

■ CASE REPORT

Odontogenic Ghost Cell Carcinomaの一例

久保田 勇人^{*1}, 北原 規^{*1}, 濱水 京子^{*1}, 清野 哲孝^{*2},
菱田 豊彦^{*1}, 宗近 宏次^{*1}, 上條 竜太郎^{*3}, 南雲 正男^{*3}

A CASE OF ODONTOGENIC GHOST CELL CARCINOMA

Hayato KUBOTA^{*1}, Tadashi KITAHARA^{*1}, Kyoko HAMAMIZU^{*1}, Noritaka SEINO^{*2},
Toyohiko HISHIDA^{*1}, Hirotugu MUNESHIKA^{*1}, Ryutaro KAMIJYO^{*3}, Masao NAGUMO^{*3}

(Received 28 June 1999, accepted 7 September 1999)

Abstract: A 38-years-old man presented with right cheek pain and swelling. CT revealed an irregular shaped right maxillary mass, with both cystic and solid components and destruction of anterior bony wall. Enucleation of the mass was performed. Histologic examination revealed odontogenic ghost cell carcinoma. A recurrent tumor was seen at 2 months after enucleation, and the patient underwent a partial maxillectomy and 54Gy of postoperative radiotherapy. No sign of local recurrence or distant metastasis was observed at the 19 months follow-up.

Key words: Odontogenic ghost cell carcinoma, Post operative radiotherapy, CT findings

はじめに

odontogenic ghost cell carcinoma (以下OGCCと略)は石灰化菌原性嚢胞: calcifying odontogenic cyst (以下COCと略)から発生するとされている極めて稀な悪性腫瘍である。我々は上顎骨発生のOGCCの一例を経験したので、若干の文献的考察も含め報告する。

症例

症例は38歳男性

主訴: 右頬部痛

既往歴, 家族歴: 特記すべきことなし。

血液生化学所見: 特記すべき異常なし。

現病歴: 1997年2月頃より右頬部痛が出現。同年3月近耳鼻科受診。副鼻腔の異常を指摘さ

れ, 昭和大学歯科病院第二口腔外科紹介受診となる。

初診時現症: 受診時右頬部の腫脹が認められた。(Fig. 1) 口腔内は, 右上歯肉頬粘膜移行部から上顎結節にかけて腫脹し, 圧痛も認められたが, 表面粘膜は正常であった。歯科病院入院時のパントモグラフィでは, 右上顎骨に骨吸収像とその周囲の強い骨硬化性変化が認められた。骨吸収像の中に隔壁様構造と小さな石灰化が散在していた (Fig. 2)。初診時のCTでは壁の不整な嚢胞成分がみられ, 石灰化及び歯牙様構造を伴っていた。上顎洞壁は破壊され, 頬部へ浸潤し, 不均一に造影される軟部腫瘍を伴っていた。(Fig. 3a, b, c, d)。
経過: 右上顎洞COCの術前診断で97年6月13日腫瘍摘出術を施行したが, 術後のCTでは部

*¹ 昭和大学医学部放射線医学教室 (〒142-0064 東京都品川区旗の台1-5-8)

Department of Radiology, Showa University School of Medicine (1-5-8, Hatanodai, Shinagawa-ku, Tokyo, 142-0064 JAPAN)

*² 山梨赤十字病院放射線科

Department of Radiology, Yamanashi Red Cross Hospital

*³ 昭和大学歯学部第二口腔外科学教室

Second Department of Oral surgery, Showa university School of Dentistry



Fig. 1 Facial view shows swelling of the right cheek.

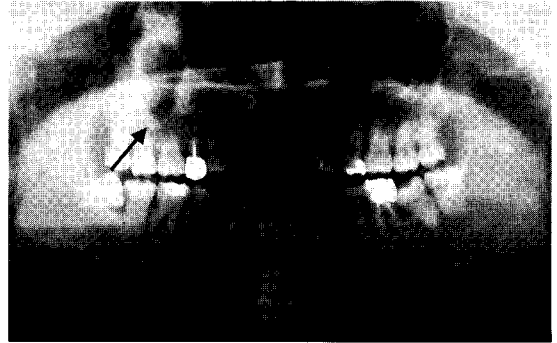


Fig. 2 Panoramic radiograph shows a mixed radiolucent-radiopaque lesion involving the right maxillary sinus.

