エナメル上皮腫にきわめて類似した組織像を呈した顎下部腫瘍の1例

高橋 雄三・田中久美子・茅野 照雄*

飯田 修・宮沢 正純・榎本 昭二

Tumor mass showing the histological findings of ameloblastoma of the submandibular region: Report of a case

Yuzo TAKAHASHI・Kumiko TANAKA・Teruo KAYANO*

Osamu IIDA・Masazumi MIYAZAWA・Shoji ENOMOTO

Abstract: An unusual case is presented of ameloblastoma arising in the submandibular region.

A 50-year-old, Japanese woman. Complained of a movable, nontender mass, approximately 40 mm in diameter, in her right submandibular region. The onset of this lesion was at age 18. During the past 32 years fluid contained in this lesion occasionally was aspirated by puncture needle as treatment.

Histopathology of this lesion revealed multilocular cystic tumor showing Ishikawa's Type III ameloblastoma-like parenchyma with fibrous stroma in the lymph node. These findings suggested that the lesion was metastatic ameloblastoma, i. e., especially malignant ameloblastoma. However, careful clinical examination failed to find the presence of the primary tumors, such as ameloblastoma of the jaw, basal cell carcinoma, squamous cell carcinoma, and craniopharyngioma.

The differential diagnosis and pathogenesis of this lesion was discussed.

Key words: ameloblastoma (エナメル上皮腫), peripheral ameloblastoma (周辺性エナメル上皮腫), malignant ameloblastoma (悪性エナメル上皮腫)

はじめに

エナメル上皮腫は、その実質が歯胚の上皮成分、特にエナメル器に類似した像を示す良性の歯原性腫瘍であ

る。本腫瘍は、歯堤上皮またはエナメル器などの歯原性上皮をその腫瘍芽とすると考えられており、通常、顎骨中心性に発生する。しかし、本腫瘍が、きわめてまれに顎骨外の歯肉部に生じることがあり、周辺性エナメル上皮腫（骨外性エナメル上皮腫）と呼ばれている。顎骨内あるいは歯肉（歯槽）部以外の口腔粘膜や口腔外にエナメル上皮腫に類似した組織像を示す病変が生じることがあるが、それらの部位は発生学的に歯原性上皮を含まないとされるため、腫瘍組織発生学的にはエナメル上皮腫とはみなし難いとされている¹⁾。

今回、病理組織学的に定型的なエナメル上皮腫にきわめて類似しており、また転移性に生じた病変とは考え難い顎下部腫瘍の1例を経験した。このきわめてまれと考えられる症例の臨床像、病理組織学的所見を記述するとともに、他疾患との鑑別ならびにその発生由来につき考察を行ったので報告する。

東京医科歯科大学歯学部第2口腔外科学教室
(主任：榎本昭二教授)

* 東京医科歯科大学歯学部口腔病理学教室
(主任：山本 肇教授)

The 2nd Department of Oral & Maxillo-Facial
Surgery, Faculty of Dentistry, Tokyo Medical &
Dental University (Chief: Prof. Shoji, Enomoto)

* Department of Oral Pathology, Faculty of Den-
tistry, Tokyo Medical & Dental University
(Chief: Prof. Hajime, Yamamoto)

受付日：昭和63年8月25日

症 例

患 者：50歳 女性。

初 診：1987年 5 月

主 訴 右顎下部の無痛性腫脹。

既往歴：1973年から1978年の期間子宮筋腫で某都立病院に通院治療した。手術療法は行わず、現在、特に異常は認めない。

家族歴：特記事項なし。

現病歴：1956年、18歳の時より右顎下部の無痛性の腫脹を自覚する。近内科医を受診、唾液腺疾患と診断される。治療としては年に2～6回の穿刺吸引を行う。約2年後の1958年に近歯科医で、右臼後部の腫脹の切開縫合処置を受けた。この処置が埋伏智歯の抜歯であったかどうかは、患者自身記憶がない。1977年に穿刺吸引処置では顎下部病変の腫脹に著明な変化を認めなくなったため、処置の継続を中止した。1987年5月、再度、腫脹が増大したため、某歯科受診後、当科へ紹介され来院した。この時某歯科で撮影し持参したオーソパントモグラム所見に異常所見はみられなかった（写真1）。

