臨床的に含歯性嚢胞を疑わせた非定型的な unicystic ameloblastoma の 1 例

武田 秋生・李 明子・小田 泰之
工藤 逸郎・草間 薫*・茂呂 周*

An unusual case of unicystic ameloblastoma showing typical clinical findings of dentigerous cyst

Akio TAKEDA・Akiko LEE・Yasuyuki ODA
Itsuro KUDO・Kaoru KUSAMA*・Itaru MORO*

Abstract: We describe a case of unicystic ameloblastoma in the left lower wisdom tooth region in a 16-year-old girl. Clinical examinations showed typical features of a dentigerous cyst. Although a lining epithelium was observed in the unicystic lesion, tumor nests characteristic of an enamel organ were also present as lining epithelial elements, and island-like and mass-like regions of ameloblastoma were found in the connective tissue of the cystic wall. Small amounts of calcified materials were noted in the tumor nests. These findings suggested that this case was an unusual unicystic ameloblastoma derived from the epithelium lining a follicular dental cyst.

Key words: unicystic ameloblastoma (ユニシスティックアメロブラストーマ), dentigerous cyst (含歯性嚢胞), calcified materials (石灰化物)

緒 言

エナメル上皮腫は実質が歯胚の上皮成分とくにエナメル器に類似し、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。またその組織由来についてはエナメル器あるいは歯堤を腫瘍芽とするものであろうことは多くの人々によって承認されている¹⁾が、含歯性嚢胞をはじめとする歯原性嚢胞の裏装上皮からエナメル上皮腫が生じうることも十分に考えられる。

今回著者らは含歯性嚢胞の臨床診断のもとに嚢胞摘出術を施行し、病理組織学的に WHO の歯原性腫瘍に分類されている unicystic ameloblastoma²⁾ の像を示し、小石灰化物の出現を認める一例を経験したので報告する。

日本大学歯学部口腔外科学教室第一講座
(主任：工藤逸郎教授)

*日本大学歯学部病理学教室
(主任：茂呂 周教授)

First Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Nihon University School of Dentistry (Chief: Prof. Itsuro Kudo)

*Department of Pathology, Nihon University School of Dentistry (Chief: Prof. Itaru Moro)

受付日：平成 6 年 7 月 6 日

症 例

患 者：16 歳，女子。

初 診：1992 年 8 月 10 日。

主 訴：なし。

既往歴：5 歳時，全身麻酔下においてヘルニアの手術既往がある。

家族歴：特記事項なし。

現病歴：当科初診の約 6 年前より某歯科医院にて矯正治療を続けている。約 3 年前の X 線診査にて「8」歯根未完成埋伏歯の歯冠を含む雀卵大の X 線透過像が認められたが，最近になり増大傾向を示したため精査を勧められ当科に紹介され，来院した。

全身所見：体格，栄養状態ともに良好で，全身的には特記すべき事項はない。また，顔貌は左右対称性で，顎下部には左右側とも小豆大，可動性，弾性硬の中顎下リンパ節を 1 個ずつ触知し，圧痛はない。

局所所見：口腔内には特に異常は認められない。また歯髓電気診で「7」は生活反応を示した。

X 線所見：初診時のオルソパントモ X 線写真では「7」遠心部に，大きさは雀卵大で埋伏した「8」の歯冠を含む単房性，境界明瞭な X 線透過像が認められる(写真 1A)。

写真 1

A: 初診時オルソパントモ X 線写真

B: 摘出物の断面写真

(矢印: 肉眼的に摘出物の陥凹部に認められた軟組織片)

写真 2 摘出物の病理組織像 (H-E 染色)

A: 上皮塊内の石灰化物 (×200)

B: 内腔に増殖したエナメル上皮腫の像 (×100)

臨床診断: 「8」部含菌性嚢胞。

処置および経過: 上記臨床診断のもとに、局所麻酔下において嚢胞摘出術を施行した。皮質骨に欠損は認められず、嚢胞は「8」埋伏歯とともに一塊として摘出し、摘出創腔は開放創とした。「7」は術中保存不可能と思われたため抜歯した。嚢腔内には半粘稠性、黄色透明な内容液を認めた。現在、術後約 1 年 5 か月を経過するが再発はなく、特に異常所見も認められず経過は良好である。

