翼突下顎隙に発生した周辺性エナメル上皮腫の1例 —免疫組織化学的検討—

真田英太郎・長谷川敏美・小山道男*・馬淵一嘉*
藤田茂之*・兵行忠*・飯塚忠彦*

A case of peripheral ameloblastoma in the pterygomandibular space —Immunohistochemical investigations—

Eitaro SANADA・Toshimi HASEGAWA・Michio KOYAMA*・Kazuyoshi MABUCHI*
Shigeyuki FUJITA*・Yukitada HYO*・Tadahiko IIZUKA*

Abstract: Peripheral ameloblastoma is a rare tumor, which occurs in the soft tissue overlying alveolar bone.

We represent an unusual case of peripheral ameloblastoma arising in the right pterygo-mandibular space.

Case: The patient, a 66-year-old woman admitted to our hospital with complain of mass in the right retromandibular region. The tumor was excised under general anesthesia.

The postoperative course was uneventful with no sign of recurrence.

There has been some controversy concerning the relation between peripheral ameloblastoma and basal cell carcinoma.

By the identification of immunohistochemical localization of the human type IV collagen in this tumor, we could get some knowledges of this problem.

Key words: peripheral ameloblastoma (周辺性エナメル上皮腫), pterygomandibular space (翼突下顎隙), immunohistochemical investigation (免疫組織化学的検討)

緒 言

エナメル上皮腫は、一般に顎骨中心性に発生するが、まれに口腔軟組織に原発することがあり周辺性エナメル上皮腫と呼ばれている。

今回、著者らは66歳女性の右側翼突下顎隙に発現した周辺性エナメル上皮腫の1例に対して、免疫組織化学的

検討を行い、基底細胞腫との鑑別について若干の知見を得たので文献的考察を加え報告する。

症 例

患 者：66歳 女性。

初 診：昭和62年11月■日。

主 訴：右側臼後部の腫脹。

既往歴：特記事項なし。

家族歴：特記事項なし。

現病歴：1年程前より右側臼後部に腫瘤を認めるも放置。その後、無痛性に腫瘤が増大したため当科を受診した。

現 症

全身の所見：体格栄養状態ともに良好で、全身的に異常は認めなかった。

局所の所見：口腔外には著変なく、口腔内所見では右側臼後部に鳩卵大の正常粘膜により被覆された比較的境

市立宇和島病院歯科口腔外科

(主任：長谷川敏美医長)

* 京都大学医学部口腔外科学教室

(主任：飯塚忠彦教授)

Clinic for Dentistry and Oral Surgery, Uwajima City Hospital (Chief: Toshimi Hasegawa)

* Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Faculty of Medicine, Kyoto University (Chief: Prof. Tadahiko Iizuka)

受付日：平成元年1月23日

写真 1 初診時口腔内写真

写真 3 初診時 CT 像

写真 2 初診時頭部X線像

写真 4 術後6か月口腔内写真

界明瞭な弾性硬の無痛性の腫瘍を認めた。なお、同部粘膜には発赤、圧痛および自発痛は認めず、所属リンパ節も触知しなかった(写真1)。

X線所見：腫瘍に相当する下顎枝内側の骨に異常は認めなかった(写真2)。

CT 所見：右側翼突下顎隙に直径約 25 mm の比較的境界明瞭で均一な腫瘍様陰影を認めた(写真3)。

臨床診断：右側翼突下顎隙良性腫瘍。

処置および経過：昭和62年11月■日、局麻下に生検を施行し、病理組織検査の結果エナメル上皮腫と診断されたため、昭和63年1月■日、全身麻酔下にて腫瘍摘出術を施行した。手術は下顎枝前縁よりやや内側寄りに腫瘍直上の口腔粘膜に切開を加えると腫瘍は粘膜下に存在し、安全域を考慮し腫瘍実質および一層の周囲組織を含

めて、一塊として摘出した。腫瘍と口腔粘膜上皮との癒着や腫瘍の浸潤を思わせるような下顎枝内面の骨の変化は認めなかった。術後6か月経過した現在、口腔内所見(写真4)およびX線像(写真5)より再発を思わせる所見はなく経過良好である。

