

症例報告 骨吸収を伴った周辺性エナメル上皮腫の1例

葎葉 清香* 朝倉眞莉子 宮本 姿也
頰彦 玲子 安田 有沙 鈴木麻衣子
八十 篤聡 鎌谷 宇明 代田 達夫

抄録：エナメル上皮腫は一般的には顎骨中心性に生じるが、まれに歯肉や顎骨周囲の軟組織に発生することがあり、これを周辺性エナメル上皮腫と呼称している。今回われわれは下顎歯肉に生じ、骨吸収を伴った周辺性エナメル上皮腫の1例を経験したのでその概要を報告する。患者は49歳の男性で、1か月前より下顎右側歯肉に腫瘤を自覚した。徐々に腫瘤の増大と接触痛を自覚するようになったため、近在歯科を受診したところ、精査加療を勧められ、当科を2014年4月に受診した。初診時、下顎右側第一小臼歯相当部の頬側歯肉に12mm大で境界明瞭な弾性硬の腫瘤を認めた。腫瘤表面粘膜はやや粗造となり白色を呈しており、触診時に圧痛を認めた。口内法X線写真およびパノラマX線写真において下顎右側第一小臼歯近心に不定形でやや境界不明瞭なX線透過像を認めた。2015年1月に局所麻酔下にて右側下顎歯肉腫瘍摘出術を施行した。腫瘍は骨膜を含め一塊として摘出した。術中の所見として、腫瘍に接する下顎骨の吸収を認めた。病理組織学的に、上皮成分と粘液様の基質を伴った線維性結合組織の間質成分を認めた。間質内には叢状に増殖するエナメル上皮類似細胞、内部にはエナメル随様の網状配列が認められた。歯肉に限局して生じた病変であり、顎骨内病変が認められなかったため、確定診断は周辺性エナメル上皮腫とした。現在、術後4年が経過したが、再発もなく経過良好である。

キーワード：周辺性エナメル上皮腫、骨吸収、下顎歯肉

緒言

周辺性エナメル上皮腫はStanleyら¹⁾により提唱されたまれな歯原性腫瘍であり、骨内に発生するエナメル上皮腫と同様の組織学的特徴を有し、かつ顎骨と離れた歯肉などの軟組織に生じ腫瘤状に増殖しているものと定義されている。周辺性エナメル上皮腫では、骨の吸収は無いが、あっても骨の表層のみが圧迫吸収される程度で、著明な骨吸収や骨内への浸潤はみられない^{2,3)}。今回われわれは骨吸収を伴った周辺性エナメル上皮腫の1例を経験したので報告する。

症例

患者：49歳，男性。

初診：2014年4月。

主訴：下顎右側歯肉の腫瘤。

既往歴：特記事項なし。

家族歴：特記事項なし。

現病歴：1か月前より下顎右側歯肉に腫瘤を自覚した。徐々に腫瘤の増大と接触痛を自覚するようになったため、近在歯科を受診したところ、精査加療を勧められ、当科を紹介受診した。

現症：

全身所見：体格，栄養状態は良好であった。

口腔外所見：特記すべき異常所見は認めなかった。

口腔内所見：下顎右側第一小臼歯相当部の頬側歯肉に12mm大で境界明瞭な弾性硬の腫瘤を認めた。腫瘤表面粘膜はやや粗造となり白色化しており、圧痛を認めた(写真1)。下顎右側犬歯と第一小臼歯



