

著明な歯根吸収を伴った腺様歯源性腫瘍の細胞学的,
組織学的小よび超微形態学的観察

山 辺 滋 藤 樹 亨 富 永 和 宏
水 野 明 夫 高 橋 弘 岡 邊 治 男

**Adenomatoid odontogenic tumor with remarkable
root resorption : Report of a case**
—Special reference to cytological, histopathological
and ultrastructural observation—

Shigeru Yamabe, Toru Fujiki, Kazuhiro Tominaga,
Akio Mizuno, Hiroshi Takahashi and Haruo Okabe

口腔腫瘍 (J Jpn Soc Oral Tumor) 9 (1) : 13~18

日本口腔腫瘍学会誌 第9巻 第1号 別刷

1997年(平成9年)3月発行

Journal of Japan Society for Oral Tumors Vol. 9, No. 1, 1997

臨 床

著明な歯根吸収を伴った腺様歯原性腫瘍の細胞学的、 組織学的および超微形態学的観察

山 辺 滋 藤 樹 亨 富 永 和 宏*
水 野 明 夫 高 橋 弘** 岡 邊 治 男**

要旨：50歳女性の上顎に発生し、著明な歯根吸収がみられた腺様歯原性腫瘍の1例について報告した。摘出物の細胞学的、組織学的および超微形態学的知見が得られた。細胞学的には、腺管様構造を伴う核重積性の集団や紡錘形細胞からなるシート状の集団がみられ、細胞診の所見は診断に有用であった。また、電顕的には、著しい変形核を有する多角形細胞や、増殖性の強い細胞でみられる nuclear pocket を有する細胞が観察された。

キーワード：腺様歯原性腫瘍、電子顕微鏡、細胞診、上顎

緒 言

腺様歯原性腫瘍は、従来、腺エナメル上皮腫¹⁾あるいは腺様エナメル上皮腫²⁾と呼ばれていたが、その病態はエナメル上皮腫と異なる³⁾として、Philipsen and Birn (1969)⁴⁾ が腺様歯原性腫瘍 adenomatoid odontogenic tumor (AOT) の名称を提唱し、WHO (1971)⁵⁾ でも用いられている⁶⁾。

このたび、著明な歯根吸収を伴った AOT の1例を経験したので、その概要を報告するとともに、報告のきわめて少ない AOT の細胞学的および超微形態学的観察に関しても考察する。

症 例

患者：50歳、女性

初診：1993年2月2日

主訴：左側上顎歯肉の無痛性腫脹

既往歴および家族歴：特記すべきことなし

現病歴：1993年1月下旬、他部位の歯科治療を希望して某歯科を受診し、左側上顎歯肉の腫脹を指摘された。また、パノラマX線写真にて |2—5

の根尖部にX線透過像が認められたため、当科に紹介された。

現 症

全身所見：体格中等度、栄養状態良好で、特記すべき異常を認めなかった。

口腔外所見：左鼻翼基部を中心とした顔面上唇部から頬部皮膚に直径4cm、高さ0.5cmの軽度の無痛性腫脹を認めた。所属リンパ節には病的腫大は認めなかった。

口腔内所見：|2—4 相当部唇（頬）側歯肉から歯肉唇（頬）移行部にかけて3.5×2.5×0.5cm大の比較的境界明瞭な無痛性の骨膨隆がみられた（写真1）が、羊皮紙様感や波動を触れなかった。|2—5 はすべて電気歯髓反応陽性であった。|4は中等度の動揺を呈し、|2は打診痛が著明であった。

画像所見：デンタルおよびパノラマX線写真では、|2—5 の歯根の根尖側の一部を含み、2.4×2.3cm大の辺縁に一層の骨硬化縁を有する境界明瞭な類円形のX線透過像を認め、|34間の歯根離開および|4の根尖側約3/4の著しい歯根吸収が

長崎大学歯学部第一口腔外科学教室（主任：水野明夫教授）

* 九州歯科大学口腔外科学第一講座（主任：福田仁一教授）

** 長崎大学歯学部口腔病理学教室（主任：岡邊治男教授）

[1996年5月17日受付、1996年11月15日受理]

