

## チタンメッシュトレーとPCBMによる 下顎骨再建を施行した類腱型エナメル上皮腫の1例

川村 貴史, 千葉 卓, 八木 正篤, 古城慎太郎, 瀬川 清,  
水城 春美, 三上 俊成\*, 佐藤 泰生\*, 武田 泰典\*

岩手医科大学歯学部口腔外科学講座顎口腔外科学分野

(主任: 水城 春美 教授)

\*同口腔病因病態制御学講座口腔病理学分野

(主任: 武田 泰典 教授)

(受付: 2011年1月6日)

(受理: 2011年3月11日)

類腱型のエナメル上皮腫 (desmoplastic ameloblastoma: DA) は, エナメル上皮腫の一亜型で, 豊富な膠原線維の増生からなる間質と石鹸泡状のエックス線透過像を特徴とする. DA は, X線学的に境界不明瞭で, 腫瘍周囲の被膜がないため切除範囲の設定が困難で, 典型的なエナメル上皮腫と比較して, 再発の割合が高いと考えられている.

2006年9月, 58歳の男性が, 下顎右側臼歯部歯肉の腫脹と顎骨の膨隆にて近医より当科を紹介受診した. 画像所見において, 腫瘍の境界は不明瞭で, 腫瘍は下顎骨下縁にまで及んでいた.

生検の結果, 組織学的に類腱型のエナメル上皮腫と診断された. 下顎区域切除術ならびにチタンメッシュトレーと腸骨からのPCBMによる下顎骨再建を施行した.

術後4年経過した現在, 再発はみられていない.

### 緒 言

類腱型のエナメル上皮腫は間質の豊富な膠原線維の増生と境界不明瞭な蜂巢状のエックス線透過像を特徴とする疾患で, 2005年WHO分類<sup>1)</sup>でエナメル上皮腫の一亜型とされた.

著者らは, 下顎骨右側に生じた類腱型のエナメル上皮腫の1例に対して下顎区域切除を行い, チタンメッシュトレーと腸骨から採取したPCBM (海綿骨骨髓細片) による顎骨再建を施行したので, その概要を報告する.

---

A case of desmoplastic ameloblastoma mandibular reconstructed by titanium mesh tray and PCBM  
Takafumi KAWAMURA, Suguru CHIBA, Shintaro KOGI, Masaatsu YAGI, Kiyoshi SEGAWA, Harumi MIZUKI,  
Toshinari MIKAMI, Hirotaka SATO, Yasunori TAKEDA  
Division of Maxillofacial Surgery, Department of Oral and Maxillofacial Surgery, School of Dentistry,  
Iwate Medical University  
(Chief: Prof. Harumi MIZUKI)  
Division of Oral Pathology, Department of Pathogenesis and Control of Oral Disease, School of Dentistry,  
Iwate Medical University  
(Chief: Prof. Yasunori TAKEDA)

## 症 例

患者：58歳，男性

初診：2006年9月

主訴：下顎右側臼歯部の腫れが気になる

既往歴：12年前から高血圧症，アルコール性肝炎

家族歴：特記事項なし

現病歴：1か月前，下顎右側第一小白歯および第二大白歯の動揺を自覚したため近くの歯科医院を受診した。同医院にて歯肉の腫脹と顎骨の膨隆を指摘され，同年9月，同医院からの紹介により当科を受診した。

