下顎臼歯部に生じた dentinogenic ghost cell tumor の 1 例

石橋 修・杉山芳樹・武田泰典*
古内秀幸・小幡和郎**・松尾伸一**

A case of a dentinogenic ghost cell tumor in the mandibular molar region

ISHIBASHI Shu · SUGIYAMA Yoshiki · TAKEDA Yasunori *
FURUUCHI Hideyuki · OBATA Kazuo ** · MATSUO Shinichi **

Abstract: Dentinogenic ghost cell tumor (DGCT) is a rare lesion regarded to be a variant of calcifying odontogenic cyst (COC). However, some investigators recommend that DGCT should be distinguished from COC, because DGCT shows more aggressive behavior than ordinary COC. DGCT trends to occur in elderly persons and is composed mainly of ameloblastoma-like solid epithelial nests containing numerous ghost cells and dentinoid tissue. In this report, we present a case of DGCT in the mandibular molar region.

A 73-year-old woman was referred to us because of a tender tumor mass in the mandibular molar region. An elastic soft oval tumor, measuring 20 × 12 mm, was found in the gingiva near the lower left third molar. The covering mucosa of the lesion showed slight redness. On the panoramic X ray film, a clearly demarcated semicircular radiolucent lesion with many radiopaque spots was observed in the left side of the mandible. The lesion was excised under local anesthesia. The postoperative course was uneventful, with no recurrence.

Key words: dentinogenic ghost cell tumor (象牙質形成性ゴースト細胞腫), calcifying odontogenic cyst (石灰化歯原性嚢胞), odontogenic tumor (歯原性腫瘍), ghost cell (ゴースト細胞), mandibular gingiva (下顎歯肉)

緒 言

象牙質形成性ゴースト細胞腫 (dentinogenic ghost cell tumour, 以下 DGCT) は, 石灰化歯原性嚢胞 (calcifying odontogenic cyst, 以下 COC) の亜型であり, エナメル上皮腫様の上皮成分の増生, 多数のゴースト細胞の出現, 類象牙質の形成などの組織学的特徴を備えた充実性の腫瘍病変である^{1, 2)}. 本腫瘍の多くは高齢者に生じ, なかには悪性型の報告¹⁾もある. DGCT はまれな疾患で, 国内外での

報告例は未だ 30 例に満たない.

今回われわれは, 左側下顎臼歯部に生じた DGCT の 1 例を経験したので, 文献的考察を加えて報告する.

症 例

患 者: 73 歳, 女性.

初 診: 2000 年 1 月 ■ 日.

主 訴: 左側下顎臼歯部の圧痛.

既往歴: 40 年前, 子宮後傾後屈症の手術を受けた. 10 年前から高血圧症にて服薬加療中である.

現病歴: 1 週間前から総義歯装着時に左側下顎臼歯部に一過性の疼痛が生じた. その後, 食事の際に咬合痛を生じるようになり, 近歯科医院を受診した. X 線撮影にて, 圧痛部に骨欠損様の透過像がみられ, 精査加療目的に当科を紹介された.

現 症:

全身所見: 体格中等度, 栄養状態は良好であった.

口腔外所見: 顔色良好, 顔貌は左右対称であった.

リンパ節所見: 左右ともに大豆大 1 個で可動性があり, 圧痛は認めなかった. また, 頸部には異常なリンパ節は認

岩手医科大学歯学部口腔外科学第二講座
(主任: 杉山芳樹助教授)

* 岩手医科大学歯学部口腔病理学講座
(主任: 佐藤方信教授)

** 八戸赤十字病院歯科口腔外科
(主任: 小幡和郎部長)

Second Department of Oral and Maxillofacial Surgery,
School of Dentistry, Iwate Medical University (Chief:
Associate Prof. SUGIYAMA Yoshiki)

* Department of Oral Pathology, School of Dentistry, Iwate
Medical University (Chief: Prof. SATOH Masanobu)

** Department of Dentistry, Oral and Maxillofacial Surgery,
Hachinohe Red Cross Hospital (Chief: Dr. OBATA Kazuo)

受付日: 2004 年 4 月 19 日

採択日: 2004 年 7 月 27 日

写真1 初診時口腔内写真

「8」相当部歯肉に20×12mm大の膨隆が認められる。同部歯肉は、軽度の発赤を伴い弾性軟で圧痛を認めた。

写真2 初診時パノラマX線写真

「8」相当部の骨に境界明瞭で半円形の透過像と、その内部には粒状の不透過像がみられる。

写真3 摘出標本写真

A：摘出標本は、14×12×11mmで充実性、弾性軟であり線維性被膜に覆われている。

B：断面は、内部に石灰化物と思われる硬組織が認められる。

写真4 病理組織像
(H-E 染色, ×40)