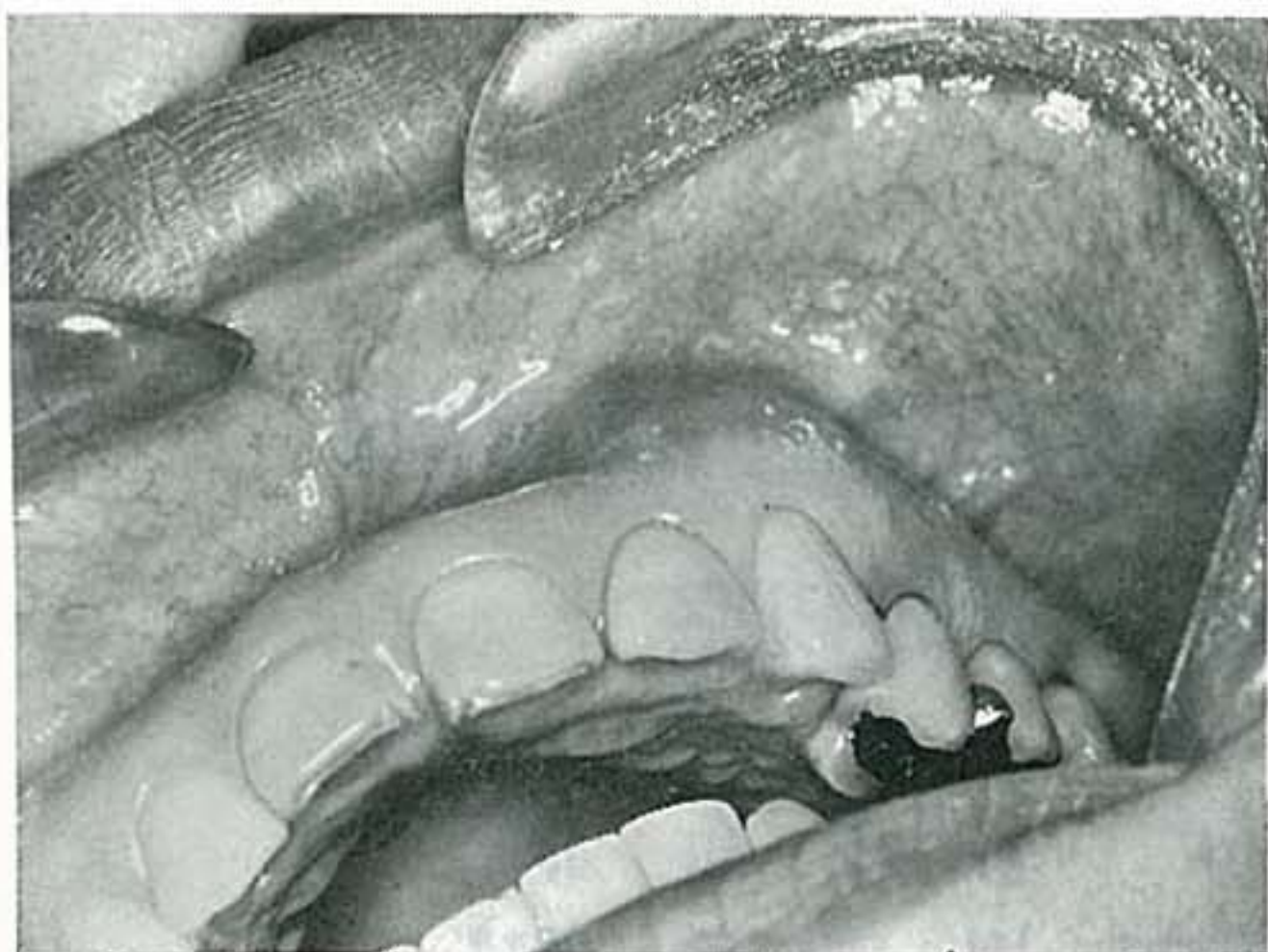


写真 1 初診時口腔内所見

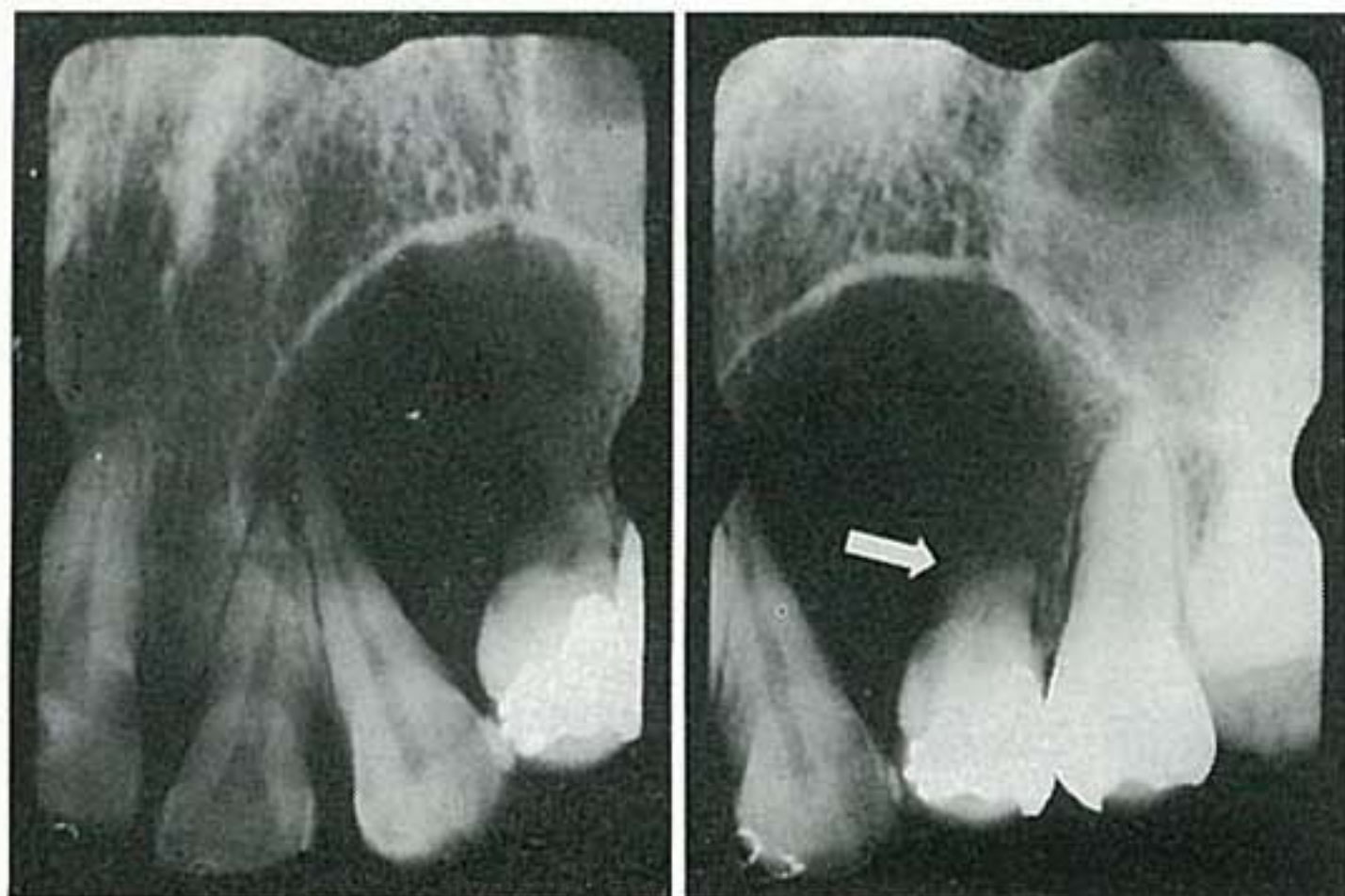