全身所見：特記事項なし

顔貌所見：左右対称で，特記事項なし

口腔内所見：下顎右側臼歯相当部に頬舌的な骨の膨隆を認めた（図1）。

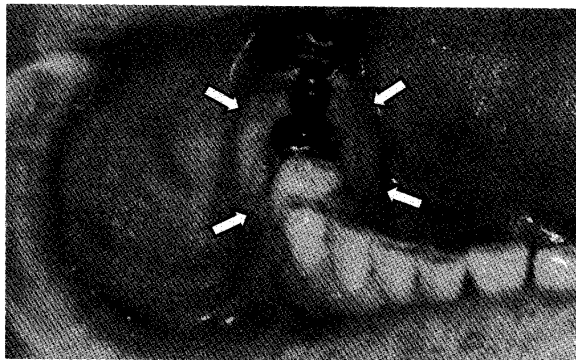


図1 初診時の口腔内写真

下顎右側臼歯相当部に頬舌的な骨の膨隆を認めた

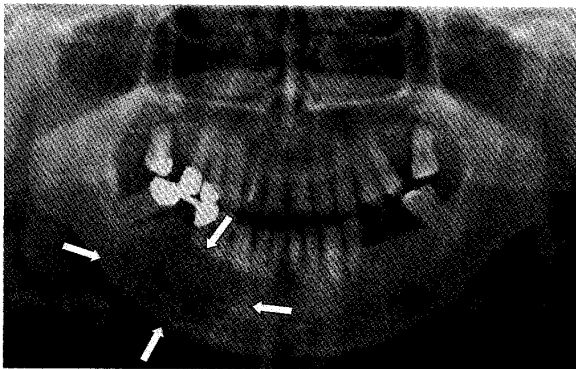


図2 初診時のパノラマエックス線写真

下顎右側側切歯から右側第一大臼歯にかけて多房性の境界不明瞭な透過像を認めた

画像所見：パノラマX線写真で下顎右側側切歯から右側第一大臼歯にかけて多房性の境界不明瞭な透過像を認めた（図2）。

CTでは，頬側方向への顎骨膨隆と皮質骨の著明な圧迫吸収を認めた（図3）。

Dental-MPRでは，病巣は下顎下縁に及んでおり，下顎管の下方への圧排と頬側皮質骨の菲薄化を認めた（図4）。



図3 初診時のCT画像

頬側方向への顎骨膨隆と皮質骨の著明な吸収を認めた

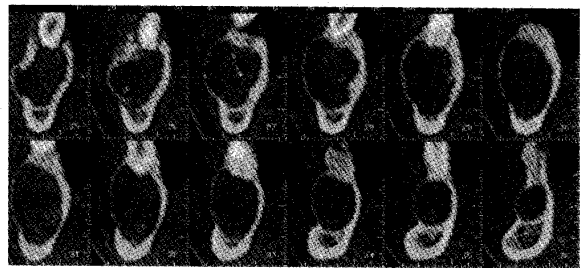


図4 初診時のDental-MPR画像

病巣部は下顎下縁に及んでおり，下顎管の下方への圧排と頬側皮質骨の菲薄化を認めた

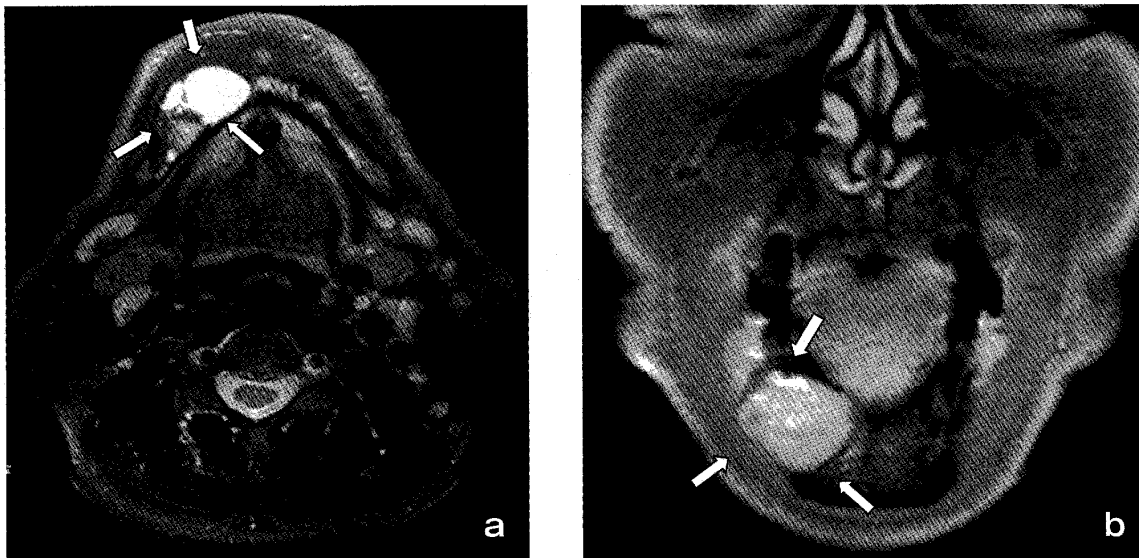


図5 初診時のMRI画像

a: 水平断 T2WI, b: 前額断 T1WI (Gd 造影), 下顎の正中から右側小臼歯部にかけて T2WI で高信号を呈し, ガドリニウムで造影される腫瘤を認めた

MRI では, 下顎正中から右側小臼歯部にかけて T2WI で高信号を呈し, ガドリニウムで造影される腫瘤を認めた (図 5a, b).

臨床診断: 下顎骨腫瘍

処置および経過: 2007 年 2 月に入院した。はじめに, 病変部の生検を行ったところ, 病理組織学的診断は類腫型のエナメル上皮腫であった。

同月, 全身麻酔下にて下顎区域切除術, チタンメッシュトレーおよび PCBM による下顎骨再建術, 大耳介神経移植による下歯槽神経再建術

を施行した (図 6a, b)。下顎骨下縁から歯槽部にかけて骨膜上で剥離し, 腫瘍部分を含めて区域切除した。ついで, 右側大耳介神経を長さ約 4cm 採取し, 切除した下歯槽神経とオトガイ神経間に移植した。神経移植後, チタンメッシュトレーを下顎骨の切除端部分に架橋的に装着, 固定し, 前腸骨稜部から採取した PCBM をトレー内に圧密充填した。

