

— 臨床 —

上顎洞を占有した腺様歯原性腫瘍の1症例

— 病理組織学および免疫組織化学的検索と文献的考察 —

堀野 一人¹⁾, 大西 真²⁾, 村田 雅史³⁾⁴⁾, 朔 敬³⁾

1) 新潟県立吉田病院歯科口腔外科 (主任: 堀野一人医長)

2) 長岡赤十字病院歯科口腔外科 (主任: 大西 真部長)

3) 新潟大学歯学部口腔病理学講座 (主任: 朔 敬教授)

4) 新潟大学歯学部歯科保存学第二講座 (主任: 原 耕二教授)

(受付: 平成8年5月15日; 受理: 平成8年6月7日)

Adenomatoid odontogenic tumor occupying maxillary sinus:
a case report with histopathologic study and review of the
literatureKazuhito HORINO¹⁾, Makoto OHNISHI²⁾, Masashi MURATA³⁾⁴⁾,
Takashi SAKU³⁾1) *Department of Dentistry and Oral Surgery, Niigata prefectural Yoshida Hospital*
(Chief: Dr. Kazuhito HORINO)2) *Department of Dentistry and Oral Surgery, Nagaoka Red Cross Hospital*
(Chief: Dr. Makoto OHNISHI)3) *Department of Oral Pathology, Niigata University School of Dentistry*
(Chief: Prof. Takashi SAKU)4) *Department of Periodontology, Niigata University School of Dentistry*
(Chief: Prof. Kohji HARA)

(Received on May 8, 1996; Accepted on June 7, 1996)

Key words: Adenomatoid odontogenic tumor (腺様歯原性腫瘍), Maxillary sinus (上顎洞), Histopathological findings (病理組織学的所見), Immunohistochemical findings (免疫組織化学的所見)**Abstract:** We report a case of adenomatoid odontogenic tumor in the maxillary bone. The patient was an 11-year-old girl who complained of cheek swelling. X-ray examination revealed that the tumor involved an impacted canine in its cystic lesion and occupied most of the space of left maxillary sinus, and contained microcalcifications. The lesion was extirpated under general anesthesia and examined histopathologically, to be diagnosed as adenomatoid odontogenic tumor. On histologic examination, it showed characteristic duct-like structures and whorled or rosette masses of tumor cells. The rim and amorphous contents of duct-like structures and eosinophilic droplets among solid nests of columnar cells were much of eosinophilic and argyrophilic materials. In immunohistochemical staining, they also showed strong immunoreactivity for heparan sulfate proteoglycan, laminin, and collagen type IV.**要旨:** 11歳, 女兒に認められた腺様歯原性腫瘍の1症例を報告する。主訴は頬部の腫脹で, X線診査で左側上顎洞部に埋伏犬歯と小石灰化物を含む嚢胞様病変を認めた。全身麻酔下, 病変を摘出し, 病理組織学的検索を行った。腺様歯原性腫瘍の病理診断が得られ, 特徴的な管腔様構造と塊状胞巣を認めた。管腔様構造内面の縁取りと内部の無定

型内容物及び充実性胞巣内滴状物は好酸性及び好銀性多糖類に富み、また、免疫染色ではヘパラン硫酸プロテオグリカン、ラミニン、IV型コラーゲンに強陽性であった。

結 言

腺様歯原性腫瘍は口腔外科領域において認められる歯原性腫瘍の中では比較的稀なものとされている。今回、私たちは上顎洞を占有した腺様歯原性腫瘍の1症例を経験したので病理組織学および免疫組織化学的検索を行い、かつ、若干の文献的考察を含めて報告する。

症 例

患者：11歳 女性

初診：1994年4月27日

主訴：左側頬部の無痛性腫脹

既往歴：特記事項なし

家族歴：特記事項なし

現病歴：初診の1週間ほど前に左側頬部の無痛性腫脹に気づいた。放置していたが縮小しないため心配になり当院小児科を受診、当科を紹介された。

口腔外所見：体格は高度肥満(肥満度50%)、顔貌は左右非対称、左側鼻翼にびまん性の腫脹を認めた。臨床検査では肥満と脂肪肝による肝機能の異常を認めたが、他は特記事項を認めなかった。

