周辺性エナメル上皮腫の1例

安藤 智博・井瀬 謙二・阿部 廣幸・扇内 秀樹
安彦 善裕*・下野 正基*

A case of peripheral ameloblastoma

Tomohiro ANDO・Kenji INOSE・Hiroyuki ABE
Hideki OGIUCHI・Yoshihiro ABIKO*・Masaki SHIMONO*

Abstract: Peripheral ameloblastoma which histopathologically resembles a typical intraosseous ameloblastoma occurs in the soft tissue outside the alveolar bone. We describe a case of peripheral ameloblastoma arising in the gingiva of the premolar region in the left mandible of a 36-year-old man. A brief review of the literatures reported so far in Japan on this lesion and its differential diagnosis in relation to basal cell carcinoma are discussed.

Key words: peripheral ameloblastoma (周辺性エナメル上皮腫), histopathology (病理組織)

緒 言

エナメル上皮腫は、通常顎骨内に発生する疾患であるが、きわめてまれに顎骨を覆う軟組織に発生することもあり、周辺性エナメル上皮腫といわれている。われわれは周辺性エナメル上皮腫の1例を経験したので報告する。

症 例

患 者：36歳 男性。

初 診：1987年5月■日。

主 訴：左下顎小白歯部舌側歯肉の腫脹。

既往歴：特記事項なし。

現病歴：1987年2月頃に「45」部の舌側歯肉の腫脹を自覚したが、無痛のため放置した。同年4月歯科治療時に同部の腫脹を指摘され、その後増大傾向を認めたため、5月■日当科を受診した。

東京女子医科大学口腔外科学教室
(主任：扇内秀樹教授)

* 東京歯科大学病理学教室第2講座
(主任代行：下野正基助教授)

Department of Oral and Maxillofacial Surgery,
Tokyo Women's Medical College (Chief: Prof.
Hideki Ogiuchi)

* 2nd Department of Pathology, Tokyo Dental
College (Acting Chief: Assoc. Prof. Masaki
Shimono)

受付日：平成2年4月24日

写真1 初診時口腔内写真

め、5月■日当科を受診した。

口腔内所見：左側下顎小白歯部舌側歯肉に11×15×5mmの半球状、境界明瞭な腫瘍を認めた。表面は顆粒状で、色調は健常色であった。「34」は電気歯髓検査で陽性であり、動揺はなかった。「567」にはブリッジが装着されていた(写真1)。

X線所見：オルソパントモグラムの「45」間の歯槽骨に軽度の骨吸収像を認めたが、デンタルX線写真では異常は認められなかった(写真2, 3)。

臨床診断：エプーリス。

処置および経過：1987年5月■日に生検を行い、Pseudoepitheliomatous hyperplasiaの診断を得たので、6月3日局所麻酔下に「4」の抜歯と腫瘍摘出術を施行した。腫瘍周囲の粘膜に骨面に達する切開を加え骨より剥

写真 2 初診時オルソパントモグラム

写真 3 デンタルX線写真

写真 4 摘出物写真

写真 5 病理組織像 (H.E. 弱拡大像)

表面を覆う口腔上皮には著しい釘脚の形成がみられ、上皮下結合織中には典型的な叢状型を示す部と胞巣を形成し濾胞型を呈する腫瘍細胞が認められる。上皮と腫瘍細胞は連続移行を示すところもみられる。

写真 6 病理組織像 (H.E. 中拡大像)

濾胞状の腫瘍細胞はエナメル器に類似しており、間質と接した部には円柱状の細胞が配列している。その内方には主に、星状形を呈する細胞よりなっている。

離し摘出した。骨との剝離は容易であり吸収などの異常は認めなかった。術後2年再発は認めない。

摘出物所見：腫瘍は10×10×5mm大で弾性硬であり、断面は充実性で灰白色を呈していた(写真4)。

病理組織所見：口腔粘膜上皮には不規則な釘脚の延長がみられ、その直下に大小さまざまな形態を示す上皮細胞胞巣からなる腫瘍組織が認められた(写真5)。腫瘍実

質は典型的な叢状型が大部分を占めていたが、一部に濾胞型を示す部も認められた(写真6)。叢状型を示す部では、索状に増殖した部は円柱形の細胞からなっていた(写真7)。また濾胞型を呈する部では、腫瘍細胞はエナメル器に類似しており、間質と接した部には円柱形の細胞が配列し、一部の胞巣は扁平上皮化生を呈し、胞巣中央部には角質球を認めた(写真8)。また腫瘍細胞と口

