比較的大きな周辺性エナメル上皮腫の1例

三浦正資・岡村和彦*・三輪邦弘**

下田恒久・大関 悟・本田武司

A case of a relatively large peripheral ameloblastoma

MIURA Masayoshi · OKAMURA Kazuhiko * · MIWA Kunihiro **

SHIMODA Tunehisa · OZEKI Satoru · HONDA Takeshi

Abstract: We describe a 73-year-old man with a relatively large peripheral ameloblastoma arising from the anterior part of the mandibular gingiva. Clinical examination of the lesion showed a globular mass, about 40 × 30mm in diameter, which was elastic hard and had a wide base that closely adhered to the alveolar bone. The base partially extended to the floor of the mouth, and the remaining teeth (5+4) adjoining the mass were quite loose. An X-ray film disclosed a wide area of superficial resorption in the alveolar bone surrounding the remaining teeth. A biopsy was performed, and the histological diagnosis was ameloblastoma. Based upon the diagnosis of peripheral ameloblastoma, excision of the tumor tissue was performed with the patient under general anesthesia. Pathological examination of the specimen revealed neoplastic ameloblastic cells proliferating chiefly in the submucosa. The neoplastic cells were directly contiguous with the surface squamous epithelium. Individual tumor nests consisted of peripheral layers of columnar or cuboidal cells and enclosed central areas of reticular or partially keratinized acanthomatous cells. Discrete islands and nests of tumor cells were set in a loose collagenous stroma with hyalinization. As of 4 years after the operation, no sign of recurrence has been observed.

Key words: mandible (下顎), odontogenic tumor (歯源性腫瘍), peripheral ameloblastoma (周辺性エナメル上皮腫)

緒 言

周辺性エナメル上皮腫はエナメル上皮腫のなかでも発生頻度の低い疾患である。今回われわれは高齢者の下顎前歯部歯肉に発生した比較的大きな周辺性エナメル上皮腫を経験したのでその概要を報告する。

症 例

患 者：73歳，男性。

初 診：平成12年（2000年）7月■日。

福岡歯科大学口腔顎顔面外科学講座
（主任：大関 悟教授）

* 福岡歯科大学生体構造学講座
（主任：谷口邦久教授）

** 福岡歯科大学診断・全身管理学講座
（主任：湯浅賢治教授）

Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Fukuoka Dental College (Chief: Prof. OZEKI Satoru)

* Department of Morphological Biology, Fukuoka Dental College (Chief: Prof. TANIGUCHI Kuniyoshi)

** Department of Diagnostics & General Care, Fukuoka Dental College (Chief: Prof. YUASA Kenji)

受付日：2004年2月12日

採択日：2004年3月23日

主 訴：下顎前歯部の腫瘍。

家族歴：特記すべき事項なし。

既往歴：特記すべき事項なし。

現病歴：数年前より下顎前歯部舌側に腫瘍を自覚したが、痛みなどの症状がなかったため放置していた。平成12年7月、受診した歯科医院にて同部の腫瘍の精査を勧められ、当科を紹介されて来科した。

現 症：

全身所見：体格、栄養状態は良好で異常所見は認められなかった。

局所所見：顔貌は左右対称、顔色良好。

口腔内所見：4+4 舌側歯肉に大きさ40×30mm、有茎性でカリフラワー状、弾性硬の腫瘍を認めた（写真1）。歯牙は5431、234が残存していたが、いずれも強い動揺を認めた。

X線所見：4+4の歯槽骨に水平的骨吸収、および腫瘍の圧迫吸収、または浸潤を思わせる骨吸収所見を認めた（写真2）。

CT所見：下顎前歯部舌側に内部が比較的均一な soft tissue density の mass を認め、基部に相当する舌側皮質骨に

写真1 初診時口腔内写真

写真3 X線CT写真（水平断）
舌側皮質骨に骨の添加，粗造化を認める（矢印）。 写真2 初診時X線写真
上：パナグラフィーX線写真
下：デンタルX線写真（動揺歯抜去後）：
一部に遊離した歯槽骨が認められる（矢印）。 写真4 術直後口腔内写真
創面をテルダーミス®にて被覆した。

骨の添加，および粗造化が認められた（写真3）。

臨床検査所見：異常所見を認めなかった。

臨床診断：下顎前歯部エプーリスの疑い。

処置および経過：初診時に動揺歯の抜去とともに生検を施行，エナメル上皮腫の診断を得たため，平成12年8月■日，全身麻酔下に腫瘍切除術を施行した。切開は歯槽部の正常粘膜上に行い，腫瘍は骨膜を含め切除した。腫瘍に