口腔内所見：[3]を除いた永久歯27歯が萌出し、[C]が残存していた。[1-5]部頬側に半球状の骨膨隆を認めたが表面粘膜は正常であった。硬さは骨様硬で、中央部は羊皮紙様を呈しており、圧痛は認めなかった。当該歯牙には動揺や打診痛は認めず、全て生活歯であった。

X線所見：オルソパントモグラフィにて梨状口の左外側縁に鶏卵大で境界明瞭、類円形のX線透過像を認め、内部に[3]と思われる埋伏歯を含んでいた。[C 4567]の根尖も含んでいたが、歯根吸収は認めなかった(写真1)。CTでは眼窩下縁に至る大きな嚢胞様病変を認め、点状の石灰化物を多数認めた(写真2)。

臨床診断：石灰化を伴った歯原性嚢胞あるいは腫瘍

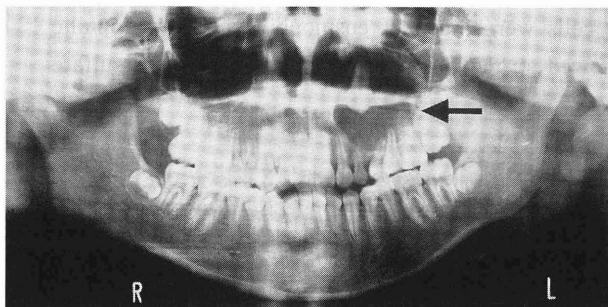


写真1 初診時オルソパントモグラフィ

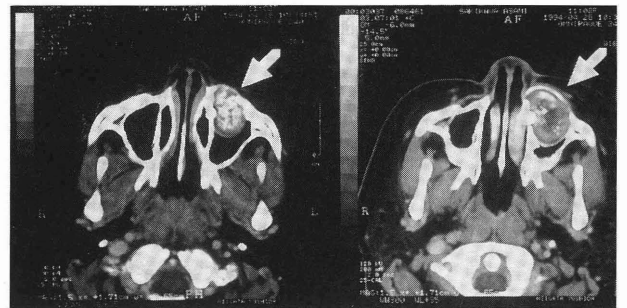


写真2 術前CT像

処置および経過：1994年5月13日、局所麻酔下に生検を施行したが、線維性組織の診断しか得られなかった。5月19日、全身麻酔下で嚢胞摘出術を施行した。嚢胞は埋伏歯の歯冠を含み、一塊として摘出できた。後上方に僅かに固有上顎洞が残っていたが、上顎洞のほとんどは嚢胞に占拠されていた。僅かに残存した上顎洞粘膜にも炎症所見が認められ、上顎洞根治術を施行した。埋伏歯の歯根は自然孔のやや下方で、固有鼻腔に突出するように植立されており、これを摘出することで固有鼻腔との交通が認められた。これを下方に拡大することで下鼻道側壁が大きく開放され、対孔形成となった。

摘出物所見：摘出物は37×25×35mmの類球形で、断面は嚢胞様構造を呈していた。内部には埋伏歯の歯冠を含み、歯根は腫瘍外に突出していた。軟X線写真では多数の小石灰化物が認められた(写真3)。

病理組織学的所見：摘出物は10%中性緩衝ホルマリンにて固定後、HE, PAS, トルイジン青, コロイド鉄, アルシアン青, ギムザ, コッサ, 鍍銀の各染色とヘパラン硫酸プロテオグリカン、ラミニン、IV型コラーゲンの免疫染色を行った。一部は脱灰後、埋伏歯を含む切片とした。腫瘍は比較的厚い線維性被膜に覆われ、埋伏歯歯冠周

