エナメル上皮腫の臨床病理学的検討

古堅京子・山城正宏・砂川 元・金城 孝
喜舎場 学・仲宗根康雄・友寄喜樹

Clinico-pathological study on ameloblastoma

Kyoko FURUGEN・Masahiro YAMASHIRO・Hajime SUNAKAWA・Takashi KINJO
Manabu KISYABA・Yasuo NAKASONE・Yoshitatu TOMOYOSE

Abstract: Twenty-one ameloblastoma cases examined clinically, radiologically, and histopathologically were reported.

1) The mean age was 33.1 years old and the highest incidence was recognized in the first and fifth decades. There were 11 males and 10 females.

2) Twenty-one cases were found in the mandible, with the molar~ramus region being the most frequent site of involvement and none in the maxilla.

3) In radiographycal observations, eleven cases were unilocular type, seven cases were multilocular type and three cases were honeycomb or soap-bubble type.

4) In pathological observations using Ishikawa's classification, 1 case was Type I, 2 cases were Type II and eight-teen cases were Type III.

5) Eight-teen of the twenty-one cases were treated. Eight cases were operated on by segmental resection, 5 cases were operated on by partial resection and 5 cases were operated on by the conservative surgical method.

Key words: ameloblastoma (エナメル上皮腫), clinico-pathological study (臨床病理学的検討), treatment (治療)

緒 言

エナメル上皮腫は、歯原性腫瘍の中でもしばしば遭遇する疾患である。通常顎骨内に発生し、腫瘍が増大するに従って大小の嚢胞を形成することを特徴とする。その発育はきわめて緩慢であり組織学的には良性腫瘍であるが、骨浸潤性を有しており、しばしば再発を起こすといわれている。また、きわめてまれではあるが、転移など悪性の経過をとるものがあり¹⁻⁴⁾、臨床上、注意を要する腫瘍といわれている。今回われわれは、昭和48年9月より昭和63年1月までの14年4か月間に、琉球大学医学部歯科口腔外科を受診し、病理組織学的にエナメル上皮

腫と診断された21例について、臨床所見と治療法を中心に検討を行ったので報告する。

対象および方法

対象症例は昭和48年9月から昭和63年1月までの14年4か月間に、琉球大学医学部歯科口腔外科を受診し、病理組織学的にエナメル上皮腫と診断された21例である。

これら対象症例を、来院時年齢および性別、主訴および来院までの期間、腫瘍の大きさ、発生部位およびX線所見、病理組織学的分類、治療および経過について検討した。

成 績

1 年齢分布および性別

来院時年齢は、最年少5歳(男児)から最年長72歳(女性)にわたっていた(図1)。すなわち10歳代および50歳代が最も多く、おのおの4例で、次いで10歳未

琉球大学医学部歯科口腔科学講座

(主任：山城正宏教授)

Department of Oral Surgery, School of Medicine,
University of the Ryukyus (Chief: Prof. Masahiro
Yamashiro)

受付日：平成元年6月28日

図 1 年齢および性別分布

表 1 症状自覚より来院までの期間

期 間	症 例 数
～ 3 か月未満	6
～ 6 か月未満	6
～ 1 年未満	1
～ 3 年未満	3
～ 5 年未満	1
～10年未満	3
10年以上	1
計	21例

満, 20歳代, 40歳代がそれぞれ3例であった。最も少なかったのは60歳代および70歳代であった。全症例における平均年齢は, 33.1歳であった。性別では男性11例, 女性10例でその比率は1.1:1であった。

2. 主訴および来院までの期間

主訴としては21例中18例が顎骨の膨隆または顔面の腫脹, 2例が疼痛, 1例が不快感であった。

何らかの異常に気づいてから当科を受診するまでの期間をみると, 6か月未満で来院した症例が最も多く, 21例中12例 (57%) であった (表1)。最短期間は症状自覚から4日間, 最長期間は約10年間放置したままの症例であった。

