

〔臨床〕 松本歯学 2 : 153~159, 1976

エナメル上皮腫の2症例

龍方孝典, 西村吉行, 鹿毛俊孝, 伊藤栄二
佐野雄三, 亀山嘉光, 千野武広

松本歯科大学 口腔外科学教室第一講座 (主任 千野武広 教授)

林 俊子, 枝 重夫

松本歯科大学 口腔病理学教室 (主任 枝 重夫 教授)

Two Cases of Ameloblastoma

TAKANORI RYUKATA, YOSHIYUKI NISHIMURA, TOSHITAKA KAGE, Eiji ITO

YUZO SANO, YOSHIMITSU KAMEYAMA and TAKEHIRO CHINO

Department of Oral Surgery I, Matsumoto Dental College

(Chief: Prof. T. Chino)

TOSHIKO HAYASHI and SHIGEO EDA

Department of Oral Pathology, Matsumoto Dental College

(Chief: Prof. S. Eda)

Summary

Two cases of ameloblastoma appeared in the mandibles of 52-years-old and 42-years-old men were reported in this paper. In the first case the lesion resembled radicular cyst radiographically, but was diagnosed as ameloblastoma having a large cyst histopathologically. The second case was believed to be a recurrent ameloblastoma 17 years after the operation, and its pathological findings showed so-called ameloblastic hemangioma.

はじめに

エナメル上皮腫は歯胚上皮に由来する真性の歯系腫瘍で、口腔外科領域においては、その再発傾向および悪性転化など臨床的に大いに関心をもたれている腫瘍のひとつである。また病理組織学的にはその由来する歯胚上皮のあらゆる発育段階に類似した種々の様相の組織像を呈することが知ら

れている。

今回、我々は、臨床的に歯根嚢胞を疑わせた症例と、極めて長期間経過した後に再発をきたし組織学的にも比較的稀な興味ある所見を呈した症例との2症例を経験したのでその概要を報告する。

症 例 I

患者：三〇正〇，52歳，男性

初診：昭和50年5月7日

主訴：右側下顎小臼歯部の腫脹

本論文の要旨は第1回松本歯科大学学会（1975年11月8日）において発表された。（1976年10月27日受理）

家族歴：特記すべき事項なし

現病歴：昭和49年9月、5の抜歯術を受けたが経過は順調であった。昭和50年2月初旬、5相当部歯肉の無痛性腫脹に気づき某開業歯科医を受診し化学療法を受けるも緩解せず穿刺により排膿を行ってきたが、4月中旬にいたり内容物に淡黄色の粘稠な液体がみられたので精査のため当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、その他には特記すべき所見は認められなかった。

口腔外所見：顔貌は左右対称性で、顔色良好、所属リンパ節の腫脹は特に認められなかった。

口腔内所見：開口障害なく、5相当部歯肉はほぼ正常粘膜に被われ、触診により軽度の骨膨隆を示した。僅かに圧痛を伴うも波動は触れなかった。5は欠損状態で、4には歯質欠損は認めなかった。

X線所見：3遠心側より6近心根にかけて拇指頭大の境界明瞭な、単房性に近い透過像を認め4の根尖並びに3の歯根遠心側の一部に吸収が認められた(図1)。

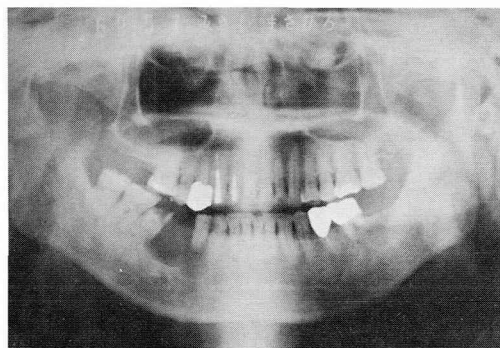


図1：オーソパントモグラフ

検査所見：

血液一般検査

赤血球数 $377 \times 10^4 / \text{mm}^3$

白血球数 $5800 / \text{mm}^3$

血色素量 13.5 g/dl

ヘマトクリット値 48 %

血液化学的検査

黄疸指数 5

TTT 5.04U

ZTT 10.6U

総コレステロール 198 mg/dl

ALP 14.4KAU

GOT 76KAU

GPT 56KAU

LDH 340WU

chE 正常

総蛋白 6.91 g/dl

血糖 102 mg/dl

尿検査

比重 1.012

pH 6.0

蛋白質 (—)

