

上顎洞腫瘍として発生したエナメル上皮腫 2 例

尾尻博也¹, 多田信平¹, 辰野 聡², 有泉光子³¹東京慈恵会医科大学放射線医学教室 ²東京歯科大学市川総合病院放射線科³東京都職員共済組合青山病院

はじめに

エナメル上皮腫は歯源性腫瘍では最も頻度の高い腫瘍であるが、上顎洞腫瘍として発生するものはまれである。画像所見および術前生検でも確定診断に苦慮する例も多い。今回、我々は上顎洞腫瘍として生じたエナメル上皮腫の 2 例を経験したので、画像所見とともに文献的考察を加えて報告する。

症 例

症例 1: 48 歳, 男性。数か月前から鼻閉感が持続, 徐々に増強するため, 近医耳鼻科受診。右中, 下鼻道に充満する易出血性ポリープを認め, 鼻腔側壁および下鼻道側壁の内側への突出を認めた。精査加療目的にて当院耳鼻科紹介受診。血液生化学検査に異常なし。既往歴として 30 年前虫垂切除術を受けている。生検にて異型度の乏しい円柱状上皮が柵状, 管腔状に増生しており基底細胞腺腫が疑われた。CT 横断像 (Fig. 1) では右上顎洞を中心とした膨張性発育を示す軟部腫瘤を認め, 内側は右鼻腔を占拠し, 外後方は一部側頭下窩へと進展していた。腫瘍の内部は不均一であった。MRIT₁ 強調横断像 (Fig. 2A) で腫瘍は骨格筋と比較して内部不均一な等から低信号強度を示した。T₂ 強

調像 (Fig. 2B) では腫瘍全体は高信号を示し, 内部に不規則な低信号域を認めた。ガドリニウム DTPA 造影後 T₁ 強調像 (Fig. 2C) では強い増強効果を示す充実部分と造影されない嚢胞部分が混在していた。画像上, 智歯との関連は明らかでなかったが, 上歯槽弓の一部に病変は

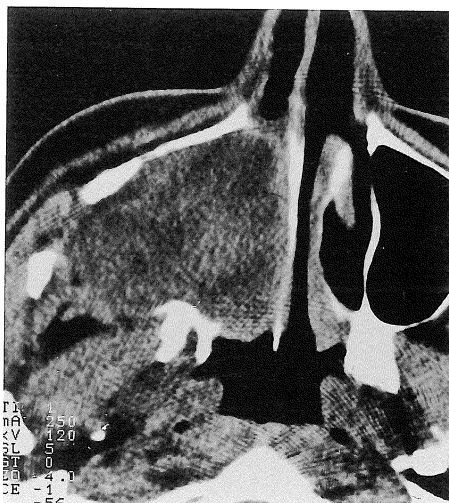


Fig. 1. Case 1. Transverse CT images. A soft-tissue density mass stays centered in right maxillary antrum. Remodeling of medial and posterior walls of antrum is noted. The lesion directly extends into right nasal meatus medially and buccal space posterolaterally. Internal architecture of the lesion is non-homogeneous.