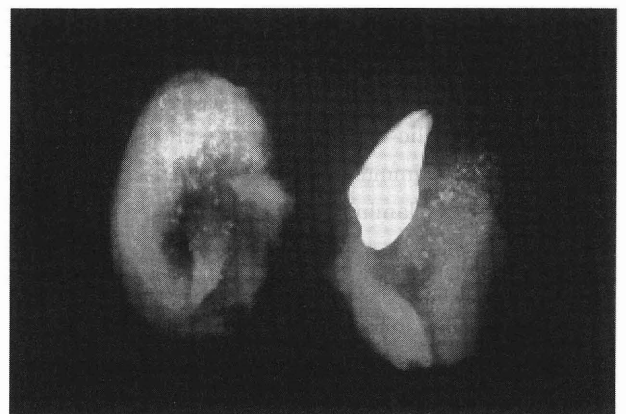


写真3 摘出物軟X線像

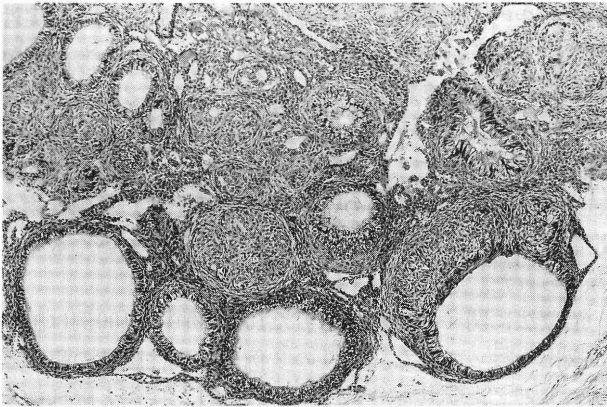


写真4 HE染色弱拡大像

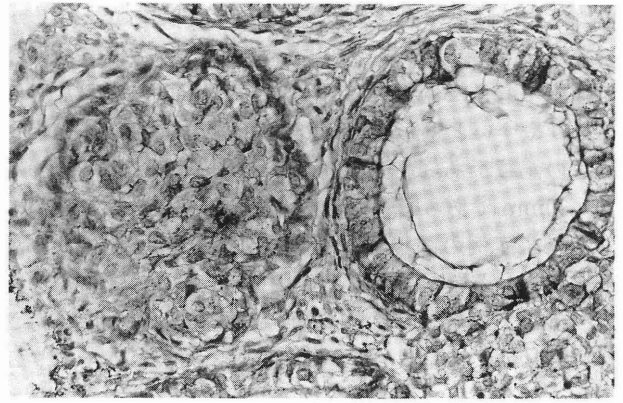


写真6 ラミネン染色像

囲に嚢胞腔が形成され、その周囲に腫瘍が配置していた。腫瘍胞巣と埋伏歯冠部の歯小皮との連続はみられなかった。腫瘍細胞は特徴的な管腔様構造と塊状胞巣とを形成して充実性に増殖していた(写真4)。管腔様構造を呈する円柱状細胞の核は管腔の遠心に偏位しており、管腔様構造内面の縁取り部分および管腔内部にはエオジン好性物質の沈着が認められた。さらに、充実性胞巣内部にもエオジン好性の滴状物が多数散在していた。また、腫瘍実質内にヘマトキシリン好性の小石灰化物の散在も認められた。この小石灰化物はコッサ染色強陽性で、カルシウム塩の沈着が確認された。管腔様構造内面の縁取り部分と内容物および充実性胞巣内の滴状物はPAS(写真5)、コロイド鉄、アルシアン青の各染色で陽性、鍍銀染色により好銀性、さらにトルイジン青、ギムザ染色で異調染性を示したことから、これらが糖蛋白質およびムコ多糖類に富むことが示された。免疫染色では基底膜構成物質であるヘパラン硫酸プロテオグリカン、ラミネン(写真6)、IV型コラーゲンは管腔様構造内面の縁取り部分と内容物、および充実性胞巣内の滴状物に強陽性であった。

