、創の保護をはかった。現在、術後約2年6か月を経過しているが、開放創もほとんど閉鎖し、再発は認められず経過良好である(写真6)。

摘出物所見：腫瘍には明らかな被膜はなく、全体的に弾性軟、充実性の軟組織塊であった(写真7)。

病理組織学的所見

光顕所見：腫瘍は主として基底細胞に類似した立方状あるいは円柱状の腫瘍細胞の増殖より成り、それらの細胞が索状あるいは充実性の小胞巣状に増殖していた。索状に増殖する部分では、腫瘍細胞がほぼ2層性に配列し、それらの細胞は比較的大きな類円形の核を有していた(写真8)。充実性の小胞巣状に増殖する部分では周

写真 6 術後1年6か月の口腔内所見

写真 8 病理組織所見 (H-E 染色)

索状に増殖する部分

腫瘍細胞がほぼ2層性に配列し、間質は疎な繊維性結合織より成る。

写真 7 摘出物所見

写真 9 病理組織所見 (H-E 染色)

充実性の小胞巣を示す部分

胞巣の中心部では扁平上皮化生が認められる。

辺には高円柱状の細胞が柵状に配列し、それらの細胞の核は長円形で胞巣中心部に向かって極性を示し、また間質から遠い胞巣側に位置していた。胞巣中心部の細胞は多角形あるいは扁平な細胞から成り、ときには細胞間に明らかな細胞間橋を認めた(写真9)。腫瘍間質は疎な線維性結合織で占められており、しばしば囊胞状を呈している部分もあった。

電顕所見：基底細胞に類似した立方形あるいは円柱状の細胞は、核は比較的大型で不整楕円形を呈し、ところどころに深い切れ込みを伴う核も散見された。胞体内には中等度のミトコンドリア、粗面小胞体が主として基底側に存在していた。トノフィラメントは比較的豊富で束状に核を取り巻くように配列していた。その他、少量のグリコーゲン顆粒も認められた。それぞれの細胞はところどころに狭い細胞間隙をもって密接して存在し、デスモゾームによる接合も散見された。これらの細胞と間質は比較的平坦な連続した基底膜によって隔てられていた(写真10)。

病理診断：エナメル上皮腫、WHO の分類では basal cell type、石川の分類ではⅡ型であった。

写真 10 基底細胞型エナメル上皮腫の電顕写真 (×6,400)

考 察

エナメル上皮腫は口腔領域腫瘍の代表的なものであり、口腔領域の腫瘍性疾患のなかで占める割合は、8～19%⁶⁻⁸⁾で、歯源性腫瘍中では、45～57%⁶⁻⁸⁾であると報告されている。しかし、その多くは下顎に発生し、上顎の発生頻度は低く、本邦では5%前後⁷⁻¹⁰⁾と報告されている。

エナメル上皮腫の組織型分類は種々提唱されている。本邦では腫瘍の分化の程度によりⅠ～Ⅲ型に分類する石川の分類が最も多く用いられており、欧米ではWHOの分類に従って、follicular, plexiform, basal cell, acanthomatous, granular cell, other various typeの6型に分類するのが一般的である。組織型分類による発生頻度をWHOの分類に従ってみると、本邦では堂原⁹⁾、横林⁴⁾、山崎⁹⁾が報告しているように follicular, plexiform type が大半を占めている。上顎のエナメル上皮腫の分類では、Tsaknis ら¹¹⁾は上顎に発生したエナメル上皮腫24例のうち組織標本の得られた14例中、4例が plexiform, 2例が follicular, 6例が plexiform と follicular の混合型、さらに2例が acanthomatous type であり granular cell あるいは basal cell type のものはなかったと報告している。上顎に発生した basal cell type のエナメル上皮腫に関して、本邦では篠崎¹²⁾、榊原¹³⁾の1例報告があるが、plexiform, follicular type のものに比べて少ない。