キーワード ameloblastoma, maxillary antrum, MRI

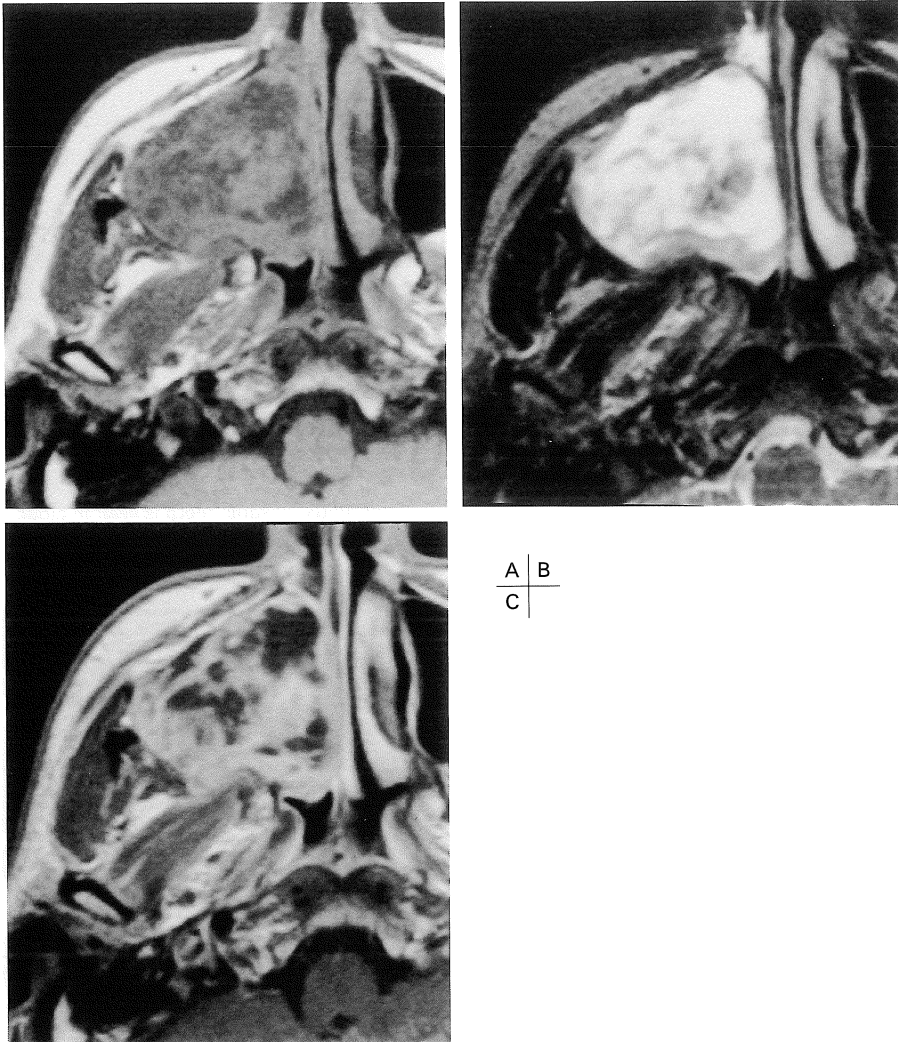


Fig. 2. Case 1. MR images of sinusal cavities. T₁-weighted transverse images (A). The lesion presents as an intermediate signal intensity mass with internal inhomogeneity. T₂-weighted transverse images (B). The lesion is represented by an extremely high intensity mass. Low-intensity septation-like structures are seen in the lesion. T₁-weighted transverse images after intravenous administration of Gadolinium-DTPA (C). The lesion consists of intensely-enhanced solid areas and non-enhanced cystic areas.

及んでいた。手術施行。上顎洞前壁開放により上顎洞粘膜に覆われた腫瘍を認めた。歯槽隆起との剥離は困難であったが、他の周囲構造との

剥離は容易であった。摘出標本の病理組織診断 (Fig. 3) で腫瘍は丈の高い円柱状細胞の柵状配列と類円形細胞のシート状配列より成り、腺

1997年11月20日受付 1998年1月12日改訂

別刷請求先 〒105-8461 東京都港区西新橋 3-25-8 東京慈恵会医科大学放射線医学教室 尾尻博也

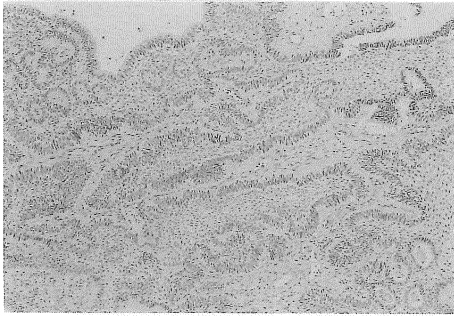


Fig. 3. Case 1. Histopathologic examination. The tumor has a follicular pattern with nests of tumor cell surfaced with columnar cells with central squamous metaplasia.

