下顎角部に発生した歯牙エナメル上皮腫の1例

吉田雅志・高久 暹・佐野次夫・今井謙一郎
友利浩一郎・松田雅明

A case of odontoameloblastoma of the mandibular angle region

Masashi YOSHIDA・Susumu TAKAKU・Tsuguo SANO
Kenichiro IMAI・Kouichirou TOMORI・Masaaki MATSUDA

Abstract: Recently, we encountered a rare case of odontoameloblastoma that developed in the mandibular angle region.

The patient was a 35-year-old woman who was initially brought to our department because of a swelling on the right side of the mandibular angle region. On examination her general condition was good, and there were no abnormal findings. At the lesion, swelling was localized to the right side of the mandibular angle. On palpation, the lesion felt like a hemispheric protrusion of bone. Radiographic examination showed a unilocular radiolucent lesion, associated with an irregular intralesional radiopacity.

The clinical diagnosis was a bone cyst with a calcified body in the mandibular angle region. The bone cyst was totally extirpated under general anesthesia. The tumor, which consisted of solid tissue, measured 17×16×16 mm and was surrounded by a capsule. The histopathological diagnosis was odontoameloblastoma.

Key words: odontoameloblastoma (歯牙エナメル上皮腫), mandibular angle region (下顎角部)

緒 言

歯牙エナメル上皮腫はエナメル上皮腫類似の組織とエナメル質、象牙質などの硬組織からなる歯源性腫瘍で、その発生はまれである¹⁾と言われている。

われわれは、下顎角部に発生した歯牙エナメル上皮腫の1例を経験したので報告する。

症 例

初 診：平成7年9月■日。

患 者：35歳，女性。

主 訴：右下顎角部の腫脹。

既往歴，家族歴：特記事項はない。

現病歴：平成2年4月頃から右下顎角部の腫脹に気

付いていたが，痛みがないので放置していた。最近，腫脹が大きくなってきたように思われ，当科を受診した。

現 症：右下顎角部に軽度のび慢性腫脹がみられたが，被覆皮膚に異常はなかった。触れてみると，下顎角部に相当して約17×17×10mmの半球状骨隆起が存在した。圧痛はなかった(写真1)。顎下，頸部リンパ節は触れなかった。なお開口制限はなかった。口腔内は肉眼的に著変をみとめなかったが，右下顎枝前縁から下顎枝頰側に向かって触診したところ，下顎角咬筋附着部に近く半球状の骨隆起が触れた。

画像所見：パノラマX線写真によると(写真2)，右下顎角部に不規則な不透過像を伴った単房性X線透過像が存在した。

臨床検査成績：異常所見はなかった。

臨床診断：右下顎角部石灰化をともなった骨嚢胞。

処 置：臨床診断にもとづいて，平成7年11月■日，全身麻酔下で摘出手術を行った。病変部位から推して口腔内より進入するのは至難と考え，右下顎角下縁下

埼玉医科大学口腔外科学講座

(主任：高久 暹教授)

Department of Oral and Maxillofacial Surgery,
Saitama Medical School (Chief: Prof. Susumu
Takaku)

受付日：平成9年2月20日

写真1 術前の顔貌写真
右下顎角部に軽度のびまん性腫脹
が認められた

写真2 術前のパノラマX線写真
右下顎角部に不規則な形をした石灰化像（矢頭）を
伴った単房性X線透過像が認められた

写真3 摘出物
腫瘍内には、硬組織塊が存在した

写真4 腫瘍軟組織の病理組織像
エナメル上皮腫のI型に似た組織像を呈している
（H-E染色, ×100）

20mmのところに長さ40mmの横皮膚切開を施し、下顎角下縁に達した。同部骨膜に切開を加えて、咬筋ともども骨膜を上方へ剥離、翻転し、病変部に達した。下顎角部から下顎枝にかけて境界明瞭な骨隆起が存在した。骨隆起周辺の骨を骨ノミで削除し、粘膜剥離子を挿入して骨面から嚢胞を剥離し一塊として摘出した。創骨面は骨硬化性で、きわめて平滑であった。創は一次閉鎖し、術後7日目まで圧迫包帯を施した。

摘出物所見：摘出物は肉眼的に嚢胞ではなく、大きさ約17×16×16mmのほぼ球形の充実性腫瘍で、硬組織塊を内臓していた（写真3）。

病理組織所見：硬組織が併存したので、予め EDTA

によって脱灰したのち、通法にもとづいてパラフィン切片を作製した。切片標本は軟組織と硬組織からなっていた。軟組織は島状の細胞集塊と線維性結合組織からなるものであった。細胞集塊の周辺部は扁平あるいは多角形の上皮細胞が配列し、内部は星状細胞の増殖と小嚢胞形成からなり、蜂巣状構造を示した。線維性結合組織には腫瘍性増殖はみとめられなかった（写真4）。以上の所見から、本腫瘍の軟組織はエナメル上皮腫のI型に類似するものと判断された。硬組織は形成不全のエナメル質と象牙質からなり、変性歯髓様組織を内臓していた。なおエナメル小柱は不明瞭であったが、不規則な象牙細管様構造がみとめられた（写真5）。以上の結果から歯牙エナメル上皮腫と診断された。

