

症例報告

下顎に発生した埋伏歯を伴わない 腺腫様歯原性腫瘍の1例

朝倉真莉子¹⁾ 佐藤 仁^{*1)} 宮本 裘也²⁾
鈴木麻衣子²⁾ 笹間 雄志²⁾ 筑田洵一郎²⁾
瀧本 玲子²⁾ 嶋根 俊和¹⁾ 代田 達夫²⁾

抄録：腺腫様歯原性腫瘍はまれな歯原性腫瘍で、その多くは埋伏歯を伴い上顎骨内に生じる。今回われわれは下顎骨に生じた埋伏歯を伴わない腺腫様歯原性腫瘍の1例を経験したので報告する。症例は25歳、女性。1年程前より左側下顎犬歯部歯肉の腫脹が生じ、次第に増大してきたため精査・加療目的に当科を受診した。当科初診時には、左側下顎小白歯部の唇側歯肉に無痛性腫脹が認められた。パノラマ X 線および CT では、埋伏歯は認められず左側下顎犬歯と左側下顎小白歯の歯根間に 11×10×8 mm 大で内部に不透過像が点在する境界明瞭な透過性病変が認められた。下顎骨歯原性腫瘍の臨床診断の下、局所麻酔下に腫瘍摘出術を施行した。病理組織学的には、円柱状の腫瘍細胞が花冠状の細胞巣を呈しながら環状配列を示していた。腺管状構造を形成する部位では、その内部に硬組織片や小石灰化物を含んでいたことから、腺腫様歯原性腫瘍と診断した。術後2年が経過した現在、明らかな再発を示す所見は認められていない。埋伏歯を伴わない腺腫様歯原性腫瘍は Extrafollicular variant とされ、報告例が少ないことから、症例の蓄積が必要とされている。本腫瘍の再発はきわめてまれとされているが、今後も慎重な経過観察を行う予定である。

キーワード：腺腫様歯原性腫瘍，下顎，小白歯部，歯根間，Extrafollicular variant

緒言

腺腫様歯原性腫瘍 (adenomatoid odontogenic tumor: AOT) は歯原性ならびに顎顔面骨腫瘍の WHO 分類において、腺管様構造を持つ良性上皮性歯原性腫瘍と定義されている¹⁾。発生率は歯原性腫瘍の中でも5%以下とまれであり¹⁾、10～20歳代の女性の上顎前歯部に多く発生する¹⁻³⁾。埋伏歯を伴わない AOT は、成因や病態について不明な点が多く、症例の蓄積が必要とされている³⁾。今回われわれは、下顎犬歯部に発生した埋伏歯を伴わない腺腫様歯原性腫瘍の1例を経験したので、報告する。

症例

患者：25歳、女性。

主訴：左側下顎犬歯および第一小白歯部の歯肉腫脹。

既往歴・家族歴：特記すべき事項なし。

現病歴：患者は、約1年前より左側下顎犬歯および第一小白歯の歯肉腫脹を自覚し、徐々に増大してきたため、近在歯科医院を受診した。パノラマ X 線写真にて、左側下顎骨に透過像が認められたため、精査・加療目的に当科を紹介され、受診した。

