上顎に発生したエナメル上皮線維象牙質腫の1例

国領 真也¹⁾・富永 和宏¹⁾・土生 学¹⁾
張 皿²⁾・福山 宏²⁾・福田 仁一¹⁾

A case of ameloblastic fibrodentinitoma in the anterior maxilla

KOKURYO Shinya¹⁾・TOMINAGA Kazuhiro¹⁾・HABU Manabu¹⁾
ZHANG Min²⁾・FUKUYAMA Hiroshi²⁾・FUKUDA Jinichi¹⁾

Abstract: We report a case of ameloblastic fibrodentinitoma arising in the maxilla. A 2-year-old boy presented for evaluation because of an unerupted primary central incisor. Clinical examination revealed fully erupted primary dentition, with the exception of the left maxillary primary central incisor. Slight enlargement of the alveolar cortical plate was noted in the edentulous area. Periapical radiography revealed an unerupted primary central incisor surrounded by a well-circumscribed area of radiolucency. The clinical diagnosis was a cyst. Enucleation of the cyst and extraction of left primary central incisor were performed with the patient under general anesthesia. Histopathological examination of the cystic lesion revealed a cellular myxomatous stroma containing strands of odontogenic epithelium and dentinoma. The final diagnosis was ameloblastic fibrodentinitoma. At the 10-year follow-up evaluation, there was no evidence of recurrence.

Key words: ameloblastic fibrodentinitoma (エナメル上皮線維象牙質腫), maxilla (上顎)

緒 言

エナメル上皮線維象牙質腫は、歯原性間葉のなかに歯原性上皮と幼若象牙質の増殖を示すまれな歯原性腫瘍である。

今回われわれは、2歳男児の左上顎前歯部に発生したエナメル上皮線維象牙質腫の1例を経験したので報告する。

症 例

患 者：2歳，男児。

初 診：1997年9月。

主 訴：左上顎乳中切歯の萌出遅延。

既往歴・家族歴：特記事項なし。

現病歴：1996年9月，左上顎乳中切歯の萌出遅延を主訴に近歯科医院を受診した。経過観察を行うも変化が認められないため，1997年9月に当院を紹介された。

現 症：

口腔外所見：異常所見は認められなかった。

口腔内所見：左上顎乳中切歯相当の唇側歯肉部に骨膨隆が認められ，被覆粘膜はやや白色を帯びており，同部に羊皮紙様感が認められた。また口蓋側にも，軽度の骨膨隆が認められた（写真1）。

X線所見：パノラマX線写真，デンタルX線写真にて，左上顎中切歯が左上顎乳中切歯と重なるように存在するのが確認できた。歯槽頂から鼻腔底にかけてこれらの歯冠を囲むように境界明瞭な8×9mmの嚢胞様透過像が認められた（写真2）。CTでは，左上顎乳中切歯の歯冠を含むX線透過性の病変が認められ唇側の骨が一部消失しており，左上顎中切歯は病変に接する形を呈していた（写真3）。

臨床診断：上顎骨嚢胞の疑い。

処置および経過：1997年10月28日に全身麻酔下に病変の摘出術を行った。まず，左上顎乳中切歯相当部の歯肉を弧状切開し，粘膜骨膜弁を剥離翻転した。病変上の骨面は膨隆，菲薄化しており一部に骨欠損を認めた。欠損部周囲の膨隆した骨の削除を行い，左上顎乳中切歯とともに摘

¹⁾ 九州歯科大学口腔顎顔面外科学講座病態制御学分野
(主任：富永和宏教授)

²⁾ 九州歯科大学生命科学講座口腔病態病理学分野
(主任：福山 宏教授)

¹⁾ Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Division of Maxillofacial Diagnostic and Surgical Science, Kyushu Dental College (Chief: Prof. TOMINAGA Kazuhiro)

²⁾ Division of Oral Pathology, Department of Biosciences, Science of Health Improvement, Kyushu Dental College (Chief: Prof. FUKUYAMA Hiroshi)