3. 腫瘍の大きさ

腫瘍の大きさは, 鶏卵大および小鶏卵大が21例中18例 (85%) と大多数を占めていた (表2)。最も大きなものは, 前歯部から下顎枝部にかけて乳児頭大を示す症例であり, 最も小さなものは, 拇指頭大を示す症例であった。

4. 発生部位およびX線所見

発生部位はいずれも下顎骨内に発生しており, 21例中9例 (42.9%) が大臼歯部～下顎枝部に生じていた。本腫瘍をX線像より単胞性透過像, 多胞性透過像, 蜂窩状透過像に分類すると, 単胞性11例 (53%), 多胞性7例

図 2 X線像の分類

(33%), 蜂窩状3例 (14%) であった。これらを部位別にみると, 単胞性透過像を示した11例では, 過半数の7例 (64%) が大臼歯部～下顎枝部に発生していた。一方

図 3 年齢別 X 線像の分類

表 2 腫瘍の大きさ

	症例数 (%)
拇指頭大	1 (5%)
小鶏卵大	4 (19%)
鶏卵大	14 (66%)
手拳大	1 (5%)
乳児頭大	1 (5%)
計	21例

表 3 病理組織学的分類 (石川分類)

組織学的分類	症 例 数
I 型	1
II 型	2
III 型	18
計	21例

表 4 治療法

	症例数	%
顎骨離断切除術	8(3)	44
部分切除術	5	28
摘出・搔爬術	5	28
計	18例	100%

() 内は骨移植を示す

多胞性では、7 例中 2 例 (29%) のみであり、また蜂窩状では、大臼歯部～下顎枝部に発生した症例は認められなかった (図 2)。

また年齢別にみると、30 歳未満の症例はすべて単胞性透過像を呈しており、その平均年齢は 16.7 歳であった。逆に、40 歳以上の症例に単胞性透過像を示すものは認められなかった。一方、多胞性および蜂窩状透過像は 40 歳～50 歳代に多くみられ、その平均年齢は 51.2 歳であった。なお埋伏歯を含む症例は 7 例で、その内の 6 例は単胞性、1 例は多胞性であった (図 3)。

5. 病理組織学的分類

病理組織像の分類は石川の分類 (I～III 型) に従った。III 型が最も多く 21 例中 18 例を占めており、I 型が 1 例、II 型が 2 例であった (表 3)。このうち I 型は 11 歳男子で、下顎角部に鶏卵大、単胞性の X 線透過像を示していた。II 型のうち、1 例は 31 歳女性で、下顎角部に鶏卵大、多胞性の X 線透過像を示し、他の 1 例は 68 歳女性で、右側小臼歯部より左側第 2 大臼歯部にかけて手拳大の多胞性透過像を示していた。

6. 治療および経過

当科において生検のみ施行し不治療転科した 3 例を除いた 18 例に治療を行った。その治療内容は、顎骨離断切

除術を施行されたものが 8 例 (44%) と最も多く、このうち 2 例には腸骨移植、1 例には肋骨移植が行われていた。部分切除術は 5 例に、摘出・搔爬術は 5 例に施行されていた。顎骨切除症例は部分切除術 5 例を含むと 18 例中 13 例 (72%) であった (表 4)。

顎骨離断切除術を行った 8 例では、再発もなく予後良好である。部分切除術を行った 5 例中 1 例に術後約 1 年経過後、反対側に透過像が認められた。また摘出・搔爬術を行った 5 例については現在なお経過観察中である。

考 察

エナメル上皮腫は歯源性腫瘍の中でも代表的な腫瘍であり、本腫瘍についての報告は多数みられる。本腫瘍は

きわめて古くから存在した腫瘍⁵⁾と思われる。1884年 Malassez が dental lamina の上皮遺残から発生するものとして、epithelioma adamantin と名付け、その後、1890年 Derujinsky は、adamantinoma と名付けた⁵⁾。