現症：

全身所見：栄養状態は良好。

口腔外所見：顔貌は左右対称であった。

口腔内所見：左側下顎犬歯と第一小白歯間の頬側歯肉に弾性硬の腫瘤が認められた。周囲粘膜に炎症所見は認められず、自発痛や咬合痛はなかった(写真1)。

画像所見：パノラマ X 線写真では左側下顎犬歯・第一小白歯の歯根間に 11×10×8 mm の透過像が認められた(写真2)。CT で内部に不透過像を伴う

¹⁾ 昭和大学歯学部口腔外科学講座口腔腫瘍外科学部門

²⁾ 昭和大学歯学部口腔外科学講座顎顔面口腔外科学部門

* 責任著者

〔受付：2020年5月13日，受理：2020年6月10日〕



写真 1 初診時口腔内所見
左側下顎犬歯および小白歯間の頬側歯肉に骨膨隆が認められる。

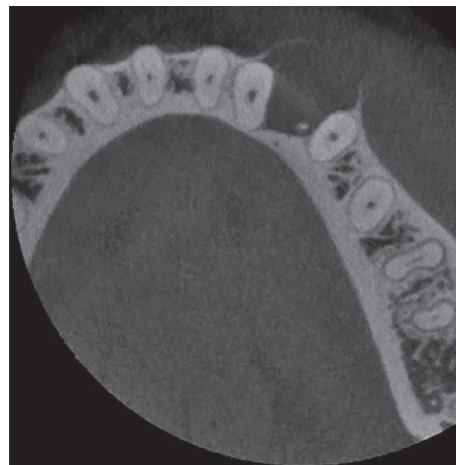


写真 3 CT (初診時)
左側下顎犬歯および第一小白歯間に嚢胞様透過像と内部に11×10×8 mmの透過像が認められ、内部には顆粒状の不透過像が認められる。



写真 2 パノラマ X 線写真 (初診時)
両側下顎側切歯が欠損しており、左側下顎犬歯と左側下顎小白歯間に透過像が認められる。埋伏歯はなく、左側下顎犬歯と左側下顎小白歯の根は離開している。



写真 4 パノラマ X 線写真 (術後1年)
明らかな再発所見はなく、新生骨の増生が認められる。

境界明瞭な単房性透過像が認められ、頬側皮質骨は菲薄化していた (写真3)。病変の両隣在歯の歯根は離開していたが、歯根吸収は認められなかった。

臨床診断：左側下顎骨歯原性腫瘍。

処置および経過：局所麻酔下にて左側下顎骨腫瘍摘出術を施行した。病変は被膜を有しており、一塊として容易に摘出が可能であった。両隣在歯は保存し、周囲骨をラウンドバーにて一層削除した後、創を完全に閉鎖し、手術を終了した。術後2年が経過した現在、明らかな再発を示す所見は認められていない (写真4)。

病理組織学的所見：病変は厚い線維性被膜を有し (写真5A)、内部には腺管状構造を形成する腫瘍細

胞の増殖が認められた。円柱状の腫瘍細胞が環状配列を呈し、一部では花冠状を呈していた。その周囲には骨・セメント質様硬組織片や小石灰化物が認められた (写真5B)。

病理組織学的診：左側下顎骨腺腫様歯原性腫瘍。

考 察

AOTの臨床所見や画像所見は、含歯性嚢胞やエナメル上皮腫に類似しており、術前の臨床診断においてAOTと診断されることはほとんどない⁴⁾。本症例では、上記疾患以外にも、病変内部に不透過像が認められたことから、石灰化歯原性嚢胞や石灰化上皮性歯原性腫瘍などが鑑別診断としてあげられた。エナメル上皮腫では、病変に近接する歯の抜歯

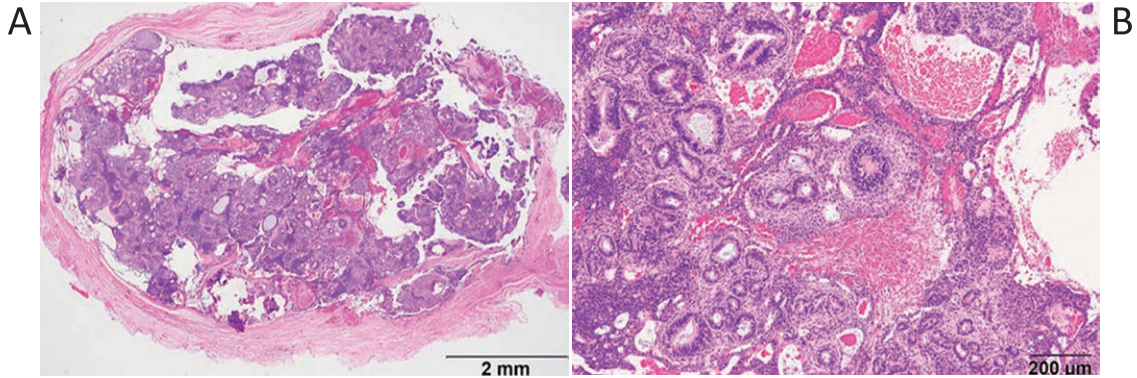


写真 5 病理組織像

- A：弱拡大（H-E 染色，×20）．病変は厚い線維性被膜によって被覆され，内部には腺管構造を有する腫瘍細胞の増殖が認められる．
 B：花冠状構造（H-E 染色，×100）．円柱状の腫瘍細胞が花冠状の環状配列を呈する部位があり，その周囲には骨・セメント質様硬組織片や小石灰化物が認められる．