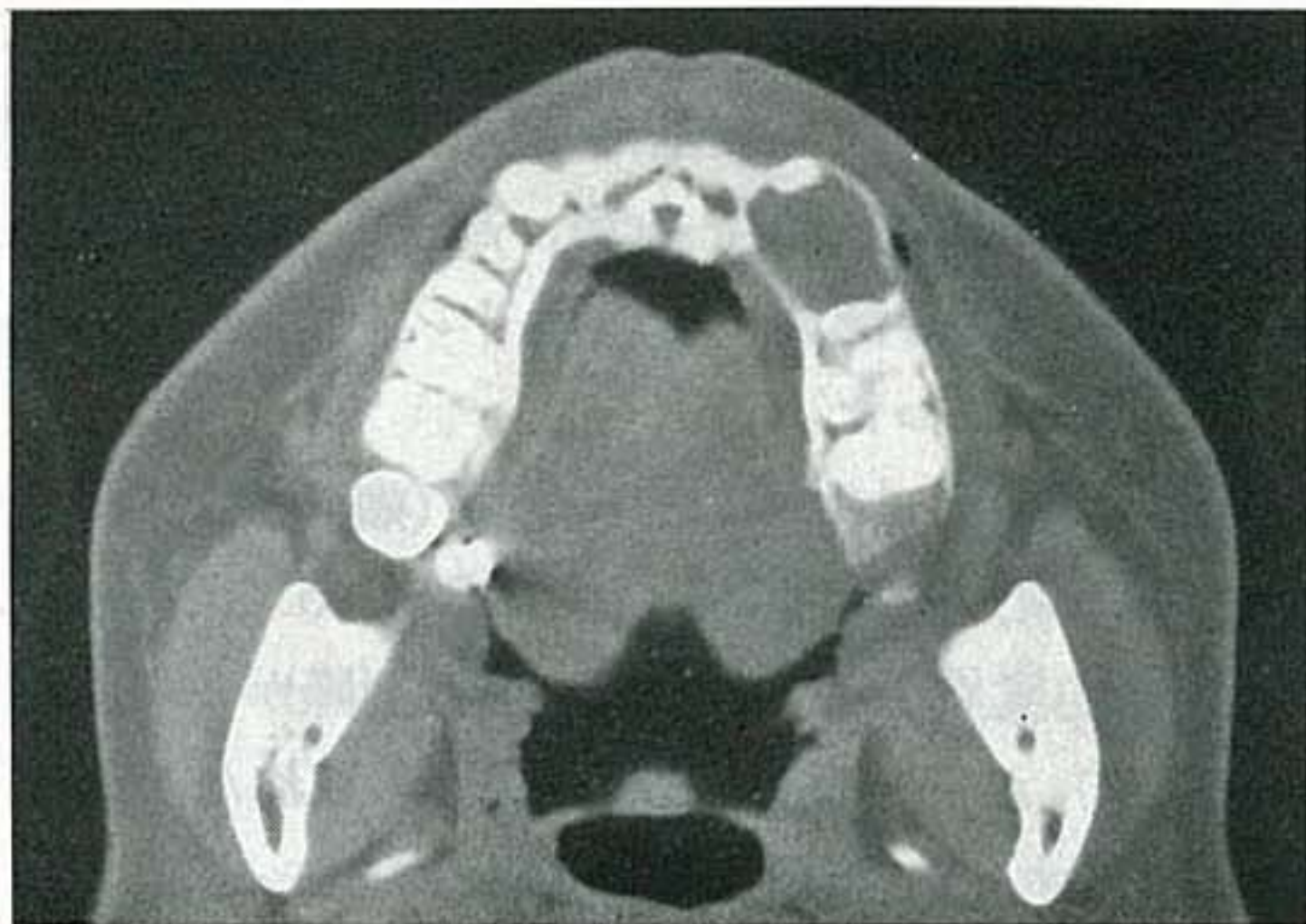
写真 2 初診時デンタルX線像
矢印 (⇒) は、上の歯根吸収像