写真 7 病理組織像 (H.E. 強拡大像)

腫瘍の大半を占める叢状型の部では索状に増殖した腫瘍細胞は主に、円柱形の上皮細胞よりなっている。その間質はきわめて疎な結合組織であるが、炎症性細胞浸潤は認められない

写真 9 病理組織像 (H.E. 弱拡大)

写真 8 病理組織像 (H.E. 強拡大像)

ところどころで、腫瘍細胞巢は内方に向かって扁平上皮化生を示し、角質球もみられる。明らかな異型細胞は認められない。

写真 10 病理組織像 (H.E. 強拡大)

腔粘膜上皮との連続移行を示す部分も認められた。

弱拡大で骨と上皮の間にエナメル上皮腫の細胞が明らかに増殖している。また、骨の周囲には、骨膜の存在が認められる (写真 9, 10)。

病理組織学的診断：周辺性エナメル上皮腫。

考 察

周辺性エナメル上皮腫は顎骨内に発生するエナメル上皮腫の組織学的特徴をもっているが、顎骨を覆う軟組織、すなわち歯肉歯槽部に発生するものとされている^{1,2)}。しかしこの定義では歯肉歯槽部以外の口腔軟組織に発生したものは除外することになるが、石川³⁾も歯肉以外の部位に発生したものは、周辺性エナメル上皮腫とは認めがたいと述べている。

われわれが渉猟し得た本邦での歯肉に発生した周辺性エナメル上皮腫の報告例は、1967年の柘植ら⁴⁾の報告より現在まで、自験例を含め21例であった (表1)。

男女比は 2 : 1 で男性に多く、発生年齢は 9 ~ 71 歳と幅広く、顎骨内エナメル上皮腫の発生年齢と比較して高くなっていた。発生部位は上顎 7 例、下顎 14 例であり、下顎では前歯部から小臼歯部の舌側歯肉が 9 例と多く、上顎では口蓋側歯肉が 5 例であった。井手ら¹⁰⁾は発生学的に歯胚は舌側もしくは口蓋側に形成されるので、上皮遺残が同部位に残存する可能性が高く、そのため同部が周辺性エナメル上皮腫の好発部位になっている可能性があると述べている。臨床症状はほとんどが無痛性の腫瘤として認められ、大きさは拇指頭大のものから 5 mm 大のものまでみられたが、2 mm 前後のものが多かった。表面は正常粘膜に覆われているものが大部分で

