

症 例 報 告

エナメル上皮線維歯牙腫の1例

A Case of Ameloblastic Fibro-odontoma

東京医科大学口腔外科学講座, *東京医科大学病院病理部

山 田 容 三 工 藤 泰 一 下 川 千 可 志 本 田 一 文
小 川 隆 蛭 名 勝 之 佐 藤 元 彦 内 田 安 信
海 老 原 善 郎*

緒 言

エナメル上皮線維歯牙腫は、エナメル上皮線維腫様の組織像を呈する軟組織のなかに歯牙硬組織の形成を伴う比較的にまれな歯源性腫瘍である¹⁾。われわれは左側下顎骨に生じた本症を経験したので、その概要を報告する。

症 例

患 者: 7 歳, 男児。

初 診: 1986 年 12 月

主 訴: 左側下顎の腫脹。

現病歴: 海外の某歯科医により左側下顎骨の異常陰影を指摘され精査, 治療目的のため帰国, 当科を受診した。

既往歴, 家族歴: 特記事項なし。

現 症 (全身所見): 体格は中等度, 栄養状態良好で全身に異常は認められなかった。

(局所所見): 左側耳下腺咬筋部に軽度膨隆による顔貌の左右非対称がみられ (写真 1), 口腔内所見では左側下顎乳臼歯部から下顎枝前縁にかけて, 特に頬側骨体部の膨隆を認め, 波動や羊皮紙様感は触れず, 表面は滑沢で被覆粘膜は健常であった (写真 2)。過去に同部の急性炎症症状の既往はなく, 家族は顔貌の非対称に気づいたものの無痛性に経過した

同膨隆についてはまったく無関心であった。

X 線所見: 左側下顎第二乳臼歯の遠心根から下顎上行枝前半におよぶ境界明瞭な透過像を認め, 内部に歯牙腫様の不透過像を包含し, 第一大臼歯と思われる根未完成の歯冠, および下顎管が腫瘍に圧排されるように下顎骨下縁にみられた (写真 3)。

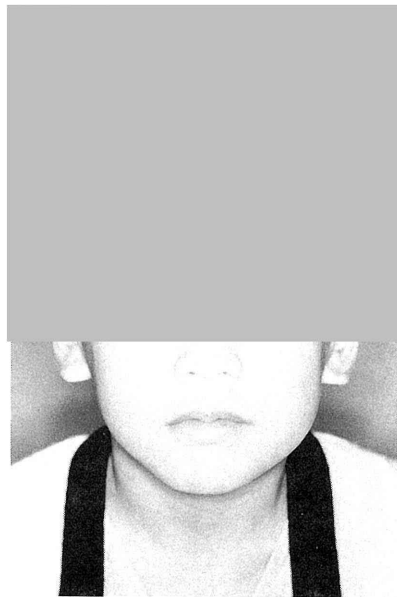


写真 1 初診時顔貌所見

(1994 年 10 月 4 日受付, 1994 年 11 月 15 日受理)

Key words: エナメル上皮線維歯牙腫 (Ameloblastic fibro-odontoma), 歯源性腫瘍 (Odontogenic tumor), 下顎 (Mandible)

