上顎に発生した巨大な骨形成性エプーリスの1例

傳田 祐也・北島晴比古・清水 武
五島 秀樹・川原理絵・横林敏夫

A case of massive epulis osteoplastica in the maxilla

DENDA Yuya・KITAJIMA Haruhiko・SHIMIZU Takeshi
GOTO Hideki・KAWAHARA Rie・YOKOBAYASHI Toshio

Abstract: Epulis is an inflammatory or reactive hyperplasia of the gingiva, and commonly occurs in the oral region. However, epulis osteoplastica (peripheral ossifying fibroma) is a relatively rare disease. We report the case of a massive epulis osteoplastica covering the palate.

The patient was a 75-year-old woman who came to our clinic because of a palatal tumor. The tumor measured 60 × 50 × 20 mm and was elastical hard and pedunculated. A radiopaque area was found on radiographic examination. The clinical diagnosis was epulis osteoplastica, and gingival tumor excision was performed under general anesthesia. The histopathological diagnosis was peripheral ossifying fibroma (epulis osteoplastica). As of 17 months after the operation, there has been no recurrence, and oral function is good.

Key words: epulis osteoplastica (骨形成性エプーリス), peripheral ossifying fibroma (周辺性化骨性線維腫), massive epulis (巨大エプーリス), maxilla (上顎骨)

緒 言

エプーリスは歯肉に生じる良性限局性腫瘍の総括的な臨床診断名である。病理組織学的には肉芽腫性、線維性、血管腫性、線維腫性、および骨形成性などに分類される^{1,2)}。このうち骨形成性エプーリスは線維性組織のなかに硬組織が形成されたものであり、骨形成線維腫などの腫瘍性疾患と組織学的に類似する興味深い疾患であり、その発現頻度は比較的まれである^{1,3)}。しかし、その発生部位は歯肉部であることより比較的早期に発見されるため、最大径が50mmを超えることはまれである^{4,5)}。今回われわれは口蓋すべてを被覆するまでに増大した骨形成性エプーリスの1例を経験したので報告する。

症 例

患 者：75歳、女性。
主 訴：口蓋部の腫瘍。
初診日：2009年4月。
既往歴：高血圧症、脳出血。

長野赤十字病院口腔外科
(主任：横林敏夫部長)
Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Nagano Red Cross Hospital (chief: YOKOBAYASHI Toshio)
受付日：2010年8月23日
採択日：2011年7月26日

家族歴：特記事項なし。

現病歴：2005年頃に上顎部分床義歯を作製。不具合がなかったため、義歯調整は受けず使用していた。2009年4月、上顎鉤歯である|2が破折し義歯不適合が生じたために某歯科医院を受診した。義歯調整時、本人には自覚症状はないものの口蓋全体を覆う有茎性の腫瘍を指摘された。腫瘍性病変が疑われたため、精査を勧められ、紹介により当科を受診した。

全身所見：身長150cm、体重65kg、栄養状態は良好であった。

口腔外所見：顔貌左右対称、特記すべき異常所見は認めなかった。

口腔内所見：|3口蓋側歯槽部に径10mm程の基部を有する約60×50×20mmの有茎性腫瘍が口蓋全体を覆い、さらに左右歯槽頂を超えて口腔前庭にまで及んでいた。その表面性状はやや凹凸を認めるも全体的には平滑で、潰瘍形成は認めなかった。後方部に義歯床後縁による圧痕を認めた(写真1)。触診では弾性硬で、圧痛は認めなかった。431|2346は残根であった。