さらに、Ivy and Churchill⁷⁾ によって ameloblastoma という名称が提案された。本邦においても現在は ameloblastoma またはエナメル上皮腫の名がよく用いられている。

今回われわれは、エナメル上皮腫自験例21例について臨床病理学的に検討を行ったのでその結果について考察した。

年齢分布については、10歳代および50歳代に最も多く各4例みられたものの、10歳未満、20歳代、30歳代、40歳代では各3例と、その差は僅少であった。従来の報告⁸⁻¹⁵⁾では20歳代が最も多く、10歳代から40歳代にかけて約80～90%が発生するといわれている。またその平均年齢は30歳～40歳代に存在し、10歳以下の年少者および50歳以上の高齢者の発生率は低いとされている。本報告の平均年齢は33.1歳であった。この結果は多くの報告例⁸⁻¹⁵⁾と一致していた。10歳代、および50歳代に比較的多くみられたのは、オルソパントモグラフィーの普及により、早期または偶然に本疾患が発見されるようになったことと、本腫瘍の発育が緩慢で経過が長いこと、さらに沖縄県は比較的離島が多いので、医療機関を受診するのが遅れる症例があるためではないかと考えられた。男女の比率は本報告では1.1:1で、やや男性に多く認められた。平出¹⁰⁾、寺崎¹⁵⁾、毛利¹⁶⁾、山本⁹⁾、柴崎¹¹⁾、久保田⁸⁾、Small¹³⁾の報告では男性に多いとしているが、Robinson¹²⁾、清水²²⁾は女性に多く認められたとしている。また性差はないとする報告¹⁴⁾もある。いずれにせよその差はほとんどなく、本症と性差には特に関連はないと思われる。

主訴としては21例中18例(85%)が顔面の腫張を訴えており、顔面が非対称になるほどの顔貌の変形をきたしてから来院していた。このように長期にわたって無痛性に増大することからも、本腫瘍が良性腫瘍の性格を有していることが推察される。また、疼痛あるいは不快感を主訴とした3例では感染を伴っていた。

何らかの異常に気づいてから当科を受診するまでの期間は、従来の報告によると本腫瘍の場合、Small¹³⁾の平均5.8年、寺崎¹⁵⁾の5.1年、平出¹⁰⁾の5.42年、柴崎¹¹⁾の4.8年などがあるが、山崎ら¹⁷⁾の報告では1年以内に約59%が来院している。本報告では、約57%に相当する12例が6か月未満に来院しており、山崎ら¹⁷⁾と同様に比較的短い傾向を示していた。最短期間は4日間で、疼痛および腫張を主訴に来院しており、感染を伴った症例であった。最長期間は約10年経過しており、その顔貌は著しく変形していた。

腫瘍の大きさは、経過年数が長くなるほど大きくなる

ようである。大きなものでは、わが国の報告¹⁹⁾で、1,000g前後の症例がある。われわれの報告においては、乳児頭大を示すものが1例みられた。なお同症例は前述のごとく約10年を経過していた。寺崎¹⁵⁾、久保田⁸⁾らは、半数以上が鶏卵大であったと報告している。表2に示すごとく、本報告でも鶏卵大が21例中14例(66%)を占めており、他の報告とはほぼ同様の結果であった。

本症の発生部位について、従来の報告は圧倒的に下顎が多いこと、しかも智歯部に多く認められるといわれている^{8-19, 21, 22)}。本報告においてもすべて下顎に生じており、上顎には1例も認められなかった。

X線写真は本腫瘍の診断の重要な手掛かりとなる。従来の報告では、主に単胞性、多胞性に分類され、平出¹⁰⁾では115例中85例が多胞性を示しており、その他諸家^{9, 16-18)}の報告でも多胞性の方が多くとされている。本報告では、単胞性、多胞性、蜂窩状の3つに分類したところ、単胞性11例、多胞性7例、蜂窩状3例の結果を得たが、広義の多胞性透過像を呈するものは結局10例であった。今回の報告では単胞性と多胞性の例数はほぼ同数を示していた。