写真 3 CT X線像 (横断像)

みられた (写真2)。CT 像 (横断像) では、左側上顎骨に類円形透過像がみられ、内部は均一で、唇 (頬) 側骨の膨隆および菲薄化がみられた (写真3)。なお、病変と上顎洞および鼻腔との交通はみられなかった。また、術前の画像所見において、明らかな石灰化物は認められなかった。

臨床検査所見：一般血液、生化学検査および尿



写真 4 摘出物断面所見

検査には、とくに異常所見は認めなかった。

処置および経過：原始性嚢胞あるいは歯源性腫瘍の疑いで、同年3月9日、全身麻酔下に腫瘍摘出術および上顎骨部分切除術を施行した。唇 (頬) 側および口蓋側の粘膜骨膜弁を剥離し、病変が骨膜下に浸潤していないことを確認した上で、12-5、周囲骨および腫瘍を一塊として切除・摘出した。術後の治癒は良好で、局部床義歯による欠損補綴を行い、術後約3年を経過した現在、再発の徴候はない。

摘出物の所見：腫瘍の大きさは35×20×10mmで、露出した腫瘍表面は茶褐色を呈し、弾性硬であった。断面では、腫瘍全体に黄白色と淡赤色の部分が混在し、中心部に褐色部分がみられ、周囲は結合組織様被膜で被われていた (写真4)。また、軟X線像では、2.4×2.0cm 大で不正形のX線不透過性の石灰化様物質が多数散在して認められた (写真5)。

検体標本の染色方法：摘出物の断面から捺印標本、摘出物の一部を電顕標本、残部を光顕標本とした。捺印標本においては、乾燥固定後ギムザ染色、また、95%アルコール固定後パニコロ染色を行った。光顕標本については、通法に従い、ホルマリン固定・パラフィン包埋を行い、薄切後、ヘマトキシリン-エオジン (HE) 染色を施し、病理組織学的検索を行った。

電顕標本については、細切後、1.25%グルタル



写真 5 軟X線像



写真 7 細胞診所見 パパニコロ染色 (×40×5)