腔状、嚢胞状を呈したり多彩な像を認めた。エナメル上皮腫の最終診断を得た。

症例2：28歳，男性．半年前より鼻閉感持続．近医耳鼻科で1か月前に右鼻腔の腫瘍を指摘され，精査加療目的で当院耳鼻科受診．腫瘍穿刺にて漿液性液体を吸引し，細胞診の結果はclass IIであった．血液生化学検査では白血球増多 ($10.6 \times 10^3/\text{mm}^3$) の他異常なし．既往に特記すべきものなし．副鼻腔断層撮影 (Fig. 4) で上顎洞軟部影内に落ち込んだ埋伏智歯を認めた．造影後CT横断像 (Fig. 5) で右上顎洞を中心に膨張性腫瘍を認め，不均一な増強効果を示した．MRIT₁強調横断像 (Fig. 6A) で腫瘍は内側は鼻腔，外側方は側頭下窩への進展が見られた．腫瘍内部は不均一で，骨格筋と比較して等からわずかに高信号強度を示す領域が混在し，モザイク様を呈していた．腫瘍はT₂強調像 (Fig. 6B) では高信号を示し，内部には低信号の隔壁様構造を含む．ガドリニウム-DTPA 造影後 T₁ 強調像 (Fig. 6C) では増強効果を示す充実性部分と隔壁が造影される多房性嚢胞部分とが混在していた．手術施行．上顎洞前壁を開放後，腫瘍摘出．下壁は歯根周囲に入り込んでおり，剝離困難であった．病理学的検査 (Fig. 7) では線維上皮性組織のポリープ様発育を主体とし，間質は粘液様変化が目立

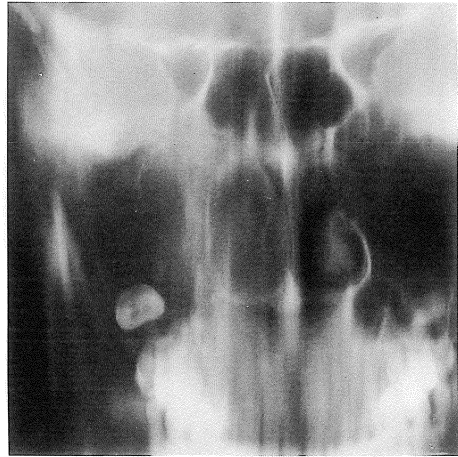


Fig. 4. Case 2. Conventional tomography. An unerupted wisdom teeth is seen in cloudy right antrum.

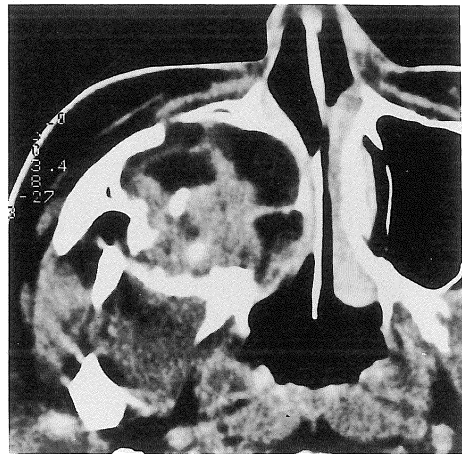


Fig. 5. Case 2. Post contrast CT image. A soft-tissue mass filling right maxillary antrum remodels antral walls and directly extends into right nasal meatus. The lesion is quite non-homogeneously enhanced.