また部位別にX線所見を分類すると、臼後部から下顎角部、下顎枝部に発生した症例では単胞性のものが多く、前歯部や臼歯部では多胞性が比較的多くみられた。

さらに年齢別X線所見においては表3に示すごとく、単胞性は若年者に、多胞性または蜂窩状は中高年者に多くみられた。つまり、部位別、または若年者と中高年者とは、本腫瘍の増殖様式、さらには発生学的な由来が異なる可能性を示唆すると思われる。

本腫瘍は歯胚の上皮成分、特にエナメル器に類似しており、また嚢胞を形成しやすい特徴を有している。その多様な組織像から、病理組織学的分類にはいろいろな分類法が用いられている^{15, 21, 23-26)}。本報告では、宮崎・荒井の分類²⁶⁾にならった石川の分類²⁷⁾を用い、腫瘍をⅠ～Ⅲ型に分類した。Ⅰ型は扁平上皮の性格を表しており、3つの型の中では最も少ないとされている。本報告でもⅠ型は1例、全体の4.8%と最も少なかった。Ⅱ型はⅠ型に比べてさらにエナメル器に類似しているが部分的に扁平上皮の部分を示すとされており、本報告では2例にみられ、全体の9.6%であった。Ⅲ型はいわゆる定型のなエナメル上皮腫で最も多くみられる型であり、実質はエナメル器によく類似している。本報告においても21例中18例にみられ、最も頻度が高く、85.6%となっていた。茅野²⁸⁾の報告においても本腫瘍下顎例の369例中263例、71.3%がⅢ型であった。今回われわれは、3つの型に分類したが、各型の移行型や、混在する型も多くみられた。

本症の組織発生について、Shafer²⁹⁾は1)エナメル器の遺残細胞、歯堤もしくは Hertwig 上皮鞘の遺残物、Malassez の上皮遺残、2)歯原性嚢胞の上皮、(特に

含歯性嚢胞と歯牙腫), 3) エナメル器の發育障害, 4) 口腔粘膜の基底細胞, 5) 身体の他部位の上皮の迷入(特に脳下垂体)などをあげているが, いまだ定説はないようであり, ささまざまな論議を呼んでいる。

本腫瘍の治療法として従来外科療法, 放射線療法^{13, 18, 30)}, 薬物療法^{18, 31, 32)}などが報告されている。最近では外科療法を主体とすることが多く, われわれは21例中治療を行った18例全例において外科療法^{33, 34)}のみを行った。外科療法は, 根治療法と外科的保存療法に区別されている。根治療法は顎骨離断, 部分切除などの顎切除を行う方法で, その再発率は Small ら¹³⁾ 12%, 柴崎¹¹⁾ 9%, 平出¹⁰⁾ 8%, 横林ら³⁵⁾ 9.7%, 久保田ら⁸⁾ 9.7%, Mehlish ら³⁶⁾ 7.7%, Sehdev ら³⁷⁾ 6.5%で, いずれも低いと報告している。本報告でも, 顎切除を行った13例中12例については再発もなく, 現在経過良好である。しかし1例に術後約1年後に反対側に小さな橢円形の透過像を示す症例がみられ, 現在なお経過観察中である。外科的保存療法は搔爬あるいは摘出法で, その再発率は Small ら¹³⁾ 46%, 寺崎¹⁵⁾ 26%, 柴崎¹¹⁾ 29%, Mehlish ら³⁶⁾ 68%, 横林ら³⁵⁾ 44%, 上田ら³⁸⁾ 59.3%と高く報告されている。しかし, 寺崎¹⁵⁾は外科的保存療法によっても全治せしめ得る場合もあり, 術後の顔貌ならびに機能の回復を考慮すれば捨て難い方法であるとしている。また同方法により, 好成績をおさめたとする報告例^{11, 39-42)}が多数存在してきている。したがって, 当科においても最近受診した5例に対して摘出・搔爬術を行った。そのうち2例は初診時に歯原性嚢胞と診断し処置されたもので, 現在のところ再発の兆しは認められない。他方, 残りの3例に対しても同方法を施行し経過良好であるがいずれも術後1年未満であり現在なお経過観察中である。Small⁴³⁾によれば, 手術後長期間経過した後の再発は, 腫瘍細胞が手術後瘢痕組織中に埋没され, 非常に緩慢に増殖したものとされている。われわれの術後の各症例も, 現時点においては観察期間が短いので今後長期にわたる経過観察が必要である。