腫瘍実質は歯原性上皮の濾胞状の増殖からなり、これら上皮増殖巣と間葉組織との間には、象牙質様硬組織が種々の程度に形成されている(矢印は小嚢胞様の空洞を示す)。

写真5 病理組織像
(H-E 染色, ×300)

上皮増殖巣と間葉組織の間には、象牙質様硬組織が形成されている。また、上皮増殖巣には多くのゴースト細胞がみられ、一部は石灰化をきたしている。

写真6 病理組織像
(H-E 染色, ×250)

部分的に形成された小嚢胞様の空洞は、上皮あるいは間葉組織に囲まれている。

めなかった。

口腔内所見：上下顎は無歯顎であった。「8」相当部歯肉に20×12mm大の膨隆がみられた(写真1)。同部歯肉は、軽度の発赤を伴い弾性軟で圧痛を認めた。なお、「78」の欠損に関する既往は明らかでない。

パノラマX線所見：「8」相当部の骨に境界明瞭な半円形の透過像と、その内部には粒状の不透過像がみられた(写真2)。また、透過像の底面は下顎管に接していた。

臨床診断：左側下顎骨嚢胞の疑い。

処置および経過：2000年2月■日局所麻酔下に摘出術を施行した。切開線は、歯肉の膨隆部周囲から5mm外側とした。骨膜剥離子にて骨面を露出させた後、病変部方向へ剥離を行った。歯槽頂部に骨欠損がみられ、同部から粘膜剥離子にて骨と病変間の剥離を行った。周囲骨組織から病変組織の剥離は容易で、歯肉を含めて一塊として摘出した。摘出後の骨面は、ラウンドバーで一層削除したが、下

顎管の露出はなかった。摘出部は開放創とし、塩酸オキシテトラサイクリン軟膏ガーゼを填入し手術を終了した。術後3日目からガーゼ交換を行い、術後23日目には上皮化が完了した。術後、4年経過している現在、創部は周囲組織と比べやや陥凹しているが、再発なく経過良好である。

摘出標本所見：摘出標本は、14×12×11mmで充実性、弾性軟であり、線維性被膜に覆われていた(写真3A)。また、断面はほぼ充実性で石灰化物と思われる硬組織が混在していた(写真3B)。病理組織学的には、エナメル器に類する歯原性上皮の濾胞状の増殖からなり、これら上皮増殖巣と間葉組織との間には象牙質様硬組織が形成されていた(写真4, 5)。エナメル器に類する歯原性上皮巣内には、多くのゴースト細胞が集塊状あるいは孤立性にみられ、一部は石灰化をきたしており、とくにエナメル髓に相当する部分に分布する傾向にあった。象牙質様硬組織は、上皮増殖巣を部分的に取り囲むもの、全周性に取り囲むもの、ある

表1 国内外における悪性型を除いた dentinogenic ghost cell tumour の報告例

No.	報告年	報告者	性	年齢	部位	大きさ	埋伏歯の有無	X線学的境界
1	1986	Tajima et al.	♂	33	右側下顎臼歯部～下顎枝	60×50mm	有	明瞭
2	1987	Hirshberg et al.	♂	42	左側下顎歯肉部	10×6×4 mm	無	明瞭
3	1988	McClatchey et al.	♂	57	右側下顎側切歯舌側歯肉部	5mm	無	不明瞭
4	1990	Colmenero et al.	♂	66	右側上顎臼歯部	50×40×40mm	無	不明瞭
5	1992	Raubenheimer et al.	♂	82	右側下顎歯槽部	6×6×4 mm	無	不明瞭
6	1997	Castro et al.	♀	83	右側下顎前歯部	30×15×10mm	無	明瞭
7	1997	Junquera et al.	♀	24	左側上顎前歯部	30×20mm	無	明瞭
8	1998	Piattelli et al.	♂	80	下顎臼歯部歯肉部	15mm	無	不明瞭
9	1999	Lombardi et al.	♀	70	右側下顎小臼歯部	30×20mm	無	明瞭
10	2000	宮原ら	♀	59	下顎前歯部歯肉部	15×10×3 mm	無	明瞭
11	2000	Mori et al.	♀	38	右側下顎臼歯部	30×40mm	無	明瞭
12	2001	伊東ら	♂	75	下顎前歯部歯槽部	小豆大	無	不明瞭
13	2002	Kasahara et al.	♂	59	左側下顎大臼歯部～顎角部	60×50mm	有	不明瞭
14	2004	自験例	♀	73	左側下顎大臼歯部	14×12×11mm	無	明瞭

症例 No.1～13 は、文献 16～28 に対応する。

いは大きな塊状を呈するものまで、その形成状態はさまざまであった（写真 4）。また、部分的に小嚢胞様の空洞が形成されており（写真 4 矢印）、このような空洞は上皮あるいは間葉組織により囲まれていた（写真 6）。なお、摘出した組織全体は膠原線維に富んだ被膜で覆われており、この被膜内には腫瘍細胞は認めなかった。

病理組織学的診断：dentinogenic ghost cell tumour.