X線所見：パノラマX線写真より、左側上顎に境界明瞭な骨様のX線不透過像を認めた(写真2)。

CT所見：口蓋部に60×50mmほどの腫瘍を認め、内部に径20×15mmおよび10×10mm程の顎骨と同程度の

写真1 初診時口腔内写真（鏡面像）
上顎口蓋部咬合面観，口蓋を覆う腫瘍を認めた。

写真3 CT画像
軟組織条件，顎骨と同程度の density を有する不透過像を認めた。

写真2 初診時パノラマX線写真
左側上顎に不透過像（矢印）を認めた。

写真4 術後17か月の口腔内写真（鏡面像）
口蓋部咬合面観，再発を認めない。

density を有する不透過像を認めた。不透過像と上顎骨の連続性は認めなかった（写真3）。

臨床診断：左側上顎歯肉良性腫瘍（骨形成性エプーリス）

処置および経過：2009年6月，全身麻酔下に上顎腫瘍切除術施行。腫瘍は13部歯槽堤粘膜に茎部を有し，この茎部に対し骨膜を含み切除し，同時に13の抜歯を行った。また431|246の抜歯も行った。切除後の顎骨骨面に骨吸収は認めなかった。骨面を一層削除し，コラーゲン使用人工皮膚（テルダーミス®）を貼付，テトラサイクリン塩酸塩軟膏塗布ガーゼを用いtie overを行い圧迫した。手術より1週間後，テトラサイクリン塩酸塩軟膏塗布ガーゼを除去した時点で創面は肉芽組織で被覆されており，その後徐々に上皮化した。現在術後17か月経過しているが再発なく経過良好である（写真4）。

切除標本所見：切除標本は62×49×22mm大で，赤白色，表面性状は正常，弾性硬であった（写真5）。2か所で硬く，その断面では中央部に茶色の骨様組織を認めた。

切除標本X線所見：骨様の不透過性を有する部位を2か所認めた。基部に近い部分は約30×15mm，基部より遠い部分は10×10mmであった（写真6）。

病理組織学的所見：平坦な重層扁平上皮に覆われ，間質は密な膠原線維の増殖からなっていた。中央部に層板骨とやや浮腫性で拡張した細血管が散在した線維組織からなる骨髄を有する骨組織が形成されていた（写真7-A, B）。

病理組織学的診断：peripheral ossifying fibroma (epulis osteoplastica)。

写真5 切除標本写真

切除標本の大きさは $62 \times 49 \times 22\text{mm}$ で、赤白色、表面性状は正常であった。

写真6 切除標本X線写真

骨様の不透過性を有する部位を2か所認めた。

写真7 病理組織像 (H-E 染色)

A: 平坦な重層扁平上皮に覆われ、間質は密な膠原線維の増殖からなっていた (弱拡大)。

B: 層板骨とやや浮腫性で拡張した細血管が散在した線維組織からなる骨髄を有する骨組織が形成されていた (強拡大)。

考 察

骨形成性エプーリスは線維性組織のなかに硬組織が形成されたものである。欧米では以前より骨形成性エプーリスについて peripheral ossifying fibroma や peripheral cementifying fibroma などの腫瘍性病変の名称が多く用いられる傾向にあるが²⁾、本邦においては腫瘍性病名を用いるか否かは未だに結論が出ていない。

本邦における骨形成性エプーリスの発現頻度は全エプーリス中で、石川ら¹⁾は7.8%、岡上ら³⁾は11%、好土ら⁶⁾は4.6%、加藤ら⁷⁾は5.1%、川崎ら⁸⁾は17.5%と報告しており、比較的まれな疾患と考えられる。また、骨形成性エプーリスの大きさに関しては10~20mmのものが多く、全体の約80%を占めるとの報告が多い^{3, 8, 9)}。

当科を開設した1983年10月より2009年4月までの25

年7か月に当科を受診し、病理組織学的にエプーリスと診断された438例のうち骨形成性エプーリスは63例14.4%であり、発現頻度としては他施設の報告とほぼ同程度であった。また、大きさに関しては20mm未満のものが63例中47例74.6%でありこちらもほぼ同程度であった。

口腔衛生環境に対する関心が向上した今日では、緩徐な発育をとるエプーリスが増大するまで放置される機会は少ない。本邦においてわれわれが渉猟し得た過去20年間の報告のなかで長径が50mmを超えて増大したエプーリスは8例、そのうち骨形成性エプーリスは5例であり、骨形成を伴う頻度は62.5%であった。本邦における骨形成性エプーリスの発現頻度は4.6~17.5%であり、増大したエプーリスでは骨形成を伴う頻度が高くなる傾向にある。また50mm以上に増大した骨形成性エプーリスの発現部位はすべてが下