ち，線維芽細胞の賦活増生を認めた．エナメル上皮腫の診断を受けた．

考 察

エナメル上皮腫は歯源性腫瘍では最も頻度の

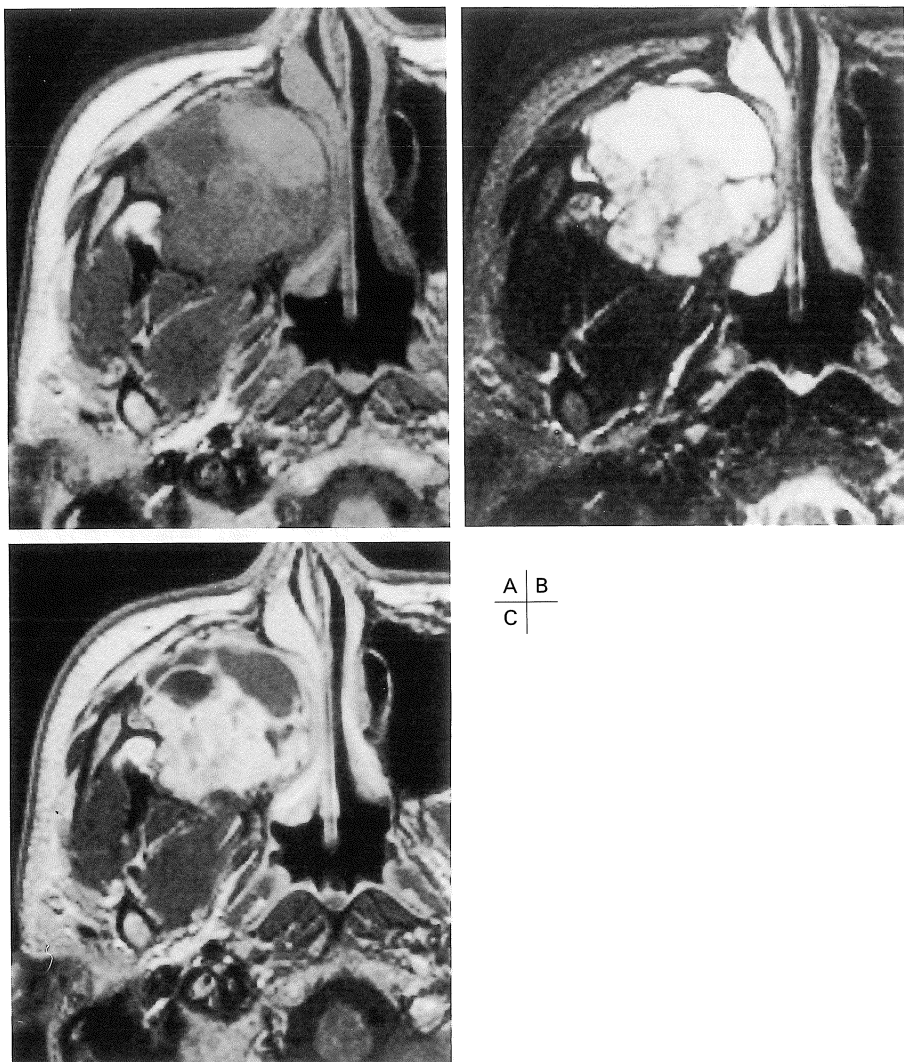


Fig. 6. Case 2. MR images of sinonasal cavities. T₁-weighted transverse images (A). There are low-intermediate signal intensity areas and slightly high intensity areas, which intermix each other. Remodeling of posterior wall of right antrum represents expansile growth of the lesion. T₂-weighted transverse images (B). The lesion is noted as a multiloculated cystic mass. T₁-weighted transverse images after intravenous administration of Gadolinium-DTPA (C). There are both intensely enhanced areas and non-enhanced cystic areas in the lesion.

高い腫瘍であるが、歯原性腫瘍の1%を占めるのみである¹⁾。その80%は下顎骨より発生、特に下顎臼歯部、下顎角部発生が70%を占める。上顎骨発生は全体の20%以下で、そのうち47%が臼歯部、15%が上顎洞か鼻腔底、9%

が臼歯前部、9%が犬歯から切歯部、2%が口蓋発生である²⁾。組織学的に下顎病変と同様であるにもかかわらず、上顎病変では近接する眼窩、頭蓋底、頭蓋内進展の有無が臨床的に重要で、ときに致死性である³⁾。まれに骨外発生を



Fig. 7. Case 2. Histopathologic examination. There is a predominantly plexiform pattern composed of trabeculae of tumor cells with columnar epithelium surface and the central cores were composed of stellate reticular cells.

示し、末梢性エナメル上皮腫と称される⁴⁾。性差、人種差なく、30~50歳代に多い⁵⁾。しばしば症例2のごとく埋没歯を容れる。外傷の既往がある例もある。良性だが侵襲性のある腫瘍で、まれに転移を来す。肺、所属リンパ節の他、胸膜、椎体、頭蓋骨、肝臓、耳下腺などが標的臓器となりうる⁶⁾。病巣搔爬、単純摘出術のみでは60%、根治術後では5%の再発率を有する⁷⁾。

肉眼的に充実性と嚢胞性に分かれるが、ほぼ全例で部分的に嚢胞部分を有する。嚢胞性エナメル上皮腫はさらに単房性と多房性に区分される。病理学的にはWHO分類に従い濾胞型と叢状型に分かれ、その混合型が最も多い⁸⁾。また、WHO分類では組織学的に良性所見のみであっても、転移を来した場合悪性エナメル上皮腫と定義している⁸⁾。

画像所見として単純X線写真では顎骨に生じたエナメル上皮腫は軽度硬化縁を有する膨張性骨透亮像として見られ、多房性のものは蜂巢様を呈する。歯尖の侵食像、歯の偏位を伴うことがある。歯を容れる単房性嚢胞性エナメル上皮腫では単純X線写真や断層撮影でエナメル質嚢胞との鑑別が問題となる。CTでは低濃度の嚢胞部分と充実部分の混在する膨張性発育を示す腫瘍として認められる。CT、MRIで充実