摘出物所見：腫瘍は 27×25×24 mm の結節状の腫瘍で、表面は平滑、淡紅色、弾性硬であった(写真6)。断面所見では、内部は充実性で乳白色を呈していた(写真7)。

病理組織所見：腫瘍細胞は索状・網状に配列し、また増殖した腫瘍実質の末端が歯堤状を呈している部分も認める。間質には水腫様変性を認める(写真8)。また、一部には腫瘍細胞が大小の胞巣を形成して増殖しており、胞巣周辺部の細胞は極性を持って配列し、胞巣内部

写真 5 術後6か月頭部X線像

写真 8 病理組織像 (H-E 染色, $\times 100$)

写真 6 摘出腫瘍

写真 9 病理組織像 (H-E 染色, $\times 100$) 写真 10 病理組織像 (H-E 染色, $\times 100$)

写真 7 摘出腫瘍の剖面

はやや大きく、軽度の異形性を認める細胞で占められている (写真9)。

また、数個の小さな細胞からなる歯源性上皮が間質中に島状に散在する所見も認める (写真10)。

免疫組織化学的所見：免疫組織化学的検討は間接法にて行った。一次抗体には Advance 社製ポリクローナルウサギ抗ヒトⅣ型コラーゲン抗体と AMD 社製モノク

写真 11 免疫組織化学的所見：血管周囲に反応
→（矢印）を認めるのみである。

（間接酵素抗体法，ポリクローナル抗ヒト
IV型コラーゲン抗体使用，×40）

写真 12 免疫組織化学的所見：血管周囲に反応
→（矢印）を認めるのみである。

（間接酵素抗体法，モノクローナル抗ヒト
IV型コラーゲン抗体使用，×40）

ロナールマウス抗ヒトIV型コラーゲン抗体を用いた。

被検材料は10%中性緩衝ホルマリンにて固定，パラフィン包埋後，4 μ m に薄切，脱パラフィンを行った。アルコールを通して水洗。PBS 洗浄後，ペプシン処理。再び PBS 洗浄後内因性ペルオキシダーゼ反応阻止のため，0.3% H_2O_2 加メタノール処理。非特異的反応を減弱させるため，2次抗体と同種の正常血清を反応させた。次に1次抗体を反応させ，PBS 洗浄後，2次抗体を反応させ，DAB 反応にて発色させ，メチルグリーンまたはヘマトキシリン核染色，カナダバルサム封入後，鏡見した。

免疫組織化学的検討の結果，ポリクローナルおよびモノクローナルの抗ヒトIV型コラーゲン抗体の反応はともに血管周囲に反応が認められるものの，その他の部位にはまったく認められなかった（写真11，12）。

考 察

エナメル上皮腫は一般に顎骨中心性に発生するが，まれに口腔軟組織に発生することがあり周辺性エナメル上皮腫と呼ばれている。

また組織学的にこれと類似した腫瘍が，頭蓋咽頭管や胸骨，尺骨，腓骨，脛骨などにも発生することが知られている¹⁾。

周辺性エナメル上皮腫はわれわれの渉猟し得た限りでは，自験例を含めて38例が報告されている（表1）。

性別では男性24例，女性13例，不明1例と男性に多い。発生年齢は23～82歳と多年代にわたって発生するが，顎骨中心性のものと比べて高齢者に多く，自験例も66歳女性であった。

発生部位別では，上顎歯肉11例，下顎歯肉21例と下顎に多く，小白歯より前方に発生する率が高い。その他に

頬部3例，軟口蓋2例が報告されている。自験例は翼突下顎隙に発生したもので，今までにこの部位での報告例はなく，発生部位的にきわめてまれである。

本腫瘍の発生由来については諸説があり，現在なおあきらかではない。

Stanley⁴⁾は，口腔粘膜上皮下に遺残した歯堤および歯原性上皮に由来するとし，歯牙発生部位上の軟組織すなわち歯肉部に発生したものに限る，peripheral ameloblastoma と呼称して報告し，その他遠隔部に発生したものと区別している。

