

臨床病理検討会レポート

〔第8回〕悪性エナメル上皮腫

日時：1992年11月12日

新潟大学歯学部口腔病理学教室
 福島 祥紘
 新潟大学歯学部附属病院臨床検査室
 鈴木 誠
 新潟大学歯学部歯科放射線学教室
 中山 均・林 孝文
 新潟大学歯学部口腔外科学第一教室
 本間 克彦

症例提示

患者：23才，女性
 初診：1973年9月20日
 主訴：左下顎臼歯部の腫張
 現病歴：1973年7月頃左下顎臼歯部の腫脹に気づき，徐々に7の動揺を生じ，開業医にて抜歯され，腫脹が増大したため当科紹介受診。
 既往歴：特記事項無し。
 初診時現症：口腔外所見。左側顎角から頬部にかけて発赤を伴わない瀰漫性の腫脹がみられ，下顎下縁にそって圧痛を認める。左顎下リンパ節は小指頭大1個可動性があり圧痛を認める。口腔内所見。6部から臼後結節にかけて28×14mmのわずかに発赤をともなった腫脹を認め，舌側に骨をふれず，圧痛あり。
 臨床診断：エナメル上皮腫
 最終診断：悪性エナメル上皮腫
 処置および経過：1973年9月20日生検にてエナメル上皮腫の診断を得た。11月6日腫瘍の摘出，埋伏8の抜歯を施行。腫瘍は嚢胞状で歯槽部では口腔粘膜と，上行枝部では内側翼突筋に癒着していた。1974年2月のX-Pにて左下顎骨上行枝中央，関節突起部に透過像が出現し，6月11日下顎骨部分切除を施行した。1978年3月頃より左顎関節部に疼痛が出現し，鎮痛剤処方および針治療，SGBを施行されるも症状は改善せず，1979年2月X-Pにて左下顎骨上行枝に透過像を確認。3月27日下顎骨半側切除術施行。腫瘍は下顎切痕から下顎頭，下顎骨舌側，側頭窩下，翼状突起，茎状突起におよんでいた。また，頭蓋底に骨欠損を認めた。腫瘍は黄白色で充実性であった。4月頃より左耳介後上方の腫脹に気づき，徐々に増大。8月21日脳外科紹介受診。左側側頭骨に4.7×3.5cmの骨欠損をX-Pにて認め，9月13日側頭骨切除腫瘍全摘手術施行。エナメル上皮腫の転移と診断された。11月15日頭蓋CTにて左中頭蓋窩に腫瘍が出現し，50Gyの照射を行った。腫瘍はCTにてわずかに造影されるのみとなった。1985年3月右小脳半球に腫瘍が出現，20Gy照射し，その後，PEP 10mg×10回を投与し，腫瘍は縮小した。1986年1月右後頭葉側脳室後角に腫瘍が出現。PEP 10mg×7回を2クールおこない腫瘍は縮小した。

1989年頃よりパノラマにて左下顎臼歯部に骨透過像を認め，徐々に増大傾向を認めたため1992年1月31日下顎骨辺縁切除術施行。摘出物は骨内に嚢胞状病変を有していた。術直前のCTにて左顎下部に23×20mmの腫瘍を指摘され，生検にて腫瘍の再発ということで，2月25日摘出術施行した。腫瘍は線維性の被膜を有しており，血管が豊富であった。1995年4月現在再発は認められない。（本間）

画像所見

図1：1973年9月のパノラマX線写真
 埋伏した左下第3大臼歯を含み，下顎枝に及ぶ境界明瞭な単胞性の透過性病変を認める。
 図2：図1と同時のデンタルX線写真
 病変の辺縁は平滑であり，下顎骨内へのびまん性の浸潤傾向は認められない。
 図3：1974年2月のパノラマX線写真
 下顎頸部前縁および下顎切痕部に透過領域を認める（矢頭）。
 図4：1975年6月のパノラマX線写真
 下顎骨部分切除術・再建術施行後。
 図5：1978年11月のパノラマX線写真
 図4と比較すると，左上顎骨後縁は不明瞭化しており，左下顎枝の圧迫吸収像（矢頭）と頭蓋底の変形を認める（上方の矢頭）。
 1979年9月のCTでは，左側頭骨部に腫瘍性病変を認めた。
 図6：1979年11月の造影CT像
 左中頭蓋窩に造影される腫瘍性病変を認める（矢頭）。この病変に対し，同年12月より左右対向にてライナック10MVX線による50Gyの外照射を施行した。この後1985年3月には右小脳半球など複数か所に多発性の転移巣出現し，同年5月よりライナック10MVX線による20Gyの外照射を施行した。
 図7：1992年1月のパノラマX線写真
 1989年頃より認められていた左下顎臼歯部の境界明瞭な透過性病変は増大（矢頭）。
 図8：1992年1月の造影CT像
 左下顎骨内には軟組織病変（矢印），左顎下部には造影される腫瘍性軟組織病変を認める（矢頭）。
 なお，多発性脳転移巣は病理組織学的な検索は行われておらず，これら以外の再発病巣については全て連続していた可能性が示唆された。（中山，林）