現 症

全身的所見：栄養、体格ともに良好で、特記事項なし。

顔貌所見：左右対称。異常なし。

口腔外所見：右顎下部に42×32 mm 大の腫瘍が触知された（写真2）。腫瘍は周囲組織と境界明瞭で可動性を示し、弾性硬であった。当該部の自発痛および圧痛は認められなかった。

口腔内所見：歯肉、頬粘膜をはじめ口腔粘膜にあきらかな病的変化を認めなかった。右顎下腺開口部からの唾

写真2 顎下部腫瘍を示す。右顎下部に境界明瞭な腫瘍を触知した。

写真3 CT像。右顎下腺腺体前方外方に顎下腺を圧排して存在する、不整形、分葉状のmassを認める。mass内部に嚢胞性病変の存在が示唆される。

液の流出は良好であった。また、 $\frac{8}{8}$ の智歯および埋伏歯について抜歯の既往はなく、X線像所見でも埋伏歯の存在は認められなかった。

X線所見：当科で撮影したX線写真上、顎骨部に異常所見は認められなかった。また、後述する本疾患と他病変の鑑別診断のため全身骨格の検査（bone survey）を行ったが、胸部X線写真をはじめとしてすべての写真に特に異常所見は認められなかった。

CT所見（写真3）：右顎下腺腺体前方外側に32×25×30 mmの不整形、分葉状の腫瘍があり、これは顎下腺体を圧排していた。腫瘍内部の濃度（density）は均一でなく、一部低濃度を示し、嚢胞性病変の存在を示唆した。

顎下腺造影所見（写真4）：右顎下腺腺体はmassによりやや後方へ偏位していた。顎下腺の主導管系、分岐管系、腺実質ともによく描写されており顎下腺のあきらかな異常所見は認められなかった。

その他、一般の臨床検査値にあきらかな異常は認められなかった。

写真1 当科受診前の、某歯科医院で撮影されたオーソパントモグラム。顎骨部にあきらかな異常所見の存在を認めない（1987年、5月撮影）

写真 4 顎下腺造影像。右顎下腺腺体は腫瘤により後方へ偏位している。顎下腺自体にあきらかな異常所見は認められない。

写真 6 固定後の腫瘤の剖面

中央部は白色・充実性で一部に癭痕様組織が認められる。周囲には多房性囊胞性病変が認められる。

写真 5 顎下部の腫瘤および顎下腺摘出時の術中写真を示す。腫瘤は広頸筋の下方に被膜に包まれて存在し、内後方に隣接する顎下腺とともに一塊として摘出された。

写真 7 腫瘤の病理組織像を弱拡大で示す。病変は上皮に被覆された多房性病変とリンパ性組織がめだつ間質から構成されている。

また、エコーグラムおよびシンチグラムによる検査は行われなかった。

腫瘤の穿刺吸引で、やや粘稠な淡黄色透明な内容液 3 ml を吸引したが、細胞診や生化学的な検査は行われなかった。

臨床診断：右顎下腺囊胞あるいは腫瘍。

処置および経過：1987年9月 上記臨床診断のもとに、全身麻酔下に顎下部の腫瘤および顎下腺摘出術を施行した。

腫瘤は広頸筋の下方に被膜に包まれて存在し、内後方に隣接する顎下腺とともに一塊として摘出した（写真 5）。

摘出物所見：摘出物は腫瘤と顎下腺よりなり腫瘤と顎下腺の連続性はあきらかでなかった。腫瘍はほぼ球形、35×30 mm 大で、弾性軟の組織塊の中央部に弾性硬の部分を感じた。顎下腺の形、大きさ、硬さには異常は認められなかった。

この腫瘤を穿刺吸引したところ、やや赤みがあった。

明粘稠な性状の内容液を約 2.2 ml 吸引した。リン酸緩衝ホルマリン液固定後の腫瘤の断面の所見では、中央部は白色、充実性一部に癭痕組織が認められた。この癭痕組織の部分の周囲は、多房性の囊胞性病変を呈し粘稠な内容液をいれていた（写真 6）。