写真 1 口腔内所見

下顎右側第一小白歯相当部の歯肉に 12 mm 大で境界明瞭な弾性硬の腫瘍を認める。腫瘍表面粘膜はやや粗造となり白色化している。



写真 3 手術時所見

右側下顎歯肉腫瘍を摘出後、腫瘍に接する下顎骨の吸収を認める。

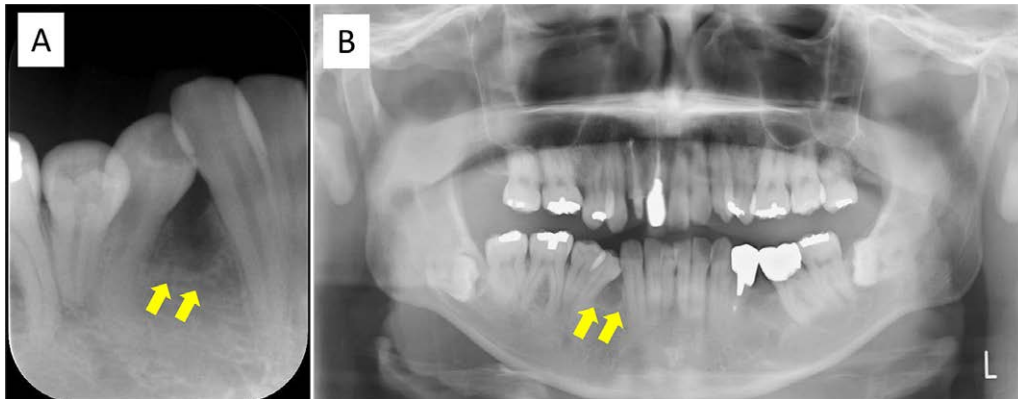


写真 2 X線所見

A：口内法 X線写真，B：パノラマ X線写真

口内法 X線写真，パノラマ X線写真で右側下顎第一小白歯近心に不定形でやや境界不明瞭な X線透過像を認める。

は歯髄診断で生活反応を認めた。

X線所見：口内法 X線写真およびパノラマ X線写真において下顎右側第一小白歯近心に不定形でやや境界不明瞭な X線透過像を認めた（写真 2）。

初診時臨床診断：下顎右側歯肉腫瘍。

処置および経過：2015 年 1 月，局所麻酔下にて下顎右側歯肉腫瘍切除術を施行した。腫瘍の臨床症状よりエプーリスまたは乳頭腫を疑い，腫瘍周囲粘膜に約 2 mm の安全域を設け，骨膜を含め切除した。腫瘍に接した歯槽骨に X線所見に矛盾しない骨吸収を認めたため，同部の骨を一層削除した（写真 3）。術後創部は上皮化し，現在 4 年が経過しているが，再発は認めていない。

病理組織学的所見：

H-E 染色所見；上皮成分は被覆する口腔粘膜と一部で連続的に移行し，間質には粘液様の基質を伴った線維性結合組織を認めた。また，叢状に増殖するエナメル上皮類似細胞，内部にはエナメル随様の網状配列が認められた。さらに，一部に扁平上皮化生，角化，石灰化が認められた（写真 4）。

病理組織学的診断：周辺性エナメル上皮腫。

考 察

2017 年の WHO 分類によりエナメル上皮腫は，単嚢胞型，骨外性 / 周辺性，転移性エナメル上皮腫と分類され，顎骨外にみられる周辺性エナメル上皮腫

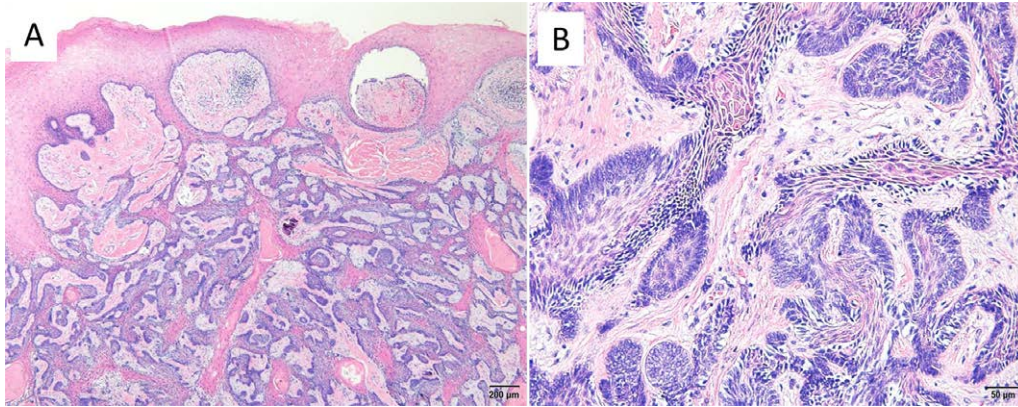


写真 4 病理組織像 (H-E 染色)