糖 (—)

ケトン体 (—)

潜血 (—)

臨床診断：54歯根嚢胞

処置および経過：昭和50年5月12日、局所麻酔のもとに摘出術を行なった。周囲骨との分離も容易で4と共に一塊にして摘出したのち閉鎖創とした。現在術後17ヶ月にて再発傾向もなく経過良好である。

摘出物所見：摘出物は4歯根遠心面に附着し、結合織性の厚い被膜に包まれた嚢胞様を呈していた(図2)。

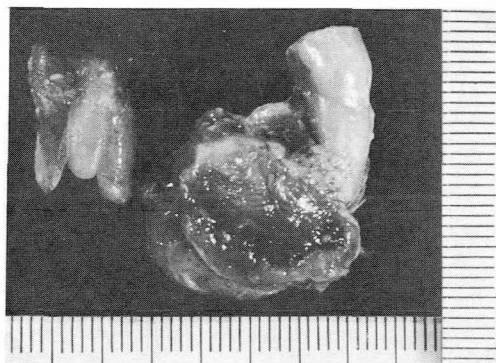


図2：摘出物、左6、右4と腫瘤

病理組織学的所見：歯牙と附着した嚢胞様を呈する組織は、緻密に形成せられた比較的古い結合織よりなり、嚢胞腔壁上方と歯牙に近接する所に胞巣は限局していた(図3)。歯牙に近い部分では、大小の胞巣を形成して一群をなし、個々の胞巣は間質に面して円柱状の細胞が柵状をなして配列し、核は基底と反対側に偏在していた(図4)。実

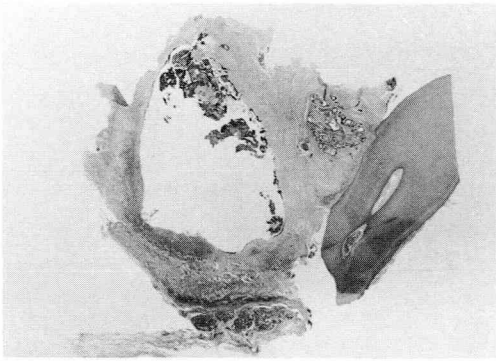


図3：4および腫瘍のセロイジン切片全形

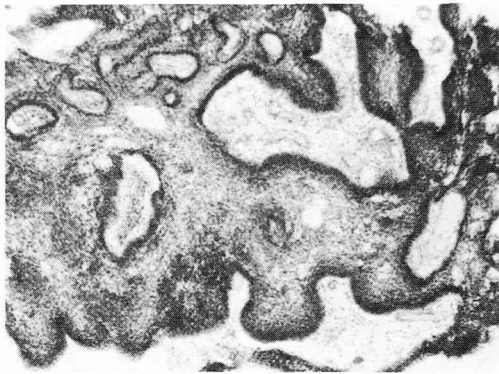


図4：嚢胞内壁にみられたエナメル上皮腫

質細胞は中央に移行するに従い星形となり、一部には小嚢胞を形成し、いわゆる星状細胞嚢胞Ⅰ型を形成していたものもあった(図5)。これら胞巣



図5：嚢胞壁内に増殖したエナメル上皮腫胞巣内に実質嚢胞の形成がある。

間の間質は、比較的古い結合組織が緻密に配列し、胞巣群を厚く取り囲み、また腫瘍が最も近接する部で歯牙のセメント質は広範に吸収され、一部では象牙質にまで及んでいた。

一方、大きな嚢胞腔に接する胞巣群では、個々の胞巣は構造の崩れたものが多く、嚢胞壁に円柱状の細胞が周囲結合組織に基底を向けて配列し、エナメル上皮腫を呈している部分が観察された(図6)。また一部には星状細胞への分化があまりみら