摘出物所見: 摘出物は $5 \times 4 \times 3$ cm 大で灰白色を呈しており、「8」歯冠を含んでいる。肉眼的に一部陥凹した部に軟組織の小片が認められる (写真 1B)。

病理組織学的所見: 嚢胞壁は平坦な重層扁平上皮により裏装され、上皮下には密な線維性結合組織が認められる。一部毛細血管の拡張があり、リンパ球、形質細胞の浸潤を認めるがその程度は軽度である。線維性

写真 3 肉眼的に摘出物の陥凹部に認められた軟組織片の病理組織像 (H-E 染色)

A: エナメル上皮腫の胞巣および小嚢胞 (×100)

B: 胞巣内の小石灰化物 (×400)

結合組織内には歯原性上皮の集塊が散在性に認められる。基底細胞層の進展を含む上皮突起の著しい進展像も散見され、Islands of ameloblastoma とみなされる小嚢巣を多数認め、これら歯原性上皮の集塊内の一部に小塊状の石灰化物を容れる部もみられる (写真 2A)。嚢胞を裏装する上皮成分の一部には平坦な重層扁平上皮に連続して、胞体が空腔状を呈する立方形ないし円柱形の細胞が認められ、基底層の細胞の核が整然と一列に配列する像がみられ、また上層の細胞がエナメル嚢に類似する部が認められ、内腔に向かって増殖する部もみられる (写真 2B)。肉眼的に、摘出物の陥凹した部に認められた軟組織片は、歯胚の上皮成分に類似する腫瘍細胞からなるエナメル上皮腫の像を示し、一部に間質嚢胞が認められる (写真 3A)。また棘細胞腫型の部も認められ、ごく一部の實質内には小石灰化物が認められる (写真 3B)。

考 察

含菌性嚢胞はごくまれに多房性を呈することがあり、X 線学的に多房性の像を示すことの多いエナメル上皮腫との鑑別が困難になることがある。さらに単房性に生じてくる unicystic ameloblastoma の場合ことにその臨床的な鑑別は非常に困難となってくる。本症例は、X 線学的に単房性で智歯の歯冠を含む典型的な含菌性嚢胞の臨床像を呈していたが、病理組織学的検査では unicystic ameloblastoma の像を呈していた。

エナメル上皮腫の組織由来について、エナメル器あるいは歯堤を腫瘍芽とするものであることは多くの人々によって承認されている¹⁾が、含菌性嚢胞を発生母地と考える報告も散見される^{3~7)}。本症例は、平坦な重層扁平上皮により裏装された単房性の嚢胞であったが、裏装する上皮成分の一部はエナメル上皮腫の像

を呈し、嚢胞腔へ向けて増殖像が認められる部があり、エナメル上皮腫が嚢胞上皮より発生した可能性が考えられた。また、この嚢胞には上皮突起の進展像がところどころ認められ、Islands of ameloblastoma とみなされる小巣が多数みられ、これら上皮成分の一部の集塊内に小塊状の石灰化物が認められた。

また肉眼的に陥凹した部に認められた軟組織片には歯胚の上皮成分に類似する腫瘍細胞からなる胞巣が認められ、棘細胞腫型のエナメル上皮腫の像を呈していた。一部には間質嚢胞の形成が見られ、またごく一部の実質内には未石灰化部分の随伴がない、類円形および不正形の微小石灰化物が認められた。エナメル上皮腫における石灰化物の存在は平野ら⁶⁾や Siar ら⁸⁾によって報告があり、本症例で認められたものも同様なものと考えられるが、その形状や未石灰化物の随伴がない点から異栄養性石灰化物と考えられた。

unicystic ameloblastoma の臨床的特徴について Gardner⁹⁾ は好発年齢は 20~30 歳代、好発部位は下顎第三大臼歯部であると述べているが、本症例では 16 歳の女子で左側下顎智歯に関係して認められた。

unicystic ameloblastoma は Robinson ら¹⁰⁾ が初めてその本質について述べ、組織学的に 3 種類の型に分類した。その後 Gardner⁹⁾ はさらにもう 1 つの型を付け加えた。すなわち、(1) 嚢胞上皮がエナメル芽細胞により裏装されているもの。(2) エナメル上皮腫の小塊が嚢胞腔内に増殖しているもの。(3) エナメル上皮腫が嚢胞裏装上皮から結合組織にかけて増殖しているもの。(4) Islands of ameloblastoma が結合組織に存在し、非腫瘍性の嚢胞を形成しているものである。本症例はこのうちの (2), (3), (4) の混合像を呈していた。