受付日：2008年8月22日

採択日：2009年4月28日

写真1 初診時の口腔内写真
左上顎乳中切歯相当の唇側歯肉部に骨膨隆を認めた。

写真3 術前 CT 像
唇側骨の一部消失を認めた。

写真2 初診時のデンタルX線写真
左上顎乳中切歯の歯冠を囲むように境界明瞭な囊胞様透過像を認めた。

写真4 摘出標本の写真
10 × 18mm, 充実性弾性軟であった。

出した。病変と周囲骨との癒着はなく剥離も容易であった。病変の奥に左上顎中切歯の歯胚を認めたが癒着はみられなかったため、保存し、創を縫合閉鎖した。摘出標本は、10 × 18mmの充実性弾性軟で、断面はすりガラス状灰白色であった（写真4）。術後10年の現在、左上顎中切歯は正常に萌出しており再発所見はない（写真5）。

写真5 7年後（9歳時）のパノラマX線写真
左上顎中切歯は正常に萌出し、再発所見はない。

写真6 病理組織像 (H-E 染色, $\times 40$)

A : 全体像

B : 歯乳頭類似の組織増生が認められた (□部分の拡大像)。

写真7 病理組織像 (H-E 染色, $\times 400$)

A : 異形象牙質基質が認められた (矢印)。

B : エナメル芽細胞に類似する所見が認められた (矢印)。

病理組織学的所見：腫瘍の大部分は歯乳頭類似の組織の増生から成っていた (写真6)。上顎乳中切歯との境界領域から病変の中心部にかけ上皮細胞が2列をなし索状に増殖する部分や濾胞形成を伴っている部分が認められた。また、その上皮で囲まれた内部には歯髄様組織がみられ、粗い未石灰化基質をもつ異形象牙質基質が認められた。さらに歯原性上皮の一部にはエナメル質形成のない高円柱状細胞、すなわち核の偏在したエナメル芽細胞に類似する細胞もみられた (写真7)。

病理組織学的診断：エナメル上皮線維象牙質腫。

考 察

エナメル上皮線維象牙質腫はその病態と組織学的診断に関して議論の多い腫瘍である。本腫瘍は、1936年に Straith¹⁾ が最初に歯牙腫のまれな型として報告した。腫瘍のなかの硬組織のほとんどが象牙質から成り、セメント質はごくわずかでエナメル質を含まない歯牙腫と定義した。その後しばらくは象牙質腫と呼ばれており、アメリカ口腔病理学会は本腫瘍を歯原性腫瘍と考えていた²⁾。1970年に Golin は本腫瘍を歯原性上皮成分が成熟する前の段階の歯牙腫と考え、歯牙腫の亜型として分類すべきであると主張した。1971年のWHO分類³⁾では本腫瘍を、歯原性上皮と