病理組織学的診断：腺様歯原性腫瘍

術後経過：術後1年7ヶ月を経過した現在、異常所見を認

めず、経過良好である。

考 察

日本国内で邦文誌に発表された腺様歯原性腫瘍は1939年、正木¹⁾により2症例が報告されて以来、われわれが渉猟し得た症例は自験例を含めて128例(重複症例、再発症例を除く)であった。性別では男性32例、女性93例、不明3例と女性に多く、男女比は1:2.9であった。年齢は3歳から71歳におよび、平均18.8歳であった。発生部位では、上顎に発生したものが73例(57.0%)、下顎に発生したものが55例(43.0%)と上顎での発生率がやや高かった。上下顎とも前歯部および犬歯部に発生したものが多く、前歯部で37例(28.9%)、犬歯部で54例(42.2%)と両者で全体の7割以上を占めていた(表-1)。本腫瘍が犬歯部において多く発生する理由として、石川²⁾は歯列弓の彎曲部にあたるという解剖学的因子の関与を示唆している。また武田ら³⁾は、本腫瘍は代生歯胚中の過剰歯胚の組織構成の混乱によって生じた一種の過誤腫であるために、過剰歯胚の生じやすい前歯部、犬歯部に好発するのではないかと推察している。自験例も上顎犬歯部に発生した症例であったが、摘出物の病理組織学的所見から³⁾の退縮エナメル上皮と腫瘍とは無関係であったため、過剰歯胚、あるいは過剰な歯堤から発生したものと考えられた。

石川²⁾によると稀には骨外の粘膜部に生じた例もあるというが本邦での報告例128例はすべて顎骨内に生じたものであった。腫瘍が増大する際には骨の圧迫吸収が起

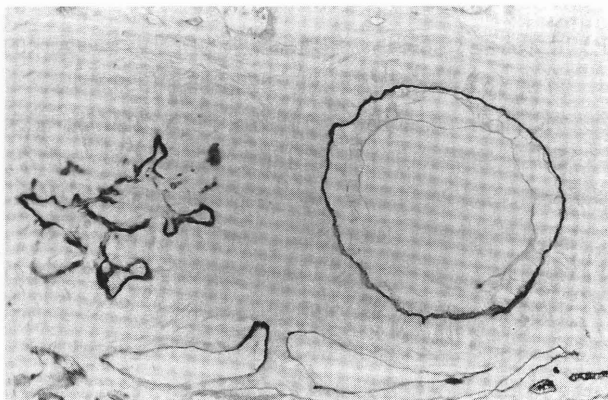


写真5 PAS染色像

	前歯	犬歯	小白歯	大白歯	不明	計
上顎	21	33	12	2	5	73
下顎	16	21	11	6	1	55
計	37	54	23	8	6	128

こり、良性腫瘍の場合、急激な増大は起こらない。しかしながら上顎洞という空間に腫瘍の一端が波及した場合は腫瘍の増大は容易となり、比較的短期間に大きなものとなりやすいと思われる。128例中、摘出物の具体的な大きさの記載があった56症例の中で最大は黒田ら⁴⁾の80×70×30mmであった。しかし、上顎洞と離れた顎骨内に生じた47症例の腫瘍最大径の平均が27.6mmであったのに対し、上顎洞内に波及した9症例の最大径の平均は41.6mmであり、上顎洞に進展した腫瘍の増大の容易さが伺われた。自験例の大きさは37×25×35mmであり、上顎洞に進展した腫瘍の平均よりやや小さめであった。