表 1 本邦における下顎に生じた Extrafollicular variant の報告例

No.	報告者	報告年	年齢	性別	部位	細分類	欠損歯
1	滝川ら ⁶⁾	1970	23	女	#42-45	E2	なし
2	伊賀ら ⁷⁾	1976	44	男	#41-44	分類不能	あり
3	亀山ら ⁸⁾	1985	24	女	#42-44	E2	なし
4	大山ら ⁹⁾	1986	16	女	#41-42	E2	なし
5	小木ら ¹⁰⁾	1989	34	男	#34-41	分類不能	なし
6	森田ら ¹¹⁾	1996	29	男	#42-44	不明	不明
7	森田ら ¹¹⁾	1996	44	男	#41-44	不明	不明
8	村上ら ¹²⁾	2002	20	女	#44-45	E2	なし
9	自験例	2020	25	女	#33-34	E2	あり

や辺縁切除術などの根治的的外科治療が適応となるが，本症例では，病変が約 10 mm と小さく，組織生検を兼ねた摘出術による顎骨保存療法を選択した．病変の両隣在歯は，摘出時に腫瘍が周囲骨から容易に剥離できたため保存した．本腫瘍は若年の女性の前歯部に発生することが多く，術後の審美性についても考慮する必要がある．歯槽突起部に生じた本腫瘍を摘出する場合には，支持歯槽骨の欠損による歯肉退縮などの審美障害が生じる可能性もある．本症例では，腫瘍径が小さく，欠損部への骨増生も良好であったため，術後の歯肉退縮などの問題は生じていない．腫瘍径が大きく，支持歯槽骨の欠損に伴う歯肉退縮が予想される場合には，腸骨海綿骨細片の移植術や骨誘導再生療法などを併用する必要があると考えられた．

AOT はその発生様式によって，埋伏歯を含む Follicular variant，埋伏歯を含まない Extrafollicular variant，顎骨外の軟組織に発生する Peripheral variant に分類される²⁾．各 variant の発生率は，Follicular variant が約 7 割で，埋伏歯を含まない Extrafollicular variant は約 2 割，Peripheral variant は 1 割未満と報告されている²⁾．本症例は，顎骨内に発生しており，埋伏歯を伴わないことから，Extrafollicular variant と考えられた．Philipsen らは，AOT の典型例である埋伏歯に関連する Follicular variant はすでに十分な症例の蓄積があるため，症例報告の必要はないとし，本症例のような Extrafollicular variant や peripheral variant は症例の蓄積が必要と述べている³⁾．Extrafollicular variant は，約半数が下顎に発生し，本症例と同様に小白歯の近

傍に発生することが多い⁵⁾。Extrafollicular variant はさらに E1 (歯牙に関係しない), E2 (歯根間に存在し, 両隣在歯の離開を伴う), E3 (根尖と重複する) および E4 (根の中間に重複する) に細分化される²⁾。われわれの渉猟し得た限り, 本邦で下顎に生じた AOT Extrafollicular variant の報告は 8 例あり, E2 に分類可能な症例は自験例を含めて 5 例であった (表 1)⁶⁻¹²⁾。5 例中 3 症例で, 病変の摘出とともに両隣在歯の抜歯が行われているが⁶⁻⁹⁾, 村上らは両隣在歯を保存しても予後が良好であったことを報告している¹²⁾。本症例においても, 両隣在歯は保存し, 腫瘍の摘出・搔爬のみで良好な結果が得られた。E2 では, 病変が両隣在歯の歯根間に存在するため, 隣在歯の抜歯は予後のみならず術後の審美障害に寄与することから, 今後は, AOT Extrafollicular variant の細分類に基づいた報告の蓄積が必要と考えられた。