本症例の場合、腫瘍細胞の増殖様式という観点からいうと plexiform type に分類されようが、しかし増殖している細胞は、立方状あるいは円柱状の基底細胞様細胞が主であり、エナメル嚢に似た構造を示す部分は認められなかった。この点 Nasu ら¹⁴⁾によって plexiform として述べられている光顕所見とは異なる。さらに、Takeda ら¹⁵⁾、榊原¹³⁾が報告している基底細胞型エナメル上皮

腫と光顕的には酷似しており本症例を基底細胞型エナメル上皮腫とした。

本症例の光顕所見の特徴の1つに口腔粘膜の扁平上皮と腫瘍胞巣との連続性があげられる(写真11)。このような連続性はエナメル上皮腫においてはしばしば観察され、腫瘍の発生母地が問題となるところである。軟組織に発生する peripheral ameloblastoma においては、このような連続性がみられたという報告が多く^{3,17,18)}、peripheral ameloblastoma の発生母地を口腔粘膜上皮の基底細胞とする意見もある。しかし本症例のように、臨床的にもX線的にも顎骨中心性のエナメル上皮腫と考えられる場合、口腔粘膜の扁平上皮と腫瘍胞巣との連続性は腫瘍増殖の二次的なものと考えた方が妥当であろう。またこのような症例は Mehlich ら¹⁶⁾の報告にもある。

エナメル上皮腫の電顕的研究に関しては、松田¹⁹⁾、久保田⁹⁾、Mincer ら²⁰⁾、Greer ら²¹⁾、Nasu ら¹⁴⁾の報告がある。今回わたしたちは基底細胞型エナメル上皮腫の主として基底細胞様細胞について電顕的に観察した。この細胞は写真10に示すごとく円柱状あるいは立方状で核は不整楕円形を呈し、しばしば切れ込みを示した。核細胞質比は大で、核は包巣中心側に偏在していた。胞体内には中等量のミトコンドリア、粗面小胞体が存在し、それらは主として基底膜側にみられた。トノフィラメントは比較的豊富で束状に核を取り巻くように配列していた。その他、少量のグリコーゲン顆粒も認められ、遊離リボソームは細胞全域に散在していた。ゴルジ装置はほとんどみられなかった。それらの細胞は互いに密接して存在し、ところどころに狭い細胞間隙が認められた。デスモゾームによる接着、microvilli による嵌合などもいくらかは認められるが、多くはなかった。基底膜側細胞膜にはしばしばハーフデスモゾームが認められた。細胞と間質とは明瞭な基底膜でへだてられ、しばしば細胞の凹凸によって平滑さを欠くが、連続性は失われなかった。この所見は松田¹⁹⁾の報告している分化の中等度のエナメル上皮腫(Ⅱ型)の周辺部の細胞の所見と酷似しているが、久保田⁹⁾、Mincer ら²⁰⁾、Greer ら²¹⁾、Nasu ら¹⁴⁾の述べているエナメル上皮腫の電顕像とは種類の点で若干異なっている。また Matthiessen ら²²⁾の述べているヒトエナメル器の電顕像と対比してみると、彼らのいう内エナメル上皮に似ているように思われたが、本症例の場合ゴルジ装置はほとんどみられなかった。

本腫瘍に対する治療法についてさまざまな検討がなされており、ことに上顎においては、下顎に比べて再発率が高いという理由から、顎骨切除が望まれる。しかしすべての症例に対して、根治的治療というのではなく、患者の年齢、腫瘍の大きさや部位、組織型、審美的要素などを十分検討したうえで決定すべきである。組織型と再発の関係については、山本²³⁾は分化の低い石川の分類のⅠ型に高い再発傾向がみられたとし、Georgiade ら²⁴⁾

写真 11 病理組織所見 (H-E 染色)

口腔粘膜と腫瘍胞巣との連続性が認められる。

は角化傾向のある acanthomatous type は浸潤しやすいと報告している。本腫瘍は、WHO の分類では basal cell type, 石川の分類ではⅡ型を示し、周囲への浸潤は少なく再発傾向も低いと考え摘出術を施行した。

