

## 特異な嚢胞様構造を呈した Ameloblastoma の1 症例

河住 信, 中村千仁, 川上敏行

松本歯科大学 口腔病理学教室 (主任 枝 重夫 教授)

井手口英章, 山崎安一

松本歯科大学 口腔外科学第2 講座 (主任 待田順治 教授)

### A Case of Ameloblastoma Formed a Characteristic Unicyst-like Structure

MAKOTO KAWASUMI, CHIHITO NAKAMURA and TOSHIYUKI KAWAKAMI

*Department of Oral Pathology, Matsumoto Dental College  
(Chief: Prof. S. Eda)*

HIDEAKI IDEGUCHI and YASUICHI YAMAZAKI

*Department of Oral Surgery II, Matsumoto Dental College  
(Chief: Prof. J. Machida)*

### Summary

Ameloblastoma formed a unicyst-like structure lined with stratified squamous epithelium was occurred in a 41-year-old man. The present case had apparent transformation between the lining epithelium and the columnar cells of ameloblastoma proliferated inside the "cyst". The fabricating mechanism of this structure was examined microscopically and compared with another cyst forming lesions such as follicular dental cyst, radicular cyst and traumatic bone cyst by referring to reported papers extensively. After this consideration, it was concluded that the lining epithelium of this structure would come from metaplasia of the columnar cells which covered the follicles of the ameloblastoma. And this structure would be a number of follicles of this lesion from the beginning, and since then, they would become a "cyst" by mutual expansion and confusion by means of some unknown factors.

## 緒 言

Ameloblastoma は歯原性上皮に由来し、口腔に発現する腫瘍中では比較的一般的なもので、下顎に好発することが知られている。報告された症例は多数にのぼるが、今回著者の経験した41歳男性の左側下顎臼歯部に生じたものは腫瘍塊が嚢胞様の構造物に囲繞されており、構造の内壁には重層扁平上皮の裏装像が観察された特異な形態をとったものである。そこでその詳細とともに本構造の形成機転につき文献的考察を加えて報告する。

## 症 例

患者：41歳 男性

初診：昭和56年6月6日

主訴：左側頰側歯槽部腫脹

家族歴、既往歴：特記すべき事項なし

現病歴：昭和56年6月2日、左側下顎大臼歯部

の疼痛を主訴とし某歯科医院を受診した。同側小臼歯頰側歯槽部の腫脹を指摘され、同部の切開処置を受けたが、その腫脹が軽減しなかったので、本学第2口腔外科を紹介され来院した。

全身所見：体格中等度、栄養状態良好で特に異常は認められなかった。

局所所見： $\overline{3} \sim \overline{7}$ にかけて頰側歯槽部に骨様硬の膨隆が存在し、骨の欠損は $\overline{4} \sim \overline{5}$ 頰側根尖相当部、および $\overline{4}$ 舌側根尖相当部に認められた。被覆粘膜は正常色を呈し、切開創部に限局して軽度の炎症症状が存在していた。また切開創は閉鎖しており、同部位よりの試験穿刺によって血液を混じた膿汁が吸引された。なお、 $\overline{3} \sim \overline{6}$ は電気歯髓診断では反応を示さなかったが、術前処置として根管治療を行なった際、 $\overline{4}$ 、 $\overline{6}$ の根管口より出血を認めた。 $\overline{3} \sim \overline{5}$ の歯牙については齶触は認められず、 $\overline{6}$ にはアマルガム充填が施されていたが、破折脱落していた(図1)。