病理組織学的所見：固定後の切り出しでみると、腫瘤は薄い線維性被膜に包まれており、顎下腺とは容易に剝離分離することができた。断面でみると腫瘤は、粘稠な内容液を入れた半透明感のある多房性の病変で、中央部は黄白色・充実性で一部は硝子化を呈して癭痕様であった。また、被膜下にリンパ節様の組織を認め、被膜外にも小さなリンパ節がみられた。病理組織学的には弱拡大でみると、腫瘤は上皮に被覆された大小不同の多房性の囊胞性病変で、これらの間に線維性ないしリンパ性組織が介在し、一部には硝子様組織がみられた（写真 7）。最大断面では、中央部に二次的なコレステリンの析出や石灰沈着を伴う硝子化した癭痕組織が存在した。また、被膜下にあきらかなリンパ濾胞と辺縁洞をもつリンパ組

写真 8 腫瘍の病理組織像を弱拡大で示す。中央部に、上皮性嚢胞性病変に二次的変性加わり生じたと考えられる線痕性組織を認める。この組織は硝子性変性とコレステリン結晶の小間隙よりなる退行性変化を示した。

写真 10 間質部の胚中心をもつリンパ性組織を示す。

写真 9 多房性病変部の病理組織像

線維性結合組織からなる間質と上皮の濾胞様増殖巣からなる病変で、基底部の円柱状の細胞配列の内側に星状の細胞層を認める。この細胞層に水腫性変性が起こり嚢胞形成が認められエナメル髄嚢胞様構造を示す。分化度の高い定型的エナメル上皮腫の組織像ときわめて類似する所見と考えられる。

写真 11 嚢胞病変の内側の上皮細胞層の病理組織像。一部にメラニン色素を有する渦巻き状の結節巣が散見された。

写真 12 上皮の索状増殖を示す。右側に二次的変性をみる。

織からなる局面を認め、これらの組織と嚢胞の間に介在するリンパ性組織とは連続性の移行が認められ、問題の病変がリンパ節内の病変であることが強く示唆された(写真8)。拡大をあげてみると、嚢胞性病変は顎骨のエナメル上皮腫にきわめて類似した組織像を呈していた(写真9)。すなわち、濾胞様細胞巣状に上皮が増殖し、細胞周囲の基底部の細胞は高円柱状で核の配列も整然としており、その内方には星状の細胞が増殖し、この部では液化消失や膠質様変性による嚢胞形成が随所にみられ、これらが融合した大きな嚢胞の形成もみられた。これらの上皮性細胞の間に介在する組織は、細胞成分の乏しい線維性結合組織からなり、多くの部位でその周囲にリン

パ性組織を認めた(写真10)。また、星状細胞部に結節状増殖巣を散見し、これらの細胞内にメラニン色素と考えられる茶褐色の色素顆粒を認めた(写真11)。一部には、歯堤に類似した上皮の索状の増殖巣を認め、これらの部位でも上皮巣に小嚢胞化をみた。中央部の線痕性組織

は嚢胞様病変に二次的変性が加わったものであった(写真12)。全割標本による検索で、腫瘍内には唾液腺やそれに関連する組織は認められなかった。また、顎下腺には軽度の炎症性浸潤細胞を伴う軽度の萎縮がみられたが、腫瘍との関連を示唆するような所見は認めなかった。

以上の病理学的所見から、本病変は上皮のあきらかな増殖性性格から腫瘍性病変と考えられ、その腫瘍実質は顎部に生じる定型的なエナメル上皮腫にきわめて類似し、Ishikawa 分類でⅡ型に、WHO 分類では follicular type に相当するものであり、実質に接する固有間質は線維性結合組織からなるものであった。しかしながら、この腫瘍様病変がリンパ節内にあると考えられることが病変の理解を困難とした。まず、転移性エナメル上皮腫が疑われ、原発巣の検索が行われたが、発見されず、少なくとも臨床的には、顎下部のリンパ節に現局した病変であることが確認されたが、腫瘍病理学的には、特に腫瘍発生学的な見地から確定診断には至らず、「エナメル上皮腫にきわめて類似した組織像を呈した顎下部腫瘍」との記載診断にとどまった。

