明細胞を伴った周辺性エナメル上皮腫の1例

林 勝彦・田辺晴康・伊介昭弘
杉崎正志・金 英声

A case of peripheral ameloblastoma with clear cell components

Katsuhiko HAYASHI・Haruyasu TANABE・Akihiro IKAI
Masashi SUGISAKI・Kim Young-Sung

Abstract: A case of peripheral ameloblastoma with histopathologic evidence of clear cell components in a 46-year-old man is reported. The tumor was located in the lower right premolar region, and was excised en bloc from the mesial side of the first premolar to the distal side of the second premolar, with the patient under general anesthesia. On examination 4 years later no sign of recurrence was found.

Histopathologically, the tumor had an ameloblastomatous structure with clear cells consisting of ovoid, clear cytoplasm and pyknotic nuclei. The area containing clear cells show direct transition to, or intermingling of, typical follicular areas, and tumor nests invaded bone, which suggested that the tumor had an aggressive biological character.

Key words: peripheral ameloblastoma (周辺性エナメル上皮腫), clear cell (明細胞), premolar region (小臼歯部)

緒 言

エナメル上皮腫は通常顎骨中心性に発生するが、ときに骨周囲の軟組織を原発とするものがある。これらは周辺性エナメル上皮腫と呼ばれ、まれな疾患とされている¹⁾。今回われわれは「54」部舌側歯肉に発生し、その病理組織学的所見として腫瘍胞巣中に明細胞を認めた1例を経験したので報告する。

症 例

患 者：46歳，男性。

初 診：平成6年9月■。

主 訴：右側下顎歯肉の腫瘍。

家族歴および既往歴：特記事項はない。

現病歴：平成6年8月初旬、「54」部舌側歯肉に腫瘍を自覚するも無痛性のため放置していた。その後増大傾向を認めたため、精査加療を目的に同年9月■，

当科を紹介され受診した。

現 症：

全身所見：体格中等度，栄養状態良好。

口腔外所見：特記事項はない。

口腔内所見：「54」部舌側歯肉に、境界明瞭で、径15mm，弾性硬の腫瘍が認められ、基底部分は広基性であった。被覆粘膜は顆粒状、部位により乳頭状を呈しており、色調はやや赤みをおびていた（写真1）。「54」はいずれも生活歯であり打診痛や動揺は見られなかった。X線所見：デンタルX線写真にて、歯槽骨の吸収等の異常所見は認めなかった（写真2）。

臨床検査所見：異常所見は認めなかった。

臨床診断：下顎歯肉良性腫瘍。

処置および経過：平成6年9月■，生検を施行しエナメル上皮腫の診断を得たため、平成6年11月■，全身麻酔下にて「4」近心から「5」遠心の歯槽骨を、「54」根尖部より5mm下方の位置で辺縁切除した。術後4年を経過した現在、再発傾向は認めず経過良好である。

摘出物所見：「54」を含め舌側歯肉部腫瘍組織、歯槽骨が一塊として切除された。腫瘍組織は、舌側付着

東京慈恵会医科大学歯科学教室

(主任：田辺晴康教授)

Department of Dentistry, Jikei University School of

Medicine (Chief: Prof. Haruyasu Tanabe)

受付日：平成9年8月13日

写真1 初診時口腔内写真
54 部舌側歯肉に腫瘤を認める。

写真3 初診時生検材料の病理組織学的所見 (H-E 染色, ×350)
濾胞型を呈するエナメル上皮腫腫瘍実質中に明細胞を認める (矢尻)。

写真5 (写真4-Bの拡大像, H-E 染色, ×400)
腫瘍実質中に明細胞を認める。

写真2 初診時デンタルX線写真
病巣部を矢尻で示す。

写真4 手術材料の病理組織学的所見 (H-E 染色, ×15)
矢印Aの範囲では典型的なエナメル上皮腫の組織像を認め、部位により被覆粘膜上皮との連続性を認める。
矢印Bの範囲において、比較的小型の胞巣を形成しつつ歯槽骨にいたるまで増殖する腫瘍組織を認める。

写真6 (写真4-Bの拡大像, H-E 染色, ×200)
大部分が明細胞により構成された腫瘍胞巣を示す。

歯肉より連続したいわゆるエプーリス状を示していた。表面は顆粒状あるいは乳頭状で、正常粘膜に比し赤色調を呈していた。

病理組織学的所見：当科初診時に試験切除した際の病理組織学的所見(写真3)では、粘膜上皮下において腫瘍細胞がエナメル器様構造を呈しつつ増殖していた。また、腫瘍胞巣中に、濃縮した核と淡明な細胞質を有する明細胞がさまざまな程度で認められた。

手術材料の病理組織学的所見では、付着上皮から連続し乳頭状増殖を示す歯肉粘膜上皮下において、濾胞型を呈するエナメル上皮腫腫瘍実質が胞巣を形成しつつ増殖していた。また、腫瘍実質が粘膜上皮と連続する部位もみられた(写真4-A)。それらの組織から移行的に、比較的小型の胞巣を形成しつつ歯槽骨にいたるまで増殖する腫瘍組織を認めた(写真4-B)。同部位の腫瘍組織は基本的に濾胞型エナメル上皮腫の組織像を呈していたが、腫瘍胞巣内にさまざまな程度の明細胞がみられた。明細胞は主に腫瘍実質の増殖最先端部に多く認められ、部位によっては大部分が明細胞により構成された腫瘍胞巣を認めた(写真5, 6)。これら明細胞はPAS染色で顆粒状の陽性反応を示し、その多くはジアスターゼにより消化された。また、明細胞

を有する腫瘍実質が増殖する部位において、歯槽骨の圧迫性吸収や一部で骨浸潤像を認めた。なお、明細胞を認める部位において2層性の腺管腔構造、導管上皮細胞等はみられなかった。