左側顎下リンパ節は大豆大のものが1個触知さ

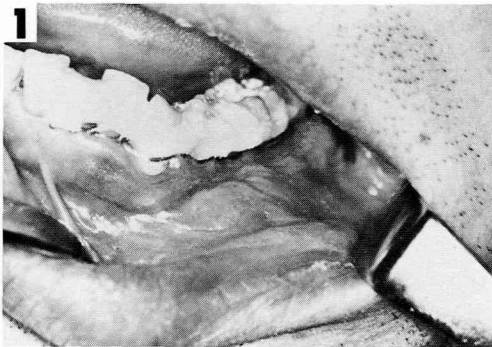


図1：口腔内所見。患側歯槽部頰側に膨隆が見られる。

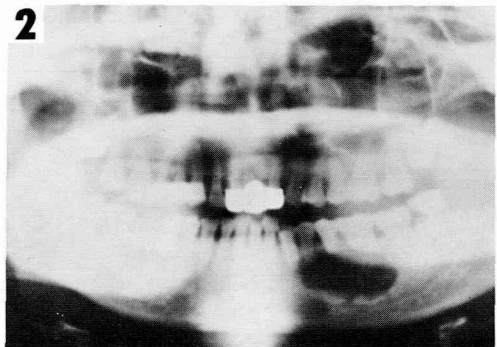


図2：パノラマX線写真。 $\overline{3} \sim \overline{6}$ におよぶ境界明瞭な円形単房性X線透過像が見られ、 $\overline{5}$ 、 $\overline{6}$ 歯根は高度な吸収を受けている。