術後, 高気圧酸素療法を計 20 回施行した。術後経過は良好で, パノラマ X 線写真にて骨

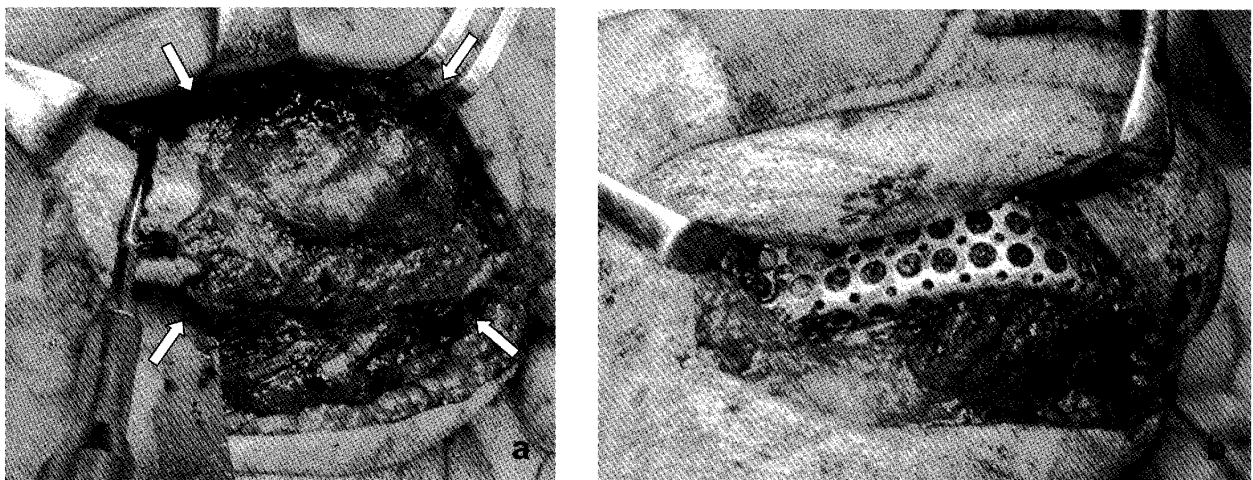


図6 術中写真

a: 腫瘍部位を含めた区域切除 (矢印: 腫瘍), b: チタンメッシュトレーと PCBM による下顎骨再建

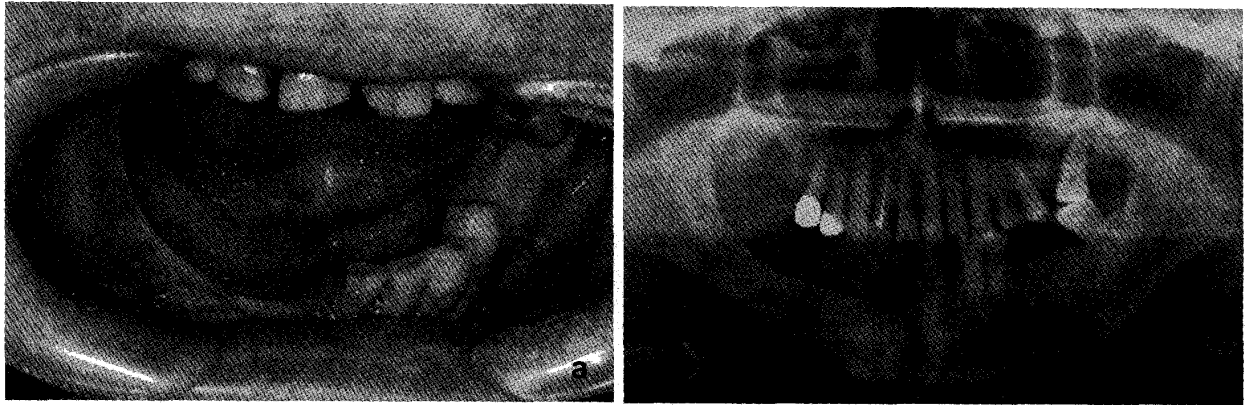


図7 術後の口腔内写真(a)ならびにパノラマエックス線写真(b)  
骨形成が確認され, 再発を疑う所見は認めない.

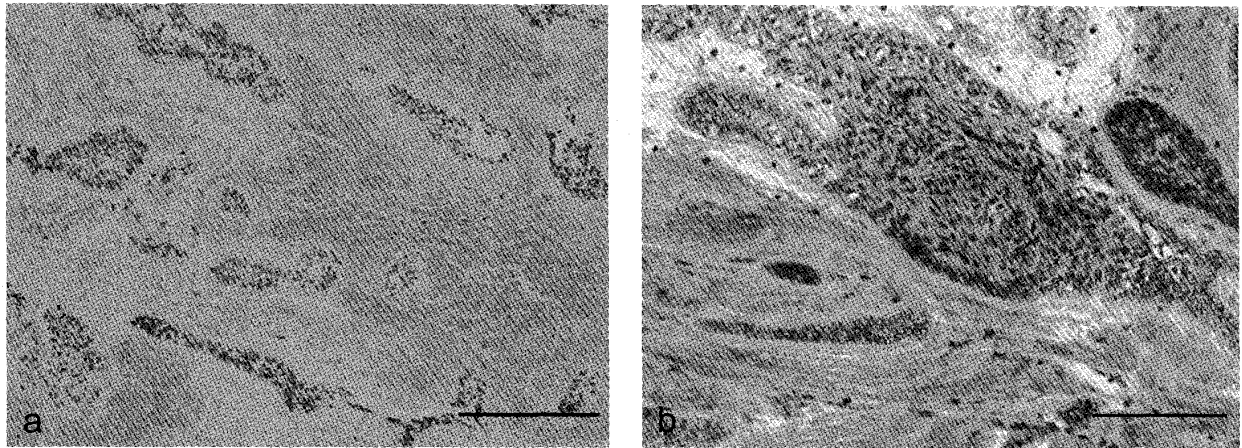


図8 図: 病理組織像

豊富で密な線維性結合組織からなる間質中に, 粘液変性物に周囲を囲まれた大小不規則な形の腫瘍胞巣を認めた. 実質は扁平な細胞の密な配列からなっており, エナメル器に類似していた (H-E 染色).

a.  $\times 100$  bar :  $200\mu\text{m}$     b.  $\times 200$  bar :  $100\mu\text{m}$

移植部位の不透過性の増強を認め, 術後 12 か月目に全身麻酔下にチタンメッシュトレイを除去した. その際, 目視でも骨形成が確認できた. 再発を疑う所見は認めなかった (図 7a, b).