また Ackermann ら¹¹⁾ は 57 例の unicystic ameloblastoma について検索を行い、Group 1: 前述の Robinson ら¹⁰⁾ の分類の (1), Group 2: Robinson ら¹⁰⁾ の分類の (2), Group 3: Robinson ら¹⁰⁾ の分類の (3) と Gardner⁹⁾ が提唱した (4) を併せたものの 3 つの Group に分類し、その発生率は Group 1 で 42%, Group 2 で 9%, Group 3 で 49% であったとしている。さらに Group 3 においては通常みられるエナメル上皮腫と同様の生物学的態度をとることから、臨床配慮が必要であることを述べている。本症例は Group 3 でみられる組織像も認められたことから、今後十分な経過観察が必要であると考えられた。

結 語

1) 臨床的に典型的な含菌性嚢胞の像を呈した症例に対し嚢胞摘出術を施行し、病理組織学的に検索したところ嚢胞の一部にエナメル上皮腫が認められた。

2) エナメル上皮腫の腫瘍胞巣は、嚢胞を裏装する

状態、嚢胞腔内に向かって増殖する状態、および嚢胞壁の結合組織中に島状あるいは塊状にさまざまな状態で認められ、単房性ながら複雑な unicystic ameloblastoma の像を呈していた。

3) エナメル上皮腫の実質は嚢胞を裏装する平坦な重層扁平上皮と移行していたため、本腫瘍は含菌性嚢胞から発生した可能性が考えられた。

4) 一部の胞巣内には類円形および不正形の微小石灰化物が存在し、その形状や未石灰化物の随伴がないことから異栄養性石灰化物と考えられた。

5) 術後 1 年 5 か月経過した現在、再発を含め異常所見は認められていない。

本論文の要旨は、第 38 回日本口腔外科学会総会（平成 5 年 10 月 日、新潟）において発表した。

引 用 文 献

- 1) 石川悟朗監修：口腔病理学Ⅱ．改訂版，永末書店，1982，462-479.
- 2) Kramer, I.R.H., Pindborg, J.J., et al.: Histological typing of odontogenic tumours. Springer-Verlag 2nd Ed. 11-13 1992.
- 3) Cahn, L.R.: The dentigerous cyst is a potential adamantinoma. Dent Cosmo 75: 889-893 1933.
- 4) Stanley, H.R., Diehl, D.L.: Ameloblastoma potential of follicular cysts. Oral Surg Oral Med Oral Pathol 20: 260-268 1965.
- 5) McMillan, M.D., Smillie, A.C., et al.: Ameloblastoma associated with dentigerous cyst. Oral Surg Oral Med Oral Pathol 51: 489-496 1981.
- 6) 平野紀正，下野正基，他：特異な形態を示した Ameloblastoma の 3 例。歯科学報 70: 1285-1293 1970.
- 7) 平沼康彦，島崎貴弘，他：上顎濾胞性歯嚢胞より発生したと思われるエナメル上皮腫の 1 例。日口外誌 31: 2340-2345 1985.
- 8) Siar, C.H., Ng, K.H.: View from Beneath: Pathology in focus calcifying and keratinizing ameloblastoma of the maxilla. J Laryngol Otol 105: 971-972 1991.
- 9) Gardner, D.G.: A Pathologist's approach to the treatment of ameloblastoma. J Oral Maxillofac Surg 42: 161-166 1984.
- 10) Robinson, L., Martinez, M.G.: Unicystic ameloblastoma a prognostically distinct entity. Cancer 40: 2278-2285 1977.
- 11) Ackermann, G.L., Altini, M., et al.: The unicystic ameloblastoma: a clinicopathological study of 57 cases. J Oral Pathol 17: 541-546 1988.