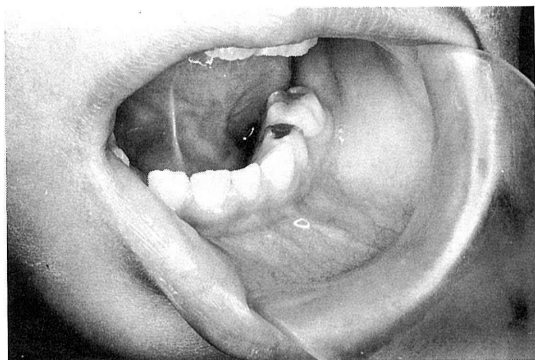


写真 2 初診時口腔内所見

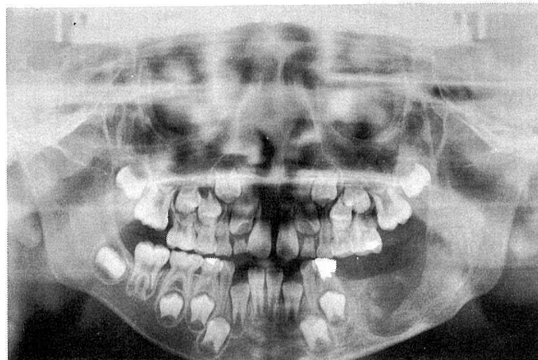


写真 5 術後 3 カ月経過時のパノラマ X 線写真

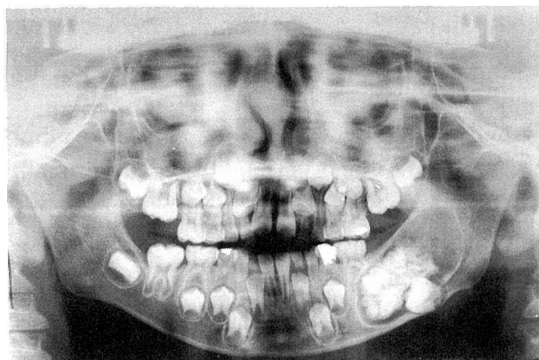


写真 3 初診時パノラマ X 線写真

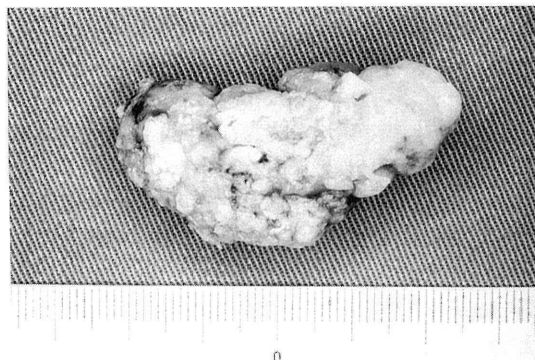


写真 6 摘出物所見

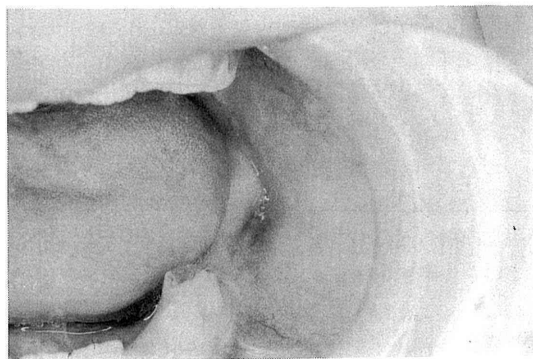


写真 4 術後 3 カ月経過時の口腔内所見

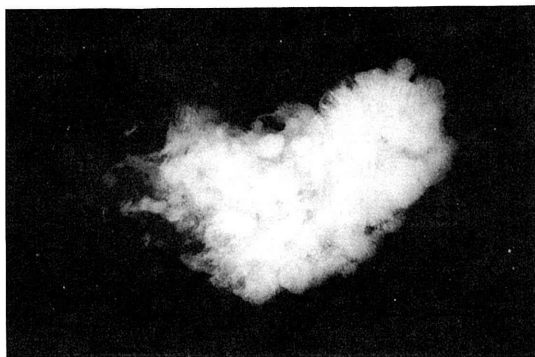


写真 7 摘出物の軟 X 線写真

臨床診断: 左側下顎歯原性腫瘍。

処置および経過: 1986 年 12 月 ■■■, 全身麻酔下に口腔内より摘出術を施行した。まず左側下顎第二乳臼歯を抜歯後, 遠心および頬側に切開を加え歯肉骨膜弁を翻転し, 膨隆した皮質骨を露出した。骨表面は平滑で欠損部や肉眼的な病的所見は認められず,

これを開削すると被薄化した骨皮質の直下に腫瘍組織が露出した。さらに周囲の骨を除去し, 腫瘍を一塊として摘出した。周囲との癒着はなく, 腫瘍摘出後, 下顎下縁にみられた第一大白歯と思われる埋伏歯を抜去し, 骨面を骨バーで一層削除し解放創とした。術後の経過は良好で, 約 6 週で副腔全域の上皮

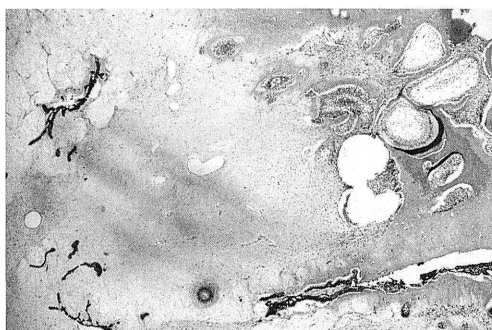


写真 8 病理組織像 (H・E 染色 弱拡大)



写真 9 病理組織像 (H・E 染色 強拡大)

