上顎洞に広範に進展した腺様歯原性腫瘍の1例

川村 信五・関口 隆・原田 雅史
永井 格*・賀来 亨**

A case of adenomatoid odontogenic tumor extending widely in the maxillary sinus

KAWAMURA Shingo・SEKIGUCHI Takashi・HARADA Masashi
NAGAI Itaru*・KAKU Tohru**

Abstract: Adenomatoid odontogenic tumor (AOT) is an uncommon odontogenic lesion characterized histologically by ductal structures of epithelial cells and foci of calcification. Typically, these lesions arise in the lateral incisor/canine region in alveolar bone of the maxilla. Rarely, the lesion exhibits aggressive behavior, such as becoming large or extending into the paranasal sinuses. This article describes a case of AOT that extended widely in the maxillary sinus.

A 18-year-old woman was referred to our clinic for evaluation of a mixed radiolucent-radiopaque lesion with a well defined border in the right maxillary sinus. A computerized tomographic evaluation demonstrated a defined large lesion that had extended widely in the right maxillary sinus, with thinning the cortical bone of the maxilla. The lesion was associated with an unerupted tooth on the corresponding region of the nasal cavity.

An incisional biopsy was performed under local anesthesia. The pathological diagnosis was AOT. Surgery was performed with the patient under general anesthesia. The tumor was enucleated completely via an intraoral approach. There has been no recurrence as of 5 months after surgery.

Key words: adenomatoid odontogenic tumor (腺様歯原性腫瘍), maxillary sinus (上顎洞), unerupted tooth (埋伏歯)

緒 言

腺様歯原性腫瘍 (adenomatoid odontogenic tumor, 以下 AOT と略) は WHO 国際分類において、歯原性の外胚葉性間葉組織を伴う歯原性上皮から発生する良性腫瘍の範疇に位置づけられている¹⁾。本腫瘍は発生頻度の少ない歯

原性腫瘍のなかでもさらにまれな腫瘍で、その多くは上顎前歯部に発生するが、上顎洞へ進展するものはまれである^{2, 3)}。

今回われわれは上顎洞に広範に進展した AOT の 1 例を経験したので、その概要を報告する。

症 例

患 者：18歳，女性。

初 診：平成14年4月■。

主 訴：右上顎洞の精査。

既往歴，家族歴：特記事項なし。

現病歴：平成14年4月■，歯科治療のため某歯科医院を受診し，パノラマ X 線写真において右上顎洞内に散在性の石灰化様不透過像を有する透過性病変を認めたため，専門医療機関の受診を勧められ当科を受診した。

現 症：

全身所見；全身的には体格は中等度で栄養状態は良好で

医療法人溪仁会手稲溪仁会病院歯科口腔外科
(主任：関口 隆部長)

*札幌医科大学医学部口腔外科学講座
(主任：小浜源郁教授)

**北海道医療大学歯学部口腔病理学講座
(主任：賀来 亨教授)

Department of Dentistry and Oral Surgery, Teine Keijinkai Hospital (Chief: Dr. SEKIGUCHI Takashi)

*Department of Oral Surgery, Sapporo Medical University School of Medicine (Chief: Prof. KOHAMA Gen-iku)

**Department of Oral Pathology, Health Sciences University of Hokkaido School of Dentistry (Chief: Prof. KAKU Tohru)

受付日：2003年1月7日

採択日：2003年4月22日

写真1 初診時顔貌写真

右頬部に比較的境界明瞭な無痛性・骨様硬の腫脹を認める。

写真2 初診時口腔内写真（ミラー像）

7654Cの頬側・口蓋側に比較的境界明瞭な骨様硬の膨隆（矢頭）を認める。

写真3 パノラマX線写真

右上顎洞に砂粒状の石灰化像と埋伏歯（矢印）を伴う境界明瞭な透過像が認められる。7654Cの歯根尖は吸収している。

写真4 前額断X線CT写真

右上顎洞を広範に占有し鼻腔および篩骨洞の一部に及ぶ類円形の腫瘍を認める。

腫瘍内部には大小不同の砂粒状の石灰化様不透過像と埋伏歯が認められる。

あった。

口腔外所見；顔貌は左右非対称で右頬部に比較的境界明瞭な無痛性、骨様硬の腫脹を認めた（写真1）。右鼻腔は膨隆により狭窄しており、鼻閉を認めた。

口腔内所見；7654Cの頬側・口蓋側に比較的境界明瞭な骨様硬の膨隆を認め、口蓋側は羊皮紙様感を呈し、7654Cは動揺を認めた（写真2）。

画像診断所見；パノラマX線写真では右上顎洞に砂粒状の石灰化像とその鼻腔側に埋伏歯を伴う境界明瞭な単房性透過像を認め、7654Cの歯根尖は吸収していた（写真3）。X線CT写真では、右上顎洞を広範に占有し鼻腔および篩骨洞の一部に及ぶ類円形の腫瘍を認め、内部には大小不同の砂粒状の石灰化様不透過像と埋伏歯が認められた（写真4）。また、右眼窩底、鼻腔側壁、上顎洞前壁・後外側壁、口蓋側壁は菲薄化、膨隆していた。