術後 4 年経過した現在, 経過観察を行っているが, 下顎の機能障害はなく, 知覚も回復しつつある. また, 再発も認めていない.

病理組織学的所見: 豊富で密な線維性結合組織からなる間質中に, 粘液変性物に周囲を囲まれた大小不規則な形の腫瘍胞巣を認めた. 実質は, 扁平な細胞の密な配列からなっており, エナメル器に類似していた (図 8).

病理組織診断: エナメル上皮腫 (類腱型)

## 考 察

類腱型のエナメル上皮腫は 1984 年に Eversole ら<sup>2)</sup> によって初めて報告され, 2005 年の WHO 分類<sup>1)</sup> でエナメル上皮腫の一亜型に分類された.

Beckley ら<sup>3)</sup> は 1984 年から 2002 年までの 18 年間に報告された類腱型のエナメル上皮腫 81 例について報告している. それによると, 典型的なエナメル上皮腫とは異なり, 類腱型のエナメル上皮腫に性差はなく, 発生部位は上顎と

下顎ではほぼ同率の発生率であると述べている。しかし、渡邊ら<sup>5)</sup>が経験した症例は全て下顎に発生しており、自験例も下顎であった。

また、Beckleyら<sup>3)</sup>は類臃型の発生頻度はエナメル上皮腫全体の0.9%~12.1%と述べている。Takataら<sup>6)</sup>のエナメル上皮腫の研究によると、類臃型と診断された症例は89例中の7例(7.9%)であった。このことから、歯原性腫瘍全体に対するエナメル上皮腫の割合を考えると類臃型のエナメル上皮腫は比較的まれな疾患であるといえる。

本腫瘍の治療としては一般的に顎骨区域切除、辺縁切除、摘出搔爬が行なわれている。後藤ら<sup>7)</sup>によると、典型的なエナメル上皮腫の再発率は10.1%~20.6%と報告されているのに対して、類臃型は34例中8例(23.5%)で再発を認めたと報告しており、再発率はやや高いと考えられる。これは、Waldronら<sup>4)</sup>が考察したように、類臃型は腫瘍周囲の被膜が不完全で浸潤性の増殖を示す場合があり、また周囲との境界も不明瞭で切除範囲の設定が困難であるためと考えられる。

自験例では、画像所見において腫瘍の境界が不明瞭であり、腫瘍が下顎骨下縁付近まで及んでいたこと、また生検の結果、組織学的に類臃型と診断されたことから、病巣部を確実に切除するために下顎区域切除術を選択した。再建方法として比較的手術侵襲の少ない、チタンメッシュトレーと自家PCBM移植による下顎骨再建を施行した。

本症例においては術後12か月でメッシュトレーを除去したが、自家PCBM移植では一般に術後6か月程度で本来の下顎骨に近似した形態の骨が再建されると報告されている<sup>8)</sup>ように、術後6か月を経過すればトレーを除去できると思われる。なお、PCBM移植後の移植骨の生着ならびに骨形成状態の判定にはX線画像検査が有用で、本症例においても、術後経時的にパノラマX線写真を撮影し、骨移植部位の骨形成の状態を観察した。