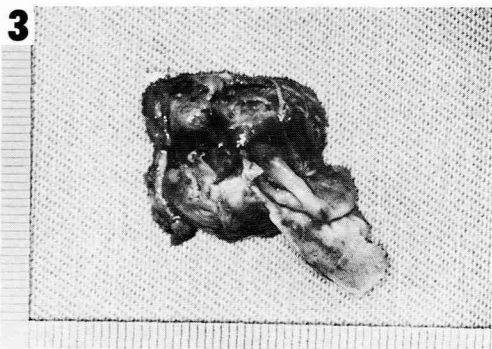


図3：摘出物外観

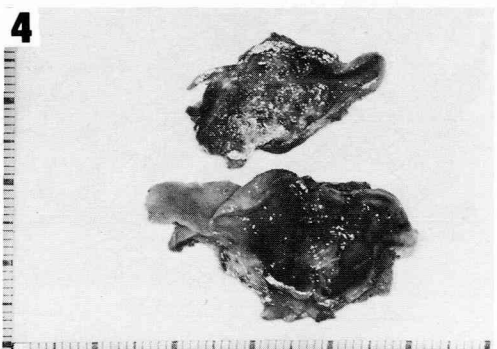


図4：摘出物断面観

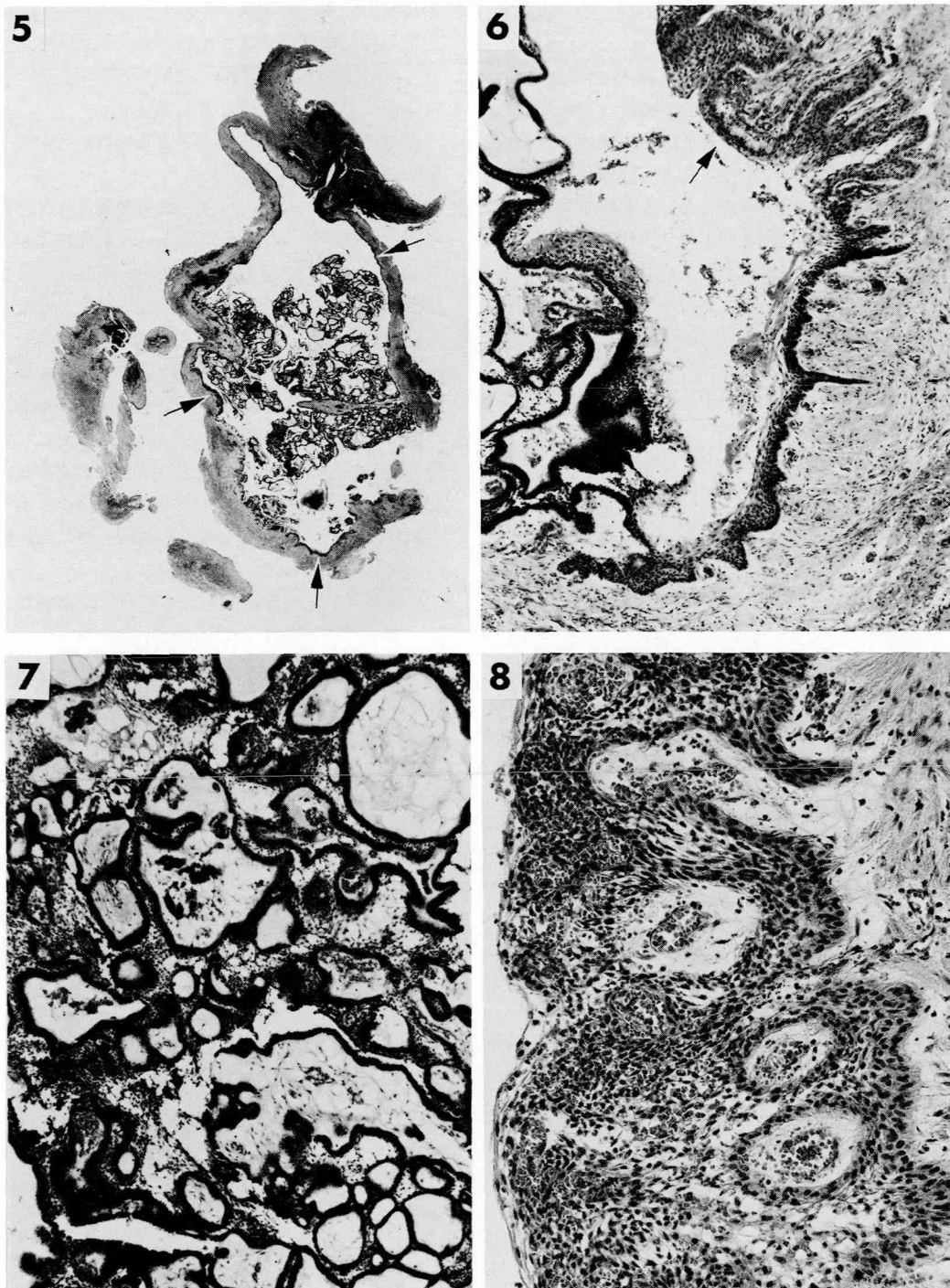


図 5：摘出物全体像。矢印は重層扁平上皮の裏装部位を示す。（H・E染色 × 8）

図 6：扁平上皮（矢印）へと徐々に移行する腫瘍細胞（H・E染色 × 45）

図 7：内部の ameloblastoma（H・E染色 × 45）

図 8：重層扁平上皮の強拡大像（H・E染色 × 97）

れ、可動性で圧痛は認められなかった。右側は触知できなかった。患側の神経支配領域の知覚は正常であった。

X線所見：[3]根尖相当部より[6]遠心根にかけて単房性、境界明瞭なクルミ大のX線透過像が認められ、その周囲は一層の骨硬化像により囲まれていた。[3]、[4]根尖部の吸収は軽度で、その根尖は嚢胞内に突出しており、[5]、[6]では根吸収が著しく歯根の $\frac{1}{3}$ ～ $\frac{1}{2}$ におよんでいた(図2)。

臨床検査所見：血液一般、血清化学検査などに異常所見は認められなかった。

臨床診断：左側下顎嚢胞の疑い

処置および経過：昭和56年6月15日入院の上、術前処置を行ない、同月16日局所麻酔下にて嚢胞摘出術を施行した。

嚢胞周囲の骨壁は硬く平滑で、比較的容易に剝離摘出することができたが、[3]および[4]の歯根と嚢胞壁とは剝離が困難であった(図3)。摘出後、創は一次的に閉鎖した。術後患側口唇部に軽度な知覚鈍麻を後遺したが、10か月を経過した現在、症状は消退し、創部の治癒経過も良好で、予後観察中である。

