上顎の残存性歯根嚢胞より発生したと思われる上顎の顎骨中心性癌の1例

小松 史・山田哲男・植田章夫
中島潤子・中島 哲・川上敏行*

A case of central carcinoma of the maxilla probably arising from a residual radicular cyst

Fuhito KOMATSU・Tetsuo YAMADA・Akio UEDA
Junko NAKAJIMA・Satoshi NAKAJIMA・Toshiyuki KAWAKAMI*

Abstract: According to the classification of the World Health Organization (WHO), primary intraosseous carcinoma (central carcinoma) is defined as a squamous cell carcinoma arising within the jaw, having no initial connection with the oral mucosa, and presumably developing from residues of the odontogenic epithelium.

We report a case of central carcinoma occurring in a 69-year-old man. Marsupialization was performed under the diagnosis of residual radicular cyst.

Histopathological examination revealed a moderately differentiated squamous cell carcinoma with atypical lining epithelium. A combination of radiation and chemotherapy was given, followed by a partial maxillectomy. Unilateral total neck dissection was performed 3 months after the initial operation. Five years later, the patient has been free of recurrence and distant metastasis.

Key words: central carcinoma of the jaw (顎骨中心性癌), maxilla (上顎), squamous cell carcinoma (扁平上皮癌), residual radicular cyst (残存性歯根嚢胞)

緒 言

顎骨中心性に発生する癌腫は、まれな疾患であり、顎骨内に原発し初期より口腔粘膜との連絡はなく歯原性上皮の遺残から発生したと推定される扁平上皮癌と定義される¹⁾。上・下顎別においては下顎に多く、上顎での発生は比較的まれという^{2~5)}。

今回われわれは、上顎において残存性歯根嚢胞より発生したと思われる顎骨中心性癌の1例を経験したので、その概要を報告する。

松本歯科大学口腔外科学第一講座
(主任：千野武廣教授)

*松本歯科大学口腔病理学教室
(主任：枝 重夫教授)

Department of Oral and Maxillofacial Surgery
I, Matsumoto Dental University School of Dentistry (Chief: Prof. Takehiro Chino)

*Department of Oral Pathology, Matsumoto Dental University School of Dentistry (Chief: Prof. Sigeo Eda)

受付日：平成11年1月27日

症 例

患 者：69歳，男性。

主 訴：上顎右側犬歯部唇側歯肉部の瘻孔。

家族歴，既往歴：特記すべき事項なし。

現病歴：平成5年9月初旬，通院加療中の某歯科医院にて上顎右側犬歯部の瘻孔を指摘され，精査加療を目的として当科を紹介された。なお上顎右側前歯および犬歯は，約10年前に抜歯処置を受けていた。

現 症：全身所見に特記すべき事項はなし。

口腔外所見：顔貌は左右対称性で，眼症状，鼻症状，知覚鈍麻などの神経症状は認められず，所属リンパ節については，患側に可動性で小豆大の顎下リンパ節を1個触知したが圧痛はなかった。

口腔内所見：上顎右側第一大臼歯のみ残存しており，部分床義歯を装着していた。該当部歯肉粘膜はおおむね健常色を呈し，上顎右側犬歯部唇側歯肉に直径約2mmの瘻孔が認められた(写真1)。触診では，瘻孔周囲約15mmの範囲で歯槽骨が欠損しており，さらに圧迫により，瘻孔から透明な内容液が漏出した。なお圧

写真1 初診時口腔内写真
→: 瘻孔

写真2 初診時咬合法 X 線写真

写真4a 病理組織像 ×30
↓; 遊離端を示す嚢胞壁

痛は認められなかった。

X 線所見: 単純 X 線撮影においては上顎右側中切歯から第一小臼歯相当部に境界の不明瞭な類円形の嚢胞様透過像があった(写真2)。

処置ならびに経過: 平成5年9月20日残存性歯根嚢胞の診断のもと、生検を兼ねて嚢胞摘出術・開窓術を施行した(写真3)。術中所見では、同部には嚢胞腔に相当する部位は認められず、帯黄白色の組織が充実に増殖していたのみであった。

