歯乳頭組織の関与が疑われた 象牙質形成を伴うエプーリスの1例

四道玲奈¹⁾・南里篤太郎¹⁾・田島暢崇¹⁾
山下裕美¹⁾・藤田修一²⁾・朝比奈 泉¹⁾

A case of epulis with dentin formation possibly arising from dental papilla

SHIDO Rena¹⁾・MINAMIZATO Tokutaro¹⁾・TAJIMA Nobutaka¹⁾
YAMASHITA Hiromi¹⁾・FUJITA Shuichi²⁾・ASAHINA Izumi¹⁾

Abstract: Most congenital teeth lack dental root formation and show remarkable mobility. They are often extracted owing to the risk of accidental ingestion and aspiration caused by abscission. Mass lesions including hard tissue formation rarely appear after tooth extraction or abscission. We report a case of epulis arising in the presumptive root formation region of congenital teeth, which progressed after tooth extraction, in an 8-month-old girl. The provisional clinical diagnosis was epulis fibrosa, and the mass was excised with the patient under local anesthesia. Histopathological examination revealed mesenchymal tissue proliferation accompanied by dentin formation, suggesting that the dental papilla participated in its occurrence. The prognosis was good as of 16 months after surgery.

Key words: epulis (エプーリス), congenital teeth (先天性歯), dental papilla (歯乳頭), dentin formation (象牙質形成)

緒 言

先天性エプーリスは、新生児の歯肉に生じる腫瘍性病変である¹⁾。一方、先天性歯は歯根の形成がほとんど認められず、動揺が著しいため自然脱落したり抜去されたりすることがあるが、自然脱落あるいは抜去後、まれに同部に硬組織の形成を含む病変が発生することがあり、エプーリスとして報告されている^{2~7)}。これは先天性歯抜去後に遺残した歯乳頭あるいはその下方の組織に分化が起こり発生したと考えられているが²⁾、この病変が先天性歯抜去以前に発生していたのか否かは明確にされていない。

今回われわれは、先天性歯の歯根相当部に発生し、同歯抜去後に増大傾向を示した象牙質形成を伴うエプーリスの1例を経験したので報告する。

症 例

患 者: 8か月、女児。

初 診: 2013年8月。

主 訴: 下顎前歯部に生じた腫瘍の精査。

既往歴: 在胎週数36週。出生時体重2,662g、身長48cmであり、特記事項は認めなかった。

家族歴: 特記事項なし。

現病歴: 生下時より下顎前歯部に2本の先天性歯を認めていた。生後1か月までは体重増加は良好であったが、その後体重増加が停滞していた。当院小児科から体重増加不良との関連性を指摘され、当科を受診する6か月前に、当院小児歯科を受診した。先天性歯は、骨植なく動揺しており、先天性歯の基部には腫瘍を認め、その上部の歯冠周囲には発赤、腫脹を認めた。舌下面には疼痛を伴う軽度のRiga-Fede病を認めたため、同歯は抜去された(写真1A)。その後、先天性歯周囲の発赤、腫脹は消退したものの、その発赤、腫脹部の基部に存在した腫瘍は消退することはない。

¹⁾ 長崎大学大学院医歯薬学総合研究科医療科学専攻展開医療科学講座顎口腔再生外科学分野

(主任: 朝比奈 泉教授)

²⁾ 長崎大学大学院医歯薬学総合研究科医療科学専攻生命科学講座口腔病理学分野

(主任: 池田 通教授)

¹⁾ Department of Regenerative Oral Surgery, Unit of Translational Medicine, Nagasaki University Graduate School of Biomedical Sciences (Chief: Prof. ASAHINA Izumi)

²⁾ Department of Oral Pathology and Bone Metabolism, Unit of Basic Medical Sciences, Nagasaki University Graduate School of Biomedical Sciences (Chief: Prof. IKEDA Tohru)

受付日: 2015年1月13日

採択日: 2015年10月20日

く、増大傾向が認められたため、精査加療目的に当科へ紹介された。

現 症：

全身所見；特記事項なし。

口腔外所見；特記事項なし。

口腔内所見；下顎前歯部に、弾性やや硬で表面性状滑沢な18×5mm大の広基性腫瘤を認めた(写真1B)。

臨床診断；線維性エプーリス。

処置および経過；局所麻酔下にメスを用いて骨膜を含めて腫瘤を切除し、止血目的に周囲軟組織をCO₂レーザーで焼灼した。

術後経過は良好で、16か月経過した時点で、両側下顎乳前歯は欠損しているが、その他の乳歯は上下顎第一乳歯まで正常に萌出しており、再発はみられていない。

病理組織学的所見；標本は、ホルマリン固定、ブランク・リュクロ脱灰を行い、HE染色を行った。歯肉粘膜の隆起は粘膜下に紡錘形間葉細胞が集簇しており、基部には硬組織の形成を伴っていた(写真2A)。間葉細胞の集簇巣は被膜をもたず、少量の歯源性上皮塊を含んでいた。細胞に核異型はなく、核分裂像もみられなかった(写真2B)。硬組織には間葉細胞が接しており、主に口腔粘膜側では、屈曲した象牙細管様の構造や封入細胞も含まれ、未成熟な象牙質とみなされた(写真2C)。間葉細胞は象牙質の表面では密に配置し、深部には歯髓様の構造が認められ、象牙芽細胞の縁取りをもつ前象牙質を有し、歯髓部から放射状に配列する密な象牙細管を含む成熟した象牙質も含まれていた(写真2D)。一方、エナメル質やセメント質—骨様組織の形成は認められなかった。場所による分化程度の相違があるものの、象牙質形成との関連から、間葉細胞は歯乳頭に由来することが考えられた。組織学的に歯乳頭組織の関与が疑われる象牙質形成を伴う間葉組織の増殖性病変と診断された。