考 察

エナメル上皮腫は、病理組織学的に実質が歯胚の上皮成分、とくにエナメル器に類似し、間質は鬆粗な線維性結合組織で構成され、しばしば大小の嚢胞を形成することを特徴とする良性の歯原性腫瘍である¹⁻⁷⁾。

本腫瘍の発現部位は、顎骨の下顎大臼歯、後臼歯部に発症する例がほとんどである⁸⁾。上顎にも生じるが例は少ない。腫瘍の増大とともに、顎骨は内部から吸収され膨隆し、骨皮質が薄くなると波動を触れるようになる。発育は緩慢で経過は長く、初期には無症状であるが、腫脹の増大、顔面の非対称の出現などで初めてその発症に気づくことが少なくない。X線学的には、顎骨内の多房性の透過像をもつ膨隆像としてみられることが多いが、ときには単胞性あるいは充実性の腫瘍を思わせる半透過像を示す。

形成された嚢胞内には一般に、黄色調のやや粘潤な液体を含んでいる¹⁾。

本腫瘍は実質細胞の分化の方向、程度の相違によって、あるいは組織構造によって組織像も多少異なるので、病理組織学的にいくつかの型に分けられ、いろいろな分類法が試みられている。

WHO 分類⁹⁾ (1971年) では follicular, plexiform, acanthomatous, basal cell type, granular cell type および other variants の6型に分類されている。

宮崎・荒井は、エナメル上皮腫には分化の程度の低い扁平上皮に近いものから、分化の程度の高い正常のエナメル器に近いものまでいろいろなものがあるとしてI-

Ⅳ型の4型に分類した¹⁰⁾。さらに、Ishikawa は、彼らの分類のⅣ型はエナメル上皮線維腫に相当するため、エナメル上皮腫に含めるのは適当ではないとしてⅠ、ⅡおよびⅢ型の3型に分類している¹¹⁾。WHO 分類との比較では、必ずしも正確であるとは考えられないが、Ⅰ型は acanthomatous, Ⅱ型は basal cell type に相当し、Ⅲ型はそのほかのものが相当するとみなされている¹²⁻¹⁴⁾。

本腫瘍の組織由来に関しては、本腫瘍が比較的若い人に主としてみられることから、発育中の、または退縮過程にある歯胚や歯堤を構成する歯原性上皮から生じると考えられており、完全に退縮した歯原性上皮からは生じにくいとされている。本腫瘍の実質細胞の分化の状態と由来組織の関連については茅野の考察がある⁸⁾。すなわち、Ⅰ型、Ⅰ-Ⅱ型は形態像の類似性から、退縮過程にある扁平上皮の性格を持つ残存歯原性上皮に由来するとし、Ⅲ型は正常歯数の歯胚に出現する第3歯堤などの abortive な歯堤や、歯胚またはエナメル器の一部が生理的退縮を遂げないで残存しているなど、ある程度まで分化した歯原性上皮、あるいは分化しうる能力のある若い歯原性上皮を芽組織としていと報告している。そのほかの可能性のある腫瘍芽組織としては、歯原性嚢胞、特に含歯性嚢胞および歯牙腫の上皮が考えられている¹⁵⁾。しかし、本質的な意義はきわめて乏しいという意見もある⁸⁾。

また歯原性上皮以外の発生母地としては、原始口窩上皮、あるいは口腔粘膜上皮が考えられている。原始口窩上皮の腫瘍芽としての意義は、この上皮を芽組織とする頭蓋咽頭腫がエナメル上皮腫と似た病理組織像を示すことに基づいている。腫瘍の発生機序や原因はあきらかでない。

一般に、腫瘍の組織型、発現部位および発現時期は、その由来する腫瘍芽組織の細胞組織学的性状、存在部位および存在時期を反映するものと考えられている¹⁵⁾。

本症例の病理組織学的所見では、上皮のあきらかな増殖性性格から、さらに細胞学的所見より良性の腫瘍性病変であると考えられた。この腫瘍実質はエナメル器に類似した構造を示す多房性病変であり、Ishikawa 分類ではⅢ型に、WHO 分類では follicular 型の定型的エナメル上皮腫と観察された。また、円柱状の上皮性細胞の内方にある渦巻き状の結節巣の一部にメラニン色素の存在が観察されたが、歯原性腫瘍および嚢胞の上皮細胞にはメラニン色素が認められるという報告があり¹⁶⁾。本病変が歯原性腫瘍である可能性をしめす傍証の一つと考えられる。本病変の間質は実質に接して線維性結合組織から構成され、その周辺には胚中心をもつリンパ性組織が存在しており、本病変はリンパ節内にあるエナメル上皮腫と診断できるものと考えられた。