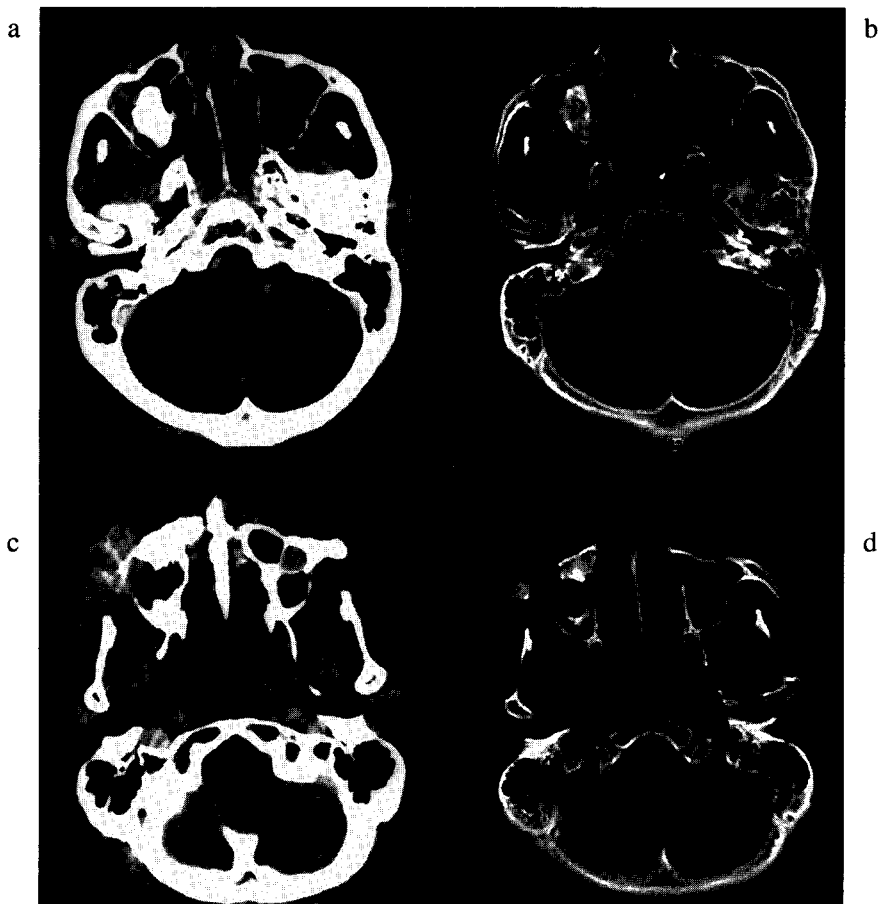


Fig. 3 CT appearance of patient at the time of initial hospital admission.
 (a), (b) Axial CT shows large calcification in the tumor.
 (c) CT scan reveals cystic component in the right maxillary sinus and soft tissue mass outside of the sinus.
 (d) CT scan shows destruction of the anterior maxillary sinus wall.

分的な腫瘍の残存が認められた。病理組織からOGCCと診断された。初回手術より2ヶ月後腫瘍再増大のため (Fig. 4a, b, c, d) 97年8月29日上顎腫瘍切除, 右上顎骨部分切除術が施行された。切除標本 (Fig. 5a) では右上顎部に類円形の腫瘍が認められ, 内部に多数の石灰化を伴っていた。病理組織像では (Fig. 5b, c) 多数のghost cellの塊がみられ, 異型細胞を伴った上皮も認められ, 二度目の切除標本の病理診断もOGCCであった。

腫瘍塊は切除されていたが (Fig. 6), 上顎骨の切除断端に腫瘍細胞が認められたため, 術後照射を右上顎部に対し行った。照射は

4MVX線を用い, 直交二門で30°ウェッジ使用した。照射野は6cm×7cmの大ききで, 設定病巣深度は4.5cm, 断端部を十分含め, また術前腫瘍があった範囲に2cmの marginsをとった。(Fig. 7)。スーパーサーを使用して下顎側は照射野外とし, 水晶体も照射野範囲から外した。一回線量は1.8Gyとし, 54Gy/30回を97年10月24日より12月9日まで46日間で施行した。軽度の放射線皮膚炎以外は, 急性障害はなく, 特異的な副作用は認められなかった。以後19ヶ月の観察を行っているが局所再発や遠隔転移, 晩期障害などは認められていない。