摘出物所見：摘出物の大きさは約 $3 \times 4 \times 2$  cmで長球状を呈し、表面は滑沢で赤褐色、内面はやや粗造で暗赤褐色であった。嚢胞壁の厚さは3～5 mmで内容液には血液や膿汁が含まれていた(図4)。

#### 病理組織所見 (MDC 057-81)

摘出物内部には基底細胞が高円柱状を呈し、自由面に向けて次第に星型形態をとるようになる組織増殖が観察された。全体は網眼状を呈し、多数の類円形の空隙を有していた。これらの空隙は増殖した星型細胞の中に形成された実質性のものであり、これは実質嚢胞と呼ばれるものである。また基底細胞によって囲まれた間質嚢胞もあり(図7)、この中には出血巣を含むものもあった。以上の ameloblastoma の組織はさらにその外側を厚い線維性の袋状構造物により囲繞されており、その内側で ameloblastoma に対峙する部位には重層扁平上皮の裏装が認められた(図5、6矢印)。同上皮は数層ないし10数層で一部は浮腫状に細胞間隙を拡張していた(図8)。この嚢胞様物は内部の ameloblastoma と数か所で連絡しており、あ

る部分では壁の一部が梁柱状に腫瘍組織中に侵入、胞巣を分断していた。腫瘍と壁面が接触する部位では、腫瘍細胞は蛇行しながら壁面に沿って増殖し、ついには数層の高円柱状ないし円柱状細胞よりなる裏装上皮となるが、先の重層扁平上皮との間には明らかな連絡が存在し、徐々に移行して行く像が観察された(図6)。また嚢壁結合組織中には ameloblastoma の胞巣が島嶼状に認められ、実質嚢胞が形成されていた。さらに壁中で血腫の形成された部分には異物巨細胞も見られ、コレステリンの針状空隙も確認された。嚢壁に連続した肉芽組織中には反応性の骨増生も見られ、脆弱な骨梁の形成があった。

病理診断：ameloblastoma

#### 考 察

本報の主目的である嚢胞様構造と ameloblastoma との関係について文献を参照しつつ以下に考察する。

Ameloblastoma が嚢胞と関連して出現した症例は内外の文献に多数を見ることができ、とりわけ濾胞性歯嚢胞(含歯性嚢胞と原始嚢胞を含む)との関係について論じたものが多い。このうち含歯性嚢胞については Cahn (1933)<sup>1)</sup> が嚢壁よりの ameloblastoma の発生を報告して以来、この種の嚢胞の多くが、組織検査で ameloblastoma と診断されるようになって来ており<sup>2)</sup>、Getter (1965)<sup>3)</sup> によれば、同腫瘍の33%が直接含歯性嚢胞に関係しているという。それだけに臨床診断は困難で、報告例中にも、含歯性嚢胞を疑ったが ameloblastoma であった例<sup>4)～19)</sup>、逆に ameloblastoma を疑ったが組織学的に腫瘍は認められず、含歯性嚢胞と確定診断された例<sup>20)～24)</sup> が少なくない。本症例では埋伏歯は見られず、原始嚢胞の可能性が考えられたが、歯列に欠損のない点や、過剰歯起源の場合でも病巣が多数歯に及ぶ大きさである点から<sup>15)</sup>、これは否定されるものと思われた。

歯根嚢胞(残留嚢胞を含む)は口腔の嚢胞中最も多発する<sup>21)</sup>が、同嚢胞から ameloblastoma が生じたという報告は少なく、Thoma (1933)<sup>26)</sup> によるものが最初と思われる。Lee (1970)<sup>27)</sup> は残留嚢胞内部に生じた ameloblastoma を Cahn (1933)<sup>1)</sup> の言う mural type とする意見を発表しており、賛同者も多いと言っている。また本邦でも横林ら