本病変の発現時期は、初発症状である無痛性腫脹が起きた18歳の時と考えられる。茅野の自験例396例のエナ

メル上皮腫（うち25例が上顎例）の実質細胞の分化の状態と腫瘍の芽組織との関係についての検討の中で、下顎エナメル上皮腫中の各組織型の年代層に占める割合の検索に関する報告で、10歳代での大多数は、その芽組織を若い歯原性上皮とするため、分化のよい定型的なそれであるⅢ型であったと述べている。本症例の発症時期と病理組織像の関連性はこの検索結果を反映しているのかもしれない。

前述したようにエナメル上皮腫の芽組織は歯原性組織が主であると考えられている。したがって発生学的に、この歯原性上皮の存在する部位である顎骨の中心性に生じるのが通常であるとされる。顎骨のあらゆる場所に発生するようであり歯槽骨や歯根膜から発生し歯槽部に局限していた例が報告されている¹⁷⁾。まれに本腫瘍が歯肉に生じる場合があり周辺性エナメル上皮腫（骨外性エナメル上皮腫）と呼ばれている¹⁸⁾。この周辺性エナメル上皮腫の発生母地は口腔粘膜の中で歯肉上皮由来という説がある。この理由としては、腫瘍実質と歯肉上皮との連絡がしばしば認められることに基づいている。しかし、この理由だけでは、周辺性エナメル上皮腫が口腔粘膜の中で特に歯肉だけに生ずることを説明しにくい。そこで、歯肉の固有層には歯原性上皮の遺残をしばしば含むことがあるため、これが本腫瘍の発生母地として最も重要であると考えられている^{1,12,13)}。したがって、本腫瘍も広義の歯原性上皮に由来したものであり、腫瘍実質と歯肉上皮とは二次的に連絡が生じたものと考えられている。しかし口腔粘膜上皮から発生する可能性を支持する所見も知られている^{18,19)}。

このような理由で、顎骨と歯肉（歯槽）部以外に発生した例はエナメル上皮腫とはみなし難いとされている。しかし、歯肉以外の口腔粘膜である頬粘膜部に生じた例が報告され²⁰⁾、周辺性エナメル上皮腫の場合と同様に、上記した芽組織の問題のほか歯原性上皮の異所性発生の可能性を含めて、その由来組織が問題とされている。さらには扁平上皮の性格に相当する組織像のため基底細胞腫（癌）との異同について議論されている¹⁾。しかし、本症例のように口腔外である顎下部に発生したエナメル上皮腫の例の報告はみられない。

そこで、本病変の他疾患との鑑別、またその発生由来について考察を試みた。

本症例は顎下部のリンパ節内にみられたものであることから、まず転移性病変であることを疑い、エナメル上皮腫に類似した組織像を示す疾患を中心に原発巣の検索を臨床的に行った。

全身骨格の単純X線写真（bone survey）による検索、また丹念な臨床症状の精査の結果、顎骨中心性または周辺性エナメル上皮腫の存在をはじめ、基底細胞腫（癌）、扁平上皮癌、頭蓋咽頭腫および長管骨のアダマンチノーマの存在を示す臨床所見は得られなかった。この結果よ

り、本病変はこれらの疾患から転移性に生じたものではないものと考えられた。エナメル上皮腫については現症からその存在は否定された。しかし、本症例の病歴の中で、初発症状である顎下部の無痛性腫脹の発現の2年後に処置された同側下顎臼後部の病変との関連が問題になる。問診の記録では「8」の埋伏歯の抜去を行ったとなっているが、患者自身がX線写真で埋伏歯の存在、また抜去された歯牙をみていないなど詳細は不明である。しかし、この処置後、現在に至るまで当該部に臨床的に著変なく、また単純X線写真像でも病変の存在を示唆する所見は得られていない。