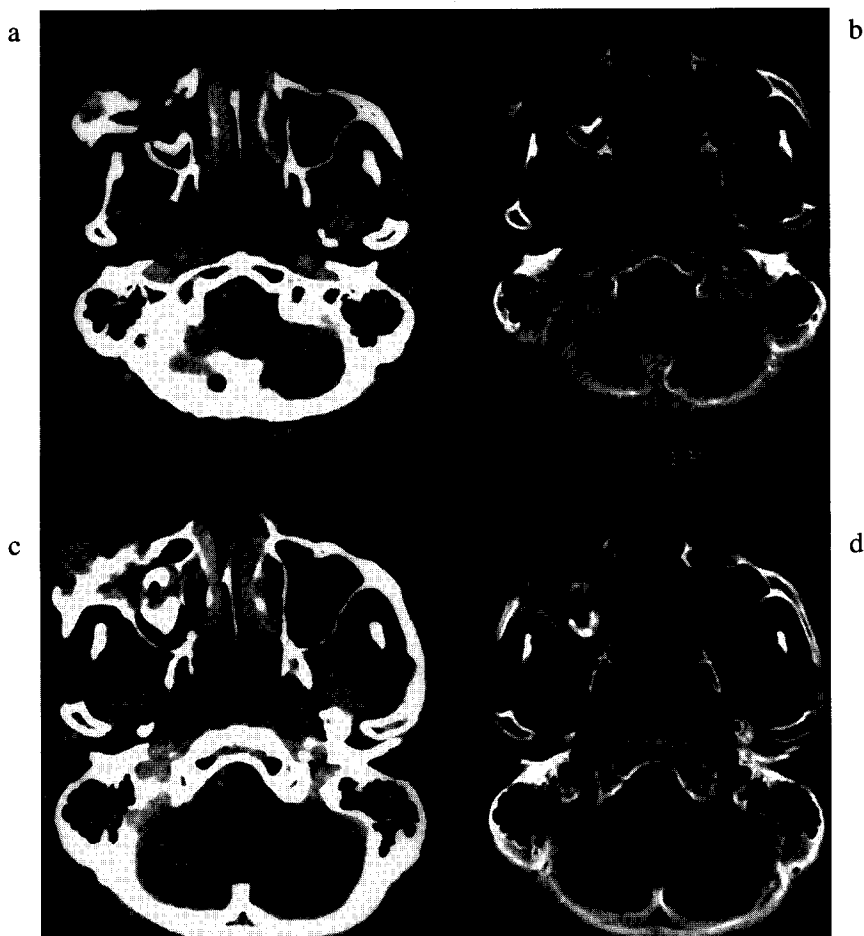


Fig. 4 CT appearance of the patient at the time of recurrence.
(a), (b) CT reveals soft tissue mass and calcification which extruded to the outer side of the sinus. Cystic component was resected.
(c), (d) CT shows soft tissue mass and calcification in the maxillary sinus.