一方，Aisenberg⁴⁾，Villa⁵⁾は，口腔粘膜上皮と連絡を有するエナメル上皮腫を報告し，口腔粘膜上皮に由来するエナメル上皮腫が存在することを主張している。

これに対して，Siegmund³⁾は，増殖した腫瘍が単に二次的に連絡したにすぎないとし口腔粘膜上皮と連絡を有するものすべてが口腔粘膜上皮より直接発生したものと断定し得ないことを示唆している。

自験例の発生由来について，H-E 所見にて数個の細胞からなる歯原性上皮が間質中に島状に散在する所見も認められ，歯原性上皮に由来するものと考えられた。また本症は病理組織学的には，Gardner³⁷⁾は，WHO の分類で acanthomatous type が多く，follicular type, basal cell type も存在するとしているが，自験例では一部に軽度の異形性を認める腫瘍細胞の増殖を認めたが，大部分は plexiform type を示した。これらの所見から病理組織学的にも周辺性エナメル上皮腫の像が認められたが，基底細胞腫と周辺性エナメル上皮腫の異同について種々なる見解があり，その鑑別点も確固としたものが得られていないのが現状である。

Gardner³⁷⁾は，周辺性エナメル上皮腫および基底細胞腫と診断された21例について，病理組織学的に検索して，両者は同一疾患であるとしている。一方，Mori

表 1 周辺性エナメル上皮腫の報告例

報 告 者	年 代	年 齢	性	発 生 部 位
1 Gullifer ²⁾	1936	49	男	上顎前歯部歯肉
2 Braustein ³⁾	1949	63	男	左側頬部
3 Aisenberg ⁴⁾	1953	60	男	下顎犬歯部歯肉
4 Villa ⁵⁾	1953	—	—	下顎角部～下顎犬歯部歯肉
5 Pollack ⁶⁾	1955	56	男	軟口蓋側方
6 Stanley ⁷⁾	1959	36	女	下顎小臼歯部歯肉
7 England ⁸⁾	1960	39	女	下顎前歯部歯肉
8 Russell ⁹⁾	1966	52	男	右側上顎結節
9 柘 植 ¹⁰⁾	1967	37	男	<u>3 2</u> 口蓋側歯肉
10 Klinar ¹¹⁾	1969	68	男	右側頬部
11 原 田 ¹²⁾	1969	64	男	<u>5 4</u> 舌側歯肉
12 Lee ¹³⁾	1970	35	男	<u>13 4</u> 口蓋側歯肉
13 Lee ¹³⁾	1970	47	男	<u>5 4</u> 舌側歯肉
14 Wertheimer ¹⁴⁾	1972	23	女	<u>1 2</u> 舌側歯肉
15 Mori ¹⁵⁾	1972	66	女	<u>7</u> 頬側歯肉
16 Mori ¹⁵⁾	1972	54	男	右側軟口蓋
17 Wallen ¹⁶⁾	1972	82	男	右側上顎結節
18 Balfour ¹⁷⁾	1973	62	男	<u>5</u> 舌側歯肉
19 Gardner ¹⁸⁾	1973	57	男	右側下顎犬臼歯部歯肉
20 Richardson ¹⁹⁾	1974	47	女	<u>4 5</u> 舌側歯肉
21 柴 田 ²⁰⁾	1974	60	男	<u>13 4 5</u> 口蓋側歯肉
22 右 田 ²¹⁾	1975	38	女	<u>4 3</u> 口蓋側歯肉
23 Pansino ²²⁾	1975	45	女	<u>3 4</u> 舌側歯肉
24 Wesley ²³⁾	1977	33	女	<u>7</u> 部歯肉
25 手 島 ²⁴⁾	1977	58	男	<u>4 5</u> 舌側歯肉
26 Greer ²⁵⁾	1978	32	男	<u>5 6</u> 舌側歯肉
27 堂 原 ²⁶⁾	1978	59	男	左側頬粘膜
28 井 出 ²⁷⁾	1978	32	男	<u>5 6</u> 舌側歯肉
29 大 野 ²⁸⁾	1979	71	男	<u>4 3</u> 頬側歯肉
30 小 森 ²⁹⁾	1979	55	男	<u>2 1 1 2</u> 唇側歯肉
31 宮 本 ³⁰⁾	1980	41	女	<u>3 2</u> 唇側歯肉
32 浅 田 ³¹⁾	1980	66	女	<u>4 3 2 1</u> 舌側歯肉
33 木 下 ³²⁾	1982	68	男	左側下顎小臼歯部歯肉
34 松 田 ³³⁾	1983	30	男	<u>4</u> 口蓋側歯肉
35 山 下 ³⁴⁾	1987	34	女	<u>1 2 3</u> 唇側歯肉
36 山 下 ³⁴⁾	1987	46	女	<u>1 2 3 4</u> 舌側歯肉
37 芝 ³⁵⁾	1988	44	男	左側下顎小臼歯部歯肉
38 自 驗 例	1988	66	女	右側翼突下顎隙