現在、術後4年経過しているが、再発なく経

過良好である。術後13年で再発したとの報告もある<sup>9)</sup>ことから、今後も定期的な経過観察を行っていく予定である。

本論文の要旨は第34回日本口腔外科学会北日本地方会(2008年5月16日、新潟)で発表した。

## 引用文献

- 1) Gardner, D. G., Heikinheimo, K., Shear, M., Philipsen, H. P., Coleman, H.: Ameloblastomas, Barnes, L., Eveson, J.W., Reichart, P., Sidransky D., ed.: World Health Organization Classification of Tumours. Pathology and genetics of head and neck tumours. IARC Press, Lyon, 296-300, 2005.
- 2) Eversole, L. R., Leider, A. S., Hansen, L. S. : Ameloblastomas with pronounced desmoplasia. J. Oral Maxillofac. Surg. 42:735-740, 1984.
- 3) Beckley, M. L., Farhood, V., Helfend, L. K., Alijanian, A.: Desmoplastic ameloblastoma of the mandible: a case report and review of the literature. J. Oral Maxillofac. Surg. 60 : 194-198, 2002.
- 4) Waldron, C. A. and el-Mofty, S. K.: A histopathologic study of 116 ameloblastoma with special reference to the desmoplastic variant. Oral Surg. Oral Med. Oral Pathol. 63 : 441-451, 1987.
- 5) 渡邊 裕, 岡崎雄一郎, 原口孝之, 小澤靖弘, 山根源之, 田中陽一: 下顎に生じた cystic ameloblastoma の一部に desmoplastic ameloblastoma の像を呈した1例. 日口外誌, 50 : 479-482, 2004.
- 6) Takata, T., Miyauchi, M., Ogawa, I., Zhao, M., Kudo, Y., Sato, S., Takekoshi, T., Nikai, H., Tanimoto, K.: So-called hybrid lesion of desmoplastic and conventional ameloblastoma: report of a case and review of the literature. Pathol. Int. 49: 1014-1018, 1999.
- 7) 後藤秀之, 河野憲司, 平野公彦, 神田稔郎, 荒井千春, 柳澤繁孝: 下顎骨前歯部に生じた desmoplastic ameloblastoma の1例. 日口外誌, 47 : 528-531, 2001.
- 8) 飯野光喜: 自家腸骨海綿骨細片による顎骨の機能再建. 山形医学, 28 : 1-11, 2010.
- 9) 須田 聡, 斎藤健一, 中塚貴志, 米原啓之: 血管柄付腓骨により再建を行った Desmoplastic ameloblastoma の1例. 日口外誌, 40 : 1566, 1994.

## A case of desmoplastic ameloblastoma mandibular reconstructed by titanium mesh tray and PCBM

Takafumi KAWAMURA, Suguru CHIBA, Shintaro KOGI, Masaatsu YAGI, Kiyoshi SEGAWA, Harumi MIZUKI, Toshinari MIKAMI\*, Hirotaka SATO\*, Yasunori TAKEDA\*

Division of Maxillofacial Surgery, Department of Oral and Maxillofacial Surgery,  
School of Dentistry, Iwate Medical University  
(Chief : Prof. Harumi MIZUKI)

\*Division of Oral Pathology, Department of Pathogenesis and Control of Oral Disease,  
School of Dentistry, Iwate Medical University  
(Chief : Prof. Yasunori TAKEDA)

[Received : January 6, 2011 : Accepted : March 11, 2011]

**Abstract** : Desmoplastic ameloblastoma (DA) is a variant of ameloblastoma, characterized by foamy radiolucency and desmoplastic stroma. The recurrence rate of DA is thought to be higher than that of usual ameloblastoma because the fibrous capsule surrounding the tumour is not present and decision of the resection area is difficult, corresponding to the radiographically poorly-defined tumour margin.

A 58-year-old man was referred to our clinic in September 2006 because of swelling of the mandible on the right side. Radiography indicated a poorly-defined lesion that expanded to the inferior border of the mandible.

We carried out a biopsy and a diagnosis of DA was made histopathologically. Then, we carried out segmental mandibulectomy and mandibular reconstruction using a titanium mesh tray and PCBM from iliac bone.

No signs of recurrence have been seen for 4 years after surgery.

**Key Words** : ameloblastoma, desmoplastic type, mandibular reconstruction, titanium mesh tray, PCBM