考 察

1992年のWHOの歯原性腫瘍新分類¹⁾において、エナメル上皮腫の組織学的分類には明細胞を含む型は記載されていない。しかし、われわれが渉猟し得た限りでは病理組織学的に明細胞を認めたエナメル上皮腫は過去に6例報告されており²⁻⁷⁾、そのうち1例は周辺性エナメル上皮腫に関するものであった⁴⁾。また、本邦において明細胞を含むエナメル上皮腫の報告はこれまでになされておらず、自験例が最初の報告であると思われる。

明細胞の発生について、Batsakis⁸⁾は、(1)細胞質に多くのグリコーゲンが存在することによる、(2)

細胞の変性による細胞質内の空胞化による、(3)組織の固定処理中に生じたアーチファクトによる、以上3つの可能性を挙げている。自験例においては、明細胞の胞体内にPAS染色陽性の顆粒を認め、ジアスターゼにより消化されたことからグリコーゲン顆粒の存在が証明された。Odukoyaら⁶⁾は、エナメル上皮腫の由来とされる歯根上皮細胞がグリコーゲンに富む明細胞を有することから、エナメル上皮腫において明細胞が認められても不思議ではないと述べている。しかし、その出現頻度はきわめて低いことから、その発生、由来に関してはさらなる検討が必要であろう。

顎口腔領域に発生する腫瘍で、転移性腎癌などの明細胞癌以外に腫瘍実質に明細胞を認めるものとして、多形性腺腫、粘表皮癌などの唾液腺腫瘍、歯源性石灰化上皮腫、歯源性明細胞腫などの歯源性腫瘍があげられる。本症例においてはこれらの疾患が鑑別診断の対象となるが、自験例では病理組織学的に唾液腺由来の明細胞に特徴的とされる2層性の腺管腔構造⁹⁾がみられなかったこと、定型的なエナメル上皮腫の腫瘍構成細胞中に明細胞が混在して認められたことから、エナメル上皮腫の腫瘍細胞に由来して明細胞が出現したと考えるのが妥当であろう。自験例において、明細胞は主に腫瘍実質の増殖最先端部あるいは歯槽骨に接する深部に多く分布していた。このことから、エナメル上皮腫の腫瘍細胞が明細胞へと分化し腫瘍組織の増殖に関与していることが示唆された。

明細胞を腫瘍構成細胞として含むエナメル上皮腫の生物学的性状、その治療法に関してさまざまな議論がなされているが、いまだ意見の一致をみていない。Ngら⁴⁾は組織学的に明細胞を認める以外に悪性所見がみられなかったこと、予後が良好であったことから明細胞型エナメル上皮腫を良性腫瘍ととらえている。また、Müllerら³⁾は、本腫瘍の腫瘍切除術後15年間再発を認めなかった症例を報告している。一方、Waldronら²⁾、Mariら⁷⁾は、再発、転移などの臨床経過から明細胞型エナメル上皮腫は悪性エナメル上皮腫とみなすべきであり、その治療に際しては安全域を含めた根治的切除術が必要であると述べている。一般的に周辺性エナメル上皮腫は非浸潤性であるとされており、その治療法として外科的切除が選択されることが多い。しかし、自験例においては試験切除時に明細胞を認めたことから前述の報告を考慮し、安全域を含めた下顎骨辺縁切除術を施行した。そして、本症例の病理組織学的所見において、腫瘍組織による歯槽骨の圧迫性吸収のみならず骨浸潤像を認めた。本所見が、明細胞型エナメル上皮腫の侵襲的な生物学的性状を反

映していることが示唆されるとともに、明細胞を含むエナメル上皮腫の診断、治療は慎重に行われるべきであると考えられた。

結 語

今回われわれは、46歳男性の54)部舌側歯肉に発生し、腫瘍実質内において明細胞を伴った周辺性エナメル上皮腫の1例を経験したので報告した。

本論文の要旨は、第161回日本口腔外科学会関東地方会(1996年5月18日、埼玉)において発表した。

引 用 文 献

- 1) Kramer, I.R.H., Pindborg, J.J., et al.: Histological classification of odontogenic tumors. 2nd Ed, Springer-Verlag, Berlin, 1992, p 1-27.
- 2) Waldron, C.A., Small, I.A., et al.: Clear cell ameloblastoma-an odontogenic carcinoma. J Oral maxillofac Surg 43: 707-717 1985.
- 3) Müller, H. and Slootweg, P.: Clear cell differentiation in an ameloblastoma. J Maxillofac Surg 14: 158-160 1986.
- 4) Ng, K.H. and Siar, C.H.: Peripheral ameloblastoma with clear cell differentiation. Oral Surg Oral Med Oral Pathol 70: 210-213 1990.
- 5) Guilbert, F. and M. Auriol, G.C.: Une forme rare d'épithélioma primitif de la mandibule: le carcinome odontogénique à cellules claires. Rev. Stomatol. Chir. Maxillofac. 92: 277-280 1991.
- 6) Odukoya, O. and Arole, O.: Clear-cell ameloblastoma (a case report). Int J Oral Maxillofac Surg 21: 358-359 1992.
- 7) Mari, A., Escutia, E., et al.: Clear cell ameloblastoma or odontogenic carcinoma. J Craniomaxillofac Surg 23: 387-390 1995.
- 8) Batsakis, J.: Tumor of the head and neck: clinical and pathological considerations. Williams and Wilkins, Baltimore/London, 1979, p47.
- 9) Batsakis, J.G., Regezi, J.A., et al.: The pathology of head and neck tumors: Salivary gland, part 3. Head Neck Surg 1: 263-273 1979.