病理所見

初回生検及び摘出時(1973年)の組織像は通常の濾胞型エナメル上皮腫(図9)で，9ヵ月後，左下顎枝部の再発も嚢胞形成を伴うが，ほぼ同じ像を示した。ところが，5年後(1979年)の上行枝再発時の組織(図10)は，実質胞巣基底部の高円柱状細胞は見られるものの，胞巣中心部の細胞数の明らかな増加と紡錘状細胞への形態変化があり，分裂像と共に一部壊死傾向を示した。また，筋層内浸潤と血管内浸潤(図11a)も示し，悪性化が示唆された。その6ヵ月後(1979年)の左側頭骨から

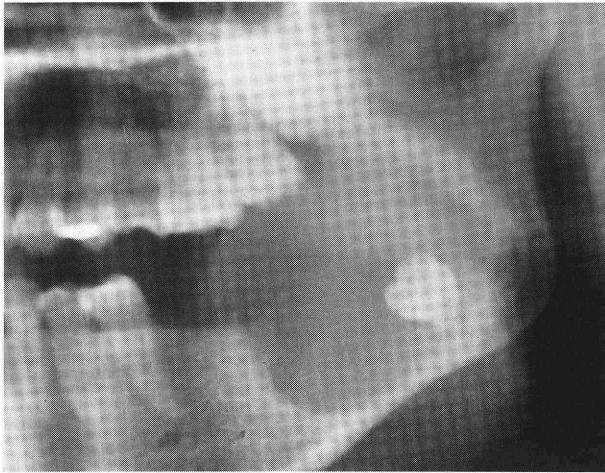


図 1

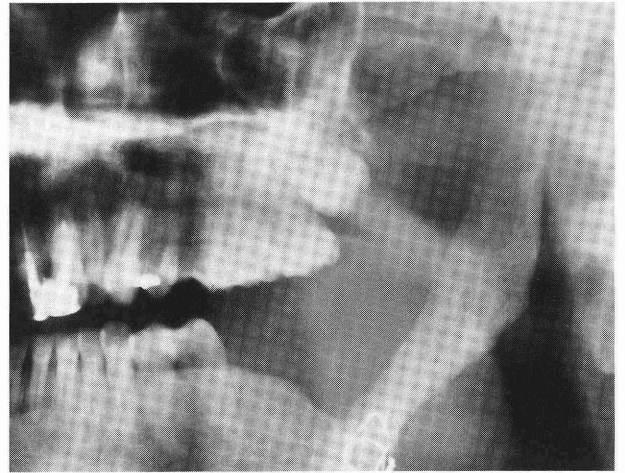


図 4

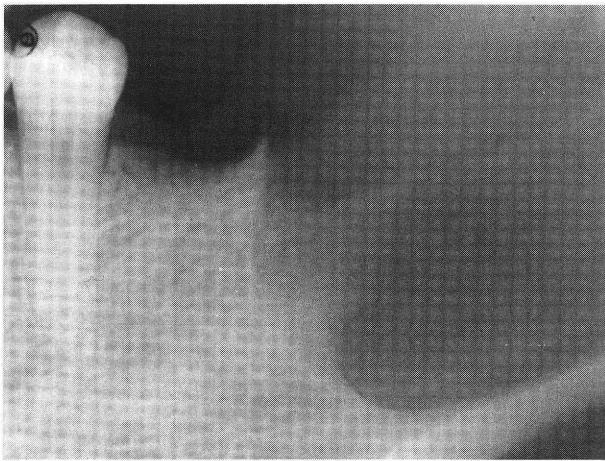


図 2