表1 本邦における50mm以上の骨形成性エプーリスの報告例

No.	報告者	報告年	年齢	性別	部位	基部	大きさ (mm)	自覚症状	石灰沈着様式
1	武田ら ¹⁰⁾	1995	26	男性	左側下顎臼歯部	6	60×50×45	無	層板状
2	馬場ら ¹¹⁾	1999	54	女性	左下顎臼歯部	4 5 6	80×70×50	有	層板状
3	下山ら ⁴⁾	2000	65	女性	右側下顎臼歯部	6	53×50×28	有	梁状
4	空閑ら ⁵⁾	2003	78	女性	右側下顎臼歯部	3 4	61×48×40	有	層板状
5	増田ら ¹²⁾	2009	63	男性	左側下顎前歯部から臼歯部	3	50×38×28	有	緻密骨
6	自験例	2010	75	女性	左側上顎前歯部	3	62×49×22	無	層板状

顎であり、5例中4例が臼歯部であった。自験例は、報告のある過去20年間の50mm以上の骨形成性エプーリスのなかで唯一上顎前歯部に発現したものであった(表1)。エプーリスの好発部位は上顎前歯部である^{8,9)}が、同部では巨大化した骨形成性エプーリスの報告は少ない。その理由は、空閑⁵⁾らの報告にもあるように、前歯部は観察しやすく審美性が重視される部位であり、巨大になる前に自覚し、医療機関を受診し処置がなされるためであろう。構音、摂食・嚥下、咀嚼時など頻りに舌尖が触れる上顎前歯部口蓋側に腫瘤が形成されれば、増大する前に自覚されると考えられる。また、口腔の生理的機能圧において舌圧と口唇・頬圧を比較した場合、口唇・頬圧よりも舌圧の方が大きい^{14~16)}。これは腫瘍が舌・口蓋側で増大しにくい理由の一つと考えられる。自験例は2005年頃上顎部分床義歯を作製し、2009年に上顎鉤歯が破折するまで義歯を問題なく使用していたことより、2005年当時にはすでに口蓋全体を被覆するエプーリスが存在し、その上に義歯を作製し、義歯床下で増大した可能性が考えられる。

骨形成性エプーリスでみられる硬組織形成の成因に関しては諸説あり、統一した見解は得られていない。歯根膜組織中の未分化間葉細胞がセメント芽細胞、骨芽細胞に分化し硬組織を形成するという説¹⁷⁾、炎症の存在下に幼若な間葉組織中の未分化間葉細胞が化生したものであるとする説¹⁸⁾、非造血系系の周皮細胞より直接形成されとする説¹⁹⁾、腫瘤の増大に伴い上皮損傷の機会が増え潰瘍が生じ、治癒する過程で石灰化や骨化を伴いつつ線維性組織が作られるとする説^{9,20)}などがある。

形成される硬組織は病理組織学的に梁状骨、緻密骨、層板骨、セメント粒あるいは骨粒、および異栄養性石灰化物に分類される²¹⁾。増大した骨形成性エプーリスに形成される硬組織は層板骨が多く、自験例においても形成された硬組織は層板骨であった(表1)。

比較的大きなエプーリスのなかには腫瘍性の増殖物としての性格を有するものがあり、また、臨床的にエプーリス

と診断された症例のなかで、病理組織学的診断により歯肉への転移癌²²⁾、唾液腺悪性腫瘍^{23,24)}、あるいはBurkittリンパ腫²⁵⁾であることが判明した症例が報告されている。生検および切除後の病理組織診断を正確に行う必要がある。

エプーリスの発生原基として、歯肉、骨膜、歯根膜、各々の結合組織の関与が考えられている。自験例は骨膜を含めた切除、抜歯、骨面の一層削除も行った。現在まで再発はないものの、再発の可能性があるため今後も定期的に経過観察をしていくことが必要である。