(1974)<sup>28)</sup>が上顎臼歯部に発生し残留嚢胞由来と考えられた ameloblastoma の例を報告している。本症例の場合、抜歯既往がなく、かつ感染根管を持たないので、歯根嚢胞は考えられない。また岡本ら(1978)<sup>21)</sup>が言う外傷による歯根嚢胞成立の可能性があるにしても、問診からは患者の病歴に外傷の既往はなく否定的である。

非歯源性嚢胞にも ameloblastoma に関連した報告があり、顔裂性嚢胞<sup>29)</sup>、表皮様嚢胞<sup>30)</sup>、外傷性骨嚢胞<sup>31)~34)</sup>の記述が見られる。前2者の可能性は発現部位から本症例には相当しないが、後者との関係は吟味を要する。外傷性骨嚢胞 (traumatic bone cyst) は, solitary bone cyst, hemorrhagic cyst と呼ばれ、外傷の既往があるとされている<sup>35)</sup>。Molyneux, et al (1965)<sup>31)</sup>によれば、外傷性骨嚢胞と診断される病変は、これに先行して存在した腫瘍が退行性変化をおこすことによって形成されるのではないかとの見方があり、本症例の形態を考えると示唆に富んでいて興味深い。平野ら(1970)<sup>36)</sup>は外傷性骨嚢胞の上皮から ameloblastoma が発生する可能性も考えられるだろうと述べている。外傷性骨嚢胞は通例25歳以下に発現するが、上顎より下顎の小白歯大臼歯領域に好発し、境界の明瞭なX線透過像として見られるなど本症例との一致点もある一方、透過像中に見られる歯でも生活していること、硬線は正常であり、歯根吸収像も認められず、歯根間に増大して scalloped appearance を呈すること、また試験穿刺により少量の血液を吸引することもあるが、通常は内容物を欠き、組織学的には hemosiderin を含んだ鬆粗な線維性組織を見るのみで、裏装上皮を欠くなど著しい相違もある<sup>37)</sup>。

前述のごとく本症例のX線像には $\sqrt{3} \sim \sqrt{6}$ の多数歯根に及ぶ吸収像が見られた。Atruthers, et al. (1976)<sup>38)</sup>は含歯性、原始性、歯根、鼻口蓋管各嚢胞と ameloblastoma の歯根吸収像の比較を行っており、ameloblastoma で他を圧して顕著に認められ、原始嚢胞では皆無であったと報告している。藤原(1978)<sup>39)</sup>は ameloblastoma と濾胞性歯嚢胞の歯根吸収像を観察し、1歯以上に吸収を認めたものは前者の86%、後者の19%にあったと述べ、伊賀・筒井(1977)<sup>40)</sup>は彼らの88例の ameloblastoma 中の247歯根のうち196根(93%)に吸収像を確認している。さらに古跡(1978)<sup>41)</sup>は多房性

を呈した ameloblastoma と嚢胞のX線写真による比較を行っており、特に本症例に見られるような病巣外形に沿った吸収の形態を示したものは ameloblastoma の48%、嚢胞の12%に見られたと報告している。このようにX線的に考察しても、本症例に見られる様な歯根吸収像が ameloblastoma 以外の嚢胞性疾患によって生じる可能性は少ないと考えられた。またこれを発現部位の上から見ると、柴崎(1960)<sup>42)</sup>、石川ら(1971)<sup>43)</sup>、横林(1974)<sup>44)</sup>、久保田ら(1978)<sup>45)</sup>の統計的研究において、ameloblastoma が他の嚢胞性疾患に比して下顎に圧倒的に多い点で一致した見解が見られ、これも本疾患を濾胞性その他の嚢胞とする考えを遠ざける。さらに石川ら(1971)<sup>43)</sup>は濾胞性歯嚢胞から生じたと考えられる ameloblastoma の自験例はなかったと述べている。