表 1 本邦における周辺性エナメル上皮腫報告例

No.	報告者	年代	年齢	性	部 位	大 き さ	上皮連絡
1	柘植ら ⁴⁾	1967	37	M	32 口蓋歯肉	大豆大	
2	原田ら ⁵⁾	1969	64	M	54 舌側歯肉	5 cm	
3	柴田ら ⁶⁾	1974	60	M	345 口蓋歯肉	拇指頭大	+
4	右田ら ⁷⁾	1975	38	F	43 口蓋歯肉	5×5 mm	—
5	浅田ら ⁸⁾	1976	40	M	45 舌側歯肉	15×15×2 mm	+
6	手島ら ⁹⁾	1977	58	M	45 舌側歯肉	17×10 mm	+
7	井出ら ¹⁰⁾	1978	32	M	56 舌側歯肉	小指頭大	+
8	小森ら ¹¹⁾	1979	55	M	上顎前歯部歯肉	2+2 にわたる	+
9	浅田ら ¹²⁾	1980	66	F	4—1 舌側歯肉	20×12×10 mm	+
10	宮本ら ¹³⁾	1980	41	F	32 唇側歯肉		
11	堀部ら ¹⁴⁾	1981	34	F	123 唇側歯肉	小指頭大	
12	高井ら ¹⁵⁾	1982	71	M	43 頬側歯肉	20×15 mm	—
13	木下ら ¹⁶⁾	1982	68	M	左下顎臼歯部歯槽頂	12 mm	+
14	山下ら ¹⁷⁾	1987	34	F	123 唇側歯肉	拇指頭大	+
15	山下ら	1987	46	F	1234 舌側歯肉	25×10×8 mm	+
16	中尾ら ¹⁸⁾	1987	9	M	21 12 歯肉		
17	松田ら ¹⁹⁾	1987	30	M	4 口蓋側歯肉	小指頭大	+
18	芝 ら ²⁰⁾	1987	44	M	543 舌側歯肉	7×5 mm	+
19	中澤ら ²¹⁾	1989	60	F	1—5 舌側歯肉	19×15×12 mm	+
20	中澤ら	1989	70	M	543 口蓋歯肉	21×19 mm	+
21	本症例	1989	36	M	45 舌側歯肉	11×15×5 mm	+

あったが、潰瘍、びらん、乳頭腫様を呈したものも認められた。自験例では表面は顆粒状で色調は健康色であった。組織学的には顎骨内エナメル上皮腫が宮崎の分類のⅢ型が最も多いのに対し周辺性エナメル上皮腫はⅠ、Ⅱ型、WHO 分類では acanthomatous, plexiform type が多いようである。自験例では典型的な plexiform type が大部分を占めたが、一部に胞巣中央部に扁平上皮化生を示す像がみられた。また本症例では一部に上皮との連続移行を示す像が認められたが、本邦報告例中では粘膜上皮との連続性のあるもの13例、連続性のないもの3例、記載のないもの5例であった。腫瘍と口腔粘膜の連続は、周辺性エナメル上皮腫の発生由来を口腔粘膜上皮とする説の根拠となっている。本邦報告例においては、粘膜上皮と腫瘍との連続性があるものが多数を占めたが、いずれも口腔粘膜上皮から発生したものか、あるいは2次的に癒合したものかについては、不明ようである。

本症は組織学的に基底細胞癌(腫)との異同が問題となっている。エナメル上皮腫と皮膚の基底細胞癌の組織学的類似性はよく知られており、WHO の分類²²⁾でもエナメル上皮腫の1つの型を basal cell type としている。また Lever²³⁾は basal cell epithelioma を solid, keratotic, cystic, adamantoid, granular の5つに分類し、adamantoid basal cell epithelioma はきわめてエナメ

ル上皮腫に類似しているとしている。これらの組織学的類似性より、周辺性エナメル上皮腫を基底細胞癌と同一疾患とする説^{1,2)}と、生物学的性状²⁴⁾、組織化学的性状²⁵⁾、電顕像²⁶⁾などから異なる疾患であるとする説^{10,21)}に意見がわかれている。いずれにせよ、両腫瘍の組織学的鑑別は不可能^{27,28)}と思われるので、歯肉歯槽部に発生した基底細胞癌は周辺性エナメル上皮腫とみなす方が混乱が少ないと思われる。

治療法では摘出のみ行われているもの6例、骨を含め切除しているもの13例であった。芝ら²⁰⁾の報告例では単純に摘出した後再発が認められている。しかしその他の摘出例では再発はなく、木下ら¹⁶⁾は完全な摘出と骨面の削除程度でよいと述べている。自験例は摘出のみの処置を行い、術後2年経過しているが、再発はみられていない。