考 察

先天性歯(congenital teeth)は、生後1か月以内にみられる早期萌出歯で、出生時すでに萌出しているものを出産歯(natal teeth)、新生児期つまり生後1か月以内に萌出するものを新生歯(neonatal teeth)と区別している⁸⁾。出産歯は歯根の形成がほとんど認められないため、動揺が著しく、自然脱落による誤嚥の恐れから早期に抜去されることがあるが^{9,10)}、先天性歯抜去後、同部に腫瘤の形成、増殖がみられるとの報告があり、いずれも臨床診断、病理組織診断はエプーリスとされている^{2~6)}。本症例では、下顎前歯部の先天性歯周囲組織の炎症や、Riga-Fede病が認められ、同歯は抜去された。先天性歯周囲の発赤、腫脹は消退したが、その基部に存在した腫瘤は消失せず、6か月経

過した時点でも、同部位にやや増大したとみられる腫瘤が残存したため、エプーリスと診断し、局所麻酔下に切除した。

組織学的には、周辺性歯源性線維腫や歯牙腫などの腫瘍性病変が鑑別診断として考えられた。歯源性線維腫でも、歯源性外胚葉性間葉組織の増殖を背景に、少量の石灰化物や幼若象牙質が含まれることがある¹¹⁾。本症例も歯源性間葉組織の集簇のなかに歯源性上皮塊を認めるが、歯源性線維腫では本症例のように歯髓を伴う象牙質を多量に形成することはない。また本症例は、被膜がなくエナメル質やセメント質の形成はみられないことから、歯牙腫も否定的であった。とくに新生児から幼児にかけては、歯牙腫の発育段階であるdeveloping odontomaがみられることがあるが、これには組織学的に正常歯胚にみられるような、エナメル質を形成しているエナメル上皮がみられる^{12~15)}。本症例では、わずかな歯源性上皮塊はみられたが、エナメル質とエナメル質を形成しているエナメル上皮は含まれていなかった。

先天性歯に関連して発生したエプーリスでは、骨様象牙質の形成や骨様セメント質や骨組織の形成を認めたとの報告があり^{3~5)}、一部は骨形成性エプーリスと診断されている^{4,5)}。これらの硬組織形成を伴うエプーリスは、先天性歯抜去後に残存した組織の一部から象牙芽細胞の分化が起こり骨様象牙質や骨様セメント質が形成されたと考えられた³⁾。しかし本症例では、peripheral ossifying fibroma(周辺性化骨性線維腫)やosseous dysplasiaを示唆するセメント質—骨様組織の形成も認められなかった。したがって、本症例は歯乳頭の機能を有する歯源性外胚葉性間葉組織中に、象牙質や歯髓を形成したのと考えられた。

元来、先天性歯は、歯根形態が不完全であるか、あるいは歯根が認められない。そのため、先天性歯が自然脱落、あるいは抜去された際に、粘膜下に歯乳頭、歯小囊、象牙芽細胞、Hertwig上皮鞘などが残存するとの報告があり^{7,9,10,16~20)}、なかには象牙質様硬組織を形成した症例もある^{2~6,9,10)}。また、外傷により歯根未完成歯を抜去した後、歯根様硬組織や象牙質形成を認めた事例が報告されている²¹⁾。一方、本症例では写真1Aに示すように、先天性歯抜去以前から、周囲歯肉に発赤、腫脹を伴う先天性歯の基部に、写真1Bにみられるものと類似した形態の腫瘤が認められ、抜去後に、さらに腫瘤の増大を認めた。したがって、先天性歯歯冠部の萌出による歯冠周囲の炎症刺激や、動揺による機械的刺激によって、Hertwig上皮鞘の誘導による正常な歯根形成がなされず、不完全な硬組織の形成が生じた可能性が考えられた。一方、正常な歯根形成がなされなかったために、早期に歯冠部が萌出した可能性も否定できない。先天性歯の抜去後、新たに歯牙様硬組織の形成

写真1 小児歯科および当科初診時の口腔内写真

- A：小児歯科初診時；先天性歯に骨髄はなく、歯冠周囲歯肉には発赤、腫脹を認め、その基部には腫瘤（矢頭）の形成を認める。
 B：当科初診時（先天性歯抜去6か月後）；弾性やや硬で、表面性状は滑沢な有茎性腫瘤を認める。