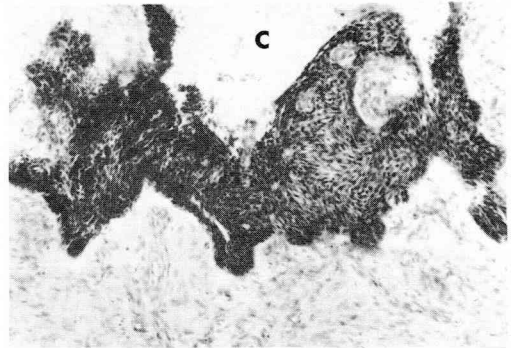


図6：嚢胞の内壁を裏装する上皮もエナメル上皮腫の像を呈している。C：嚢胞腔

れず、胞巣全体が、基底細胞類似の細胞から成るいわゆる基底細胞型エナメル上皮腫の像を呈しているものもあった(図7)。

確定診断：エナメル上皮腫(宮崎のⅢ型)

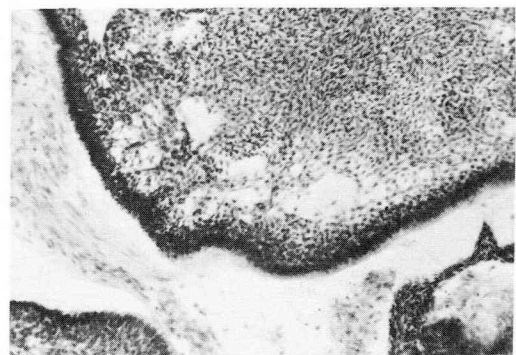


図7：胞巣の1つにみられた基底細胞型エナメル上皮腫、星形細胞への分化はあまりみられず、実質全体が基底細胞類似の腫瘍細胞から成る。

症 例 Ⅱ

患者：小○平○，42歳，男性

初診：昭和50年2月7日

主訴：左側下顎部の腫脹

家族歴：特記すべき事項なし

現病歴：約2週間前より軽度の自発痛を伴う左側下顎部の腫脹に気づき2月6日某病院歯科を受診、レントゲン診査後精査のため当科を紹介され来院した。

なお、17年前、左側臼歯部歯肉の腫脹を主訴として某大学病院を受診、エナメル上皮腫の診断のもとに腫瘍摘出術を受け5年間予後観察を行ない完治したと言われたというのが詳細は定かではない。

全身所見：体格中等度、栄養状態良好で、その他には特記すべき所見は認められなかった。

口腔外所見：顔貌は左右非対称性で、左側下顎部から骨体相当部に至るびまん性、弾性硬の軽い圧痛を伴う腫脹が認められた。左側顎下リンパ節に小豆大の腫脹が触知できた。

口腔内所見： $\sqrt{78}$ 相当部歯肉にびまん性の腫脹を認め表面は粘膜色を呈し頬側よりに瘻孔を形成し黄色粘稠性の排膿が認められた。

X線所見：左側下顎臼歯部骨体に近心は $\sqrt{5}$ 相当部より遠心は上行枝前縁に至るクルミ大境界明瞭な多房性の透過像を認め下縁は下顎管に達していた（図8）。

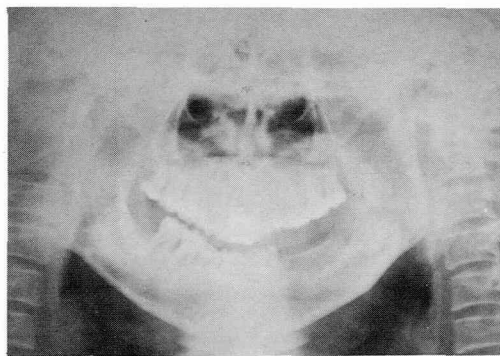


図8：オーソパントモグラフ

検査所見：

血液一般検査

赤血球数 $543 \times 10^4 / \text{mm}^3$

白血球数 $5900 / \text{mm}^3$

血色素量 14.7 g/dl

ヘマトクリット値 49 %

血液化学的検査

黄疸指数 5

TTT 2.97U

ZTT 11U

総コレステロール 200 mg/dl

ALP 8.7KAU

GOT 40KAU

GPT 45KAU

LDH 35WU

chE (—)