A: × 10, B: × 200

上皮成分は被覆する口腔粘膜と一部で連続的に移行し、間質には粘液様の基質を伴った線維性結合組織を認める。また、叢状に増殖するエナメル上皮類似細胞、内部にはエナメル随様の網状配列が認められる。

表 1 本邦における X 線骨吸収を伴った周辺性エナメル上皮腫の症例報告

No.	報告者	報告年	年齢 / 性別	発生部位	臨床診断	大きさ (mm)	組織型	上皮連続性	骨処置	再発
1	拓植ら ⁷⁾	1967	37 / 男性	上顎前歯部	歯周炎	7	記載なし	記載なし	なし	なし
2	宮本ら ⁸⁾	1982	41 / 女性	上顎前歯部	上顎腫瘍	20	叢状型	あり	骨切除	なし
3	高井ら ⁹⁾	1982	71 / 男性	下顎前～小白歯	歯原性腫瘍	20	棘細胞型	なし	骨切除	なし
4	山下ら ¹⁰⁾	1987	46 / 女性	下顎前～小白歯	良性腫瘍	25	叢状型	記載なし	なし	なし
5	大内田ら ¹¹⁾	1992	81 / 女性	上顎結節	記載なし	40	叢状型	あり	なし	なし
6	河野ら ¹²⁾	1992	37 / 女性	下顎小白歯	良性腫瘍	15	棘細胞型	なし	骨切除	なし
7	秋葉ら ¹³⁾	1995	58 / 男性	下顎前～小白歯	良性腫瘍	7	濾胞型	あり	骨切除	なし
8	宮嶋ら ¹⁴⁾	2001	76 / 男性	上顎前歯	良性腫瘍	18	濾胞型	あり	なし	あり
9	藤井ら ¹⁵⁾	2003	56 / 女性	下顎大白歯	良性腫瘍	10	濾胞型	記載なし	骨切除	なし
10	三浦ら ¹⁶⁾	2004	73 / 男性	下顎前～小白歯	エプーリス	40	棘細胞型	あり	骨削除	なし
11	金澤ら ¹⁷⁾	2011	76 / 男性	下顎大白歯	下顎腫瘍	30	濾胞型	あり	骨削除	なし
12	藤田ら ¹⁸⁾	2013	73 / 女性	下顎小白歯	良性腫瘍	20	棘細胞型	あり	なし	なし
13	自験例	2015	49 / 男性	下顎小白歯	エプーリス	12	叢状型	あり	骨削除	なし

はエナメル上皮腫全体の 1.3 ~ 10%とされている⁴⁾。

Philipsen ら⁵⁾ は日本人症例 74 例を含む 160 症例の周辺性エナメル上皮腫の病態を検討し、年齢分布は 50 歳代から 70 歳代での発生が全体の 63.7%を占め、平均年齢は 52.1 歳と報告している。男女比は 1.9 : 1 であり男性に多く、発生部位では、下顎小白歯部が最も多く (32.6%)、ついで下顎前歯部 (20.7%)、下顎大白歯部 (18.5%)、上顎大白歯部 (17.8%)、上顎小白歯部 (5.9%)、上顎前歯部 (4.4%) と続くと

報告している。若年者に多く発症する顎骨内のエナメル上皮腫と比較し²⁾、好発年齢の高い点が本疾患の特徴として挙げられる。自験例についても、49 歳男性の右側下顎小白歯部に発生した症例であり、従来の報告と好発年齢、好発部位共に一致していた。