写真3 開窓術術中写真

写真4b 病理組織像 ×150

病理組織学的所見: 摘出組織塊の一部には遊離端を示す嚢胞壁と思われる部位があった。同部を裏装する上皮は異型を呈しており、それに連続して上皮細胞が増殖し、大多數の嚢胞を形成しているのが観察された(写真4a)。強拡大では、強い異型性をもった扁平上皮細胞が嚢胞を形成しているが、典型的な癌真珠の形成は認められず、わずかに単一細胞角化を示す細胞が散見された(写真4b)。

以上より、病理組織学的には中分化型扁平上皮癌であった。なお、病理組織学的検索においても口腔粘膜上皮との連続性はなかった。

10月■日両側の浅側動脈から5-FU(250mg/1日)を持続動注を開始、同月■日から11月■日にわたりLiniac 外部照射を2Gy/1日で30Gy 併行し、Vitamin A 50000単位/1日を筋肉内投与、いわゆるFAR療法を施行した。同年12月■日上顎骨部分切除術を施行した。術後は、異常なく経過したが、翌年平成6年3月側頸部の腫脹を認めた。臨床所見およびCT、シンチグラム所見より、リンパ節転移が考えられたため4月■日、右側全頸部郭清術を施行した。病理所見においては、オトガイ下、顎下、二腹筋窩のリンパ節において原発巣と同様な組織像を呈する癌転移巣が観察された。

術後の化学療法はcarboplatin 440mgと5-FU 3960mgを1クールとして5月■日から■日まで、および6月■日から■日までの2クールを行った。平成10年10月現在、再発・転移は認められてはいない。

考 察

顎骨中心性癌の発症部位について、Gardner⁵⁾は24症例中上顎が10例、Schwimmerら³⁾は56例のうち上顎14例、下顎42例で、さらに木下ら⁴⁾は33症例中上顎は9例のみであると報告している。またOhtakeら²⁾は28例中上顎2例、下顎26例と報告しており、下顎のほうが圧倒的に多いと述べている。今回われわれの渉猟した範囲でも、上顎に発生したものは、本症例を含めても数10例にとどまり^{2, 3, 6~10)}、上顎での発生率が低いことが示された。また性別においても、女性よりも男性に若干多く発症していた^{5, 11~14)}。

リンパ節転移については、意見の一致をみていないようであるが、腫瘍が拡大し骨膜に進展するまでの間は一般の口腔粘膜上皮由来のものとは比べて転移の形成は遅いと考えられている¹¹⁾。また、下顎に発生した本腫瘍は、リンパ節転移のみならず、血管束や、神経束に沿って逆行性に浸潤することがあると報告されてい

る^{13, 15)}。上顎および上顎洞部に発生した場合、考慮すべき神経は鼻口蓋神経、中上歯槽神経と前上歯槽神経を含む眼窩下神経、後上歯槽神経、大口蓋神経などであるが、本症例において、それらの神経に沿った浸潤を疑わせる所見は認められず、また腫瘍の上顎洞内における後上方への拡大もなかった。しかし本症例においては、深頸リンパ節に転移がみられたことより、本腫瘍は転移の形成が比較的遅いという前述の報告もあるが癌腫であるかぎり、通常の頭頸部悪性腫瘍に対する場合と同様の転移に関する入念な検査と処置、また長期経過観察が必要であると考えられた。

WHO (1991) の分類で歯源性癌腫は 1) 悪性エナメル上皮腫、2) 原発性骨内癌、3) 他の歯源性上皮腫の悪性型、および 4) 歯源性嚢胞の悪性化したものの、4 型に分類されている。本症例においては病理組織学的に一部嚢胞裏装上皮との関連があり、かつ腫瘍組織と連続する正常な粘膜上皮組織を欠いていたこと、また臨床所見および類円形の嚢胞様陰影を示した X 線所見とを勘案し、臨床的、病理的にも 4) に該当するものと考えられた。また Shear¹⁶⁾ は顎骨中心性癌の診断根拠として 1) 口腔粘膜癌あるいは隣接臓器原発癌の顎骨内浸潤を否定できること、2) 他部位原発癌の顎骨内への転移を否定できること、をあげている。本症例では、この 2 つの条件は満たしていると思われる。