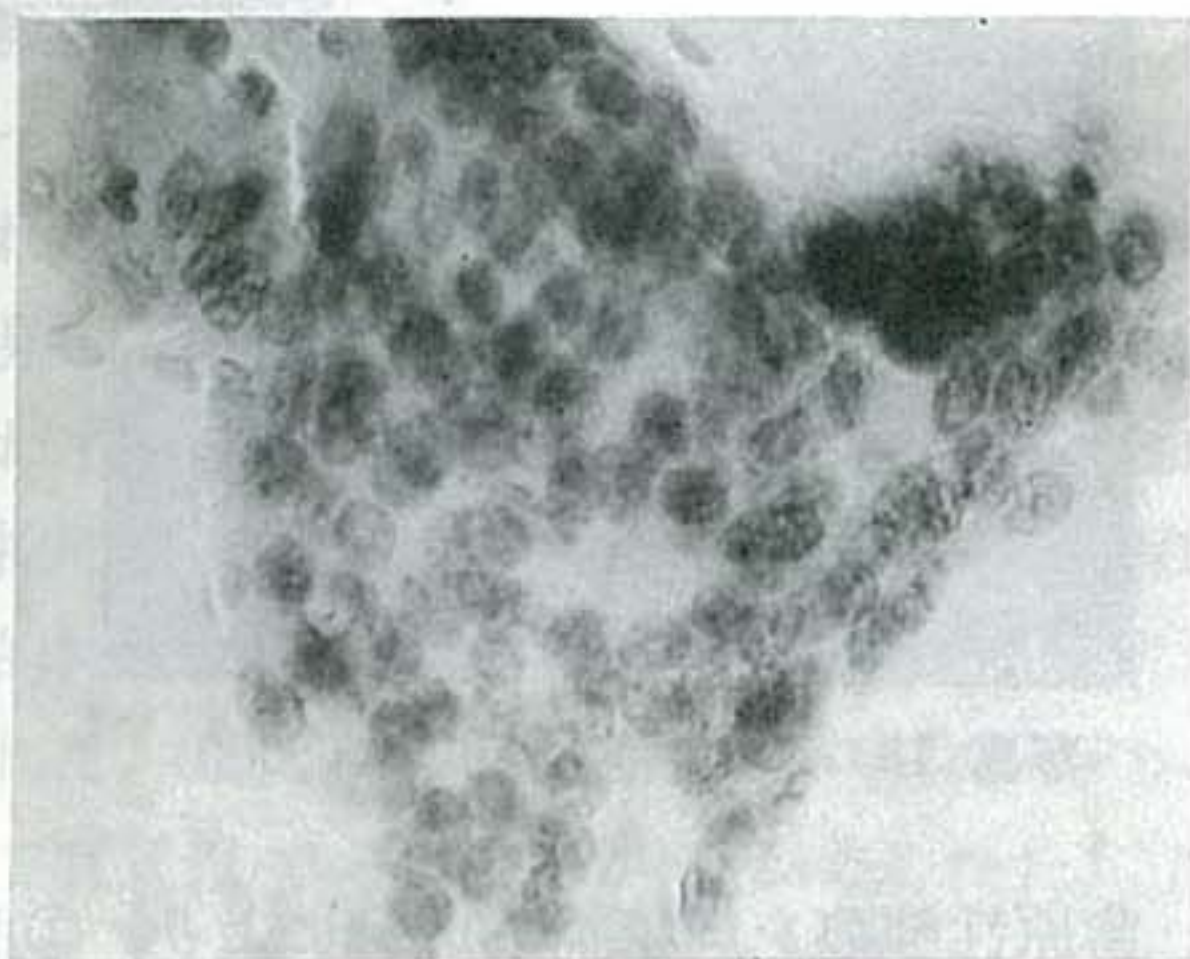


写真 6 細胞診所見 パパニコロ染色 (×40×5)



写真 8 病理組織所見 HE 所見 (×4×2.5)

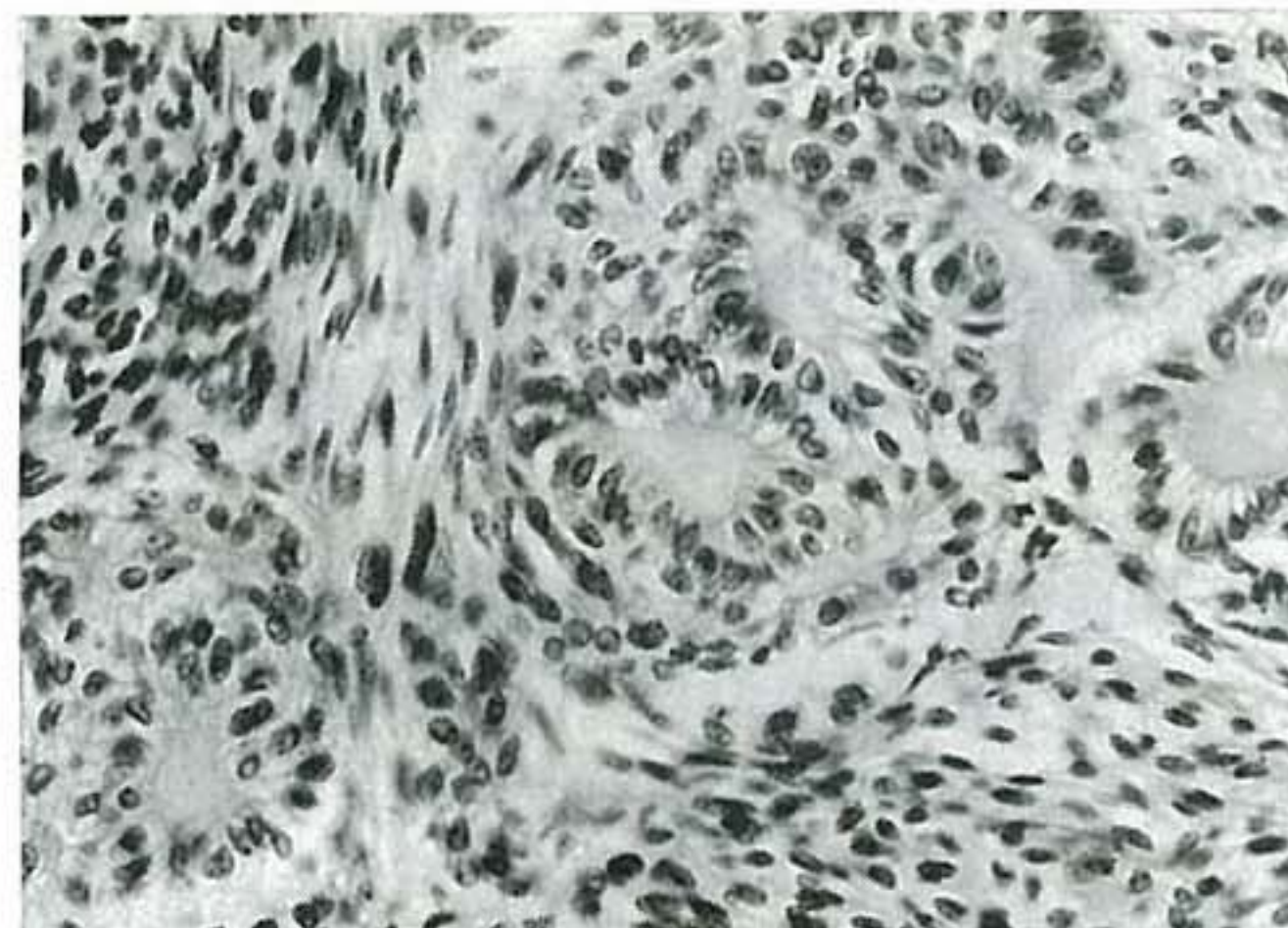


写真 9 病理組織所見 HE 所見 (×20×5)

アルデヒドー2%パラホルムアルデヒド混合固定液で24時間固定し、1%四酸化オスミウムで90分間固定を行い、以下は通法に従って、epon 812に包埋した。超薄切片は酢酸ウラニールおよびクエン酸鉛の二重染色を行い、日立H-800型電子顕微鏡で観察した。