表1 エナメル上皮線維象牙質腫（象牙質腫）の報告例

No.	報告者	発表年	性別	年齢	部位
1	Straith ¹⁾	1936	女	30	下顎第3大白歯（骨体部）
2	Thoma ⁶⁾	1941	男	16	下顎臼歯（骨体部）
3	Field ら ⁶⁾	1942	不明	9	下顎第1大白歯（骨体部）
4	Stafne ⁶⁾	1943	女	25	下顎臼歯（骨体部）
5	Stafne ⁶⁾	1943	不明	23	下顎第2大白歯（骨体部）
6	Thoma ら ⁶⁾	1946	男	6	上顎洞領域（不明）
7	Stafne ⁶⁾	1946	女	24	下顎第3大白歯（骨体部）
8	Sonesson ⁶⁾	1950	男	22	下顎第1, 2大白歯（骨体部）
9	Ingham ⁶⁾	1952	女	19	下顎第1大白歯（骨体部）
10	Sirsat ⁶⁾	1952	男	36	上顎洞領域（不明）
11	Husted ら ⁶⁾	1953	男	4	上顎乳切歯（歯槽部）
12	Husted ら ⁶⁾	1953	女	63	下顎第3大白歯（骨体部）
13	Hitchin ら ⁶⁾	1955	男	4	下顎切歯（歯槽部）
14	Pindborg ⁶⁾	1955	男	20	下顎第2大白歯（骨体部）
15	Templeton ⁶⁾	1957	男	23	下顎第1, 2大白歯（骨体部）
16	Gorlin ら ⁶⁾	1961	女	4	上顎乳切歯（歯槽部）
17	Gorlin ら ⁶⁾	1961	女	13	下顎小臼歯（骨体部）
18	Gorlin ら ⁶⁾	1961	男	8	下顎第1大白歯（骨体部）
19	Uotila ⁶⁾	1963	男	36	下顎第2, 3大白歯（骨体部）
20	Gagliani ⁶⁾	1966	不明	42	下顎両尖（不明）
21	Azaz ら ⁹⁾	1967	男	4.5	下顎乳切歯（骨体部）
22	Manning ら ⁶⁾	1970	女	55	下顎角（骨体部）
23	Mathis ら ⁶⁾	1975	女	37	下顎小臼歯（骨体部）
24	Hoggins-Browne ⁶⁾	1976	男	24	下顎枝（骨体部）
25	Gulmen ら ⁷⁾	1976	男	30	下顎切歯部（骨体部）
26	Pilz ら ⁶⁾	1977	男	不明	上顎臼歯部（骨体部）
27	Grodjesk ら ⁶⁾	1980	男	3.5	下顎乳切歯（歯槽部）
28	Rennie ら ⁶⁾	1981	男	7	上顎小臼歯部（骨体部）
29	van Wyk ⁶⁾	1983	男	8	下顎臼歯部（骨体部）
30	Villafane ら ⁶⁾	1986	女	22	上顎小臼歯部（骨体部）
31	Lukinmaa ら ¹⁰⁾	1987	男	11	下顎小臼歯（骨体部）
32	Cassidy ら ¹¹⁾	1987	男	12	上顎第1大白歯（骨体部）
33	Brandt ら ¹²⁾	1988	女	2	上顎乳切歯（歯槽部）
34	Anker ら ⁶⁾	1989	女	24	下顎骨体部（骨体部）
35	Ulmansky ら ⁶⁾	1994	男	60	上顎小臼歯部（骨体部）
36	Ulmansky ら ⁶⁾	1994	男	8	上顎乳臼歯（歯槽部）
37	Takeda ¹³⁾	1994	女	30	下顎小臼歯（骨体部）
38	Akal ら ¹⁴⁾	1997	男	9	下顎第1大白歯（骨体部）
39	Akal ら ¹⁴⁾	1997	男	22	下顎切歯（骨体部）
40	和久田 ら ¹⁵⁾	1998	女	8	下顎小臼歯（骨体部）
41	Karasu ら ¹⁶⁾	2004	女	21	下顎第3大白歯（骨体部）
42	自験例	2008	男	2	上顎乳切歯（歯槽部）

歯原性結合組織から成り、未成熟の象牙質形成を特徴とするまれな歯原性腫瘍と定義した。最終的に1992年のWHO分類⁴⁾において、本腫瘍は歯原性上皮と歯原性外胚葉性間葉の不規則な混合から成る病変であり、独立した腫瘍として、エナメル上皮線維象牙質腫という名称が用いられるようになり現在にいたった⁵⁾。

1936年から2008年までに国内外で報告されている本腫瘍は、われわれが渉猟し得た限りでは、自験例を含めて42例であった（表1）。患者の年齢は2歳から63歳（不明1例）であり、若年層に多くみられ、平均年齢は20.2歳であった。また、性別では男性24名（57%）、女性15名（36%）、不明3名（7%）で男性に多くみられた。発生部

位は上顎 12 例 (28.6 %), 下顎 30 例 (71.4 %) で下顎に好発しており, 本症例のように上顎前歯部に発生した症例は 4 例 (9.5 %) であった. またエナメル上皮線維腫と同様に骨体部 31 例 (73.8 %), 歯槽部 8 例 (19.0 %), 不明 3 例 (7.2 %) と骨体部に多く生じていた. 乳歯列に生じる場合は前歯部に多いのに対し, 永久歯列では臼歯部に発生する傾向があった.