成分が証明されればエナメル質嚢胞との鑑別点となるが、ときにエナメル質嚢胞壁よりエナメル上皮腫を生じる。これを壁にエナメル上皮腫と称し、全エナメル上皮腫の5~6%を占める^{9)~11)}。MRIではT₁強調像で内部不均一な低信号、T₂強調像で高信号と内部に混在する低信号域として認める。ガドリニウムDTPA経静脈的投与により充実成分は増強効果を示す。これらの画像所見は今回の2例でも同様である。しかし、上顎骨歯槽突起より発生し上顎洞内に膨張性に突出した病変では、上顎洞腫瘍として認められることから診断に苦慮する例もある。画像診断上では腺様嚢胞癌、腺癌(結腸型)、扁平上皮癌等が鑑別診断として問題となる。症例2の様に腫瘍内の埋没歯が認められればこれらは否定的である。上顎洞を中心として充実成分と嚢胞成分の混在した膨張性腫瘍を見たとき上顎発生のエナメル上皮腫を鑑別疾患として考慮すべきである。埋没歯の有無がその診断を示唆することがあり重要である。

結 語

まれな上顎洞腫瘍として発生したエナメル上皮腫の2例を経験したので、MRI他の画像所見を中心に文献的考察を加えて報告した。

文 献

- 1) Small IA, Waldron CA : Ameloblastoma of the jaws. *Oral Surg* 1955 ; 8 : 281-297
- 2) Sehdev MK, Huvos AG, Strong EW : Ameloblastoma of maxilla and mandible. *Cancer* 1974 ; 33 : 324
- 3) Tsaknis PJ, Nelson JF : The maxillary ameloblastoma : an analysis of 24 cases. *J Oral Surg* 1980 ; 38 : 203-206
- 4) El-Mofty SK, Gerald NO, Fasish SE, et al. : Peripheral ameloblastoma : a clinical and histologic study of 11 cases. *J Oral Maxillofac Surg* 1991 ; 49 : 970-974
- 5) Sandler KA, Novo RM, Rudner BE : A study of

- ameloblastoma : age, sex, and location statistics. NY State Dent J 1983 ; 49 : 682-684
- 6) Madiedo G, Hongyung C, Kleinman JG : Ameloblastoma of the maxilla with distant metastasis and hypercalcemia. Am J Clin Pathol 1981 ; 75 : 585-591
- 7) Hickey MJ : Surgical treatment of adamantinoma. Am J Surg 1956 ; 92 : 852
- 8) Kramer IRH, Pindborg JJ, Shear M. Histological Typing of Odontogenic Tumors. 2nd ed. Berlin, Heidelberg, New York, London : Springer-Verlag, 1991 ; 11-14
- 9) Robinson L, Martinez MG : Unicystic ameloblastoma : a prognostically distinct entity. Cancer 1977 ; 40 : 2278-2285
- 10) Matteson SR. Benign tumors of the jaws. In : Goaz PW, White SC, eds. Oral Radiology. 2nd ed. St. Louis, USA : Mosby, 1987 ; 514-565
- 11) Shteyer A, Lustman J : The mural ameloblastoma : review of the literature. J Oral Surg 1978 ; 36 : 866-872

Two Cases of Ameloblastoma Presenting as Maxillary Sinus Masses

Hiroya OJIRI¹, Shimpei TADA¹, Satoshi TATSUNO²,
Mitsuko ARIIZUMI³

¹Department of Radiology, The Jikei University school of Medicine
3-25-8 Nishishimbashi, Minato-ku, Tokyo 105-8461

²Department of Radiology, Ichikawa General Hospital, Tokyo Dental College

³Department of Radiology, The Aoyama Tokyo Metropolitan Officers' Hospital

We present two unusual cases of ameloblastoma presenting as maxillary antral masses. Although ameloblastoma is the most commonly seen odontogenic tumor, it rarely arises from the maxilla. In the two cases presented here, the lesions were evaluated with cross-sectional imaging, by which means they were visualized as expansile masses centered in the maxillary antrum. Multiple cystic areas were present within the lesions and were clearly identified as high-intensity regions on T₂-weighted images. Solid components of the masses were inhomogeneously enhanced after administration of a paramagnetic agent. In one case, the mass contained unerupted wisdom teeth.