接していた下顎前歯部舌側の皮質骨は肉眼的に吸収しており，表面はやや凹凸不整な所見を認めたため，舌側の骨面および歯槽突起部を一層削除した。露出した骨面を真皮欠損用グラフト，テルダーミス®にて被覆し（写真4），レジン保護床を装着した。術後約4週間でテルダーミス®で被覆した骨面のほぼ完全な上皮化が認められた。以後，定期的な経過観察を行っているが，平成15年12月現在，再発等認めず経過は良好である。

病理組織学的所見：口腔粘膜上皮下に大小の索状，および胞巣状の腫瘍細胞の増殖を認めた。また，腫瘍実質は粘膜上皮と一部連続していた（写真5）。腫瘍胞巣の辺縁部は柵状配列を示す円柱，立方状細胞より構成され，一部胞巣の中心部では角質変性を伴う扁平上皮化生を認めた（写真6）。腫瘍間質は硝子化を伴う線維性結合組織から成り立つ

写真5 病理組織像 (H-E 染色, 弱拡大)
表層の口腔粘膜上皮に連続して腫瘍細胞の増殖が認められる。

写真6 病理組織像 (H-E 染色, 強拡大)
腫瘍蜂巣中心部では内方に向かって扁平上皮化生を示し、角質変性を伴う棘細胞や星状細胞が認められる。

ており、その一部が顎骨に入り込んでいる所見も認められた(写真7 矢印)。以上の所見より確定診断は周辺性エナメル上皮腫(石川分類; II型, WHO分類; 棘細胞型)とした。

考 察

周辺性エナメル上皮腫に関する過去の報告例では腫瘍の大きさは20mm以下の比較的小さいものが多数を占めている。この理由として、病変が口腔粘膜の表面に出現して早期に自覚されることや、発育が緩慢であることなどが考えられる。本症例のような最大径40mm以上の大きな周辺性エナメル上皮腫の報告例は国内外を含めても少なく、なかでも下顎前歯部に生じたものはまれである^{1, 3, 5, 7, 8, 17)}。

写真7 病理組織像 (H-E 染色, 弱拡大)

本腫瘍の発生時期と経過の詳細は定かではなく、患者の記憶によると10年以上の相当長期にわたるものと推測された。経過中に疼痛等の症状がなかったことと患者自身の病識のなさが相まって大きな腫瘍に発育したものと考えられた。

周辺性エナメル上皮腫は病理組織学的にはWHO分類での棘細胞型、石川の分類ではI, II型が多いとされる。自験例では一部に扁平上皮化生を伴った棘細胞型であった。

周辺性エナメル上皮腫の発生由来が口腔粘膜であるとする一説の根拠とされる、腫瘍と口腔粘膜上皮との連続性を認めたとする報告例が本邦では比較的多数を占めている^{5, 7~9, 13, 17, 18)}。本症例の病理組織所見でも一部に上皮との連続性が認められたが二次的に癒合したものであるか否かについては不明であった。

本症例のX線所見では腫瘍に接する歯槽骨に腫瘍による骨吸収を思わせる所見が認められた。発育が緩慢な周辺性エナメル上皮腫も経過が長い大きな腫瘍になるほど接している骨の圧迫によって骨吸収を認める傾向にあると考えられている⁷⁾。術中の肉眼所見でも腫瘍に接した舌側の皮質骨は粗造、凹凸不整であったことから圧迫による骨の吸収と添加によって形態が変化したものと考えられた。また、これらの部位は病理組織学的には腫瘍実質細胞自体の浸潤は認めなかったが、腫瘍間質が吸収された顎骨に向かって入り込んでおり腫瘍の骨への浸潤とも考えることができる所見であった。周辺性エナメル上皮腫は一般に良性腫瘍の性格を有し、発育は緩慢で骨浸潤能は低いとされているが、田川ら¹⁷⁾は棘細胞型で大きさ20mm以上の大き

なものは骨浸潤の傾向が高いとしている。この他、周辺性エナメル上皮腫の骨への浸潤例の報告がいくつか散見される^{2, 8, 11, 15, 18)}。

一方、石川⁶⁾、他⁹⁾によると周辺性エナメル上皮腫では骨の圧迫吸収をきたすことはあるが、通常骨への浸潤はないとしている。Buchnerら¹⁾も過去報告された32例の周辺性エナメル上皮腫を検討し骨に圧迫吸収を認める場合もあるが、周辺性エナメル上皮腫では積極的な骨破壊は起こらないとしている。骨への浸潤はなかったとする報告^{1, 3, 10, 16)}の大半は腫瘍の大きさが20mm未満程度の小さなものである。腫瘍が大きいものでは、本来のエナメル上皮腫の性質からすると骨への浸潤の可能性を疑う方が自然であると考えられる。