結 語

今回われわれは、36歳男性、左下顎小臼歯部舌側歯肉に発生した周辺性エナメル上皮腫の1例を経験したので文献的考察とともにその概要を報告した。

なお、本論文の要旨は第140回日本口腔外科学会関東

地方会（昭和63年2月27日，東京）において発表した。

引用文献

- 1) Gardner, D.G.: Peripheral ameloblastoma; a study of 21 cases including 5 reported basal cell carcinoma of the gingiva. *Cancer*. 39: 1625-1633 1977.
- 2) Buchner, A. and Sciubba, J.J.: Peripheral epithelial odontogenic tumors; A review. *OS OM OP* 63: 688-697 1987.
- 3) 石川梧朗監修：口腔病理学Ⅱ，永末書店，京都，1982，479頁。
- 4) 柘植精一，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.
- 5) 原田雅博，林 一，他：下顎小臼歯部舌側軟組織に発生したエナメル上皮腫の1例（抄）。 *日口外誌* 15: 269 1969.
- 6) 柴田寛一，磯貝昌彦，他：Peripheral ameloblastoma と思われる1例。 *岐阜歯学誌* 1: 130-136 1974.
- 7) 右田信行，永井晴彦：Peripheral ameloblastoma の1例。 *日口外誌* 21: 463-466 1975.
- 8) 浅田洸一，石橋克礼，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.
- 9) 手島貞一，田中広一，他：Peripheral ameloblastoma の1例。 *日口外誌* 23: 391-396 1977.
- 10) 井出文雄，渡辺孝夫，他：Peripheral ameloblastoma の1例。一症例報告と文献的考察一。 *口科誌* 27: 353-362 1978.
- 11) 小森康雄，松本正明，他：Peripheral ameloblastoma の1症例。 *日口外誌* 25: 1204-1207 1979.
- 12) 浅田洸一，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: 1685-1686 1980.
- 13) 宮本博一，元井敏江，他：上顎前歯部に発生した peripheral ameloblastoma の1例（抄）。 *日口外誌* 26: 1685 1980.
- 14) 堀部直貴，泉 誠一，他：下顎唇側軟組織に発生した Peripheral ameloblastoma の1例（抄）。 *日口外誌* 27: 2015 1981.
- 15) 高井克慈，山田長信，他：周辺性エナメル上皮腫の1症例。 *日口外誌* 28: 295-299 1982.
- 16) 木下靱彦，王 朝駿，他：辺縁性エナメル上皮腫の1例。 *日口外誌* 28: 505-510 1982.
- 17) 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.
- 18) 中尾治郎，藤田 毅，他：周辺性エナメル上皮腫の1例（抄）。 *日口外誌* 33: 2335 1987.
- 19) 松田光悦，竹川正範，他：周辺性エナメル上皮腫の1症例。 *日口外誌* 33: 1511-1513 1987.
- 20) 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.
- 21) 中澤光博，川本知明，他：周辺性エナメル上皮腫の2例—症例報告と文献的考察—。 *日口外誌* 35: 664-672 1989.
- 22) Pindborg, J.J. and Kramer, I.R.: Histological typing of odontogenic tumors, Jaw cysts, and allied lesions. WHO, Geneva, 1971, p 24-25.
- 23) Lever, W.F., Schaumburg-Lever, G.: Histopathology of the Skin. J.B. Lippincott, Co., Philadelphia, 1983, p 562-568.
- 24) Lucas, R.B.: Pathology of Tumors of the Oral Tissues. 3rd Ed, Churchill Livingstone New York, p 3-59.
- 25) Mori, M., Morimoto, Y., et al.: Enzymatic histochemical demonstration of basal-cell carcinoma in the oral cavity. *OS OM OP* 25: 746-755 1968.
- 26) Green, R.O. and Hammond, W.S.: Extraseous ameloblastoma: Light microscopic and ultrastructural observations. *J Oral Surg* 36: 553-557 1978.
- 27) Schaberg, S.J., Antimarino, R.F. et al.: Peripheral ameloblastoma, Report of a case. *Int J Oral Surg* 12: 344-347 1983.
- 28) Lucas, R.B.: Pathology of Tumors of the Oral Tissues. 4th Ed, Churchill Livingstone, New York, 1984, p 142.