結 語

われわれは, 1973年(昭和48年)9月より1988年(昭和63年)1月までの14年4か月間に, 琉球大学医学部歯科口腔外科を受診し, 病理組織学的にエナメル上皮腫と診断された21例について臨床病理学的ならびに治療法について検討を行った。

1. 年齢別では10歳代および50歳代に最も多く, その平均年齢は33.1歳で, 性別では, 男性11例, 女性10例であった。

2. 症状自覚より当科来院までの期間は, 6か月未満が全体の約57%であった。

3. 腫瘍の大きさは小鶏卵大, 鶏卵大が21例中18例と

全体の85%を占めていた。

4. 発生部位では下顎が21例で, 上顎には認められなかった。また臼歯部〜下顎枝が最も多かった。X線像の分類では単胞性透過像が11例, 多胞性が7例, 蜂窩状が3例であった。また年齢別では単胞性透過像は10歳代に最も多く, 多胞性は40歳〜50歳代, 蜂窩状は50歳代に多くみられた。

5. 病理組織学的には石川の分類でⅠ型1例, Ⅱ型2例, Ⅲ型18例であった。

6. 治療法は顎骨離断切除術8例, 部分切除術5例, 摘出・搔爬術5例であった。

なお本論文の要旨は, 1988年9月, 第33回日本口腔外科学会総会(名古屋市)において発表した。

引 用 文 献

- 1) 山城正宏, 上野 正, 他: 放射線治療に有効であった悪性エナメル上皮腫の1例(会). 日口外誌 17: 356 1971.
- 2) Ikemura K., Tashiro, H., et al.: Ameloblastoma of the mandible with metastasis to the lungs and lymph nodes. Cancer 29: 930-940 1972.
- 3) Azumi, T., Nakajima, T., et al.: Malignant ameloblastoma with metastasis to the skull. report of the case. J Oral Surg 39: 630-636 1981.
- 4) 森田章介, 有家 巧, 他: 肺転移を生じた上顎悪性エナメル上皮腫. 日口外誌 33: 1529-1540 1987.
- 5) Baden, E.: Terminology of the ameloblastoma: history and current usage. J Oral Surg 23: 40-49 1965.
- 6) Minderjahn, A.: Incidence and clinical differentiation of odontogenic tumors. J max-fac Surg 7: 142-150 1979.
- 7) Ivy, R.H. and Churchill H.R.: The need of a standardized surgical and pathological classification of the tumors and anomalies of dental origin. Trans amer Ass dent Schools 240 1930.
- 8) 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.
- 9) 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: 89-91 1975.
- 10) 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. 口外誌 4: 214-228 1958.
- 11) 柴崎佐平: ほうろう上皮腫の臨床的ならびに病理組織的研究. 歯科学報 60: 978-999 1960.
- 12) Robinson, H.B.G.: Ameloblastoma. Arch Pathol. Vol 23, 1937, p 831-843.