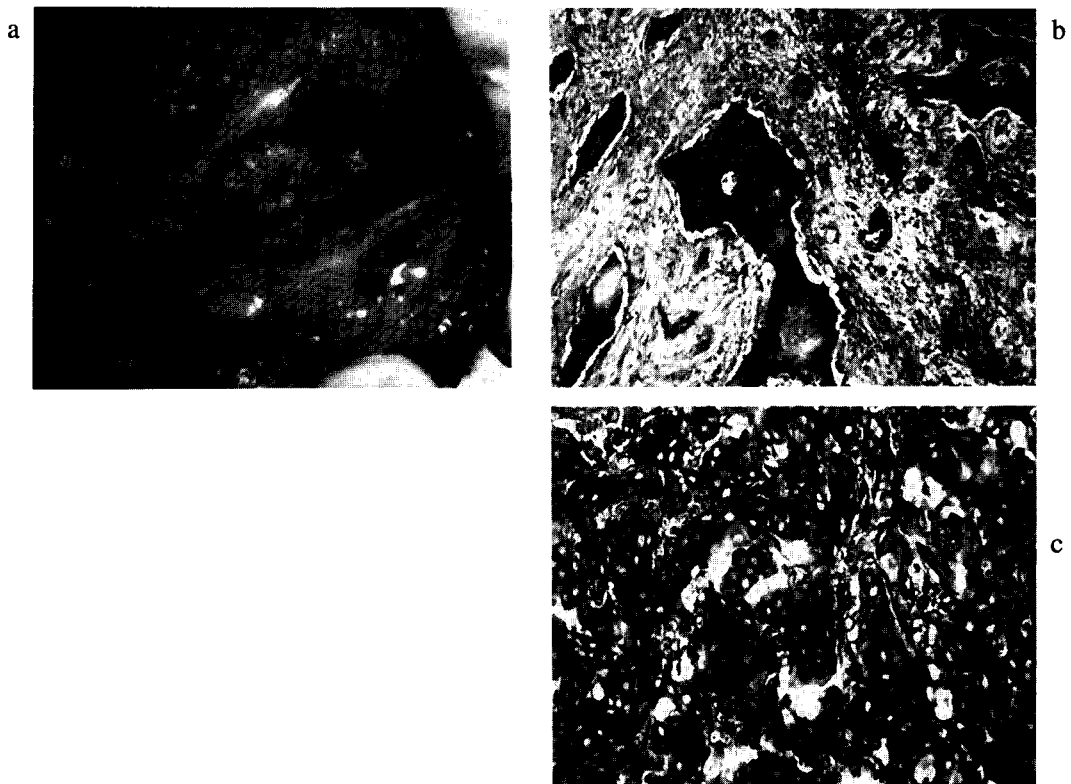


Fig.5

(a) Photograph of the cut specimen demonstrates dense calcification within the tumor.
 (b), (c) Photographs of lesion. (b) Focal calcification and nest of the ghost cells are seen. (HE stain; original magnification $\times 40$)
 (c) Ghost nucleated keratinizing cells are noted. (HE stain; original magnification $\times 100$)

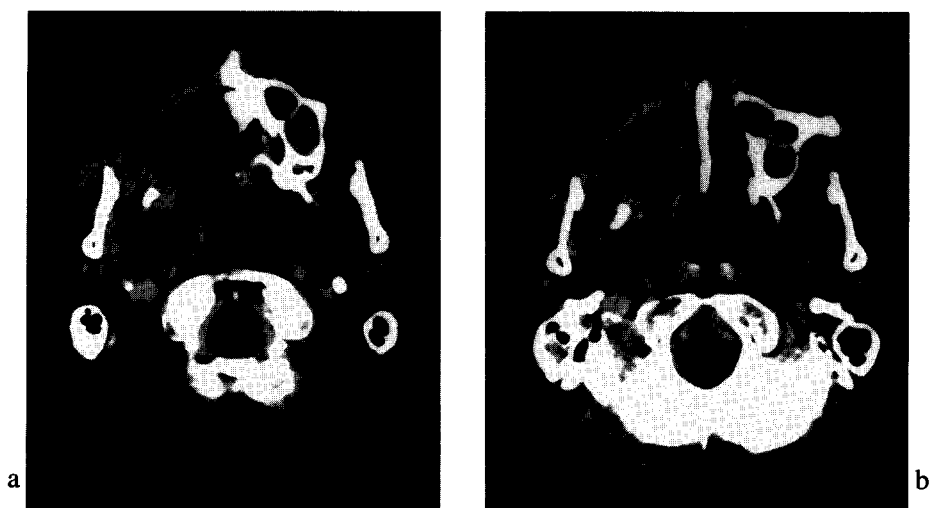


Fig. 6 (a), (b) CT scan after partial resection of maxillary sinus. CT shows no tumor rest, but microscopically, tumor cells were noted at the stump.

考 察

COCは一般に發育性の嚢胞であり¹⁾、ときとして増殖傾向を示すことがあることから、*dentinogenic ghost cell tumor*あるいは*odontogenic ghost cell tumor*という用語も提唱されている、稀な腫瘍性病変である²⁾。COCは上顎、下顎または歯肉内にある歯原性上皮遺残から発生すると考えられており、角化したghost cellと石灰化が特徴的とされている。COCの亜分類として*cystic*と*neoplastic*にわけ、*cystic*が85.9%、*neoplastic*が14.1%との報告³⁾もある。OGCCはCOCが悪性転化し、発生するとされている更に稀な悪性腫瘍で、その報告は国内・外を含め10例弱と非常に少ない⁴⁾⁻⁶⁾。OGCCは *aggressive (malignant?) epithelial odontogenic ghost cell tumor*^{7), 8)}, *malignant calcifying odontogenic cyst*^{9), 10)}, *carcinoma arising in a dentinogenic ghost cell tumor*¹¹⁾, *dentinogenic ghost cell amelanoblastoma*¹²⁾などとも呼ばれている。Ghost cellは角質変性に陥った膨大した細胞で、好酸性の細胞質と輪郭のかすかに残っている核を有し、細胞内に種々の程度の石灰化を伴う。Ghost cellは通常COCに見られるが、歯牙腫やエナメル上皮腫でも時に見られる。OGCCの定義は、「ghost cell

