周辺性エナメル上皮腫の1例

玉城 廣保・安田 順一・谷口 誠治

A case of peripheral ameloblastoma

Hiroyasu TAMAKI・Jun-ichi YASUDA・Seiji TANIGUCHI

Abstract: Ameloblastoma, especially peripheral ameloblastoma, which arises in oral soft tissue and usually develops extraosseously, is a very rare odontogenic tumor. We describe a case of ameloblastoma that originated in the anterior mandible and persisted for 15 years. The case was in a 61-year-old man, who presented with a 22×18×10 mm tumor on the lingual surface of the anterior mandible. Radiographic examination revealed no intraosseous destruction of the mandible. The preoperative clinical diagnosis was an epulis, and the tumor was resected under local anesthesia. The resected tumor was histologically diagnosed to be a peripheral ameloblastoma. Histologically, cord-like or meshwork-like nests of tumor cells were observed below the epithelium. Distinct continuity was noted between the epithelium and the nests. Histologically, the tumor basically showed a plexiform pattern, but an acanthomatous pattern was also noted frequently. There have been no signs of relapse as of two years after operation.

Key words: peripheral ameloblastoma (周辺性エナメル上皮腫), ameloblastoma (エナメル上皮腫), odontogenic tumor (歯源性腫瘍), anterior mandible (下顎前歯部)

緒 言

エナメル上皮腫のうち、口腔軟組織に原発し通常骨外性に発育する、周辺性エナメル上皮腫はきわめてまれな歯源性腫瘍である¹⁾。本腫瘍の組織像については棘細胞腫型が多く、腫瘍と被覆上皮との連続性が認められることが多い²⁾、とされる。われわれは下顎前歯部舌側歯肉に発生し、15年という長い期間を経過した、本腫瘍の1例を経験した。本症例の臨床経過および組織像を述べるとともに、若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

患 者：■歳、男性。

初 診：平成5年(1993年)4月■日。

主 訴：下顎前歯部の腫瘍。

家族歴：特記すべき事項なし。

既往歴：虫垂炎(昭和45年)。

現病歴：15年前、下顎前歯部舌側歯肉に小腫瘍が生じているのに気づいていた。約10年前、歯科治療の際腫瘍の切除をすすめられたが、無痛性のため放置していた。その後腫瘍は徐々に増大し、平成5年4月■日某歯科を受診し、当科を紹介されて来科した。

現 症：顔貌は対称性で顔色やや浅黒く、栄養体格は中等度である。歯牙の状態をみると、左側下顎中切歯・側切歯は欠損し、右側下顎中切歯・側切歯は動揺がつよい。下顎切歯欠損部を中心に右側下顎側切歯から左側下顎第一小臼歯にいたる歯肉に固有口腔側へ突出した、22×18×10mm大の腫瘍を認める(写真1)。弾性硬の腫瘍で、表面には結節状の凹凸があって、色調は一部赤桃色を帯びている。

X線写真：残存歯の歯槽骨に中等度の水平骨吸収を認める。下顎切歯欠損部の歯槽骨上には船底型の骨吸収がみられるが、顎骨深部における骨破壊は認められない(写真2)。

臨床診断：エプーリス。

処置および経過：上記臨床診断のもとに入院せしめ、平成5年8月■日、局麻下で腫瘍切除術を施行した。

国立名古屋病院歯科口腔外科
(主任：玉城廣保医長)

Department of Dentistry and Oral Surgery, Nagoya
National Hospital (Chief: Hiroyasu Tamaki)

受付日：平成7年9月5日

写真1 口腔内写真
矢印は腫瘍を示す。

写真2 X線写真
腫瘍(矢印)直下の顎骨深部には骨破壊像は観察されない。

写真3 組織像
被覆上皮と胞巣との間には連続性が認められる(HE染色, 12.5倍)。

写真4 組織像
索状に増殖する胞巣を構成する腫瘍細胞は円柱状ないし高円柱状細胞から成っている(HE染色, 200倍)。

写真5 組織像
胞巣の内部に扁平上皮化生(矢印)が観察される(HE染色, 200倍)。

動揺していた左側下顎第一・第二小臼歯をまず抜歯し、右側の中切歯・側切歯はともに腫瘍内に含め、腫瘍辺縁の正常歯肉を2～3mm含めて一塊として切除した。骨膜の剥離は容易で、腫瘍相当部の骨面は滑沢であった。歯槽頂縁の凹凸を骨バーで整形し、創傷被覆保護材(ベスキチン)を介して露出骨面を保護した。露出骨面が完全に口腔粘膜上皮で被覆されるのに、術後3か月間を要した。平成7年8月現在、術後2年が経過しているが、今のところ再発は認めていない。

組織像: 被覆上皮下に索状あるいは叢状に发育する胞巣が観察される。被覆上皮と胞巣の間には明らかに連続性がみられる(写真3)。索状に増殖する胞巣は一部歯堤に類似した上皮索であるが、円柱状ないし高円柱状の腫瘍細胞から構成されている(写真4)。叢状に发育する塊状の胞巣の周辺部には円柱状ないし高円柱状細胞が柵状に配列し、内部には星状網構造がみられる。胞巣の内部には扁平上皮化生が観察され(写真5)、角質球が変性崩壊して囊胞化しているところもある。間質内に囊胞の形成はみられない。組織型は叢状型で棘細胞腫型である。