ら¹⁵⁾は組織化学的に検索し、周辺性エナメル上皮腫では alkaline phosphatase が胞巣の中心部に強い活性を示すものの、基底細胞腫では陰性で、両者にはあきらかな相違を認めるとしている。

著者らは、免疫組織化学的に Collagen type IV の発現様式の検索をすることにより、基底細胞腫との鑑別を試みた。Collagen type IV は、基底膜に局在する分子成分の一つとされている³⁹⁾。

D. Van Cauwenberge ら³⁹⁾は基底細胞腫 25 例を検索

し、全例において腫瘍実質と間質との境界部に Collagen type IV の発現、すなわち基底膜を認めたと報告している。一方、自験例では Collagen type IV の発現を認めなかったことから、自験例は基底細胞腫と異なる疾患であると考えた。

以上の免疫組織化学的所見と H-E 所見による組織像を考え合わせると本例は、口腔領域にあらわれた基底細胞腫とは考え難く、口腔軟組織に発生した、plexiform type の周辺性エナメル上皮腫と考えるのが妥当である

と思われた。

む す び

われわれは、66歳女性の右側翼突下顎隙に発生した周辺性エナメル上皮腫の1例を経験し、基底細胞腫との鑑別点を得るために免疫組織化学的に検討を行ったので報告した。

稿を終えるにあたり、病理組織学的考察についてご指導を賜った市立宇和島病院病理栗原憲二先生に謝意を表します。

引用文献

- Lucas, R.B.: Pathology of Tumors of the Oral Tissues. 2th Ed, Churchill Livingstone, 1972, p 50.
- Gullifer, W.H.: Adamantinoma. Dent Cosmos 78: 1256-1259 1936.
- Braustein, E.: Case report of an extraosseous adamantinoblastoma. Oral Surg 2: 726-728 1949.
- Aisenberg, M.S.: Histopathology of ameloblastoma. Oral Surg 6: 1111-1128 1953.
- Villa, H.G.: A case of ameloblastoma derived from adult oral epithelium. Oral Surg 6: 1216-1223 1953.
- Pollack, R.S.: Extraosseous adamantinoma. Arch Surg 13: 353-358 1955.
- Stanley, H.R., Krogh H.W., et al.: Peripheral ameloblastoma; Report of a case. Oral Surg 12: 760-765 1959.
- England, L.C. and Providence, R.I.: Ameloblastoma of the mandible. Oral Surg 13: 648-650 1960.
- Russell, A.: Ameloblastoma of the mucosal origin. New Zealand Dent J 62: 116-118 1966.
- 拓植精一, 柴田寛一, 他: 歯肉に発生したエナメル上皮腫の1例. 口科誌 16: 395-397 1967.
- Klinar, K.L., Macmanis, J.C., et al.: Soft-tissue ameloblastoma; Report of a case. Oral Surg 28: 266-272 1969.
- 原田雅博, 林 一, 他: 下顎小白歯部歯肉に発生したエナメル上皮腫の1例(抄). 日口外誌 15: 269 1969.
- Lee, K.W., Path, M.C., et al.: Peripheral ameloblastoma. Brit J Oral Surg 8: 150-153 1970.
- Wertheimer, F.W., Donald, E.S., et al.: Peripheral ameloblastoma in a papilloma with recurrence; report of a case. J Oral Surg 30: 47-49 1972.
- Mori, M., Kuroi, M., et al.: Histochemical observation of softtissue ameloblastoma. J Osaka Univ Dent Sch 12: 109-112 1972.