腺様歯原性腫瘍は比較的稀な疾患であるため、臨床診断に苦慮するケースが多く認められた(表-2)。本腫瘍は埋伏歯と関連するケースが多く、128症例中、埋伏歯に関する記載があったのは114症例であった。埋伏歯が存在した症例は自験例も含め88症例(77.2%)であった。濾胞性歯嚢胞の臨床診断が34症例と多いのもこのためと思われる。また、石灰化物の存在も多く認められ、記載のあった117症例中、115症例(98.3%)に認められた。これにより、石灰化歯原性嚢胞や歯牙腫などの臨床診断も認められた。確定診断を得るためには、生検を行うのがもっとも確実な方法と考えられるが、実際に生検を施行した12症例のうち、腺様歯原性腫瘍の診断が得られたのは8症例(66.7%)であった。自験例の場合も生検では線維性組織の診断しか得られず、確定診断は術後の病理診断まで待たねばならなかった。腺様歯原性腫瘍は病理組織学的に特徴的な組織像を有していることから、生検材料の採取が確実であればかなりの確率で正しい病理診断が得られると思われる。

病理組織学的には、腺様歯原性腫瘍に特徴的である管腔様構造と充実性胞巣の形成が多数認められた。この管

腔様構造内面の縁取りと内部の無定型内容物及び充実性胞巣内滴状物の染色性は類似していた。すなわち、好酸性および好銀性多糖類やラミニン、ヘパラン硫酸プロテオグリカンおよびIV型コラーゲン陽性物質であることが判明した。従って、本腫瘍に特徴的なこれらの特異的な細胞外基質構造は共通の基底膜様性質を有し、滴状物の貯留に伴い、これが管腔様構造へと成長していくものと考えられた。

治療法に関する記載のあった102症例中、100例は腫瘍の摘出を行っていた。残りの2例は多形性腺腫の臨床診断のもと、上顎骨部分切除が施行された症例と腺様歯原性腫瘍の臨床診断のもと下顎骨切除及び骨移植を施行した症例であった。犬歯部に発生した腺様歯原性腫瘍54例中、自験例を含めた11例が上顎洞内に存在したり、上顎洞を大きく圧排していた症例で、うち6例では腫瘍を摘出するだけでなく上顎洞根治術が施行されていた。自験例も腫瘍摘出後、腫瘍の後方および上方の一部に固有上顎洞が残存していたが、手術操作により洞粘膜を損傷し、また、わずかではあるが炎症所見を認めたため、上顎洞根治術を施行した。

再発と思われる報告は3例認められ、再発に要する期間は2年、6年、12年であった。自験例は術後1年7ヵ月経過し、現段階で再発の兆候は認められないが、今後とも定期的な観察が必要と思われる。

結 語

われわれは、上顎洞を占有した腺様歯原性腫瘍の1症例を経験することができたので、病理組織学および免疫組織化学的検索ならびに文献的考察を加えて報告した。再発の報告もあり、今後、長期にわたる経過観察が必要と思われる。

本論文の要旨は平成6年度新潟歯学会第2回例会(平成6年11月19日)において発表した。

引 用 文 献

- 1) 正木 正: 顎腫瘍の病理組織学的所見と其の臨床的意義(8), 歯科臨床, 11, 229-265, 1939
- 2) 石川 梧朗, 秋吉正豊: 口腔病理学2, 改訂版, 永末書店, 京都, 1970, 481-486頁
- 3) 武田 進, 倉科憲治, 他: 腺様歯原性腫瘍の1例, 日口外誌, 26, 1084-1090, 1980
- 4) 黒田政文, 長内秀夫: いわゆる腺エナメル上皮腫の1例, 歯科学報, 65, 490-491, 1965

表2 臨 床 診 断

囊 胞 (52)	濾胞性歯嚢胞	34
	嚢胞(歯原性嚢胞, 顎骨嚢胞, 等)	10
	石灰化歯原性嚢胞	5
	球状上顎嚢胞	3
腫 瘍 (32)	腺様歯原性腫瘍	12
	腫瘍(良性腫瘍, 歯原性腫瘍, 顎骨腫瘍, 等)	12
	エナメル上皮腫	2
	歯牙腫	2
	エプーリス	2
	多形性腺腫	1
	血管腫	1
不 明 (44)		