上顎前歯部に発生した Desmoplastic Ameloblastoma の 1 例

竹 島 浩・永峰浩一郎・嶋 田 淳・山本美朗
田島義文*・町野 守**

A case of desmoplastic ameloblastoma in the anterior maxilla

Hiroshi TAKESHIMA・Kouichiro NAGAMINE・Jun SHIMADA・Yoshiro YAMAMOTO
Yoshifumi TAJIMA*・Mamoru MACHINO**

Abstract: Desmoplastic ameloblastoma was first described by Eversole in 1984. We recently encountered a case of desmoplastic ameloblastoma in the anterior maxilla.

A 52-year-old man presented to the First Department of Oral and Maxillofacial Surgery of Meikai University. A biopsy was performed, and examination of the biopsy specimen indicated a diagnosis of odontogenic fibroma. The patient underwent tooth extraction in the affected region and tumor resection under general anesthesia.

Microscopic examination after the operation showed an extensive collagenized stroma containing small islets of tumor epithelium with a slight tendency to form cystic structures. The histological diagnosis was therefore desmoplastic ameloblastoma.

Key words: desmoplastic ameloblastoma (線維性エナメル上皮腫), ameloblastoma (エナメル上皮腫), odontogenic tumor (歯源性腫瘍)

緒 言

Desmoplastic Ameloblastoma は、1984 年に Eversole らによって最初に報告された疾患である。今回著者らは、1 2 3 部に発生した Desmoplastic Ameloblastoma の 1 例を経験したので、その概要を報告する。

症 例

患 者：54 歳 男性。

初 診：平成 3 年 3 月 日。

主 訴：1 2 3 部の歯肉の腫脹。

現病歴：昭和 63 年頃より 1 2 3 部唇側歯肉の腫脹を認めていたが無痛性のため放置していた。しかし、その後同部腫脹が著しくなってきたため近歯科受診したところ当科を紹介され来院となった。

既往歴：約 10 年前に高血圧症を指摘されるも、現在は異常なし。また昨年、糖尿病を指摘され現在薬剤服用中である。

家族歴：特記事項なし。

現 症：全身状態は、体格中等度、栄養状態良好であった。また、局所所見は、顔貌はほぼ左右対称であった。

口腔内所見で、1 2 3 部唇側歯肉に約 2×3 cm の境界明瞭な骨様隆起を認め同粘膜は、正常粘膜色を呈しており無痛性であった(写真 1)。また、電気歯髓診断において 1 2 3 は、生活歯であった。

臨床検査所見：空腹時血糖が 122mg/dl を認める以外、異常所見は認められなかった。

X 線所見：二等分撮影法によるデンタル X 線写真

明海大学歯学部口腔外科学第一講座

(主任：山本美朗教授)

*明海大学歯学部口腔病理学講座

(主任：内海順夫教授)

**明海大学歯学部口腔診断学講座

(主任：山本美朗教授)

First Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Meikai University school of Dentistry (Chief: Prof. Yoshiro Yamamoto)

*Department of Oral Diagnosis, Meikai University school of Dentistry (Chief: Prof. Nobuo Utsumi)

**Department of Oral Pathology, Meikai University school of Dentistry (Chief: Prof. Yoshiro Yamamoto)

受付日：平成 6 月 8 月 25 日

写真1 初診時の口腔内写真

写真4 術中写真

写真2 初診時のデンタル X 線写真

写真5 病理組織所見 (H-E 染色, ×40)

写真3 初診時の CT 検査所見

写真6 病理組織所見 (H-E 染色, ×100)

を示すが、同部の半透過像内に不整形の石灰化物様不透過像が認められた(写真2)。

CT 写真を示すが、唇側皮質骨は膨隆し内部は X 線透過性で、一部、石灰化物様不透過像が認められた(写真3)。

処置および経過：123 部良性腫瘍の臨床診断のもとに平成3年3月12日外来、局所麻酔下で生検施行したところ歯原性線維腫の病理組織診断を得たため、平成3年3月12日全身麻酔下で、123 の抜歯および腫瘍切除術を施行した。

唇側口蓋側の粘膜を剥離したのち、唇側皮質骨の膨隆部を削除したところ拇指頭大白色弾性軟の充実性腫瘍が認められた(写真4)。

腫瘍組織との境界が不明瞭であったため、123 同部周囲健全骨および被覆粘膜を含めて切除した。創部は、抗生物質軟膏付きガーゼにより、タイオーバー Dressing した。

摘出物所見：腫瘍の大きさは、2.3cm×3.5cm×1.3cm であった。

病理組織所見：組織学的には、豊富な膠原線維からなる基質中に歯原性上皮の腫瘍胞巣を散在性に認めた。腫瘍胞巣はしばしば疎性の膠原線維で周囲されていた(写真5：矢印)。