一般に、エナメル上皮腫としての特徴を示し、かつ転移を生じた腫瘍は悪性エナメル上皮腫と分類されている⁹⁾。たんに顎骨を中心として頭蓋底や咽頭などに強い局所浸潤性を示すだけでは悪性エナメル上皮腫とはみなされない。この点について、臨床的には異論が残るものと思われる。転移の部位としては、領域の頸部リンパ節のほか、肺、胸膜にみられることが多い²¹⁾。本腫瘍の臨床経過は、通常の悪性腫瘍の場合より長いとされている。経過中、はじめは細胞学的に異型性の乏しいエナメル上皮腫であったものが再発をくり返すうちに、組織学的に、また生物学的に性状が変化し、やがて細胞学的に悪性像を示すようになる例が多いといわれている。このような細胞学的変化を示し、全経過が30年以上に及ぶ症例が報告されている²²⁾。このように、たびかさなる処置と再発をくり返す本腫瘍の長期間の存在が転移形成と関連があるものと考えられている。

本症例の臨床経過は約30年と長期に及んでいた。また、その病理組織像の所見はエナメル上皮腫のリンパ節転移を疑わせる。実質の病理組織学的所見はIshikawa分類でⅢ型、WHOのそれではfollicular型であった。Ikemura²³⁾の日本語と英語の論文引用による転移を有するエナメル上皮腫15症例に関する考察によると、原発巣の病理組織像はⅢ型と考えられるfollicular型7例、Ⅱ型であるbasal cell型3例、Ⅰ型であるacanthoma型1例、部分的に異型性（partly atypia）を示した例2例およびその他（less differentiated than usual および不明）2例であることより、本病変の原発巣の半数は、分化のよい定型的なエナメル上皮腫であったと述べている。また、本病変の発症年齢については、通常のエナメル上皮腫とは大きな差はないとしている。発症時期と組織像の関連では、follicular型の発症年齢は他の型に比べて若い傾向にあるようである。これは、前述した知見の反映かもしれない。転移巣の病理組織像は、原発巣のそれと同様であったという報告もあるが、より未分化であったという報告が多い。特に日本人の報告では、この傾向が強いようである。さらに、Ikemuraらの症例では、リンパ節の転移巣の病理組織像は、原発巣から浸潤拡大した舌部の腫瘍と同様の組織像を示し、細胞異型性

が観察されたという。このことより、この細胞異型性は転移の可能性を示唆する指標になるかもしれないと述べている。しかし、転移を起こす可能性のあるエナメル上皮腫の全例を病理組織学的に診断することはできないとしている。本症例の顎下部の病変は、細胞の異型性はみられず follicular 型の分化のよい定型のエナメル上皮腫の組織像を示した。上記の考察を参考にすると、本症例はエナメル上皮腫の転移巣病変である可能性は比較的小さいものと考えられる。さらに、病歴および現症の所見で口腔粘膜を含む顎部に異常は認められず、本症例は顎部の病変に由来したものではないと推察することができると思われた。しかし、本病変は、その臨床像が通常の悪性エナメル上皮腫とは異なる原発巣不明の転移性に生じたエナメル上皮腫である可能性は残るものと思われる。

したがって、本症例は WHO 分類の悪性エナメル上皮腫の可能性は否定的であると考えられよう。

次に、本病変は顎下部に原発した嚢胞様構造を伴う腫瘍性病変と考え、またその病理組織学的所見を加味して可能性のある疾患を想定して本疾患との間で鑑別診断を試みた。

まず、リンパ組織を伴った類表皮嚢胞または表皮嚢胞の可能性であるが、本疾患の側嚢胞の型は臨床像の類似性を疑わせる。しかしその嚢胞壁の内面は通常、重層扁平上皮で構成されている。したがって、本疾患の可能性はないものと考えられる。

次に、本病変と唾液腺腫瘍との鑑別が重要である。中でも嚢胞状構造とリンパ性基質との類似性から Warthin 腫瘍（腺リンパ腫）が特に問題になるものと思われる。Warthin 腫瘍の大多数は耳下腺に発生するが顎下腺に生じた例も報告されている²⁴⁾。本腫瘍の成り立ちについては、その組織学的構造や発現部位から唾液腺組織に由来するものであり、唾液腺内あるいは腺に隣接するリンパ節に封入残存した腺組織から生じたものと考えられている。上皮組織は一般に内層の高円柱上皮と外層の立方ないしは多角形細胞とが2層性に配列し管腔様構造を形成するのを特徴とする。この組織像と本病変のそれを比較すると、本病変のそれには管腔様構造の所見がなく、また腫瘍実質にも共通点は認められない。