臨床診断：上顎歯原性腫瘍。

処置および経過：平成14年4月、外来局所麻酔下に

口腔内より生検を施行した。上顎骨前壁は菲薄化、膨隆しており、同部の骨を一部除去することにより被膜を有した腫瘍が容易に露出した。生検組織の病理組織学的所見では、腫瘍は比較的確な線維性結合組織で被包されており実質組織に富み、紡錘形、多角形の腫瘍細胞が渦巻き状、索状に増殖し、円柱状、立方状の腫瘍細胞は小腺管様構造を形成していた。以上の所見より、病理組織学的にAOTと診断した（写真5）。

平成14年7月、AOS全身麻酔下に口内法により腫瘍摘出術を施行した。7654Cの抜歯を行い、同部の頬側・口蓋側の粘膜骨膜弁を剥離・翻転し、菲薄化した骨を除去し腫瘍表面を露出させた。腫瘍の表面は平滑で線維性被膜を有し、周囲組織からの剥離は、生検部の癒着もなく比較的容易であった。なお、眼窩直下、篩骨洞、鼻腔側部では腫瘍を慎重に剥離した。腫瘍摘出後には口蓋骨、上顎歯槽骨、上顎骨前壁に広範な欠損が生じたため、チタン・メッシュにて再建を行った。

写真5 生検組織の病理組織像 (H-E 染色, ×170)
紡錘形, 多角形の腫瘍細胞が渦巻き状, 索状に増殖している。

円柱状, 立方状の腫瘍細胞は腺管様構造を形成している。

写真6 摘出標本の断面写真

断面は充実性で内部には砂粒状の石灰化様物質が含まれている。

術後5か月を経過した現在, 右上顎洞に腫瘍の再発兆候や異常所見はなく, 経過は良好である。

摘出標本所見: 摘出標本の大きさは $4.0 \times 4.0 \times 3.5$ cmで「3」と考えられる歯牙を含み, 表面は帯黄色, 平滑で弾性硬であり, 断面は充実性で内部には砂粒状の石灰化様物質が含まれていた (写真6)。

病理組織学的所見: 腫瘍の周囲は厚い線維性結合組織で被包されており, 紡錘形, 多角形の上皮細胞が渦巻き状, シート状に充実性に増殖し, 円柱状細胞が腺管様構造を形成していた。また, 一部の腫瘍胞巣には小石灰化巣が散在性に認められ (写真7), 小柱構造が観察される未成熟なエナメル質様基質とエオジン好性の異形成象牙質様の硬組織も認められた (写真8)。

病理組織学的診断: 腺様歯原性腫瘍。

写真7 摘出標本組織の病理組織像 (H-E 染色, ×85)
腫瘍胞巣内に小石灰化巣が散在性に認められる。

写真8 摘出標本組織の病理組織 (H-E 染色, ×170)
小柱構造が観察される未成熟なエナメル質様基質 (↑) と異形成象牙質様の硬組織 (⇓) が認められる。

考 察

AOTは外胚葉性歯原性腫瘍で, 以前はエナメル上皮腫の亜型として腺様エナメル上皮腫と命名されていた⁴⁾。しかし, 近年では臨床的, 組織学的, 生物学的にエナメル上皮腫とは明らかに区別され, 一般的には過誤腫とみなされている^{1, 5)}。

Philipsenら²⁾によるAOT 499例の検討では, 好発年齢は10歳台後半で, 性別では女性に多く, 上顎前歯部に好発するとされている。また本腫瘍の大多数は顎骨中心性に緩慢に発育増大し, 皮質骨を圧迫性に膨隆させ^{2, 6)}, 一般的には1~3cmの腫瘍塊に成長する⁷⁾。しかしときに新生物のように活発に発育増大し, 大きな腫瘍塊に成長し皮質骨の穿孔をきたしたり⁸⁾, 副鼻腔³⁾, 頭蓋底⁹⁾へ進展するまれな症例も報告されている。自験例では腫瘍の発育増大による皮質骨の穿孔はみられなかったが, 腫瘍は右上顎洞を広範に占有し鼻腔および篩骨洞の一部にまで進展してい

た。このことは腫瘍が新生物のような活発な生物学的態度^{3, 8, 9)}を有していたことを示唆する所見と考えられ、発生部位、進展範囲からみて自験例はまれな症例と考えられた。

X線学的に本腫瘍は、単房性透過像を示し、内部にはしばしば上顎前歯、とくに犬歯が埋伏し、散在性・砂粒状の石灰化様不透過像が認められることが多い^{2, 7)}。また、腫瘍に隣接する歯根の離開をきたすが、歯根吸収はまれであるとされている⁷⁾。自験例では右上顎洞に砂粒状の石灰化様不透過像と埋伏歯を含む境界明瞭な透過像を認めた。さらに、興味深い所見は病変に近接する「7 6 5 4 C」は著明に動揺し明らかな歯根吸収が認められたことである。このことは、自験例では腫瘍が顎骨内で長期間にわたり緩慢に広範に発育増大したことを示唆する所見であると考えられた。