胞巣の最外側の細胞は立方形ないし低円柱形を呈し、胞巣中心部は多くの場合、扁平上皮様細胞からなっていた(写真6)。ときに腫瘍胞巣内に小嚢胞の形成が認

写真7 病理組織所見 (H-E 染色, ×40)

められた (写真7: 矢印)。

病理組織診断: Desmoplastic Ameloblastoma

現在, 術後約3年6ヶ月を経過し再発傾向もなく経過観察中である。

考 察

Desmoplastic Ameloblastoma は, 1984 年に Eversole ら¹⁾ によって最初に報告された疾患で, その後, 1987 年に Waldron ら²⁾ によってエナメル上皮腫 116 症例の中から, この組織型のもの 14 例が報告されている。1988 年には, Grätz ら³⁾ が 2 例, 1992 年に Philipsen ら⁴⁾ が 2 例, 1993 年に Ashman ら⁵⁾ が報告している。また, 本邦においては, 1990 年に Yoshimura ら⁶⁾, 1991 年に Higuchi ら⁷⁾, Tanimoto ら⁸⁾ が報告した 3 例のみで, 著者らが渉猟しえた報告は, これらのみである。

本疾患は, Waldron らにより詳細に報告されており臨床的には, 限局性の小腫瘍であり発生部位は上顎前歯部に多く, 次いで下顎前歯部である。X 線所見においてエナメル上皮腫の典型的な放射線像は示さず, 線維骨性病変を示唆し, 境界不明瞭で, 放射線透過性および不透過性の過程が混合した様相を呈すると言われている。また, 病理組織学的に腫瘍は充実性で腫瘍実質には, 密な膠原線維からなる線維性結合組織がみられ, その中には, 扁平上皮に類似した, 歯原性上皮からなる小胞巣が散在性に増殖し, 時に骨組織が認められると報告されている²⁾。再発については, 病変が, 臨床的ならびに肉眼的に明らかに限局しているにもかかわらず, 被膜を立証するものがなく, 辺縁部の健全な骨梁の間に明らかな腫瘍浸潤が示されたことは, 他の型のエナメル上皮腫と少なくとも同じ頻度で再発する傾向があると報告されている²⁾。本疾患は, 1992 年に WHO によって, エナメル上皮腫の亜型として初めて歯原性腫瘍の分類の中に登場した。

本疾患は, 臨床診断において, 歯原性線維腫などの線維性骨病変, Squamous Odontogenic Tumor, 悪性腫瘍などとの鑑別が必要であると思われる。

結 語

今回著者らは, 123 部に発生した Desmoplastic Ameloblastoma の 1 例を経験したので, その概要を報告した。

本論文の要旨は, 第 37 回日本口腔外科学会総会 (1992 年 11 月 20 日横浜) において発表した。

引 用 文 献

- 1) Eversole, L.R., Leider, A.S., et al.: Ameloblastomas with pronounced desmoplasia. J. Oral Maxillofac. Surg. 42: 735-740 1984.
- 2) Waldron, C.A. and El-Mofty, S.K.: A histopathologic study of 116 ameloblastomas with special reference to the desmoplastic variant. Oral Surg. 63: 441-451 1987.
- 3) Grätz, K.W. and Makek, M.: Das desmoplastische Ameloblastoma. Ein neuer morphologischer Subtyp des Ameloblastoms. DtschZ Mund Kiefer Gesichtschir. 12: 445-450 1988.
- 4) Philipsen, H.P., Ormiston, P.A., et al.: The desmo- and osteoplastic ameloblastoma. Histologic variant or clinico-pathologic entity Case reports. Int. J. Oral Maxillofac. Surg. 21: 352-357 1992.
- 5) Ashman, S.G., Corio, R.L., et al.: Desmoplastic ameloblastoma. A case report and literature review. Oral Surg Oral Med Oral Pathol 75: 479-482 1993.
- 6) Yoshimura, Y., Saito, H., et al.: Desmoplastic variant of ameloblastoma: report of a case and review of the literature. J. Oral Maxillofac. Surg. 48: 1231-1235 1990.
- 7) Higuchi, Y., Nakamura, N., et al.: Unusual Ameloblastoma with Extensive Stromal Desmoplasia. J. Cranio-Max.-Fac. 19: 323-327 1991.
- 8) Tanimoto, K., Tanaka, T., et al.: A case of desmoplastic variant of a mandibular ameloblastoma. J. Oral maxillofac. Surg. 49: 94-97 1991.