本腫瘍が真の腫瘍かどうかについては諸説あり¹³⁻¹⁵⁾, AOT の発生部位には歯の先天欠如や埋伏歯のエナメル質形成異常が認められないことから, 永久歯胚の歯堤の残遺上皮から本腫瘍が生じる可能性が考えられている⁸⁾。前述の下顎に生じた AOT E2 の本邦における過去の報告例^{6, 8, 9, 12)} では, 歯の先天欠如が認められておらず, 歯根膜に遺残した歯原性上皮が腫瘍化したものと考えられる。一方, 本症例では左側下顎側切歯が欠如しており, 残遺したエナメル器の中間層細胞が発生の寄与因子である点についても考慮する必要があると考えられた¹³⁻¹⁵⁾。AOT E2 の歯根離開は, 歯槽突起部に発生した本腫瘍の増大とともに徐々に両隣在歯が圧排されることが原因と考えられている¹⁰⁾。しかしながら, 本症例では 10 mm 程度の病変でありながら, 歯根離開が認められ, 下顎左側犬歯と第一小白歯の歯冠隣接面にも空隙が認められる。よって, 欠損している下顎側切歯のエナメル器に由来する本腫瘍が両隣在歯の発生段階から存在している可能性が示唆された。

AOT E2 の発生原因は現在も不明な点が多く, 適切な手術法や予後についても確立された見解はない¹⁶⁾。本症例では, 腫瘍の完全摘出を伴う顎骨保存療法を施行し, 2 年が経過した現在も, 明らかな再発は認められていない。AOT が良性腫瘍であり, 境界明瞭な病変であること, 再発率が低いこと, などから適切な治療が行われたと考えられるが^{5, 16)}, 長期経過後

に再発を認めたと考えられる症例もある^{17, 18)}。下顎に発生した AOT は侵襲性が高いとする報告もあることから¹⁹⁾, 今後も慎重な経過観察を行う予定である。

結 語

今回われわれは下顎に発生した埋伏歯を伴わない腺腫様歯原性腫瘍に対し, 顎骨保存療法を施行した 1 例を経験したのでその概要を報告した。本症例のように埋伏歯を伴わない Extrafollicular variant は報告例が少ないため, 発生原因や予後については不明な点が多い。本症例は, 欠損歯のエナメル器由来の可能性が示唆された。明らかな再発はなく経過しているが, 今後も慎重な経過観察を行う予定である。

本論文の要旨は, 2018 年 12 月 15 日に開催された第 206 回公益社団法人日本口腔外科学会・関東支部学術集会 (東京) において発表した。

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) Wright JM, Kusama K. Adenomatoid odontogenic tumour. In *El-Naggar AK, Chan JKC, eds. WHO Classification of Head and Neck Tumours. 4th ed.* Lyon: IARC Press; 2017. pp221-222.
- 2) Philipsen HP, Reichart PA. Adenomatoid odontogenic tumor: facts and figures. *Oral Oncol.* 1999;35:125-131.
- 3) Philipsen HP, Reichart PA, Siar CH, et al. An updated clinical and epidemiological profile of the adenomatoid odontogenic tumour: a collaborative retrospective study. *J Oral Pathol Med.* 2007;6:383-393.
- 4) 佐藤泰則, 埜口五十雄, 安藤俊史, ほか. 下顎前歯部に発生した腺様歯原性腫瘍の 1 例. *日口腔腫瘍会誌.* 1996;8:67-74.
- 5) Chrcanovic BR, Gomez RS. Adenomatoid odontogenic tumor: an updated analysis of the cases reported in the literature. *J Oral Pathol Med.* 2019;48:10-16.
- 6) 滝川富雄, 飯田喜八郎, 高沢延幸, ほか. 下顎に生じた腺様エナメル上皮腫の 1 例. *日大歯学.* 1970;44:868-873.
- 7) 伊賀成知, 松本喜雄, 中野完次, ほか. 腺エナメル上皮腫の 1 例. *日口腔外会誌.* 1976;22:864-867.
- 8) 亀山忠光, 川嶋龍一, 田中勝巳, ほか. 腺様歯原性腫瘍の 1 例 腫瘍内石灰化物の形態的, 物理化学的検討. *日口腔科会誌.* 1986;35:271-277.