本腫瘍は X 線学的には基本的に透過像であるが, さまざまな程度の X 線不透過像を内在し, わずかに石灰化のみられるものから歯牙様硬組織形成がみられるものまで多様である.

本腫瘍の病理組織学的所見も変化に富むが, 自験例のように, 歯原性間葉あるいは歯乳頭に類似する組織のなかに歯原性上皮の増殖とそれらの組織誘導により生じたと考えられる幼若象牙質の形成を伴うことが多い. その象牙質の多くは, 粗く未石灰化の状態で, 細胞の封入を伴う骨様象牙質としてしばしば観察される. これらの形成細胞としての象牙芽細胞も柵状の配列はみられるものの突起の発達が弱い未熟な分化状態の細胞であることが多い.

本腫瘍は, 手術による摘出が施行され, 再発は少ないとされている. 自験例も 10 年が経過する現在, 再発は認めていない.

結 語

今回われわれは, 2 歳男児の上顎骨に発生したエナメル上皮線維象牙質腫を経験したので, その概要を報告するとともに若干の文献的考察を加えた.

引 用 文 献

- 1) Straith, F.E.: Odontoma: A rare type. Report of case. Dent Dig 42: 196 1936.
- 2) Robinson, H.B.: Proceedings of Fifth Annual Meeting of American Academy of Oral Pathology. Chicago, 1951. Oral Surg 5: 177 1952.

- 3) Pindborg, J.J., Kramer, I.R.H., et al.: Histological typing of odontogenic tumors, jaw cysts and allied lesions. International histological classification of tumors, no. 5. Geneva, Switzerland. World Health Organization, 1971.
- 4) Kramer, I.R.H., Pindborg, J.J., et al.: World Health Organization histological typing of odontogenic tumors (2nd ed.) . Berlin, Springer, 1992.
- 5) Barnes, L., Eveson, J.W., et al.: World Health Organization classification of tumours 2005.
- 6) Ulmansky, M., Bodner, N., et al.: Ameloblastic fibro-dentinoma: report on two new cases. J Oral Maxillofac Surg 52: 980-984 1994.
- 7) Gulmen, S., Adams, R., et al.: Dentinoma of the mandible. J Oral Surg 34: 921-926 1976.
- 8) Ingham, G.G. and Texas, A.: Dentinoma. Oral Surg 5: 353-357 1952.
- 9) Azaz, B., Ulmansky, M., et al.: Dentinoma. Oral Surg 24: 659-663 1967.
- 10) Lukinmaa, P., Hietanen, J., et al.: Mandibular Dentinoma. J Oral Maxillofac Surg 45: 60-64 1987.
- 11) Cassidy, J., Crocker, D., et al.: Ameloblastic fibro-dentinoma. J Oral Maxillofac Surg 45: 734-736 1987.
- 12) Brandt, S., Mason, M., et al.: Ameloblastic fibro-dentinoma report of case. J Dent Child: 372-375 1988.
- 13) Takeda, Y.: So-called "immature dentinoma": a case presentation and histological comparison with ameloblastic fibrodentinoma. J Oral Pathol Med 23: 92-96 1994.
- 14) Akal, U., Gunham, O., et al.: Ameloblastic Fibrodentinoma. Report of two cases. Int J oral Maxillofac Surg 26: 455-457 1997.
- 15) 和久田哲生, 斉木智章, 他: メラニン色素沈着を伴ったエナメル上皮線維象牙質腫の 1 例およびエナメル上皮線維歯牙腫の 1 例. 日口外誌 44: 999-1001 1998.
- 16) Karasu, H., Akman, H., et al.: Ameloblastic fibrodentinoma. A case report. NY State Dent J 70: 22-23 2004.