術後約2年6か月を経過し、再発は認められないが、今後も長期間の観察が必要であると考ええる。

結 語

1. わたくしたちは、上顎骨に発生したエナメル上皮腫の1例を経験した。
2. 病理組織学的に基底細胞型エナメル上皮腫の所見が得られ、ところどころに扁平上皮への分化がみられた。
3. 基底細胞様細胞について電顕的に観察したところ、従来報告されているエナメル上皮腫の細胞の電顕像とは若干異なっていた。
4. 術後定期的に経過観察を行っているが、2年6か月後の現在も再発は認められない。

引 用 文 献

- 1) Pindborg, J. J. and Krammer, I. R. H.: Histological Typing of Odontogenic Tumors, Jaws Cysts and Allied Lesions. World Health Organization, Geneva, 1971, p 20-24.
- 2) 石川悟朗, 監修: 口腔病理学Ⅱ. 永末書店, 京都, 1984, 462-480頁.
- 3) 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: 435-411 1981.
- 4) 横林敏夫, 横林康男, 他: エナメル上皮腫41症例の臨床病理学的検討. 日口外誌 27: 471-421 1981.
- 5) 山崎 正, 武田 進, 他: エナメル上皮腫の臨床的・病理学的研究. 信州医誌 28: 458-468 1980.
- 6) 町田幸雄, 編: 歯源性腫瘍の発生状況, 第14回日本歯科学会総会プログラム講演抄録: 1977 249頁.
- 7) 柴崎佐平: 珐瑯上皮腫の臨床ならびに病理組織的研究. 歯科学報 60: 978-999 1960.
- 8) 鈴木章司, 水野明夫, 他: 当科における顎骨内良性腫瘍の臨床統計的検討. 口科誌 35: 239-249 1986.
- 9) 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: 15-39 1982.
- 10) 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). 日口外誌 15: 180 1966.
- 11) Tsaknis, P. J. and Nelson, J. F.: The maxillary ameloblastoma, an analysis of 24 case. J. Oral Surg 38: 336-342 1980.
- 12) 篠崎文彦, 伊田正道, 他: 高年齢女性の上顎にみられたエナメル上皮腫の1例. 日口外誌 31: 162-166 1985.
- 13) 榊原一彦, 高井克彦, 他: 上顎に発生したエナメル上皮腫の1例. 日口外誌 31: 159-162 1985.
- 14) Nasu, M. and Ishikawa, G.: Ameloblastoma. Light and electron microscopic study. Virchows Arch 399: 165-175 1983.
- 15) Takeda, Y. and Kikuchi, A.: Hyalin bodies in ameloblastoma: histological and ultrastructural observations. J Oral Pathol 14: 639-643 1985.
- 16) Mehlich, D. R., Dahlin, D. C., et al.: Ameloblastoma: a clinicopathologic report. J Oral Surg 30: 9-22 1972.
- 17) 井出文雄, 渡辺孝夫, 他: Peripheral ameloblastoma の1例—症例報告と文献的考察. 日口外誌 27: 353-362 1978.
- 18) 手島貞一, 田中広一, 他: Peripheral ameloblastoma の1例. 日口外誌 23: 391-396 1977.
- 19) 松田聰一郎: エナメル上皮腫の電子顕微鏡的研究. 口腔病誌 34: 75-101 1967.
- 20) Mincer, H. H. and McGinnis, J. P.: Ultrastructure of three histologic variants of the ameloblastoma. Cancer 30: 1037-1045 1972.
- 21) Greer, R. O. and Hammound, W. S.: Extraosseous ameloblastoma: light microscopic and ultrastructural observation. J Oral Surg 36: 553-577 1978.
- 22) Matthiessen, M. E. and Romert, P.: Ultrastructure of the human enamel organ. 1. External enamel epithelium, stellate reticulum and stratum intermedium. Cell Tissue Res 205: 361-370 1980.
- 23) 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: 89-92 1975.
- 24) Georgiade, N. and Master, F.: The ameloblastoma (adamantinoma) and its surgical treatment. Plast Reconstr Surg 15: 6-14 1955.
- 25) 大山 茂, 古閑 望, 他: 上顎に発生したエナメル上皮腫の1例. 日口外誌 32: 434-440 1986.