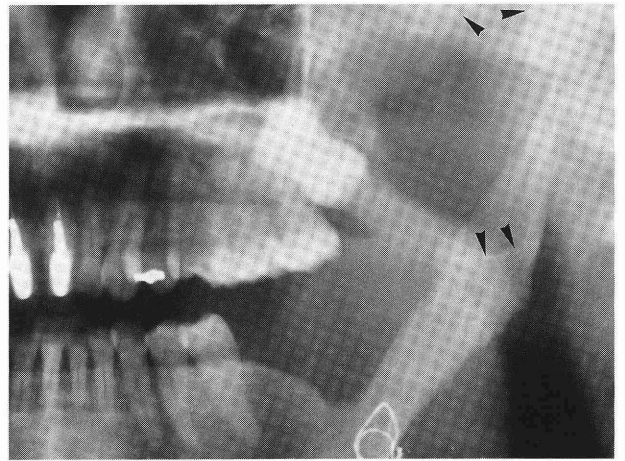


図 5



図 3

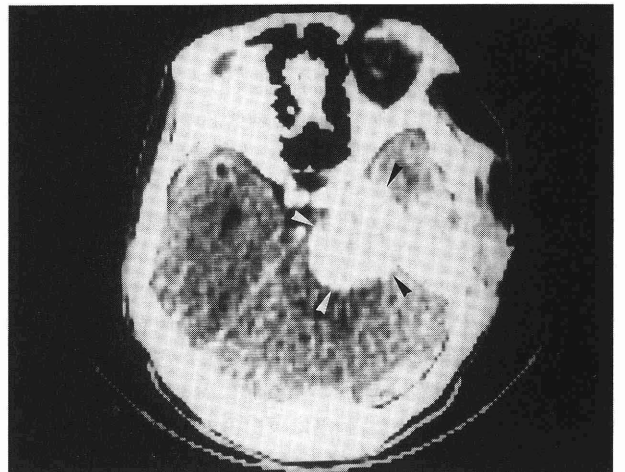


図 6

の摘出材料は、さらに細胞数の増加とN/C比の増加、実質及び間質での分裂像の増加(図11b)、血管侵襲性も示し、また、転移巣との認識から悪性エナメル上皮腫と診断した。

今回、初診時より17年後の、初回手術時における近心端からの再発像(図12)は、嚢胞形成の強いエナメル上皮腫であり、図10、11の形態的悪性を示すものは認められなかった。

(福島、鈴木)

考 察

1. 本例はエナメル上皮腫が再発を繰り返す中で悪性化を示した典型例であるが、左下顎大白歯部病変の初回摘出時の遠心端からの再発は骨破壊を伴って頭蓋内に浸潤し、組織学的にも悪性化が考えられた。一方、初診時より17年後の近心端からの再発像は嚢胞形成の明らかな良性病変と考えられた。