細胞診所見：パパニコロ染色標本において、腺管様構造を伴う核重積性の細胞集団が観察され、腺管様に配列する細胞は、卵円形核で、細顆粒状のクロマチンを伴い、ライトグリーンに淡染した細胞質を有しているが、一部で裸核状を呈していた(写真6)。また、紡錘形細胞からなるシートもみられ、楕円形の核を有し、細顆粒状～顆粒状のクロマチンを含み、細胞質はライトグリーン好性であった(写真7)。以上の所見より、病理組織学的所見を得る前に細胞診で、歯原性腫瘍、特に、

腺様歯原性腫瘍が最も強く疑われた。

病理組織学的所見：弱拡大像では、腫瘍細胞が腺管様および充実性胞巣を形成し、嚢胞化する部も認められた。充実性胞巣内には大小の腺管様構造の形成が散在性に認められた(写真8)。充実部の拡大像では、円柱状細胞によって形成されたロゼット様構造と、その周囲を多角形細胞が取り囲んでいる像が認められた。なお、ロゼット内には均一な好酸性物質を容れていた(写真9)。ま

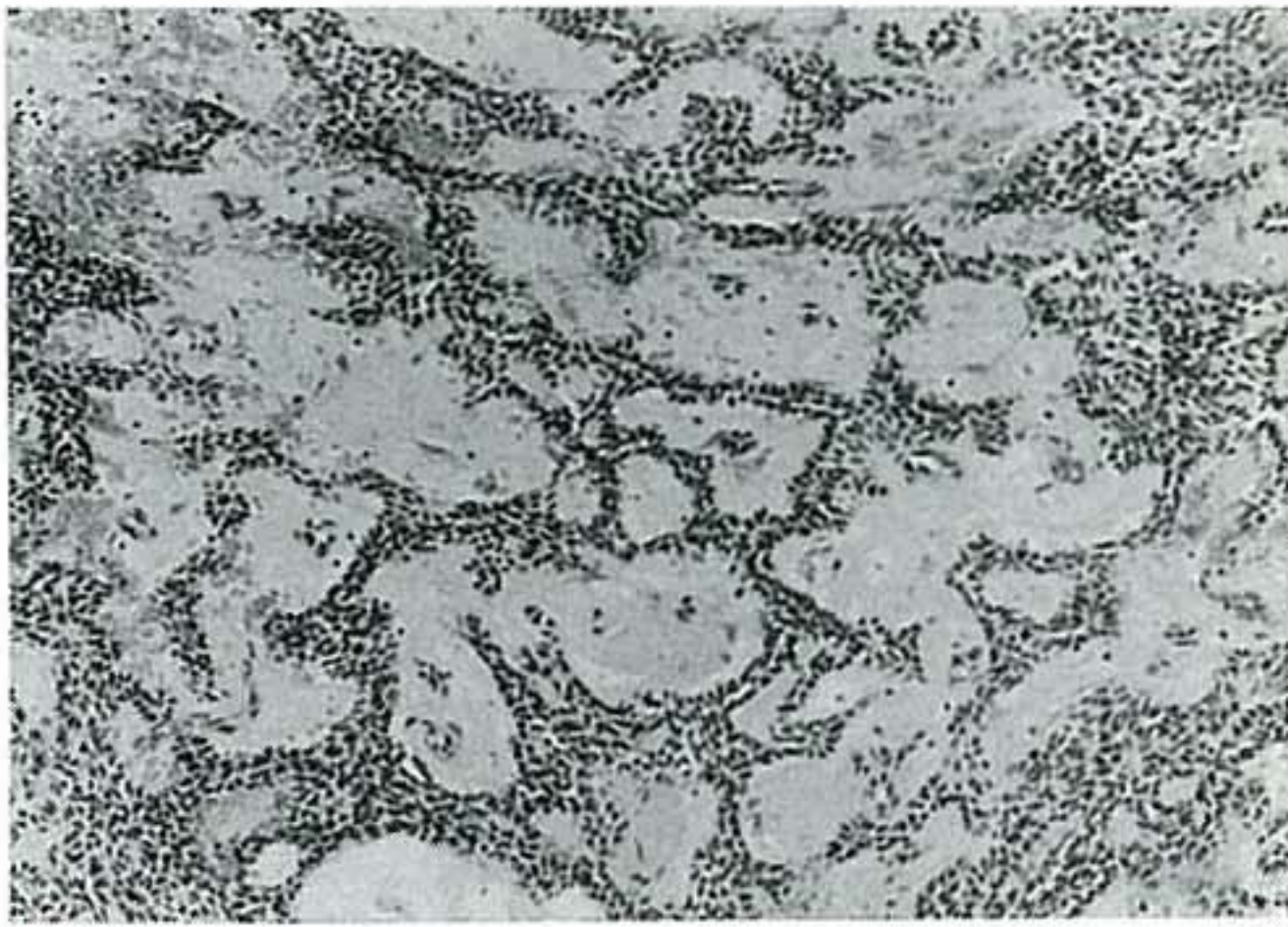


写真 10 病理組織所見 HE 染色 (×10×3.3)



写真 11 病理組織所見 HE 染色 (×20×3.3)