また、本症例では、シンチグラムを施行する機会はなかったが、Warthin 腫瘍と他の腫瘍性疾患の鑑別におけるシンチグラムの有用性を考えると、行うべき術前検査法の1つであったものと考えている。

鑑別を要する他の唾液腺腫瘍としては pseudoadenomatous adenocarcinoma²⁵⁾と基底細胞腺腫（basal cell adenoma）があげられる。前者は唾液腺に発生する悪性腫瘍であるため、本病変とは鑑別されるものと考えられる。後者の基底細胞腺腫は基底細胞様の上皮細胞の増殖からなる腫瘍で基底細胞腫に類似した組織像を示す。エ

ナメル上皮腫の中で基底細胞腫に類似した病理組織像を示すものは、石川分類でⅠないしはⅡ型のそれである。本症例の病変はⅢ型の定型的なエナメル上皮腫に類似した組織像であり、本症例と鑑別されるものと考えられた。

次に、鑑別を要する病変としてはリンパ上皮性嚢胞があげられる。本疾患の病理組織像では、リンパ性組織の上方で形成される嚢胞上皮の大部分は重層扁平上皮でおおわれているが、ときに多列円柱上皮あるいは立方上皮がみられる。成り立ちについては、胎生期にリンパ節の中に迷入した耳下腺上皮から発生するという説が有力である²⁶⁾。このようなリンパ上皮性嚢胞は通常単胞性であるが、本例のように度重なる穿刺吸引の刺激などの理由により被覆上皮が腫瘍化した可能性も捨て切れない。本症例の病歴で、1977年の穿刺吸引では腫脹に著明な変化を認めなくなっており、これは単胞性であった嚢胞性病変の多胞化を示しているのかもしれない。しかし、現在までに被覆上皮の形態が本症例のように定型的なエナメル上皮腫に類似した例は知られていない。

最後に異所性エナメル上皮腫の可能性を想定した。前述したようにエナメル上皮腫の腫瘍組織芽と考えられる歯原性上皮、または歯原上皮としての潜在能をもつ原始口窩上皮や口腔粘膜上皮が、異所性に顎下部になんらかの理由により存在していて、本病変の発生の芽組織となったと推定することができる。しかし、この可能性は、発生学的な問題を含めて今後の課題であると思われる。

以上のように考察をすすめてくると、本病変は、その病理組織学的所見より顎下部のリンパ節内の定型的エナメル上皮腫の症例と考えられる。そして、エナメル上皮腫ならば、問題は多々あるが現時点では、その発現部位から転移性の、さらにその現症、病歴および既往歴から原発巣不明のエナメル上皮腫と考えるのが妥当であると思われる。本症例の、今後の臨床経過の観察、または同様の症例の報告などが、本病変のより明確な診断を可能にするものと思われる。

結 語

定型的なエナメル上皮腫にきわめて類似した病理組織像を示した顎下部腫瘍の1例を報告した。

本症例の概要であるが、患者は50歳、女性であり、臨床経過は32年と長期に及んでいた。初発症状は右顎下部の無痛性腫脹で、18歳の時であった。経過中、腫脹の増大に伴って穿刺吸引処置を受けていた。手術切除標本の病理組織学的所見では、腫瘍性病変と考えられ、実質は分化のよい定型のエナメル上皮腫に酷似しており、Ishikawa 分類でⅢ型、WHO 分類では follicular 型に相当し、腫瘍細胞の異型性は認められなかった。病変はリンパ節内に存在していた。以上の所見より、悪性エナ

メル上皮腫を疑ったが、現症、病歴および既往歴から顎部に原発腫瘍の存在を示唆する所見は認められなかった。また全身的にも転移性病変の原発巣となるような異常所見は発見されなかった。このため原発巣不明の転移性に生じたエナメル上皮腫を想定し診断した。このきわめてまれと考えられる症例の詳細な臨床像、病理学的所見を記載するとともに、唾液腺腫瘍をはじめとして他疾患との鑑別、ならびにその発生由来について考察した。