総蛋白 7 g/dl

血糖 75 mg/dl

尿検査

比重 1.012

pH 6.0

蛋白質 (—)

糖 (—)

ケトン体 (—)

潜血 (—)

臨床診断：左側下顎エナメル上皮腫

処置ならびに経過：直ちに局所麻酔のもとに瘻孔部より試験切除を行ない病理検査に供した所、エナメル上皮腫の診断を得、昭和50年3月14日全身麻酔下にて左下顎骨部分切除術を行なった。現在術後19ヶ月にて再発も認めず予後経過良好である。

切除骨所見：切除骨は頬舌的に軽く膨隆しており、舌側皮質骨板は菲薄であるが頬側皮質骨板は比較的厚い。遠心歯槽頂にて病巣は歯槽骨を破壊し露出していた。病巣は暗赤色の軟組織よりなり周囲骨との区別は明瞭であった（図9）。

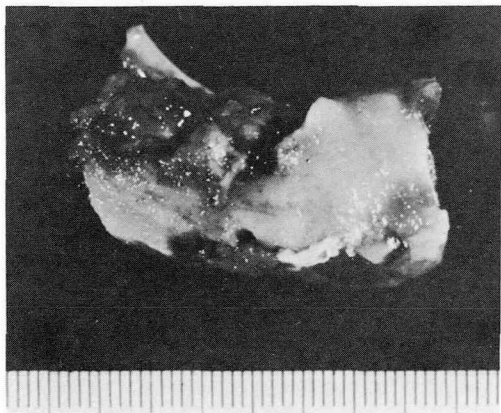


図9：摘出材料

病理組織学的所見：緻密に形成された古い結合組織により周囲骨とは境され周囲骨組織では病巣側で新生骨の層を一層認めた(図10). 古い結合組織に



図10：摘出した腫瘍と切除骨

取り囲まれた中央部では、著明な炎症細胞の浸潤を伴った部分が存在した。

腫瘍胞巣は切除骨の遠心歯槽相当部に限局し緻密に形成された結合組織に取り囲まれていた。これらは、いわゆる網状型の胞巣を形成し実質成分に富む部分と(図11, 12, 13), そうでない部分に分けられた。

実質細胞は間質に接する部分で明らかに立方形を呈するが(図13), 比較的扁平上皮に近い多角形の細胞形態をとるものが多く胞巣は概ねこの多角形の細胞より構成されていた(図11, 12). 実質成分の多い部分では腫瘍細胞に取り囲まれた間質は硝子化を来し、無構造なものあるいはこの硝子化部に赤血球を封入するものが見られた(図13). 一般に間質は拡張した血管に富み間質結合組織は極めて少なかった。腫瘍実質内に点在する網眼状の間質が小血管により占有されいわゆるエナメル上皮血管腫 ameloblastic hemangioma の像を呈している部分も認められた(図11). さらに実質が扁平上皮化生を起しそれが囊胞化するいわゆる星状細胞囊胞Ⅲ型(図11)や、腫大細胞が現われて囊胞化するいわゆる星状細胞囊胞Ⅱ型(図12)も観察できた。