た、円柱状細胞の索状増殖を示す腫瘍部の間質は硝子化を呈していた (写真10)。胞巣中に点在する硝子体様の好酸性滴状物も認められた (写真11)。以上より病理組織学的に腺様歯原性腫瘍と診断した。

電子顕微鏡的所見：腺管様構造を構成する円柱ないし立方上皮細胞では、楕円形の核が存在し、細胞質では小器官の発達は不良であった。管腔側には基底膜が存在し、その内部には中等度の電子密度を有する物質 (アミロイド様構造物) がみられた (写真12)。また、充実性増殖を示した腫瘍細胞は多角形を呈し、細胞間隙は比較的広く、細胞間にはデスモゾームが散見された。細胞質には不規則に走行するトノフィラメントがみられ、さらに変形の著しい核が認められ、核膜は比較的平滑であるが一部に nuclear pocket を有していた (写真13)。

考 察

Kramer らが記載した WHO 新分類 (1992)⁶⁾



写真 12 超微形態所見 (×2,500)



写真 13 超微形態所見 (×6,000)

では、歯原性腫瘍を腫瘍構成成分により、①歯原性上皮のみから成るもの、②歯原性上皮に歯原性の外胚葉性間葉組織 (ectomesenchyme) を伴うもの、③歯原性の外胚葉性間葉組織のみから成るもの、の3グループに分けられた。腺様歯原性腫瘍 (AOT) は、②の範疇に入り、新生物ではなく過誤腫であると考えられている。

AOT の本邦での報告は、八代ら⁷⁾によると、1939年の正木⁸⁾の報告以来、1992年まで170例の報告があり、かつていわれていたほどまれな腫瘍ではないことが明らかになってきている。患者の年齢は、平均18.8歳で、年代別にみると10歳台 (60%) に圧倒的に多い。男女比は1:2.9で女性に多く、好発部位は上顎前歯部 (38.5%) であり、埋伏歯を伴うことが多く (68%)、X線所見として一般に嚢胞様の像を呈する。また、名尾ら (1991)⁹⁾ による国内の文献的集計110例によると、30歳以上に発生した報告は、30代が8例、40代が2例、50代が0例、60代が3例であり、40歳以上

の症例はまれである。本報告例では、年齢は50歳と比較的高かったこと、また、埋伏歯を伴わなかったこと、近接する歯の著しい歯根吸収がみられたことなどが注目された。

下野ら¹⁰⁾は、AOT のX線所見としてはほとんど嚢胞様X線透過像を呈し、その中に埋伏歯を含有する像がみられるため、臨床的に濾胞性歯嚢胞と診断されていることを指摘している。AOT は、一般に未萌出歯に合併し、X線所見や手術所見において、含歯性嚢胞にきわめて類似することがあるが、AOT 内における石灰化物質の存在が有用な診断的特徴とされている⁶⁾。しかしながら、すべての例に透過像内の石灰化物が認められるわけではなく、また埋伏歯を伴わない場合は、X線学的診断は困難であり¹¹⁾、好発部位の点からも球状上顎嚢胞ときわめて類似する場合がある¹²⁾。したがって、最終的には病理組織学的診断にゆだねなければならない。本症例においても、術前の画像所見で、石灰化物の存在は明らかでなく埋伏歯も伴わず、AOT と診断するのは困難であった。

捺印塗抹標本による細胞診所見では、病理組織学的特徴を反映し、AOT に特徴的な像¹³⁾が認められた。これにより、細胞診が確定診断の一助として有意義であることが確かめられた。なお、AOT をはじめ口腔領域良性腫瘍の細胞所見に関する報告はほとんどなく、今後、確立していく必要がある。さらに、穿刺吸引による細胞診を施行することにより、術前に診断が可能となり、その臨床的意義は大きいと考えられる。

一方、AOT の電顕所見に関する報告も比較的少なく^{10,14-16)}、また、その検索対象も少数例である。腺管様構造の成因に関して、下野ら¹⁰⁾、Ishikawa and Mori¹⁴⁾、Takagi¹⁵⁾、Moro ら¹⁶⁾は電顕的に腺腔側に基底膜が認められることより、腺管様構造は真の腺管ではなく、間質嚢胞であると主張している。著者らも電顕的に腺腔内の基底膜が存在することより間質嚢胞である考えを支持したい。また、充実性増殖を示した腫瘍細胞では、細胞は多角形を呈し、著しい変形核が認められた。さらに、悪性腫瘍などの増殖性の強い細胞でよくみられる nuclear pocket¹⁷⁾ を有する細胞も認められた。このような構造についての記載は AOT の他の報告にはみられない。そのうえ、腫瘍細胞

内の小器官が乏しかった所見からも、腫瘍細胞が比較的低下分化なものだと考えられた。

AOT は一般に増殖能が低く、核異型も乏しいとされ、本報告例のように、電顕的に著しく変形した腫瘍細胞の混在がみられたことは注目すべき点である。このような所見から、本報告例は、単なる過誤腫ではなく真の腫瘍（新生物）の性格を有しているとみなされ、このことが近接する歯の著明な歯根吸収を起こした原因であるとも考えられる。