本腫瘍は無痛性で外方性増殖を示す弾性硬の腫瘤である。X 線所見で骨吸収像はないか軽度の圧迫吸収を認める程度で骨髄に達する著明な骨吸収像は認めないとされている^{2,3,6)}。われわれが渉猟し得た本

邦における X 線骨吸収を伴った周辺性エナメル上皮腫の報告例は、1967 年から 2015 年までの 48 年間に於いて 13 例であった (表 1)⁷⁻¹⁸⁾。臨床症状として特徴的な所見に乏しく、また表在性病変のため、腫瘍が比較的小さい早期のうちに発見されやすいことから、初診時臨床診断として、エプーリスや良性腫瘍と診断されていた。自験例についても、境界明瞭な弾性硬の腫瘤であり、口腔粘膜を発生母地とする良性腫瘍として、エプーリスまたは乳頭腫を疑った。そのため、事前の生検はせずに全摘出を施行し、病理診断により偶発的にエナメル上皮腫の確定診断を得た。過去に自験例と類似の所見を呈した報告¹⁹⁻²²⁾と同様に、事前においてエナメル上皮腫を疑う所見には乏しかった。また、従来の報告では 20 mm 程度以上の比較的大きなものでは骨吸収を認めたとする報告が多い^{16,17)}が、自験例では 12 mm と比較的小さな大きさであった。

本症例の発生機序について、Kato^ら²²⁾は、顎骨内エナメル上皮腫と免疫組織染色での結果が同様であったことを踏まえ、口腔粘膜下に歯胚などの歯原性上皮が残遺して発生母地となると報告している。Aisenberg²³⁾や Villa²⁴⁾は、周辺性エナメル上皮腫の発生由来が歯原性上皮だけでなく、口腔粘膜上皮の粘膜下残遺の関与も指摘している。また、Takeda^ら²⁵⁾は、腫瘍と口腔粘膜上皮との連続性を認める症例が多く報告されていることから、上皮の基底細胞層から発生すると考えている。今回渉猟し得た報告例において、記載のあった 10 例中 8 例において口腔粘膜上皮と腫瘍との連続性が確認されている。自験例についても、口腔粘膜上皮と腫瘍との連続性を認めたため、武田らの説を支持する所見であったが、腫瘍の増大により二次的に腫瘍と上皮に連続性が生じるとする説²⁶⁾もあることから、その由来を言及することは難しいと思われる。

本症例は、外向性の境界明瞭な腫瘤であり、病理組織像からも周辺性エナメル上皮腫と診断可能な典型像であったため、免疫組織染色は行っていないが、基底細胞癌や基底細胞腺腫との鑑別のため CK19, Ber-EP4, Calretin の免疫組織染色が有効となる可能性がある。

治療方法としては一般的に周囲健全組織を含め切除が行われている。本腫瘍は浸潤能が低く最小限のマージンを含めた切除が望ましいとされているが¹¹⁾、

骨の削除に関しては明確な基準はない。骨の圧迫吸収をきたすことはあっても骨への浸潤能は低いとの意見がある一方で^{2,3)}、画像や術中所見上骨に吸収所見を認めるものについてはエナメル上皮腫本来の浸潤性を考慮し、骨削除や骨切除を行うべきとする意見もある^{13, 27)}。本症例では骨と腫瘍との剥離は容易であったが、術前の口内法 X 線写真およびパノラマ X 線写真で腫瘍相当部の骨吸収を認めたことと、術中の所見として骨の圧迫吸収を認めていたため腫瘍相当部の骨を一層削除した。本邦報告例では、13 例中 8 例 (61.5%) が腫瘍摘出に加え骨削除や切除などの骨への処置がおこなわれ、すべての症例に再発は認められなかった。一方、腫瘍部位の摘出のみが施行された症例は 5 例 (38.5%) であり、そのうち 1 例においては術後に再発が認められた。このことから、顎骨内のエナメル上皮腫だけでなく、周辺性エナメル上皮腫においても術前の X 線写真や術中の所見として骨吸収を認める症例については、骨削除や骨切除等の骨処置を要すると思われる。