考 察

DGCT は、COC の垂型で、高齢者に生じるまれな疾患である^{1, 2)}。COC は、しばしば歯牙腫をはじめとする種々の歯原性混合腫瘍を伴い、ときに充実性に増殖し腫瘍的性格の窺われる場合もあることから、WHO（1992）では歯原性良性腫瘍に分類されている²⁾。COC の病理組織学的特徴は、上皮層や線維性被膜内に多くのゴースト細胞の集塊がみられることである。また、裏装上皮基底面やゴースト細胞に接して種々の成熟過程の象牙質様硬組織の形成や、ときにエナメル質形成もみられることがあり、実際に COC の過半数に歯牙腫の合併が認められている。COC の多くは 10 歳台の顎骨内に生じるが、まれに軟組織中にも発生することがある^{1～3)}。また、若年者にみられる定型的な本病変の他に、まれに高齢者で多数のゴースト細胞の出現と類象牙質形成を伴う歯原性上皮の増殖からなる充実性腫瘍病変に対して、DGCT の用語が提唱されている²⁾が、歯原性ゴースト細胞腫（odontogenic ghost cell tumour）とも呼ばれている²⁾。本腫瘍には、悪性型の報告^{11～13)}もあり、歯原性ゴースト細胞癌（odontogenic ghost cell carcinoma）の名称が用いられている¹⁾。このような腫瘍性病変は COC とは区別して分類すべきとの意見もある¹⁾。

これらの腫瘍病変について、渉猟し得た報告^{4～28)}は、自験例を含めた本邦例と欧米例を合わせて、わずか 26 例をみるにすぎなかった。これらのなかで、悪性型の 12 例を除いた DGCT の 14 例^{16～28)}について臨床的検討を行った（表 1）。性別では、男性 8 例、女性 6 例であり男性にやや多くみられた。年齢は、24 歳から 83 歳で平均 60.1 歳であった。発生部位は、上顎 2 例、下顎 12 例であり下顎に多く、なかでも臼歯部に好発する傾向がみられた。大きさは、5 mm 径のものから最大で 60mm のものまでが報告されていた。

X 線学的には、一般に種々の程度の不透過像を有する境界明瞭な透過像としてみられるとあるが^{1, 2)}、報告例では境界不明瞭なものが 6 例であった。また、腫瘍の増大により頬舌的な骨膨隆や隣在歯の歯根吸収がみられ、病巣内には顆粒状の不透過像から歯牙腫や埋伏歯を伴うものまでさまざまであるといわれている^{1, 2)}。しかし、報告例のなかで埋伏歯を伴っていた症例は 2 例のみであった。

一般に嚢胞や歯原性腫瘍が顎骨内において緩慢な速度で発育した場合は、円形もしくは類円形に増大し、ある一定の大きさになると骨の膨隆をきたす。すなわち、顎骨内面では、病変部の増大により骨内面での吸収変化による骨の菲薄化から羊皮紙様感を生じるようになり、さらには軟組織へと拡大するものである。本症例は、高齢者の無歯顎による歯槽骨の吸収に加え、顎骨内に発生した腫瘍が徐々に増大したため、半円形の骨欠損像を呈したものと推測している。

臨床的に DGCT と鑑別診断を要する疾患は、含歯性嚢胞、残留嚢胞、脈瘤性骨嚢胞などの嚢胞性疾患やエナメル上皮腫、歯牙腫、腺様歯原性腫瘍などの腫瘍性疾患があげ

られる。しかし、DGCTはまれな疾患であることから、他の疾患との鑑別は容易でないものと考えられる。各疾患のX線の特徴、好発部位、好発年齢、病変部所見を把握したうえで診断が必要と思われた。本症例は、境界明瞭な半月形の透過像と軟弾性を触知したことから、臨床的には嚢胞を疑った。

本腫瘍の治療法は、切除もしくは摘出が行われている^{26, 27)}。しかし、なかには肉芽様を呈した病変に対して搔爬を行ったとの報告¹⁵⁾もあり、経過観察中に再発がみられている。本症例は、摘出術を施行し、経過観察を行っている。術後、約4年経過した現在、再発や悪性転化の兆候はなく経過良好である。しかし、再発や悪性型の報告例もあることから、さらなる観察が必要と思われた。