病理組織学的に本腫瘍は、線維性組織で被包され、腫瘍実質に富み、腫瘍細胞は円柱状、多角形、紡錘形などを呈し、立方状ないし円柱状細胞で囲まれた腺管様構造が散在性に認められる。また腫瘍組織内には小石灰化物が散在性に認められるとされている^{1, 10)}。自験例では生検組織、手術摘出標本組織ともに腫瘍実質に腺管様構造の形成ならびに石灰化物の沈着を認め、上述の病理組織学的所見と一致するものであった。

本腫瘍の発生源については現在まで明確な概念はないが、Philipsenら²⁾はエナメル器、歯堤上皮、退縮エナメル上皮あるいはこれらの残遺物から発生したものではないかという考えを述べている。一方Robertら¹¹⁾は、電顕的に本腫瘍の細胞をエナメル器を構成する上皮細胞の形態と比較し、内エナメル上皮細胞に類似するI型と、中間層ないし星状網に類似するII型に分類し、本腫瘍が歯胚形成期のエナメル器の上皮細胞に由来する可能性を指摘している。自験例では腫瘍組織内の一部に未熟なエナメル質様基質と異形成象牙質様の硬組織が認められた。このことは腫瘍の発生源にエナメル器の上皮細胞が密接に関与し、さらにこれらの上皮細胞と間葉性細胞との相互作用¹²⁾により歯牙様構造物が形成された可能性を示唆する所見と考えられた。また、本腫瘍が埋伏する上顎犬歯に関連して好発する²⁾理由は不明であるが、自験例においても腫瘍内に「3」が埋伏していた。このことから自験例では、鼻腔側に位置異常をきたした「3」の歯胚が、歯胚の発育形成期にエナメル器の一部の上皮細胞が腫瘍発生に関与し、上顎洞内に腫瘍を形成したものと推察された。

治療法に関しては、本腫瘍は厚い被膜を有し病変の進展範囲が明瞭なため、摘出は比較的容易で再発はまれとされ

ている¹³⁾。自験例においても腫瘍は線維性被膜を有し、周囲組織からの剥離摘出は容易であった。摘出後は口蓋骨、上顎歯槽骨、上顎骨前壁に広範な欠損が生じたためチタン・メッシュにて再建し、術後の頬部陥凹の予防と今後予定される骨移植の際のスペース・メーカーを行った。術後5か月を経過しているが腫瘍の再発兆候はなく経過は良好であり、今後は骨移植を行いインプラント補綴にて咬合の回復を図る予定である。

引用文献

- 1) Kramer, I.R.H., Pindborg, J.J., et al.: Histological typing of odontogenic tumors. 2nd Ed, Springer-Verlag, Berlin, 1992, p19-20.
- 2) Philipsen, H.P., Reichart, P.A., et al.: Adenomatoid odontogenic tumor: biologic profile based on 499 cases. J Oral Pathol Med 20: 149-158 1991.
- 3) Takahashi, K., Yoshino, T., et al.: Unusually large cystic adenomatoid odontogenic tumor of the maxilla: case report. Int J Oral maxillofac Surg 30: 173-175 2001.
- 4) Abrams, A.M., Melrose, R.J., et al.: Adenameloblastoma. A clinical pathologic study of ten new cases. Cancer 22: 175-185 1968.
- 5) Regezi, J.A. and Sciubba, J.J.: Oral pathology - clinical pathologic correlation -. 3rd ed, W.B. Saunders, Philadelphia, 1999, p339.
- 6) Philipsen, H.P., Reichart, P.A., et al.: Adenomatoid odontogenic tumor: facts and figures. Oral Oncol 35: 125-131 1998.
- 7) Dare, A., Yamaguchi, A., et al.: Limitation of panoramic radiography in diagnosing adenomatoid odontogenic tumor. Oral Surg Oral Med Oral Pathol 77: 662-668 1994.
- 8) Raubenheimer, E.J., Seeliger, J.E., et al.: Adenomatoid odontogenic tumor; report of two large lesions. Dentomaxillofac Radiol 20: 43-45 1991.
- 9) 滝上真良, 上出延治, 他: 頭蓋内へ進展した腺様歯原性腫瘍の1例. 脳神経外科 16: 775-779 1988.
- 10) 石川梧朗監修: 口腔病理学Ⅱ. 改訂版, 永末書店, 京都, 1982, 481-486頁.
- 11) Robert, R.L., Smith, M.D., et al.: Adenomatoid odontogenic tumor. Ultrastructural demonstration of two cell types and amyloid. Cancer 43: 505-511 1979.
- 12) Mjor, I.A. and Fejerskov, O. 編: Histology of the Human Tooth. 改訂 人の歯の組織学, 第2版, 書林, 東京, 1980, 37頁.
- 13) Engin, B., Ferda, T., et al.: An adenomatoid odontogenic tumor with unusual clinical features. J Oral Sci 43: 283-286 2001.