予後については、一般的に経過良好とされているが^{12, 28)}、再発や遠隔転移による死亡例²⁹⁾も報告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る。

結 語

今回われわれは、骨吸収を伴った周辺性エナメル上皮腫の 1 例を経験したので、若干の文献的考察を加え報告した。

利益相反

本論文に関して開示すべき利益相反状態はない。

文 献

- 1) Stanley HR Jr, Krogh HW. Peripheral ameloblastoma: report of a case. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol.* 1959;12:760-765.
- 2) 石川梧朗, 秋吉正豊. エナメル上皮腫. 口腔病理学 II. 改訂版. 京都: 永末書店; 1982. pp462-480.
- 3) Buchner A, Sciubba JJ. Peripheral epithelial odontogenic tumors: a review. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol.* 1987;63:688-697.
- 4) 柴原孝彦. エナメル上皮腫の WHO 新分類 (2017) について 臨床の立場から. *日口腔科会誌.* 2019;68:189-195.
- 5) Philipsen HP, Reichart PA, Nikai H, et al. Pe-

- ripheral ameloblastoma: biological profile based on 160 cases from the literature. *Oral Oncol.* 2001;37:17-27.
- 6) Redman RS, Keegan BP, Spector CJ, *et al.* Peripheral ameloblastoma with unusual mitotic activity and conflicting evidence regarding histogenesis. *J Oral Maxillofac Surg.* 1994;52:192-197.
 - 7) 柘植精一, 柴田寛一, 磯貝貴彦. 歯肉に発生したエナメル上皮腫の1例. *日口腔科会誌.* 1967;16:395-397.
 - 8) 宮本博一, 岩坪敏江, 玉井健三. 上顎前歯部に発生した peripheral Ameloblastoma の1例. *日口腔科会誌.* 1982;31:300-306.
 - 9) 高井克憲, 山田長信, 水野和生, *ほか.* 周辺性エナメル上皮腫の1症例. *日口腔科会誌.* 1982;28:295-299.
 - 10) 山下敏康, 榎本道彦, 荒尾宗孝, *ほか.* 周辺性エナメル上皮腫の2症例. *日口腔科会誌.* 1987;33:76-82.
 - 11) 大内田美保, 田中俊一, 楠川仁悟, *ほか.* 高齢者の上顎にみられた周辺性エナメル上皮腫の1例. *日口腔外会誌.* 1992;38:1437-1438.
 - 12) 河野憲司, 水城春美, 柳澤繁孝, *ほか.* 歯槽骨浸潤を示した周辺性エナメル上皮腫の1例. *日口腔腫瘍会誌.* 1992;4:88-92.
 - 13) 秋葉正一, 関 陸弘, 鯨岡裕晃, *ほか.* 乳頭腫様の外観を呈した周辺性エナメル上皮腫の1例. *日口腔外会誌.* 1995;41:650-652.
 - 14) 宮嶋洋二郎, 柳川 徹, 遊佐 浩, *ほか.* 乳頭腫様の外観を呈した周辺性エナメル上皮腫の1例. *日口腔外会誌.* 2001;4:407-410.
 - 15) 藤井崇史, 植野高章, 石田展久, *ほか.* 周辺性エナメル上皮腫の1例と免疫組織化学的評価. *日口腔外会誌.* 2003;16:262-265.
 - 16) 三浦正資, 岡村和彦, 三輪邦弘, *ほか.* 比較的大きな周辺性エナメル上皮腫の1例. *日口腔外会誌.* 2004;50:376-379.
 - 17) 金澤輝之, 藤浪 恒, 鈴木慎太郎. 高齢者の下顎に発生した周辺性エナメル上皮腫の1例. *愛知学院大歯会誌.* 2011;49:99-102.
 - 18) 藤田源太郎, 道澤雅裕, 今井智章, *ほか.* 著明な顎骨吸収を伴った周辺性エナメル上皮腫の1例. *日口腔外会誌.* 2013;62:187-191.
 - 19) 加藤久視, 水澤伸仁, 坂本春生, *ほか.* 下顎小白歯歯肉に生じた周辺性エナメル上皮腫の1例. *日口腔外会誌.* 2004;50:83-86.
 - 20) 芝 良祐, 迫田隅男, 真鍋敏彦, *ほか.* 乳頭腫様増殖を示した周辺性エナメル上皮腫. *日口腔外会誌.* 1988;37:329-333.
 - 21) 玉城廣保, 安田順一, 谷口誠治. 周辺性エナメル上皮腫の1例. *日口腔外会誌.* 1966;42:85-87.
 - 22) Kato H, Ota Y, Sasaki M, *et al.* Peripheral ameloblastoma of the lower molar gingiva: a case report and immunohistochemical study. *Tokai J Exp Clin Med.* 2012;37:30-34.
 - 23) Aisenberg MS. Histopathology of ameloblastomas. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol.* 1953;6:1111-1128.
 - 24) Villa VG. A case of ameloblastoma derived from adult oral epithelium. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol.* 1953;6:1216-1223.
 - 25) Takeda Y, Kuroda M, Suzuki A. Ameloblastoma of mucosal origin. *Acta Pathol Jpn.* 1988;38:1053-1060.
 - 26) Small IA, Waldron CA. Ameloblastomas of the jaws. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol.* 1955;8:281-297.
 - 27) 中澤光博, 川本知明, 樋口均也, *ほか.* 周辺性エナメル上皮腫の2例 症例報告と文献的考察. *日口腔外会誌.* 1989;35:664-672.
 - 28) 田川新也, 乾真登可, 森 厚, *ほか.* 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. *日口腔外会誌.* 1996;45:62-66.
 - 29) Lin SC, Lieu CM, Hahn LJ, *et al.* Peripheral ameloblastoma with metastasis. *Int J Oral Maxillofac Surg.* 1987;16:202-204.