を形成している部分と様々な程度のdentinoidを伴い、歯原性上皮細胞に壊死や有糸分裂などの悪性所見または異型細胞を伴う腫瘍」というものである。報告されている症例をまとめると⁴⁾⁻¹²⁾、OGCCは成人に発症し、やや男性に多く、上顎を好発部位としているが、下顎発生の報告もある。主訴は無痛性の腫脹が多い。浸潤性の發育をし、骨破壊など局所進展傾向が強いが、遠隔転移も来しうる。

画像所見は上顎骨にX線透過性の部分と非透過性の部分が混在する病変として認められ、上顎洞の含気が消失することもある。CT所見については数例の報告があるのみで極めて少ないが^{5), 6), 11)}、そのCT像は我々のものと同様に骨硬化性変化があり、嚢胞性分と充実性分が混在し周囲への浸潤がみられるものと、円形の腫瘍が存在しているだけのものがある。CTは石灰化や嚢胞などの腫瘍性状や、浸潤範囲をよく描出し有用であった。画像上の鑑別としては、我々の症例のように浸潤傾向が強い場合、上顎骨発生の骨肉腫などが挙げられる。治療としては、手術のみが施行されている場合もあるが⁵⁾、腫瘍摘出後に、放射線治療及び化学療法が施行されることも多い^{4)-6), 9), 10), 12)}。しかし再発を繰り返したり^{5), 7), 8)}、肺や脳、皮膚などに遠隔転移を起こすこともあり^{5), 6)}、死亡例もある^{5), 9)}。

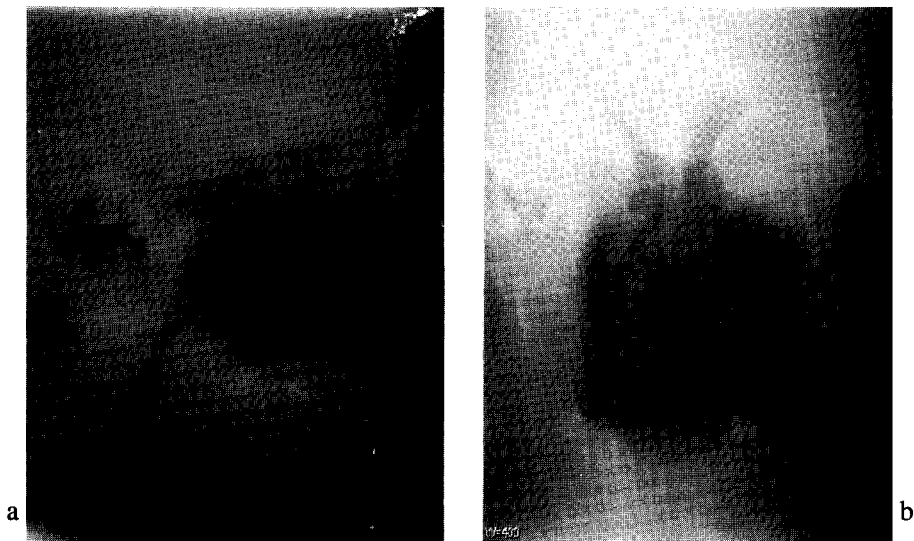


Fig. 7 Post operative radiation therapy portals are demonstrated.
(a) Lateral and (b) A→P film of linacgraphy.