- 9) 大山 茂, 福地康浩, 藤原康次, ほか. 下顎前歯部に発生した腺様歯原性腫瘍の1例. 日口腔外会誌. 1986;32:279-284.
- 10) 小木信美, 大辻 清, 下郷和雄, ほか. 類象牙質の形成を伴った腺様歯原性腫瘍の1例. 日口腔外会誌. 1989;35:745-754.
- 11) 森田章介, 有家 巧, 中嶋正博, ほか. 腺様歯原性腫瘍に関する臨床的検討. 日口腔外会誌. 1996;42:1067-1069.
- 12) 村上友則, 加藤恵三, 土井田 誠, ほか. 下顎小白歯部に発生した腺様歯原性腫瘍の1例. 岐阜大医紀. 2001;49:68-71.
- 13) 川口 泰, 高橋浩師, 北川善政. 腺腫様歯原性腫瘍の1例. 日口腔診断会誌. 2014;27:237-240.
- 14) Philipsen HP, Samman N, Ormiston IW, *et al.* Variants of the adenomatoid odontogenic tumor with a note on tumor origin. *J Oral Pathol Med.* 1992;21:348-352.
- 15) Thakur A, Tupkari JV, Joy T, *et al.* Adenomatoid odontogenic tumor: What is the true nature? *Med Hypotheses.* 2016;97:90-93.
- 16) La Monaca G, Pranno N, di Gioia CRT, *et al.* Surgical management of extrafollicular variant of adenomatoid odontogenic tumor in the maxillary posterior region. *Case Rep Dent.* 2019; 2019:3787696. (accessed 2020 Apr 19) <https://www.ncbi.nlm.nih.gov/pmc/articles/PMC6374874/pdf/CRID2019-3787696.pdf>
- 17) 深谷昌彦, 佐藤弘喜, 馬越秀雄, ほか. 上顎に発生した Adenoameloblastoma の1例. 日口腔外会誌. 1971;17:155-158.
- 18) Ide F, Matsumoto N, Miyazaki Y, *et al.* Recurrence of adenomatoid odontogenic tumor. *J Oral Pathol Med.* 2019;48:96-97.
- 19) Shaikh S, Bansal S, Desai RS, *et al.* Aggressive adenomatoid odontogenic tumor of the mandible: a rare case report and review of the literature. *J Oral Maxillofac Pathol.* 2018;22(Suppl 1):S11-S15.

A CASE OF EXTRAFOLLICULAR ADENOMATOID ODONTOGENIC TUMOR DEVELOPED IN THE MANDIBLE

Mariko ASAKURA¹⁾, Hitoshi SATO*¹⁾, Saya MIYAMOTO²⁾,
Maiko SUZUKI²⁾, Yuji SASAMA²⁾, Junichiro CHIKUDA²⁾,
Reiko TAKIMOTO²⁾, Toshikazu SHIMANE¹⁾ and Tatsuo SHIROTA²⁾

Abstract — Adenomatoid odontogenic tumor (AOT) is classified as a rare, benign odontogenic tumor. AOT is more commonly developed in the maxilla with an impacted tooth. In this study, we described a rare case of AOT developed in the mandible without an impacted tooth. A 25-year-old Japanese female had been aware of gum swelling affecting the mandibular premolar region. Due to the development of the gum swelling, she was referred to our hospital for clinical attention. At the initial visit to our hospital, the swelling in the buccal gingiva at the left lower canine and first premolar region was not associated with any pain. Panoramic X-ray and CT exhibited absence of any impacted tooth and a 12 × 10 × 10 mm-well-circumscribed radiolucent mass with points like radiopacity at the inter-radicular area between the left mandibular canine and the first premolar. Initial clinical diagnosis of the case was a mandibular benign tumor, and it was conservatively treated by surgical enucleation and curettage. Moreover, histopathological findings showed nodules with a columnar epithelium with variably sized rosette- or duct-like spaces. Around these duct-like spaces are small foci of calcification. Thus, we finally diagnosed this lesion as adenomatoid odontogenic tumor. There were no signs of recurrence for 2 years after the procedure. Cases of AOT with no impacted tooth are defined as extrafollicular variant, and only few cases have been reported of this variant. More knowledge about extrafollicular variant of AOT needs to be explored. Although recurrence rates of AOT are exceedingly low, careful and sustained follow-up is still highly recommended.

Key words: adenomatoid odontogenic tumor, mandible, premolar region, extrafollicular variant, inter-radicular

[Received May 13, 2020 : Accepted June 10, 2020]

¹⁾Division of Oral Oncology, Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Showa University, School of Dentistry

²⁾Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Showa University School of Dentistry

* To whom corresponding should be addressed