AOT は病理組織学および生化学的になお解明されていない種々の問題点を残しており、今後、症例を重ね、さらに詳細な検索が行われるべきである。

治療としては、大部分の症例において摘出術が行われている。AOT は一般に摘出後の再発および転移はみられないが、長期間後の再発例の報告も¹⁸⁾ある。本報告例は、術後3年間再発はみられていないが、特異な歯根吸収および電顕にて悪性腫瘍類似の所見がみられ、さらに長期にわたる経過観察が必要であると思われる。

結 語

今回、われわれは、50歳、女性に発生し、近接する著明な歯根吸収を伴った腺様歯原性腫瘍の1例を経験したので、細胞学的、組織学および電顕的所見を合わせて、その概要を報告した。

稿を終えるにあたり、画像診断等にご協力を頂きました長崎大学歯学部歯科放射線学教室に深謝いたします。

本論文の要旨の一部は第26回日本口腔科学会九州地方部会（長崎、1993）において発表した。

文 献

- 1) Thoma, K.H.: Adenoameloblastoma. Oral Surg 8: 441-444, 1955.
- 2) 石川悟朗監修: 口腔病理学Ⅱ. 永末書店, 京都, 1982, 481-486.
- 3) Lucas, R.B.: A tumor of enamel organ epithelium. Oral Surg 10: 652-660, 1957.
- 4) Philipsen, H.P. and Birn, H.: The adenomatoid odontogenic tumor, ameloblastic adenomatoid tumor or adenoameloblastoma, Acta Path Microbiol Scand 75: 375-398, 1969.
- 5) Pindborg, J.J. & Kramer, I.R.H.: Histological Typing of Odontogenic Tumours, Jaw Cyst, and Allied Lesions. Geneva, 1971, World Health

- Organization.
- 6) Kramer, I.R.H., Pindborg, J.J., et al. : Histological Typing of Odontogenic Tumours, 2nd ed. Geneva, 1992, World Health Organization.
 - 7) 八代智子, 三村 保, 他 : 下顎第2大臼歯に発生した腺様歯原性腫瘍の1例. 日口外誌 39 : 1261-1263, 1993.
 - 8) 正木 正 : 顎腫瘍の病理組織学的所見と其の臨床的意義 (8), 臨床歯科 11 : 229-265, 1939.
 - 9) 名尾良幸, 内藤康雄, 他 : 高齢者の下顎正中に生じた腺様歯原性腫瘍の1例. 日口診誌 4 : 445-450, 1991.
 - 10) 下野靱彦, 志村介三, 他 : Adenomatoid odontogenic tumor の1例 ; 光学顕微鏡ならびに電子顕微鏡的観察および文献的考察. 日口外誌, 14 : 1217-1227, 1985.
 - 11) Bedric, A.E., Solomon, M.P., et al. : The adenomatoid odontogenic tumor ; An unusual clinical presentation. Oral Surg 48 : 143-145, 1979.
 - 12) Glickman, R., Super, S., et al. : An adenomatoid odontogenic tumor, Simulating globulomaxillary cyst. J Oral Surg 20 : 260-30, 1983.
 - 13) 沢田勤也監修 : 口腔病変の細胞診. 永末書店, 京都 1991.
 - 14) Ishikawa, G. and Mori, K. : A histopathological study on the adenomatoid odontogenic tumor, report of four cases. Acta Odont Scand., 20 : 419-451, 1962.
 - 15) Takagi, M. : Adenomatoid ameloblastoma. An analysis of nine cases by histopathological and electron microscopic study. Bull. Tokyo Med. Dent. Univ., 14 : 487-506, 1967.
 - 16) Moro, I., Okamura, N., et al. : The eosinophilic and amyloid-like materials in adenomatoid odontogenic tumor. J. Oral Path. 11 : 138-150, 1982.
 - 17) 小野江為則 : 電顕腫瘍病理学. 南山堂, 東京, 1982.
 - 18) 深谷昌義, 佐藤弘樹, 他 : 上顎に発生した Adenameloblastoma の1例. 日口外誌 17 : 155-158, 1971.

Adenomatoid odontogenic tumor with remarkable root resorption : Report of a case

—Special reference to cytological, histopathological and ultrastructural observation—

Shigeru Yamabe, Toru Fujiki, Kazuhiro Tominaga*,
Akio Mizuno, Hiroshi Takahashi** and Haruo Okabe**

First Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Nagasaki University School of Dentistry
(Chief : Prof. Akio Mizuno)

* First Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Kyushu Dental College
(Chief : Prof. Jinichi Fukuda)

** Department of Oral Pathology, Nagasaki University School of Dentistry
(Chief : Prof. Haruo Okabe)

Abstract

A case of adenomatoid odontogenic tumor (AOT) associated with remarkable root resorption at the maxilla in a 50-year-old female was presented. Cytological, histopathological, and electron microscopical examinations of AOT revealed some valuable findings. The smears had cohesive clusters with ductal structure and sheets of spindle cells characteristic for AOT. Cytological findings were found to be useful for diagnosis. It was also found that neoplastic cells of the present AOT showed remarkable nuclear pleomorphism and nuclear pocket.

Key words : adenomatoid odontogenic tumor, electron microscope, cytological diagnosis, maxilla

Requests for reprints to : Dr. Yamabe S., First Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Nagasaki University School of Dentistry, Sakamoto, Nagasaki, 852 Japan