放射線治療が行われた症例はいずれも術後照射として施行されている。用いられている線量や効果は様々であり、術後照射として原発巣に対し、62Gy、頸部に50Gy照射したが、局所再発し、肺転移などを起こし死亡した例⁹⁾や、術後再発部位及び頭蓋底浸潤部に50Gyの照射を行い、肺転移も合併したが5年以上生存している症例⁶⁾、術後照射30Gyを3週で施行し、3年以降は経過観察されていない例¹²⁾、電子線で50Gy術後照射が施行された例¹⁰⁾、48Gyの術後照射で長期生存している例⁴⁾などもある。症例数が少なく、この腫瘍の放射線治療に対する感受性や意義はまだ明確ではないが、組織学的に扁平上皮癌の特徴を持ったOGCCの報告もあり⁴⁾、放射線治療に対する感受性はある程度あると考えられる。我々の症例では、切除標本で断端部に腫瘍細胞が認められたため、再発の可能性が大きいと考え、54Gyの術後照射を施行した。照射野や照射方法について言及している文献は、検索し得た範囲では無かった。我々は術前の腫瘍進展範囲を考慮した上で、病理所見で陽性だった断端部分を十分含めるような照射野とし、照射方法は上顎癌の照射に準じ行なった。我々の症例では顕微鏡的腫瘍細胞の残存があったが、術後照射終了後の経過観察で画像的、肉眼的に局所再発は認められておらず、放射線治療が腫瘍制御に役立っている可能性がある。しかしOGCCに対する放射線治療の意義や至適線量、最適な照射法、必要な照射野などについては、今後の症例の積み重ねによる検討が必要と思われる。

まとめ

非常に稀なodontogenic ghost cell carcinomaの一例について報告した。

文 献

- 1) Pindborg JJ, Kramer IRH, Torloni H: Histological typing of odontogenic tumors, jaw cysts, and allied lesions. Geneva: World Health Organization, 1971: pp 28.
- 2) Praetorius F, Hjorting-Hansen E, Grolin RJ, *et al*: Calcifying odontogenic cyst: range, variations, and neoplastic potential. *Acta Odontol Scand* **39**: 227-240, 1981.
- 3) Hong SP, Ellis GL, Hartman KS: Calcifying odontogenic cyst, A review of ninety-two cases with reevaluation of their nature as cysts or neoplasms, the nature of ghost cells, and subclassification. *Oral Surg Oral Med Oral pathol* **72**: 56-64, 1991.
- 4) Alcalde RE, Sasaki A, Misaki M, *et al*: Odontogenic ghost cell carcinoma: Report of a case and Review of the literature. *J Oral Maxillofac Surg* **54**: 108-111, 1996.
- 5) Grodjesk JE, Dolinsky HB, Schneider LC, *et al*: Odontogenic ghost cell carcinoma. *Oral Surg Oral Med Oral pathol* **63**: 576-581, 1987.
- 6) Kao SY, Pong BY, Li WY, *et al*: Maxillary odontogenic carcinoma with distant metastasis to axillary skin, brain, and lung: case report. *Int J Oral Maxillofac Surg* **24**: 229-232, 1995.
- 7) Ellis GL, Shmookler BM: Aggressive (malignant?) epithelial odontogenic ghost cell tumor. *Oral Surg Oral Med Oral pathol* **61**: 471-478, 1986.
- 8) Siar CH, Ng KH: Aggressive (malignant?) epithelial odontogenic ghost cell tumor of the maxilla. *J laryng otol* **108**: 269-271, 1994.
- 9) Ikemura K, Horie A, Tashiro H, *et al*: Simultaneous occurrence of a calcifying odontogenic cyst and its malignant transformation. *Cancer* **56**: 2861-2864, 1985.
- 10) Tanaka H, Takigawa T, Matumoto M, *et al*: Malignant transformation of a calcifying odontogenic cyst. *Jap J Oral Surg* **21**: 664, 1975.
- 11) McCoy BP, Carroll KO, Hall JM: Carcinoma arising in a dentinogenic ghost cell tumor. *Oral Surg Oral Med Oral pathol* **74**: 371-378, 1992.
- 12) Scott J, Wood GD: Aggressive calcifying odontogenic cyst -A possible variant of amnobloma-. *Br J Oral Maxillofac surg* **27**: 53-59, 1989.

要旨: 右頬部の痛みと腫脹を呈した38才男性。CTでは右上顎の不整な形の腫瘍が認められ嚢胞成分と充実成分とを伴い、前壁骨は破壊されていた。組織学的検索によりodontogenic ghost cell carcinomaが示された。腫瘍摘出術後2ヵ月で再発腫瘍が認められたため、上顎骨部分切除と54 Gyの術後放射線療法が施行された。19ヵ月の経過観察中、局所再発や遠隔転移は認められていない。