考 察

エナメル上皮腫は歯胚上皮に由来する真性の歯系腫瘍でその発生は比較的稀なものとされている。しかしながら組織像の多様さと臨床的には再

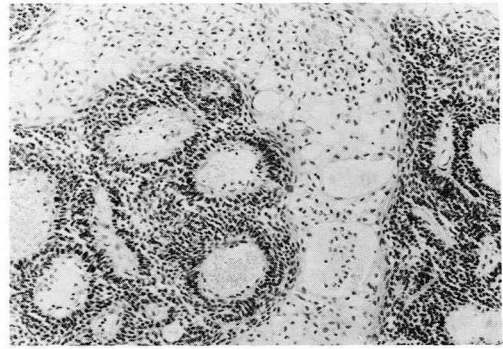


図11：網眼状の間質は小血管により占められている。上方から中央右側にかけて実質の扁平上皮化生、および小囊胞の形成がある。

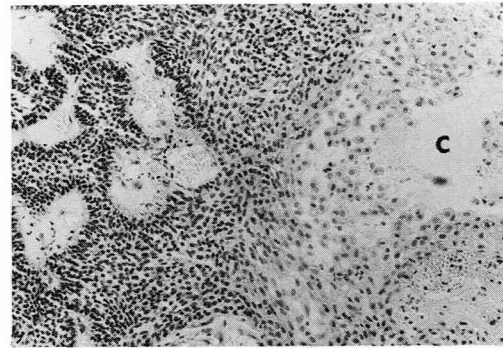


図12：腫瘍実質に腫大細胞が現われ囊胞(C)を形成している。

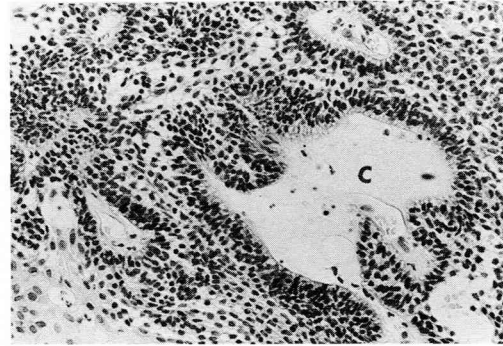


図13：実質基底細胞は骰子形で、間質は硝子化し、いわゆる間質囊胞(C)を作っている。

発、悪性化という点で興味深いものがあり従来多数の報告がある。

本疾患の臨床診断に際してはレントゲン像に依存する度合は極めて高いものである。多房像を呈

する症例では稀に他の顎骨腫瘍と鑑別し難い場合もあるが概ねさして困難を要しない。一方、単房性の像を呈する症例では歯根嚢胞など顎骨の嚢胞との鑑別に困難を来す場合が少なくない。大井⁹⁾

(1953)も之を指摘し、Bhasker¹¹⁾(1973)は最終的には生検にまつしかないと述べている。症例Ⅰではレントゲンにて境界明瞭な強い透過像を示す単房性に近い像を呈していたことと当科受診前数回にわたり穿刺排膿術を受けており感染の既往があることから周囲白線の消失が考慮され歯根嚢胞を疑った次第である。Eisenberg³⁾(1950)も同様な報告のなかでレントゲン像は歯根嚢胞と診断しうる所見を呈したと記載している。Thoma¹¹⁾(1960)は単房性エナメル上皮腫と歯源性嚢胞との鑑別点を挙げて嚢壁の詳細な相違、病巣内歯牙歯根の状態について述べている。しかしながら本症例の如く感染などの因子が加わることもあり、単房性の像を呈する場合レントゲンを中心とした臨床診断には限りがあると考えらる。

本腫瘍が極めて高い再発傾向を示すことは周知の事実で、幾多の統計的観察が行なわれている。そして臨床的な見地からその手術法と併せて種々論ぜられ手術方法に再発率が大きく左右されることが指摘されてきた。すなわち骨切除術を行なった場合と摘出搔爬術を行なった場合とでは骨切除術の場合が再発率が低いという意見が大勢のようである。しかしながらこのことは摘出搔爬術つまり外科的保存療法を一概に否定するものではない。寺崎¹⁰⁾(1959)、Castner²⁾(1967)等もむしろ単房性のエナメル上皮腫の場合には保存的に摘出すべきであると強調している。症例Ⅱでは17年前に同部のエナメル上皮腫の診断のもとに某大学病院にて外科的処置を受けた既往があり処置内容は定かでないが再発例と見做した。しかし再発と初回手術法との関連について言及出来ないのは残念である。

再発期間については、初回手術後、長期間経過して再発した例に深谷⁴⁾(1971)による15年後という報告がある。寺崎¹⁰⁾(1959)によれば60例余りの症例中最長30年観察を行ない16例に再発を見、15年以上で再発したものはなかったと記載し、極めて長期間の予後観察が必要であることを強調している。本症例においても予後5年間のfollow up 後完治した旨言い渡され観察を中止、