A CASE OF PERIPHERAL AMELOBLASTOMA WITH BONE RESORPTION

Sayaka YOSHIBA*, Mariko ASAKURA, Saya MIYAMOTO,
Reiko UTASATO, Arisa YASUDA, Maiko SUZUKI,
Atsutoshi YASO, Takaaki KAMATANI and Tatsuo SHIROTA

Abstract — Ameloblastoma originates from the odontogenic epithelium in the jawbone, but may rarely originate from the oral mucosal epithelium or gingival remnants, in which case it is called extraosseous or peripheral ameloblastoma. Here, we report a case of peripheral ameloblastoma of the lower gingiva with bone resorption. The patient was a 49-year-old man who had noticed a mass in his lower right gingiva one month earlier. He gradually became aware of increases mass size and contact pain as a subjective symptom. A local dentist referred him to our department in April 2014. At the first medical examination, a hard elastic mass with a well-defined boundary was found in the gingiva of the right lower first premolar area. The surface mucosa of the tumor was slightly coarse and white, and tenderness was noted on palpation. Dental radiographs and panoramic radiographs showed translucent shadows with an indefinite and slightly unclear margin at the mesial part in the area of the right lower first premolar. In January 2015, the tumor was removed under local anesthesia as a single mass, including the periosteum. Intraoperative observation revealed bone resorption of the mandible in contact with the tumor. Histopathologically, epithelial components and mucus-like matrix with stromal components of fibrous connective tissue were observed. Enamel epithelium-like cells proliferating in a plexiform manner were found in the stroma, and an enamel-like reticular array was found inside. The tumor was localized to the gingiva with no intramaxillary lesions, and the definitive diagnosis of peripheral ameloblastoma was made. Currently, 4 years have passed since the operation, and the patient's course has been good without recurrence.

Key words: peripheral ameloblastoma, bone resorption, lower gingiva

[Received January 24, 2020 : Accepted February 13, 2020]

Department of Oral Maxillofacial Surgery, School of Dentistry, Showa University (Chief: Prof. Tatsuo SHIROTA)

*To whom corresponding should be addressed