以上のごとく、本症例の嚢胞様構造が腫瘍に先行して存在した他の嚢胞由来のものである可能性はきわめて薄く、従って同時に2つの疾患が発生し、発育過程で融合したとも考えにくい。

それでは本症例の嚢胞様構造は何に由来するのであろうか。

本症例の組織像を詳細に観察すると、裏装上皮である重層扁平上皮は、とぎれることなく単層の円柱細胞へ、ついで高円柱細胞へと移行を示し、ついには腫瘍細胞となる。この細胞は胞巣中に柵状に配列し、基底細胞となって実質嚢胞を囲繞するのであるが、先の嚢胞様構造物内腔と、この実質嚢胞内腔との間には境界が見られず、両者は連続した空間となっていることがわかる。こうした構造が、この嚢胞様物と腫瘍塊の間で、数か所に互って観察できることから、病変の初期にはこの内腔は数個の実質嚢胞により、多房性となっていたのではないかと考えられる。その後これらの実質嚢胞は増大し、互いに融合して内腔を共有し、単一嚢腔化したのではないだろうか。嚢胞がなぜ増大するのかという問題には未だ解答が定まっていない。Struthers & Shear (1976)<sup>38)</sup>によれば、嚢腔の拡大に関係する歯根吸収力を嚢胞内圧によって説明するのは適当でなく、吸収のより顕著な ameloblastoma で、濾胞性歯嚢胞よりも低い内圧を示すという。彼らはまた骨吸収因子として最近ある種の prostaglandin が注目されているが、同一の因子が歯根吸収に反応する証拠はない

とも言っている。ameloblastoma は歯を含まず、多房性のX線透過像を示すのが原則であるが、上記の様な因子による著しい増大融合や、化膿性溶解により、X線上単一腔として出現することもあり<sup>9)</sup>、今回の症例においても、何らかの要因により、こうした変化が生じたものと考えたい。そして嚢胞壁の一部にみられた重層扁平上皮の裏装はameloblastomaの扁平上皮化生によるものと解釈したい。なお、試験穿刺により吸引された血液を混じた膿汁は、本学来院前の、切開処置に起因するものであろう。また嚢胞様物壁内には島嶼状のameloblastomaの胞巣が存在していた。このことから、今後も慎重な経過観察が為されるべきであると考ええる。