今回17年後に再発を来した訳である。このことから本腫瘍の予後観察は可及的長く少なくとも15年以上は定期的に行うことの必要性を痛感した。

病理組織学的には症例Ⅰは典型的なエナメル上皮腫の像を呈し、いわゆる宮崎・荒井⁸⁾(1939)のⅢ型に相当した。嚢胞については、壁を構成する上皮の配列および壁に連なる胞巣間の間質における硝子様無構造化などから考えて、石川⁵⁾(1969)の言う小さな嚢胞が漸次増大し、隣接するものが互いに連絡して、実質や間質を広範に液化消失させ、大きな嚢胞に発展したものと考えられる。

症例Ⅱは宮崎・荒井⁸⁾(1939)のⅠ型に相当するエナメル上皮腫で間質における内皮細胞の増殖と赤血球を豊富に容れた著明な管腔形成によるいわゆる血管腫様構造が特徴的であった。この様な間質に血管腫様変化を伴うものについて過去にはameloblastic hemangioma の名で歯源性混合腫瘍として取り扱われていた。しかしその後、石川・秋吉⁵⁾(1969)、Lucas⁷⁾(1972)等によりこれは単に間質における血管の拡張が著明になったにすぎないものであり、歯源性混合腫瘍として取り扱うことは妥当でないとした。またThoma¹¹⁾(1970)も本腫瘍をエナメル上皮腫と区別するには及ばないと述べ間質の変性現象に過ぎないと記載している。

本腫瘍が嚢胞を形成しやすい性質を持つことは周知の事実であるが、加藤⁶⁾(1973)はこの嚢胞を星状細胞嚢胞Ⅰ型(星状細胞の変性壊死によるもの)、同Ⅱ型(腫大細胞が現われてできるもの)、同Ⅲ型(扁平上皮様細胞が現われてできるもの)、膠質細胞嚢胞(膠質細胞の崩壊による)、顆粒細胞嚢胞(顆粒細胞の崩壊による)の5型に分けている。本症例Ⅰにおいて星状細胞嚢胞Ⅰ型、症例Ⅱにおいて星状細胞嚢胞Ⅱ型、同Ⅲ型が認められた。

結 論

われわれは、52歳および42歳の男性の下顎に発生したエナメル上皮腫の2症例を経験した。

臨床的に、第1例は歯根嚢胞を疑わせるレントゲン像を呈した点と、第2例は17年後に再発したものと見做されたことで興味があった。

病理組織学的には、2症例共にエナメル上皮腫

と診断され、更に第1例は嚢胞性の所見を示し、第2例はいわゆる ameloblastic hemangioma の所見を呈した。

文 献

- 1) Bhaskar, S. N. (1973) Synopsis of Oral Pathology. 3rd ed. 1—77. Mosby, St. Louis.
- 2) Castner, D. V. (1967) Intracystic ameloblastoma in the young patient. Oral Surg. 23:127—134.
- 3) Eisenberg, M. S. (1950) Adamantinohemangioma. Oral Surg. 3: 798—801.
- 4) 深谷昌彦 (1971) 上顎に発生した Adenoameloblastoma. 日口外誌. 17: 155—158.
- 5) 石川梧朗, 秋吉正豊 (1969) 口腔病理学. II, 908—960. 永末書店, 京都. 東京.
- 6) 加藤俊雄 (1973) Ameloblastoma における嚢胞形成に関する電子顕微鏡的観察. 歯科学報. 73: 1701—1752.
- 7) Lucas, R. B. (1972) Pathology of Tumours of the Oral tissues. 2nd ed. 30—57. Churchill Livingstone, London.
- 8) 宮崎吉夫, 荒井元正 (1939) 珪瑯上皮腫ノ組織由来ニ就テ. 口病誌. 13: 349—366.
- 9) 大井 清 (1953) 口腔外科学. 第1版. 140—142. 永末書店, 京都. 東京.
- 10) 寺崎太郎 (1959) エナメル上皮腫に関する臨床病理学的研究. 阪大歯誌. 4: 1277—1297.
- 11) Thoma, K. H., Goldman, H. M. (1960) Oral Pathology. 5th ed. 1171—1192. Mosby, St. Louis.