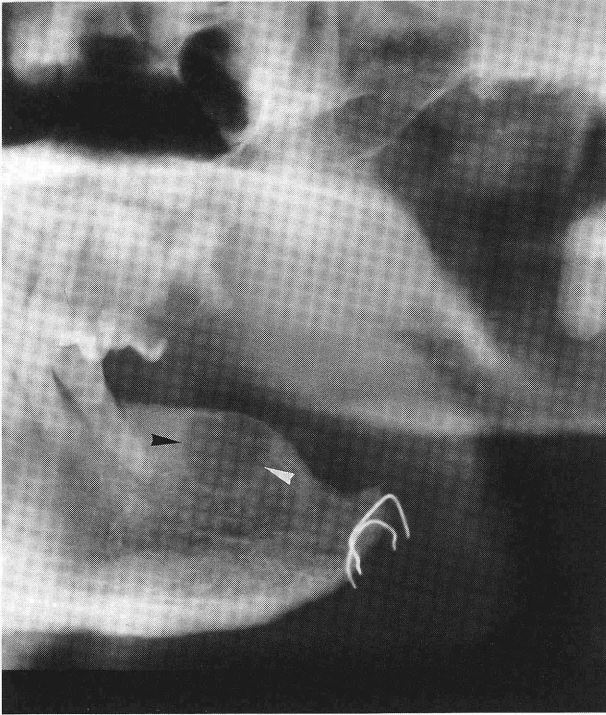


図 7

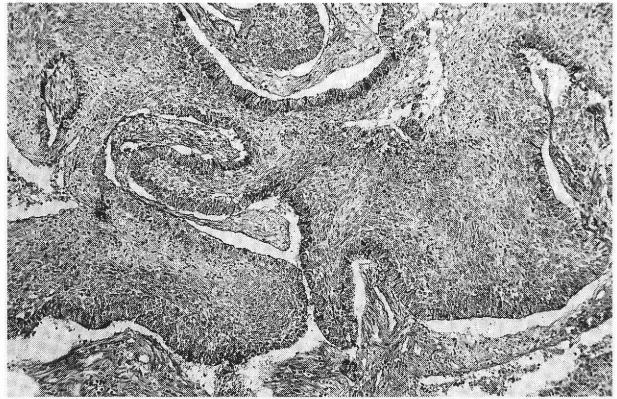


図10



図 8

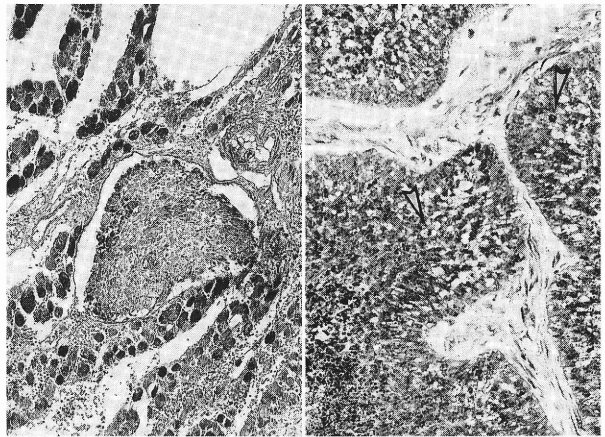


図11 a(左), b(右). ▷ 分裂像

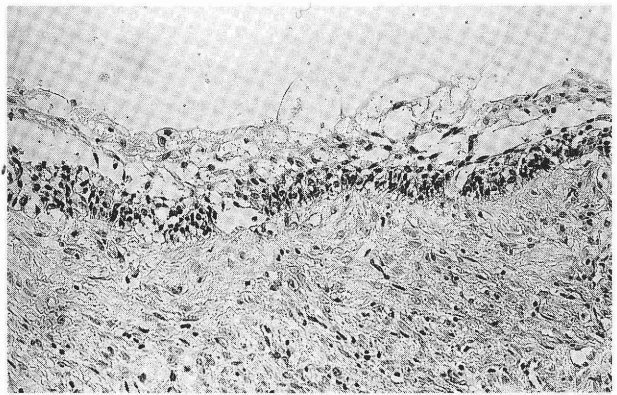


図12

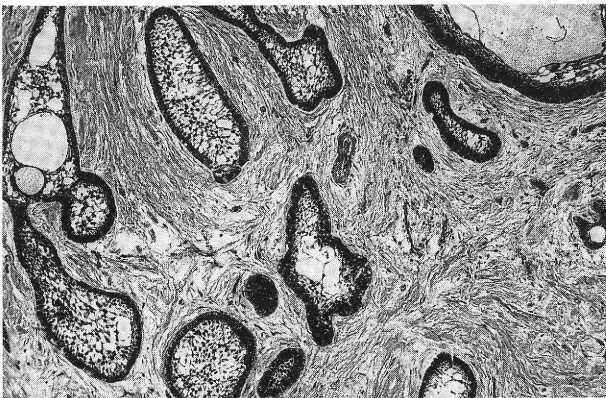


図 9

悪性エナメル上皮腫の成り立ちを考える上で極めて重要な症例と考えられる。

2. 左側頭骨への転移は、その後、左中頭蓋窩ほかに多発しており、結果的には左下顎からの連続性浸潤の可能性を否定できないと考えられた。しかし、本症例の悪性は病理学的には肯定せざるをえず、悪性エナメル上皮腫は転移を伴うエナメル上皮腫という定義のほかに、腫瘍細胞そのものの変質と高度の浸潤性を獲得した段階で悪性エナメル上皮腫の診断をつけるのが妥当ではないかと考えている。 (福島, 鈴木)