化が完了し、副腔容積は順調に減少し、術後3カ月ではほとんどわずかな陥没を残すのみとなった(写真4)。X線的には術直後と著明な差異はないものの、わずかながら骨新生のうかがえる部位もみられた(写真5)。術後約8年経過した現在まで再発などはみられず経過は良好である。

摘出物所見: 40×25×20 mm で灰白色の硬組織を主体とし、遠心半側には充実性の軟組織がやや多くみられ(写真6)、軟X線所見では米粒大～小豆大の不透過像が多数集合している状態が観察された(写真7)。

病理組織学的所見: 結合組織中に歯原性上皮の小塊状あるいは細い索状の増殖巣が散在性にみられるエナメル上皮線維腫の構造を有する部分と象牙質、エナメル質の形成が明らかな部分とを有し、象牙質では細管構造の明らかな分化度の高いものから、不規則な骨様構造を示し、骨質やセメント質との区別の困難なものまでさまざまであった。エナメル質は小柱構造が明らかで、ところによってはエナメル器を思わせる部分を中心にエナメル質と象牙質が形成され、小型の歯胚と類似した構造を有するものもみられた(写真8, 9)。

病理組織学的診断: エナメル上皮線維歯腫。

考 察

本腫瘍は古くは歯牙腫あるいはエナメル上皮腫の特殊な型として記載されており、また近年までエナメル上皮歯牙腫 Ameloblastic Odontoma の名称も用いられていた²⁾が、これは Odonto-Ameloblastoma、すなわち歯牙エナメル上皮腫や発育途上の複雑性歯牙腫が含まれているとし、1971年WHOの歯原性腫瘍分類³⁾では Ameloblastic fibro-

odontoma すなわちエナメル上皮線維歯腫が採用され、独立疾患として取り扱うべきであるという考え方が一般的である¹⁾。本例では歯牙硬組織の形成が明らかな上に、間葉性組織の増生が著明なエナメル上皮線維腫の組織像を呈する部分が約半分を占めていたため Ameloblastic fibro-odontoma と診断した。

本腫瘍の過去の報告例をみると、永峰ら⁴⁾は本邦における24例を、大多和ら⁵⁾は同様に10例を、また葛原ら⁶⁾は国内外をあわせて47例の文献を調査しているが、それらによれば本腫瘍の発現年齢は10歳前後の若年者に多く、性差はみられない。発生部位は下顎臼歯部がもっとも多く、次いで上顎前歯部である。臨床症状は無痛性で緩慢な顎骨の膨隆をきたし、歯の萌出異常を伴うことが多い。X線所見としては比較的境界明瞭な単胞性透過像のなかにさまざまな大きさの不透過像を有しており、埋伏歯あるいは未萌出歯の存在を認めるとする報告が多い。

われわれが渉猟し得た本邦における1990年以降の最近の報告例は表1に示す16例であった^{4)~17)}。平均年齢は9.5歳で、10歳以下が8例で半数を占めていた。男性10例、女性6例で若干男性に多くみられた。また発生部位としては下顎臼歯部12例、上顎前歯部2例、下顎枝部、上顎臼歯部が各々1例であり、過去の報告と同様の傾向を示していた。

治療法としては本腫瘍は若年者に好発し、また組織学的にも比較的分化度が高いため摘出術のみで、顎骨組織をできるだけ保存することが望ましい¹²⁾。

表1に示す16例においても摘出術が14例、開窓術、下顎骨区域切除術が各々1例に施行されており、また萌出困難あるいは腫瘍との連続性が認められた埋伏永久歯の2例に抜歯が行なわれている。本例で

表 1 1990 年以後の本邦におけるエナメル上皮線維歯牙腫の報告例

報告者	報告年	年齢	性別	発 現 部 位	治 療
加賀谷ら ⁷⁾	1990	8	男	左側下顎臼歯部	摘出術
中川ら ⁸⁾	1990	12 7	男 女	左側下顎臼歯部 右側下顎臼歯部	摘出術 摘出術 + ED 拔牙
中原ら ⁹⁾	1991	7 12	男 女	右側下顎臼歯部 左側上顎臼歯部	摘出術 開窓術
鈴木ら ¹⁰⁾	1991	4	男	左側下顎臼歯部	摘出術
堀川ら ¹¹⁾	1991	8	男	左側下顎枝部	摘出術
竹澤ら ¹²⁾	1992	3	男	上顎前歯部	摘出術
伊藤ら ¹³⁾	1992	8	男	右側下顎臼歯部	摘出術 + E 拔牙
立川ら ¹⁴⁾	1992	15	男	右側下顎臼歯部	摘出術 + 6 拔牙
永峰ら ⁴⁾	1992	7	女	上顎前歯部	摘出術 + A 拔牙
岡澤ら ¹⁵⁾	1992	16	女	右側下顎臼歯部	摘出術
小野寺ら ¹⁶⁾	1992	12	女	左側下顎臼歯部	摘出術 + 67 拔牙
上野ら ¹⁷⁾	1993	10	男	右側下顎臼歯部	摘出術
大多和ら ⁵⁾	1993	2	男	右側下顎臼歯部	摘出術
葛原ら ⁶⁾	1994	21	女	左側下顎臼歯部	下顎骨区域切除術