### 結 語

41歳男性の下顎左側臼歯部に発現した嚢胞様構造物を伴ったameloblastomaについて報告を行ない、併せてその形成機転を文献により考察した。

文末ながら、病理診断のご指導と論文のご校閲をいただいた本学口腔病理学教室 枝 重夫教授に感謝の意を表する。

### 文 献

- 1) Cahn, L. R. (1933) The dentigerous cyst is a potential adamantinoma. *Dent. Cosmos*, 75: 889—893.
- 2) Madan, R. (1960) Ameloblastoma developing from a dentigerous cyst. *Oral Surg.* 13: 781—786.
- 3) Getter, L. (1965) Relationship of the dentigerous cyst and the ameloblastoma: report of case. *J. oral Surg.* 23: 250—253.
- 4) Carr, B. M. and Mohnac, A. M. (1962) Simple ameloblastoma within a follicular cyst of the maxilla. *Oral Surg.* 23: 127—134.
- 5) Wilson, D. L. and Roche, W. C. (1960) Dentigerous cyst with ameloblastomatous change. report of case. *J. oral Surg.* 18: 173—174.
- 6) Josell, S. D., Reiskin, A. B. and Gross, B. D. (1979) Dentigerous cyst with mural ameloblastoma. *J. Amer. dent. Assoc.* 99: 634—636.
- 7) 杉本是孝, 前田栄一, 村上成隆 (1959) 臨床的に濾胞性歯牙嚢胞の定型像をていしたエナメル上皮腫の1例. *日口外誌*, 5: 137—141.
- 8) 吉田幸子, 川田雄祥 (1959) 歯嚢性歯嚢胞の様相を呈したエナメル上皮腫の2例(会). *口科誌*, 8: 642.
- 9) 中山学良, 高木英也, 善住満男 (1962) 含歯性単胞性エナメル上皮腫の1例. *歯界展望*, 19: 70—73.
- 10) 田島時博, 由良 忠, 水野良知, 橋本誠吾 (1960) 興味あるアダマンチノームの2症例. *三重医学*, 4: 133—136.
- 11) 熊野御堂正良 (1964) 最近経験した稀有なるエナメル上皮腫の1例について(会). *医療*, 18増刊: 438.
- 12) 山田長敬, 久保田正敏, 百瀬芳郎, 北村勝也, 佐田 喬 (1959) 特異なる組織像を呈するエナメル上皮腫の2例. *九州歯誌*, 13: 844—847.
- 13) 林 一, 吉田朔也, 山野幹雄 (1962) 上下顎の両側智歯部に発生したエナメル上皮腫の1例(会). *口科誌*, 11: 271.
- 14) 新田修美, 石井保雄, 小西文昭 (1974) 濾胞性歯嚢胞を思わせた単胞性エナメル上皮腫の二例について(会). *京大口科紀要*, 13: 35.
- 15) 青山善男, 石田賀子, 村田篤彦 (1966) 巨大なるAdamantinomaの一症例(会). *京大口科紀要*, 6: 280—281.
- 16) 楠 博夫, 清水達朗, 高橋昌士 (1970) Dentigerous Cystの定型像を呈したエナメル上皮腫の1例(会). *口科誌*, 19: 762.
- 17) 岩沢 易, 片岡振雄, 田中俊三, 田中荘二郎 (1963) 極めて興味ある「アダマンチノーム」の一例(会). *横浜医学*, 13: 88—89.
- 18) Taylor, R. N., Callins, J. F., Menell, H. B. and Williams, A. C. (1971) Dentigerous cyst with ameloblastomatous proliferation: report of case. *J. oral Surg.* 29: 136—140.
- 19) Quinn, J. H. and Fournet, L. F. (1969) Dentigerous cyst with mural ameloblastoma; report of case. *J. oral Surg.* 27: 662—664.
- 20) 栗佐好尚, 天内武敏, 石岡 隆, 西川泰右, 鈴木貢 (1971) 巨大なる濾胞性歯嚢胞の1例(会). *口科誌*, 20: 276.
- 21) 岡本日出夫, 青木紘一, 松本頼之 (1978) 珐瑯上皮腫を思わせた下顎歯根嚢胞の一例. *歯科学報*, 78: 1655—1658.
- 22) 垣見庸三, 大塚孝博, 神田 豊, 小山皓正 (1970) エナメル上皮腫を疑はしめた、多房性嚢胞の1症例について(会). *医療*, 23増刊: 399—400.
- 23) Small, G. S., Lattner, C. W. and Waldron, C. A. (1958) Ameloblastoma of the mandible simulating a radicular cyst. *J. oral Surg.* 16: 231—235.
- 24) Solomon, M. P., Bridbord, J. W. and Rosen, Y. (1974) Pseudoameloblastomatous changes in the wall of a radicular cyst. *Amer. J. clin. Pathol.* 61: 443—447.
- 25) Byrd, D. L., Allen, J. W. and Dunswoth, A. R.