写真2 病理組織像

- A (HE 染色 ×1)：全体像；拡大部位を四角で示す。
 B (HE 染色 ×10)：歯源性上皮塊（矢印）を含んだ歯源性間葉組織が象牙質様硬組織と共にみられる。象牙質様組織の表面で細胞密度が高い。
 C (HE 染色 ×20)：硬組織には屈曲した象牙細管や封入細胞がみられる。
 D (HE 染色 ×20)：象牙芽細胞を伴う歯髓構造もみられ、象牙前質や放射状に直線上に配列した象牙細管もみられる。

を伴う病変が生じたという報告は少数認められているが^{2)~6)}、実際には抜去以前から病変が形成されていた可能性がある。したがって、先天性歯萌出部位では、抜去時の注意深い観察とともに周囲組織を含む十分な搔爬が必要であり、抜去部に病変が存在している可能性、もしくは抜去後の残存組織から、硬組織形成やエプーリス等の病変が生じる可能性を考慮した慎重な経過観察が必要である。

結 語

今回われわれは8か月女児の先天性歯の萌出部位に発生した、歯乳頭組織の関与が疑われた象牙質形成を伴うエプーリスを経験したので、若干の文献的考察を加えて報告した。

謝辞

稿を終えるにあたり、資料の提供にご協力いただきました当院小児歯科 日高 聖先生、ならびに本学口腔病理学分野 池田 通教授に深謝いたします。

本論文の要旨は、第82回(公社)日本口腔外科学会九州支部学術集会(2014年6月、大分)において発表した。

本論文に関して、開示すべき利益相反状態はない。

引 用 文 献

- 1) 石川梧朗: 先天性エプーリス. 石川梧朗 監修; 口腔病理学Ⅱ. 改訂版, 永末書店, 京都, 1982, 238-240 頁.
- 2) 久芳陽一, 塚本末広, 他: 抜去された先天性歯相当部腫瘍中に形成された硬組織の病理組織学的考察. 小児歯誌 21: 87-93, 1983.
- 3) 吉田光秀, 真柳秀昭, 他: 出産歯抜歯後に硬組織を含むエプーリスを認めた1例. 小児歯誌 45: 536-540, 2007.
- 4) 有吉靖則, 中島世市郎, 他: 骨形成エプーリスを呈した先天性エプーリスの1例. 小児口外 20: 165-168, 2010.
- 5) 上野泰宏, 草野幹夫, 他: 4か月女児に生じた骨形成エプーリスの1例. 小児口外 21: 156-158, 2011.
- 6) 波多野宏美, 内川善盛, 他: 先天歯に関連したエプーリスの3例. 小児歯誌 51: 36-42, 2013.

- 7) Dymment H, Anderson R, et al: Residual neonatal teeth. J Can Dent Assoc 71: 394-397, 2005.
- 8) Massler M, Savara BS, et al: Natal and neonatal teeth. J pediatr 36: 349-359, 1950.
- 9) Berendsen WJ and Wakkerman HL: Continued growth of the dentinal papillae after extraction of neonatal teeth. J Dent Child 55: 139-141, 1988.
- 10) Ryba G and Kramer IR: Continued growth of human dentine papillae following removal of the crowns of partly formed deciduous teeth. Oral Surg Oral Med Oral Pathol 15: 867-875, 1962.
- 11) Farman AG: The peripheral odontogenic fibroma. Oral Surg 40: 82-92, 1975.
- 12) Ide F, Mishima K, et al: Rare peripheral odontogenic tumors: report of 5 cases and comprehensive review of the literature. Oral Surg Med Oral Pathol Oral Radiol Endod 99: 191-195, 2008.
- 13) Silva AR, Carlos-Bregni R, et al: Peripheral developing odontoma in newborn. Report of two cases and literature review. Med Oral Patol Oral Cir Bucal 14: e612-615, 2009.
- 14) Friedrich RE, Fuhrmann A, et al: Small peripheral developing odontoma of the maxilla in a 3-year-old patient on cone-beam tomograms. In Vivo 24: 895-898, 2010.
- 15) Toshinari M, Masaatsu Y, et al: Congenital peripheral developing odontoma accompanied by congenital teratomatous fibroma in a 9-month-old boy: a case report. Journal of Oral Science 55: 89-91, 2013.
- 16) 武田泰典, 福田容子: 歯原性腫瘍ならびに関連病変の病理. 病理と臨床 20: 1289, 2002.
- 17) Southam J: Retained dentine papillae in the newborn. Br Dent J 17: 534-538, 1962.
- 18) Oshima T, Mihara J, et al: Eruption of tooth-like structure following the exfoliation of natal tooth. J Dent Child 53: 275-278, 1986.
- 19) Nedley M, Stanlye R, et al: Extraction of natal and neonatal teeth can leave odontogenic remnants. Pediatr Dent 17: 457, 1995.
- 20) Tsubone H, Onishi T, et al: Clinico-pathological aspects of a residual natal tooth. J Oral Pathol Med 31: 239-241, 2002.
- 21) 山下 登, 向井美恵, 他: 外傷による幼若永久歯脱落後に形成された歯根のX線学的および組織学的観察. 小児歯誌 19: 546-558, 1981.