- Wallen, N.G., Loscalzo, L.J., et al.: Extraosseous ameloblastoma. Oral Surg 34: 95-97 1972.
- Balfour, R.S. and Loscalzo, L.J., et al.: Multicentric peripheral ameloblastoma. J Oral Surg 31: 535-538 1973.
- Gardner, D.G.: An ameloblastoma and a hamartoma of the dental lamina in two siblings. J Oral Surg 31: 697-700 1973.
- Richardson J.F., Greer, R.O., et al.: Ameloblastoma of mucosal origin. Arch Otolaryngol 100: 174-175 1974.
- 柴田寛一, 磯貝昌彦, 他: Peripheral ameloblastoma と思われる1例. 岐歯学誌 1: 130-136 1974.
- 右田信行, 永井晴彦, 他: Peripheral ameloblastoma の1例. 日口外誌 21: 463-466 1975.
- Pansino, F.A. and Meara, J.W.: Case report: Peripheral ameloblastoma. J Mich Dent Assoc 57: 129-130 1975.
- Wesley, R.K., Borninski, E.R., et al.: Peripheral ameloblastoma. J Oral Surg 35: 670-672 1977.
- 手島貞一, 田中広一, 他: Peripheral ameloblastoma の1例. 日口外誌 23: 391-396 1977.
- Greer, R.O. and Hammond, W.S.: Extraosseous ameloblastoma. J Oral Surg 36: 553-556 1978.
- 堂原義美, 朔 敬, 他: 頬粘膜部に発生した周辺性(骨外性)エナメル上皮腫の1例(抄). 日口外誌 24: 1349 1978.
- 井出文雄, 渡辺孝夫, 他: Peripheral ameloblastoma の1症例. 口科誌 27: 353-362 1978.
- 大野 均, 金井堅次, 他: Peripheral ameloblastoma の1症例(抄). 口科誌 28: 571 1979.
- 小森康雄, 松本正明, 他: Peripheral ameloblastoma の1症例. 日口外誌 25: 1204-1207 1979.
- 宮本博一, 元井敏江, 他: 上顎前歯部に発生した Peripheral ameloblastoma の1症例(抄). 日口外誌 26: 1685 1980.
- 浅田洗一, 村越 恵, 他: エプーリスを思わせるエナメル上皮腫の1例(抄). 日口外誌 26: 1685, 1980.
- 木下鞆彦, 王 朝駿, 他: 周辺性エナメル上皮腫の1例. 日口外誌 28: 505-510 1982.
- 松田光悦, 津山 健, 他: 周辺性エナメル上皮腫の1例(抄). 日口外誌 29: 2537 1983.
- 山下敏康, 榎本道彦, 他: 周辺性エナメル上皮腫の2症例. 日口外誌 33: 76-82 1987.
- 芝 良祐, 迫田隅男, 他: 乳頭腫様増殖を示した周辺性エナメル上皮腫. 口科誌 37: 329-333

- 1988.
- 36) Seigmund, H. and Weber, R.: Pathologische Histologie der Mundhöhle, S. Hirzel, Leipzig, 1926, p 330.
- 37) Gardner, D.G.: Peripheral ameloblastoma. Cancer 39: 1625-1633 1977.
- 38) Jo—David Fine: Antigenic features and structural correlates of basement membranes. Arch Dermatol 124: 713-717 1988.
- 39) D. Van Cauwenberge, G.E. Pierard, et al.: Immunohistochemical localization of laminin, type IV and type V collagen in basal cell carcinoma. Br J Dermatol 108: 163-170 1983.
-