WHO (1991) の分類¹⁾では、4) の歯源性嚢胞の悪性変化による中心性癌腫はきわめてまれであると記載されている。本症例はこれを完全には証明できないが、残存性歯根嚢胞から発生した顎骨中心性のまれな症例であると考えられた。なお、報告された症例以外にも診断のための臨床的、あるいは病理学的基準をすべて満たしていないという理由で報告にのぼらない症例、あるいはきわめて初期の段階で嚢胞とともに摘出され、それ以上の検索がなされなかった症例などの存在も想像され、実際にはもう少し症例数があるように思われる。

以上のことから、顎骨内の嚢胞様病変に対しては、本症の可能性を念頭に置いたうえで処置方針を決定するとともに摘出の際には、その大きさに関わらず可及的に病理学的検索を行い、本症の早期発見と的確な治療を行う事が肝要であると思われる。

結 語

今回われわれは上顎において残存性歯根嚢胞より発生したと思われる顎骨中心性癌の 1 例を経験したので、若干の考察を加え、その概要を報告した。

なお本論文の要旨は第 21 回日本口腔外科学会中部地方会 (1996 年 6 月 22 日, 金沢) において発表した。

参 考 文 献

- 1) Pindborg, J.J., Kramer, I.R.H., et al.: Histological Typing of Odontogenic

Tumours. 2nd Ed, Springer-verlag, Geneva, 1991, p25-26.

- 2) Ohtake, K.Yokobayashi, Y., et al.: Central carcinoma of the jaw. J Cranio-Maxillofac Surg 17: 155-161 1989.
- 3) Alan, M. S., Fâruk, A., et al.: Squamous cell carcinoma arising in residual odontogenic cyst. Oral Surg Oral Med Oral Pathol 72: 218-221 1991.
- 4) 木下勲彦, 永田可清, 他: 下顎骨嚢胞に生じた扁平上皮癌の 1 症例. 日口外誌 26: 180-185 1980.
- 5) Gardner, A.F., Spring, S.: The odontogenic cyst as a potential carcinoma, a clinicopathologic appraisal. JADA 78: 746-755 1969.
- 6) Müller, S., Waldron, C.A.: Primary intraosseous squamous carcinoma. Int J Oral Maxillofac Surg 20: 362-365 1991.
- 7) Maxymiw, W.G., Wood, R.E.: Carcinoma arising in a dentigerous cyst: A case report and review of the literature. J Oral Maxillofac Surg 49: 639-643 1991.
- 8) Takeda, Y.: Intra-osseous squamous cell carcinoma of the maxilla; probably arisen from non-odontogenic epithelium. Br J Oral Maxillofac Surg 29: 392-394 1991.
- 9) Suei, Yoshikazu., Tanimoto, Keiji., et al.: Primary intraosseous carcinoma: Review of the literature and diagnostic criteria. J Oral Maxillofac Surg 52: 580-583 1994.
- 10) Ariji, Eiichiro., Ozeki, Satoru., et al.: Central squamous cell carcinoma of the mandible computed tomographic findings. Oral Surg Oral Med Oral Pathol 77: 541-548 1994.
- 11) 中井道明, 相楽貞文, 他: 長期間 X 線像により観察された下顎中心性扁平上皮癌の 1 例. 日口外誌 30: 97-103 1984.
- 12) 高木 慎, 長畠駿一郎, 他: 顎骨中心性癌の 2 例. 日口外誌 33: 107-114 1987.
- 13) Yoshimura, Y., Hasegawa, K., et al.: Metastasis of adenoid cystic carcinoma of the mandible to the gasserian ganglion JADA 96: 469 1978.
- 14) Nakade, O., Ohuchi, T, et al.: Primary intraosseous carcinoma: A review of Japanese cases. Oral Med Pathol 3: 79-83 1998.
- 15) 長縄吉幸, 日下雅裕, 他: 下顎神経に沿って浸潤した下顎中心性癌の 1 症例. 日口外誌 27: 62-66 1981.
- 16) Shear, M: Primary intra-alveolar epidermoid carcinoma of the jaw. J Pathol 97: 645-651 1969.