確定診断: 周辺性エナメル上皮腫。

考 察

周辺性エナメル上皮腫の発生頻度はさきわめてまれである。Stanleyら¹⁾は文献上、1,000例以上のエナメル上皮腫を検索し、本腫瘍を2例に認めているにすぎ

ない。中澤ら²⁾もエナメル上皮腫165例中、本腫瘍は2例であったと述べている。

歯肉に発生した本腫瘍の本邦報告例は柘植ら³⁾の報告が最初で、安藤ら(1990)⁴⁾は歯肉に発生した本腫瘍21例の集計を報告している。河野ら(1992)⁵⁾によれば、本腫瘍の報告例は文献上、重複例を除外して計算すると国内例27例、国外例43例の計70例であったと述べている。工藤ら(1992)⁶⁾も内外文献例70例の部位別発生頻度について集計を行っている。以上三者の集計報告例以外の、歯肉に発生した本腫瘍の報告例としては、原田ら(1992)の2例、大内田ら(1992)の1例、山口ら(1994)の1例、秋葉ら(1995)の1例

などを挙げることができる。河野ら⁵⁾の報告を基準にして考えると、歯肉に発生した本腫瘍の本邦報告例は、自験例1例を加えても合計34例にすぎない。性別では男性に発生が多く、女性の2倍ちかい発生率である⁴⁾。31例について発症年齢の平均値を求めると、平均年齢は48.8歳であった。部位別では下顎の前歯部と小臼歯部とに発生頻度が高い^{4, 6)}。大きさは径10~20mmあるいは20~30mm大のものが多く²⁾、ようである。自験例は61歳の男性で、発生部位は下顎前歯部、大きさは22×18×10mmであった。

本腫瘍の発育は緩慢のようである。病悩期間を25例について調査した。病悩期間は最短2日から最長20年で、平均は42か月(3年6か月)であった。このように本腫瘍の病悩期間は長く、通常の顎骨内エナメル上皮腫の発育より緩慢といえるようである。最長は工藤ら⁶⁾の20年であった。これに次ぐ自験例の病悩期間は中澤ら²⁾の症例1と比肩し、ともに15年と長期のものであった。

腫瘍と被覆上皮の連続性について中澤ら²⁾は国内外文献例の30例中23例に、また安藤ら⁴⁾は本邦報告例の21例中13例にそれぞれ連続性が認められたと述べている。自験例でも明らかに胞巣と被覆上皮との連続性が観察された。組織型は棘細胞腫型が多い。中澤ら²⁾は19例中12例に単独に棘細胞腫型を認め、残り7例中3例は棘細胞腫型に叢状型や濾胞型、あるいは基底細胞型を合併したものであったと述べている。自験例は基本的には叢状型であったが棘細胞腫型を示す所を多く認めた。叢状に発育する塊状の胞巣の内部には扁平上皮化生がみられ、角質球が変性崩壊して囊胞化している所が観察された。一部に歯堤に類似した上皮索の増殖も観察された(写真4)。上皮索の周辺部を構成する腫瘍細胞は立方形というよりもむしろ円柱

状あるいは高円柱状細胞から成り立っていた。叢状型の顎骨内エナメル上皮腫においては、間質囊胞が観察されることがあるが⁷⁾、本周辺性エナメル上皮腫では間質内に囊胞の形成はみられなかった。

結 語

われわれは61歳男性の下顎前歯部舌側歯肉に発生し、15年という長期間を経過した周辺性エナメル上皮腫の1例を経験したので、若干の文献的考察を加えて報告した。

引 用 文 献

- 1) Stanley, H.R.J. and Krogh, H.W.: Peripheral ameloblastoma; Report a case. Oral Surg. Oral Med. Oral Pathol. 12: 760-765 1959.
- 2) 中澤光博, 川本知明, 他: 周辺性エナメル上皮腫の2例, 一症例報告と文献的考察一. 日口外誌 35: 664-672 1989.
- 3) 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. 日口外誌 16: 395-397 1967.
- 4) 安藤智博, 井瀬謙二, 他: 周辺性エナメル上皮腫の1例. 日口外誌 36: 2089-2093 1990.
- 5) 河野憲司, 水城春美, 他: 歯槽骨浸潤を示した周辺性エナメル上皮腫の1例. 口腔腫瘍 4: 88-92 1992.
- 6) 工藤昌人, 片岡竜太, 他: 上顎前歯部唇側に発生した周辺性エナメル上皮腫の1例. 昭歯誌 12: 69-74 1992.
- 7) 玉城廣保, 高橋洋平, 他: 初回手術から40年経過した再発性エナメル上皮腫の1例(既報告)に関する知見補遺—叢状型エナメル上皮腫の組織学的検討—. 歯展 84: 1271-1277 1994.