結 語

今回われわれは上顎に発生した、口蓋すべてを被覆するまでに増大した骨形成性エプーリスの1例を経験したので報告した。

引 用 文 献

- 1) 石川吾郎, 秋吉正豊: 口腔病理学Ⅱ. 改訂版, 永末書店, 京都, 1982, 229-240頁.
- 2) William, G.S., Maynard, K.H., et al.: A Text book of Oral Pathology. 4th Ed, Saunders, Philadelphia, 1983, p141-142.
- 3) 岡上正裕, 相崎邦雄, 他: エプーリスの発生機序に関する研究2. 硬組織形成性エプーリスの病理組織学的検討. 日大歯学 72: 824-831 1998.
- 4) 下山哲夫, 金子貴広, 他: 巨大な骨形成性エプーリスの1例. 日大歯学 74: 229-232 2000.
- 5) 空閑裕紀, 尾原清司, 他: 下顎臼歯部歯肉に生じた巨大な骨形成性エプーリスの1症例. 口腔腫瘍 15: 31-36 2003.
- 6) 好士和夫: エプーリス(歯肉腫)の臨床的ならびに組織学的研究. 口腔病誌 26: 1666-1682 1959.
- 7) 加藤隆三, 川尻秀一, 他: 当科におけるエプーリスの臨床病理学的観察. 口科誌 40: 423-431 1991.
- 8) 川崎五郎, 空閑祥浩, 他: エプーリスの臨床統計的観察およびいわゆる骨形成性エプーリスについて. 口科誌 45: 80-85 1996.
- 9) 福田容子, 戸塚盛雄, 他: エプーリスの病理学的検討 第3報 硬組織形成性エプーリス. 日口外誌 34:

- 175-181 1988.
- 10) 武田幸彦, 加藤譲治: 下顎に生じた骨形成性(骨腫性)エプーリスの1例. 日口外誌 41: 835-837 1995.
 - 11) 馬場信行, 松尾長光, 他: 顔貌変形をきたした巨大な骨形成性エプーリスの1例. 口科誌 48: 92-96 1999.
 - 12) 増田智丈, 田中徳昭, 他: 腐骨化した巨大な骨形成性エプーリスの1例. 日口外誌 55: 453-457 2009.
 - 13) 中村嘉男, 森本俊文, 他: 基礎歯科生理学. 第4版, 医歯薬出版株式会社, 東京, 2003, 276-283 頁.
 - 14) 分山英次: 歯列に加わる口唇圧, 舌圧と口腔内陰圧との関係. 九州歯科学会雑誌 32: 50-64 1978.
 - 15) 清水一郎: 下顎臼歯部に加わる頬および舌の機能圧に関する研究. 九州歯科学会雑誌 44: 848-860 1990.
 - 16) 織田展輔: 咀嚼時における筋圧の発現様相. 日補綴会誌 48: 261-270 2004.
 - 17) 照屋正信, 山城正宏, 他: 上顎に生じた巨大な周辺性化骨性線維腫. 日口外誌 29: 920-925 1983.
 - 18) 森 恵造, 浜川裕之, 他: 骨形成性エプーリスの1症例 光顕的・電顕的観察. 日口外誌 34: 1399-1405 1988.
 - 19) Dayoub, S., Devlin, H., et al.: Evidence for the formation of metaplastic bone form pericytes in calcifying fibroblastic granuloma. J Oral Pathol Med 32: 232-236 2003.
 - 20) Southam, J.C. and Vekataraman, B.K.: Calcification and ossification in epulis in man (excluding giant cell epulis). Arch Oral Biol 18: 1248-1253 1973.
 - 21) 鈴木仙一, 岡田裕之: 骨形成性エプーリスの病理組織像および細胞増殖能に関する研究. 日大口腔科学 28: 247-254 2002.
 - 22) 赤坂庸子, 神部芳則, 他: 口腔への転移癌に関する臨床的検討. 日口外誌 47: 559-562 2001.
 - 23) 宮内美和, 井垣浩一, 他: 有茎性腫瘤を呈したまれな臼後部腺房細胞癌の1例. 日口外誌 47: 607-610 2001.
 - 24) 下島あづさ, 安田浩一, 他: 上顎前歯歯槽部に発症した腺様嚢胞癌の一例. 松本歯学 23: 184-188 1997.
 - 25) 関和忠信, 上原 任, 他: 2歳7か月の幼児の右側上顎歯肉部に発生した Burkitt リンパ腫の1例. 日口外誌 47: 174-177 2001.