本論文の要旨は第140回日本口腔外科学会関東地方会(1988年2月27日、東京)において発表した。

引用文献

- 1) 石川梧朗監修：口腔病理学Ⅱ。永末書店、京都、1986、462-481頁。
- 2) Shafer, W.G. Hine, M.K., et al.: A textbook of oral pathology, 3rd edi. Saunders Co. Philadelphia, London and Tront, 1972, p 251-258.
- 3) Batsakis, J.G.: Tumors of the Head and Neck, Clinical and Pathological Considerations, 2nd edi. Williams & Wilkins Co., Baltimore, 1978, p 531-540.
- 4) Lucas, R.B.: Pathology of Tumors of the Oral Tissues, Churchill Ltd. London 1964, p 30-55.
- 5) 佐藤建夫：エナメル上皮腫の臨床病理学的研究—特に閉塞療法について—。口病誌 50: 602-635 1983.
- 6) 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.
- 7) 横林敏夫、横林康男、他：エナメル上皮腫41例の臨床病理組織学的研究。日口外誌 27: 417-421 1981.
- 8) 茅野照雄：エナメル上皮腫の組織由来について—特に埋伏歯を伴う病変との関連から—。口病誌 49: 333-357 1982.
- 9) Pindborg, J.J. and Kramer, I.R.H.: Histological typing of odontogenic tumors, jaw cysts, and allied lesions, in International histological classification of tumors, No. 5, WHO, Geneva, 1971.
- 10) 宮崎吉夫、荒井元正：珐瑯上皮腫ノ組織由来ニ就テ。口病誌 13: 349-360 1939.
- 11) Ishikawa, G: A histological study of odontogenic tumors, Acta Pathol Jap: Supple 525-539 1957.
- 12) 石川梧朗：歯原腫瘍について、とくに病理学的方面から(その1)。口病誌 26: 2108-2121 1959.
- 13) 同上(その2)。口病誌 27: 307-322 1960.
- 14) 石川梧朗：歯原性腫瘍について。口病誌 49: 555-567 1982.
- 15) 菅野晴夫：ヒト癌の自然史。日病会誌 69: 27-57 1980.
- 16) Takeda, Y., Kuroda, M., et al.: Melanocytes in odontogenic keratocyst. Acta Patho Jpn 35: 899-903 1985.
- 17) 飯田 修、小野富昭、他：歯槽部に限局してみられたエナメル上皮腫の2例。日口外誌 29: 1600-1605 1983.
- 18) 浅田洗一、石橋克禮、他：周辺性(骨外性)エナメル上皮腫の1例。日口外誌 22: 832-836 1976.
- 19) 鈴木一郎：歯肉の反応性過形成病変にみられる上皮塊の病理組織学的研究—周辺性歯原性腫瘍の組織発生に関連して—。Jpn J Oral Biol 26: 1278-1294 1984.
- 20) Woo, S.B. Smith-Williams, J.E., et al.: Peripheral ameloblastoma of the buccal mucosa: Case report and review of the english literature. Oral Surg 63: 78-84 1987.
- 21) 石川梧朗、島田義弘：口唇及びリンパ節に転移を来したエナメル上皮腫の1例。GANN 45: 311-313 1954.
- 22) 伊藤賢一、戸枝一夫、他：肺転移を伴った悪性エナメル上皮腫の1剖検例。口病誌 29: 399-407 1962.
- 23) Ikemura, K. Tashiro, H., et al.: Ameloblastoma of the mandible with metastasis to the lung and lymph nodes. Cancer 29: 930-940 1972.
- 24) Eneroth, C.M.: Salivary gland tumors in the parotid gland, submandibular gland, and the palate region. Cancer 27: 1415 1971.
- 25) Foote, F.W. and Frazell, E.L.: Tumors of the major salivary glands, Cancer 6: 1065-1133 1953.
- 26) Bernier, J.L. and Bhaskar, S.N.: Lymphoepithelial lesion of salivary gland. Histological and classification based on 186 cases. Cancer 11: 1156 1958.