は埋伏歯がかなり低位置に存在していたため萌出の可能性は少ないと判断して拔牙した。

現在まで本邦における再発，悪性化の報告はみられないが，国外では再発，悪性転化した報告¹⁸⁾がある。自験例では術後約 8 年経過した現在まで再発なく経過良好であるが，今後も観察を続ける予定である。

結 語

7 歳，男児の左側下顎に発生したエナメル上皮線維歯牙腫の 1 例を経験したので報告した。

本論文の要旨は第 138 回日本口腔外科学会関東地方会（昭和 62 年 6 月 27 日，東京）において発表した。

文 献

- 1) 石川悟郎監修：エナメル上皮線維歯牙腫．口腔病理学 II，改訂版，永末書店，京都，1982 p504～506.
- 2) 長尾喜景，他：Ameloblastic odontoma の 1 例．歯科学報 59：1150～1153，1959.
- 3) Pindborg, J.J. and Kramer, I.R.H.: Histological typing of Odontogenic tumours, jaw cysts, and

allied lesions. International Histological classification of Tumours No. 5, World Health Organization, Geneva, 1971.

- 4) 永峰浩一郎，他：上顎前歯部に発生したエナメル上皮線維歯牙腫の 1 例．日口外誌 38：1463～1464，1992.
- 5) 大多和亜希，他：エナメル上皮線維歯牙腫の 1 例．日口外誌 40：293～295，1994.
- 6) 葛原 武，他：下顎骨に生じたエナメル上皮線維歯牙腫の 1 例．日科誌 43：78～83，1994.
- 7) 加賀谷保，他：エナメル上皮線維歯牙腫の 1 例-第 2 症例の臨床経過と摘出物の組成解析-(抄)．日口外誌 36：3137，1990.
- 8) 中川清昌，他：下顎に発生したエナメル上皮線維歯牙腫の 2 例．日科誌 39：973～981，1990.
- 9) 中原寛和，他：腫瘍内埋伏歯牙を正常萌出に導いたエナメル上皮線維歯牙腫の 2 例 (抄)．日口外誌 37：2108，1991.
- 10) 鈴木邦亮，他：エナメル上皮線維歯牙腫の 1 例 (抄)．日口外誌 37：2371，1991.
- 11) 堀川晴久，他：8 歳男児の下顎枝部に発生したエナメル上皮線維歯牙腫の 1 例 (抄)．日口外誌 37：1197，1991.

- 12) 竹澤友子, 他: エナメル上皮線維歯牙腫の一症例. 小児歯科学雑誌 **30**: 508, 1992.
- 13) 伊藤直子, 他: エナメル上皮線維歯牙腫の 1 例と国内における文献的考察 (抄). 日口外誌 **38**: 1979, 1992.
- 14) 立川敬子, 他: エナメル上皮線維歯牙腫の 1 例. 日口外誌 **38**: 1188~1189, 1992.
- 15) 岡澤恵子, 他: 下顎に発生したエナメル上皮線維歯牙腫の 1 例 (抄). 口科誌 **41**: 594~595, 1992.
- 16) 小野寺滋也, 他: エナメル上皮線維歯牙腫の 1 例 (抄). 口科誌 **41**: 880~881, 1992.
- 17) 上野 圭, 他: エナメル上皮線維歯牙腫の 1 例 (抄). 日口外誌 **39**: 866, 1993.
- 18) Howell, R.M. and Burkes, E.J.: Malignant transformation of Ameloblastic fibro-odontoma to Ameloblastic fibro-sarcoma. Oral Surg **43**: 391~401, 1977.
- (別刷請求先: 〒 300-03 稲敷郡阿見町中央 3-20-1 東京医科大学霞ヶ浦病院 歯科口腔外科 山田容三)
-