引用文献

- 1) 二階宏昌：顎口腔の病変。第1版，杏林書院，東京，1997，32-40頁。
- 2) 日本口腔病理学会訳：WHO 歯原性腫瘍の組織学的分類。第1版，医歯薬出版，東京，1996，17-18頁。
- 3) 石川梧朗編：口腔病理カラーアトラス。第2版，医歯薬出版，東京，2001，138頁。
- 4) Ellis, G.L. and Shmookler, B.M.: Aggressive (malignant ?) epithelial odontogenic ghost cell tumor. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 61: 471-478 1986.
- 5) Grodjesk, J.E., Dolinsky, H.B., et al.: Odontogenic ghost cell carcinoma. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 63: 576-581 1987.
- 6) McCoy, B.P., Carroll, M.K., et al.: Carcinoma arising in dentinogenic ghost cell tumor. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 74: 371-378 1992.
- 7) Alcalde, R.E., Sasaki, A., et al.: Odontogenic ghost cell carcinoma: report of a case and review of the literature. *J Oral Maxillofac Surg* 54: 108-111 1996.
- 8) Folpe, A.L., Tsue, T., et al.: Odontogenic ghost cell carcinoma: a case report with immunohistochemical and ultrastructural characterization. *J Oral Pathol Med* 27: 185-189 1998.
- 9) Stone, C.H., Gaba, A.R., et al.: Odontogenic ghost cell tumor: a case report with cytologic findings. *Diagn cytopathol* 18: 199-203 1998.
- 10) 久保田勇人，北原 規，他：Odontogenic ghost cell carcinoma の1例。日放腫瘍会誌 11: 295-300 1999.
- 11) Kamijo, R., Miyaoka, K., et al.: Odontogenic ghost cell carcinoma: report of a case. *J Oral Maxillofac Surg* 57: 1266-1270 1999.
- 12) Lu, Y., Mock, D., et al.: Odontogenic ghost cell carcinoma: report of four new cases and review of the literature. *J Oral Pathol Med* 28: 323-329 1999.
- 13) Kim, J., Lee, E.H., et al.: Odontogenic ghost cell carcinoma: a case report with reference to the relation between apoptosis and ghost cells. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 90: 630-635 2000.
- 14) Kim, H.J., Choi, S.K., et al.: Aggressive epithelial odontogenic ghost cell tumor in the mandible: CT and MR imaging findings. *Am J Neuroradiol* 22: 175-179 2001.
- 15) 立山義朗，林 雄三，他：右上顎腫瘍 (odontogenic ghost cell carcinoma) (抄)。広島医学 55: 369 2002.
- 16) Tajima, Y., Ohno, J., et al.: The dentinogenic ghost cell tumour. *J Oral Pathol* 15: 359-362 1986.
- 17) Hirshberg, A., Dayan, D., et al.: Dentinogenic ghost cell tumour. *Int J Oral Maxillofac Surg* 16: 620-625 1987.
- 18) McClatchey, K.D., Stewart, J.C., et al.: Dentinogenic ghost cell tumour presenting as a gingival mass. *Ann Dent* 47: 31-32 1988.
- 19) Colmenero, C., Patron, M., et al.: Odontogenic ghost cell tumour. The neoplastic form of calcifying odontogenic cyst. *J Craniomaxillofac Surg* 18: 215-218 1990.
- 20) Raubenheimer, E.J., van Heerden, W.F., et al.: Peripheral dentinogenic ghost cell tumour. *J Oral Pathol Med* 21: 93-95 1992.
- 21) Castro, W.H., de Aguiar, M.C., et al.: Peripheral dentinogenic ghost-cell tumor: a case report. *Quintessence Int* 28: 45-47 1997.
- 22) Junquera, L.M., Villarreal, P., et al.: Central epithelial odontogenic ghost cell tumour. A case report. *Ann Otolaryngol Chir Cervicofac* 114: 76-79 1997.
- 23) Piattelli, A., Fioroni, M., et al.: Immunohistochemical analysis of a dentinogenic ghost cell tumour. *Oral Oncol* 34: 502-507 1998.
- 24) Lombardi, T., Kuffer, R., et al.: Epithelial odontogenic ghost cell tumour of the mandibular gingiva. *Oral Oncol* 35: 439-442 1999.
- 25) 宮原麻由美，吉田雅司，他：下顎前歯部に発生した odontogenic ghost cell tumour の1例 (抄)。口科誌 49: 434-435 2000.
- 26) Mori, M., Kasai, T., et al.: Dentinogenic ghost cell tumour: histologic aspects, immunohistochemistry, lectin binding profiles, and biophysical studies. *Oral Oncol* 36: 134-143 2000.
- 27) 伊東博司，山崎 章，他：高齢者の歯槽堤に生じた周辺性 odontogenic ghost cell tumour の1例 (抄)。日病理会誌 90: 344 2001.
- 28) Kasahara, K., Iizuka, T., et al.: A recurrent case of odontogenic ghost cell tumour of the mandible. *Int J Oral Maxillofac Surg* 31: 684-687 2002.