術後1年4か月経過しているが、異常はみとめられない。

写真5 硬組織の病理組織像
P 変性歯髓様組織, D 象牙質, E エナメル質
(H-E 染色, ×40)

考 察

歯牙エナメル上皮腫は1971年 WHO の口腔腫瘍分類によって、エナメル上皮歯牙腫から区分された歯原性腫瘍の1つで、その発生は少ない¹⁾とされている。今回、本邦における過去26年間(1971~1996)の報告を渉猟したが、12例にすぎなかった(表1)。性差はとくになかったが、年齢は平均26歳(11~76歳)で比較的若年層に好発する傾向がみられた。発生部位は下顎(12例中8例, 67%)に多く、そのうち臼歯骨体部が8例中4例(50%)を占めたが、本症例のように下顎角部に発生したものは1例(8.3%)にすぎなかった。部位的にきわめてまれと言える。臨床症状は顎部の無痛性腫脹が12例中10例(83%)で最も多かったが、本症例も同様であった(下顎角部無痛性骨隆起)。

本腫瘍は病理学的にエナメル質と象牙質が存在し、構造や性状がエナメル上皮腫に類似した歯原性上皮をもつものと定義されている²⁾。本例の病理像はそれを満たすものであった。診断上問題とされるエナメル上皮線維歯牙腫とは、本例の線維性組織に腫瘍性増殖のないことで鑑別された。

処置は一般に完全摘出によって好結果がえられる^{3~7)}とされている。しかし一方では局所再発や悪性化のあることも指摘されている^{8, 9)}。本例は腫瘍を一塊として全摘出したが、今後、十分な観察の必要性を感じている。

結 語

今回われわれは、下顎角部に発生した歯牙エナメル上皮腫の1例を経験したので、若干の考察を加えて報告した。

表1 歯牙エナメル上皮腫の報告例(1971~1996)

症例	報告者	報告年	年齢(歳)	性別	発生部位
1	田島ら	1972	25	男	左下顎 臼歯骨体部
2	河野ら	1975	12	男	左下顎 下顎枝部
3	森 ら	1976	25	男	左上顎 前歯歯槽部
4	森 ら	1976	26	男	右下顎 角 部
5	永井ら	1976	13	男	右上顎 前歯歯槽部
6	藤波ら	1977	76	女	左下顎 前歯歯槽部
7	黒柳ら	1977	13	女	左下顎 臼歯骨体部
8	伊藤ら	1977	11	女	左上顎 臼歯骨体部
9	小倉ら	1981	30	男	左下顎 臼歯骨体部
10	中谷ら	1982	11	女	右上顎 洞 内 部
11	小野ら	1985	47	女	右下顎 前歯骨体部
12	石井ら	1996	26	女	左下顎 臼歯骨体部
13	自験症例	1997	35	女	右下顎 角 部

本論文の要旨は、第41回日本口腔外科学会総会(平成8年11月, 東京)において発表した。

引 用 文 献

1) Pindborg, J.J., Kramer IRH, et al.: Histological typing of odontogenic tumors, jaw cysts and allied lesions. Histological Classification of Tumors, No5. World Health Organization, Geneva, 1971, p12-42.

2) 石川梧郎監修: 口腔病理学Ⅱ. 改訂版, 永末書店, 京都, 1982, 506-507頁.

3) 森 喜郎, 吉田正彦, 他: Odontoameloblastoma の2症例と文献的考察. 日口外誌 22: 575-584 1976.

4) 中谷俊彦, 高橋健一, 他: 上顎に発生した Odontoameloblastoma の1例. 耳鼻臨床 75: 1371-1376 1982.

5) 藤波好文, 川平清秀, 他: Peripheral ameloblastic odontoma の1例. 口科誌 28: 301-305 1975.

6) 永井哲夫, 中村保夫: Ameloblastic odontoma の1例と文献的考察. 日口外誌 22: 107-113 1976.

7) 石井宏昭, 郷家久道, 他: 歯牙エナメル上皮腫の1例. 日口外誌 42: 58-60 1996.

8) 石木哲夫, 富田喜内: 悪性化をきたした下顎エナメル上皮歯牙腫の1例. 口科誌 14: 239-240 1965.

9) Frissel, C.T., et al.: Ameloblastic odontoma. Oral Surg 6: 1129-1132 1953.