周辺性エナメル上皮腫の治療法は基本的に良性腫瘍に準じて骨膜および周囲健康組織を一部含めた腫瘍切除が行われる。さらに骨搔爬、骨削除、歯槽骨部分切除等を行うかについては本腫瘍を浸潤性とみるか否かによる。これは諸家により見解が異なっており、Buchnerら¹⁾は周辺性エナメル上皮腫の浸潤能は低いため必要最小限のマージンで局所切除を行うとしている。本邦では骨の処置を支持する報告が多い^{7, 8, 12, 14, 17)}。自験例ではX線所見で腫瘍に接する骨の吸収を認めたこと、また術中、腫瘍に接する歯槽骨に粗造な所見を認めたことから歯槽骨の削除を行った。中澤ら⁸⁾が述べているように、少なくともX線、術中所見にて腫瘍に接する骨に吸収所見を認めるものに関しては、当然骨への浸潤の可能性を考慮して腫瘍に近接する骨の削除、さらには切除を行うなどの十分な対策が必要であると考えられる。

本腫瘍の予後は一般に良好とされているが、再発や遠隔転移による死亡例も報告⁴⁾されていることから、慎重な処置、および経過観察が必要であると考えられた。

本論文の要旨は、第19回日本口腔腫瘍学会総会(2001年1月、宇都宮市)において発表した。

引用文献

- 1) Buchner, A. and Sciubba, J.J.: Peripheral odonto-

- genic tumors; a review. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 63: 688-697 1987.
- 2) Balfour, R.S., Loscalzo, L.J., et al.: Multicentric peripheral ameloblastoma. *J Oral Surg* 31: 535-538 1973.
- 3) EL-Mofty, S.K., Grard, N.O., et al.: Peripheral ameloblastoma: a clinical and histological study of 11 cases. *J Oral Maxillofac Surg* 49: 970-974 1991.
- 4) Song-Chyr, L., Chen-Mei, L., et al.: Peripheral ameloblastoma. *Int J Oral Maxillofac Surg* 16: 202-204 1987.
- 5) 井出文雄, 渡辺孝夫, 他: Peripheral Ameloblastomaの1例—症例報告と文献的考察. *口科誌* 27: 353-362 1978.
- 6) 石川悟朗監修: *口腔病理学Ⅱ*. 永末書店, 京都, 1982, 462-481頁.
- 7) 岩井正行, 古田 勲, 他: 周辺性エナメル上皮腫—症例報告と文献考察. *日口外誌* 36: 538-546 1989.
- 8) 中澤光博, 川本知明, 他: 周辺性エナメル上皮腫の2例—症例報告と文献的考察—. *日口外誌* 35: 664-672 1989.
- 9) 安藤智博, 井瀬謙二, 他: 周辺性エナメル上皮腫の1例. *日口外誌* 36: 2089-2093 1990.
- 10) 原田 薫, 井上伸一, 他: 周辺性エナメル上皮腫の2症例. *日口外誌* 38: 675-677 1991.
- 11) 三好憲裕, 西島憲巳, 他: 周辺性エナメル上皮腫を思わせた顎骨内エナメル上皮腫の一例. *日口外誌* 37: 1683-1685 1992.
- 12) 河野憲司, 水城春美, 他: 歯槽骨浸潤を示した周辺性エナメル上皮腫の1例. *口腔腫瘍* 4: 88-92 1992.
- 13) 大内田美保, 田中俊一, 他: 高齢者の上顎にみられた周辺性エナメル上皮腫の1例. *日口外誌* 38: 1437-1439 1992.
- 14) 松田光悦: 周辺性エナメル上皮腫. *歯科ジャーナル* 37: 615-617 1993.
- 15) 秋葉正一, 関 陸弘, 他: 乳頭腫様の外観を呈した周辺性エナメル上皮腫の1例. *日口外誌* 41: 650-652 1995.
- 16) 玉城廣保, 安田順一, 他: 周辺性エナメル上皮腫の1例. *日口外誌* 42: 85-87 1995.
- 17) 田川新也, 乾 真登可, 他: 臼後部に発生した周辺性エナメル上皮腫と本邦における文献的考察. *口科誌* 45: 62-66 1996.
- 18) 林 勝彦, 田辺晴康, 他: 明細胞を伴った周辺性エナメル上皮腫の1例. *日口外誌* 45: 378-381 1997.