- 13) Small, I.A. and Waldron, C.A.: Ameloblastoma of the Jaws. OS OM OP 8: 281-297 1955.
- 14) 中村平蔵監修: 最新口腔外科学. 第2版, 医歯薬出版, 東京, 1974, 414頁.
- 15) 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.
- 16) 毛利 学, 西尾正寿, 他: エナメル上皮腫に関する臨床的観察. 耳鼻臨床 66: 10; 1027-1036 1973.
- 17) 山崎 正, 武田 進, 他: エナメル上皮腫の臨床的・病理学的研究. 第1報. 信州医誌 28: 458-468 1980.
- 18) 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.
- 19) 増山弥太郎, 塩田研治: 巨大な下顎エナメル上皮腫. 口外誌 27: 435-441 1981.
- 20) Gorlin, J.R. and Goldman, H.M.: In "Thoma's oral pathology" The CV Mosby Company, St. Louis, 1970, p 482-489.
- 21) 石川梧朗: 歯源性腫瘍について. 口病誌 49: 555-567 1982.
- 22) 清水正嗣: 北西ドイツ顎外科教室におけるエナメル上皮腫54例の臨床および病理学的研究. 第1報. 臨床統計的観察及びX線の所見について. 口病誌 30: 122-127 1963.
- 23) 小野史郎: エナメル上皮腫の発育に関する形態学的研究. 福岡医学誌 51: 991-1008 1960.
- 24) Pindborg, J.J. and Kramer, I.R.H.: In "Histologic typing of odontogenic tumors. jaw cysts, and allied lesion". WHO, Geneva, 1971, p 24-25.
- 25) Lucas R.B.: In Pathology of tumors of the oral tissues, Third edition p 30-57, Churchill Livingstone London, 1972.
- 26) 宮崎吉夫, 荒井元正: ほうろう上皮腫の組織由来に就いて. 口病誌 13: 349-360 1939.
- 27) 石川梧郎: 口腔病理学Ⅱ, 改訂版. 永末書店, 京都, 1982, 462-481頁.
- 28) 茅野照雄: エナメル上皮腫の組織由来について. 口病誌 49: 333-357 1982.
- 29) Shafer, W.G. Hine, M.K., et al.: A textbook of oral pathology, ed 4, Saunders Co, Philadelphia, 1983, p 276-285.
- 30) D.G. Gardner: Radiotherapy in the treatment of ameloblastoma. J Oral Maxillofac. Surg 17: 201-205 1988.
- 31) Schulz, L.W. and Vazirani, S.J.: A new treatment of ameloblastomas. Am J Surg 8: 839-843 1959.
- 32) 加藤純夫: 鼻中隔より発生せるAmeloblastomaの1症例. 耳喉 45: 623-626 1973.
- 33) 山城正宏, 儀間 裕, 他: 小児の下顎エナメル上皮腫におけるオトガイ部分切除後の骨形成. 頭頸部腫瘍 9: 36 1982.
- 34) 山城正宏, 藤井信男, 他: 肋骨移植による下顎オトガイ部再建の長期観察. 頭頸部腫瘍 10: 125 1983.
- 35) 横林敏夫, 横村康男, 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.
- 36) Mehlish, D.R., Dahlin D.C., et al.: Ameloblastoma: a clinicopathologic report. J Oral Surg 30: 9-22 1972.
- 37) Sehdev, M.K., Huvos, A.G., et al.: Ameloblastoma of maxilla and mandible. Cancer 33: 324-333 1974.
- 38) 上田 実, 古根 亮, 他: エナメル上皮腫の治療と予後に関する研究. 口科誌 38: 54-65 1989.
- 39) 武田 進, 吉沢邦一, 他: エナメル上皮腫の臨床的・病理学的研究. 第5報. 小児における療法について. 口科誌 31: 265-271 1982.
- 40) 上野 正: 顎骨手術の要点, 特にエナメル上皮腫について. 歯界展望 30: 1007-1011 1967.
- 41) 佐藤建夫: エナメル上皮腫の臨床病理学的研究. 口病誌 50: 602-635 1983.
- 42) 河村正昭: エナメル上皮腫への提言—反復処置法について—. 口科誌 38: i-ii 1989.
- 43) Small, I.A.: Recurrent ameloblastoma twenty-five years after hemimandibulectomy. OS OM OP 9: 699-706 1956.