- (1973) Ameloblastoma originating in the wall of a primordial cyst: report of case. *J. oral Surg.* 31: 301—304.
- 26) Carpenter, L. S. and Thoma, K. H. (1933) Adamantinoma formed from a radicular cyst. *Dent. Items Interest*, 55: 716—721.
- 27) Lee, F. M. S. (1970) Ameloblastoma of the maxilla with probable origin in a residual cyst. *Oral Surg.* 29: 799—805.
- 28) 横林敏夫, 中島民雄, 谷田部雄二, 岩崎弘治 (1974) 上顎臼歯部に発生した残留嚢胞と考えられたエナメル上皮腫の 1 例. *新潟歯誌*, 4: 27—31.
- 29) Aisenberg, M. S. and Inman, B. W. (1960) Ameloblastoma arising within a globulomaxillary cyst. *Oral Surg.* 13: 1352—1355.
- 30) 宮崎 正, 淵端 孟, 久米川正好, 本田光徳 (1963) Epidermoid Zyste 様の組織像を有する Adamantinoma の 1 例について (会). *日口外誌*, 9: 291.
- 31) Molyneux, G. S. and Helsham, R. W. (1965) An unusual ameloblastoma of the jaw with observations on the possible cause of traumatic bone cysts. report of a case. *Oral Surg.* 20: 77—81.
- 32) 宮沢秋裕, 黒田政文, 大塚幸夫, 工藤啓吾, 岡田俊司 (1977) 外傷の既往を有し, 組織的に診断の困難であった Ameloblastoma の 1 例. *みちのく歯誌*, 8: 32—33.
- 33) 川平清秀, 藤洋好文, 浜崎栄作, 川島清美, 山下佐英 (1979) 下顎正中部にエナメル上皮腫を共存した単純性骨嚢胞の 1 例. *日口外誌*, 25: 157—160.
- 34) 大野朝也, 佐藤義彦, 梅沢広志, 寺元 徹, 足立深, 河原裕憲 (1974) アメロブラストーマを疑った Simple bone cyst の 1 例 (会). *東北歯誌*, 1: 77—78.
- 35) Bhaskar, S. N. (1977) Synopsis of Oral Pathology. 5th ed. 232. C. V. Mosby, St. Louis.
- 36) 平野紀正, 下野正基, 山根 瞳, 河原裕憲, 枝重夫, 山村武夫 (1970) 特異な形態を示した Ameloblastoma の 3 例. 付, Ameloblastoma の組織発生に関する文献的考察. *歯科学報*, 70: 1285—1293.
- 37) Wood, N. K. and Goaz, P. W. (1980) Differential Diagnosis of Oral Lesions. 2nd ed. 325—326. C. V. Mosby, St. Louis.
- 38) Struthers, P. and Shear, M. (1976) Root resorption of ameloblastomas and cysts of the jaws. *Int. J. oral Surg.* 5: 128—132.
- 39) 藤原政男, 西原平八, 藤下昌己, 上村修三郎, 淵端 孟 (1978) Ameloblastoma 及び Follicular cyst における歯根吸収の観察. *歯科放射線*, 18: 110—111.
- 40) 伊賀成知, 筒井 豊, 堀内康夫, 井上雅裕, 岡野博郎 (1977) 顎骨にみられる疾患と歯牙との関係について第 1 報エナメル上皮腫 (会). *歯科医学*, 40: 593.
- 41) 古跡孝知, 内海 潔, 今井一彦 (1978) 多房状を呈したエナメル上皮腫と嚢胞の X 線写真的比較検討 (会). *歯科放射線*, 18: 111—112.
- 42) 柴崎佐平 (1960) 珐瑯上皮腫の臨床的ならびに病理組織的研究. *歯科学報*, 60: 978—999.
- 43) 石川梧朗, 高木 実, 吉野信哉 (1971) エナメル上皮腫と歯原性嚢胞との関係についての病理学的研究 (会). *歯基礎誌*, 13: 322.
- 44) 横林敏夫, 常葉信雄, 広瀬達男, 中島民雄, 松川公敏, 梶川幸良, 小林健男, 福島祥紘, 石木哲夫, 滝沢裕夫 (1974) エナメル上皮腫 29 例の臨床的ならびに病理組織学的観察 (会). *日口外誌*, 20: 721—722.
- 45) 久保田文良, 本間 学, 山田哲司, 大久保滋郎, 松田 登 (1978) エナメル上皮腫 36 症例の臨床病理学的研究. *日口外誌*, 24: 609—613.