両側下顎骨に認めた非典型的形態の骨腫の1例

大槻浩一¹⁾・山西 整¹⁾・薬師寺翔太²⁾
有村友紀²⁾・近藤敬秀¹⁾・上松節子¹⁾

A case of bilateral mandibular osteoma of atypical form

OTSUKI Koichi¹⁾・YAMANISHI Tadashi¹⁾・YAKUSHIJI Shota²⁾
ARIMURA Yuki²⁾・KONDO Takahide¹⁾・UEMATSU Setsuko¹⁾

Abstract: An osteoma is a benign osteogenic tumor arising from the proliferation of mature bone. They have been reported to occur primarily in the mandible in the oral and maxillofacial region. No previous report has described a large bilateral osteoma with wing-like form arising from the mandibular ramus. We report herein a case of bilateral osteoma of atypical form occurring in the mandible. A girl of 15 years of age presented with the chief complaint of swelling and food impaction in the left side of the oral floor. Computer tomography revealed a bone-like structure extending from the inside surface of the left side mandible to the ipsilateral oral floor. In addition, another bone-like mass was shown inside the right side mandibular ramus. Both structures presented wing-like characteristic forms. A clinical diagnosis of bilateral osteoma of the mandible was made, and we performed extirpation of the tumor from both sides under general anesthesia. Pathological findings showed that the left side mass was comprised of compacted bone alone and the right side mass contained both compacted bone and cancellous bone. In conjunction with imaging tests, the masses were both diagnosed as osteoma. In the 12 months following the surgery, there has been no recurrence in the left side, whereas a new bone formation was recognized in the right side surgical site.

Key words: peripheral osteoma (周辺性骨腫)

緒 言

骨腫は成熟した骨質の増殖から成る良性の骨病変であり、中心性骨腫と周辺性骨腫に分けられる¹⁾。周辺性骨腫の好発部位は下顎角内外側、オトガイ部下縁、臼歯部の舌側とされている²⁾。

骨腫に関しては、今までさまざまな報告があるが、両側口底に翼状で比較的大きな骨腫が発生したという報告はない。今回われわれは、両側下顎骨に認めた非典型的形態の骨腫を経験したため報告する。

症 例

患 者: 15歳, 女子。

初 診: 2017年。

主 訴: 食事時に口底に食物がはさまる。

現病歴: 2001年12月に在胎40週1日、体重2,826g、身長47.0cm、頭囲33.0cm、胸囲30.5cm、Apgar Score 8/9で出生した。生直後より口腔内に異常所見(舌腫瘍、舌裂、小帯異常)を認めたため、2002年1月に当科へ紹介初診となった。2003年に舌腫瘍切除術、舌裂形成術および小帯形成術を、2011年には口腔前庭拡張術をいずれも全身麻酔下にて施行した。2012年に当院で矯正治療目的に撮影したCTにて下顎骨に病変を認めたが、生活に支障がなかったため経過観察となった。しかし2017年8月頃より、左側口底部に食渣残留を認めることが多くなり、2017年12月に上記の症状を主訴に受診した。

既往歴: oro-facial-digital syndrome。当センター遺伝診療科にて0歳時(2003年4月)に臨床所見から診断された。

家族歴: 特記事項なし。

口腔内習癖: ブラキシズムなどの口腔内習癖なし。

¹⁾ 大阪母子医療センター口腔外科
(主任: 山西 整部長)

²⁾ 岡山大学大学院医歯薬学総合研究科顎口腔再建外科学分野
(主任: 飯田征二教授)

¹⁾ Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Osaka Women's and Children's Hospital (Chief: Dr. YAMANISHI Tadashi)

²⁾ Department of Oral and Maxillofacial Reconstructive Surgery, Okayama University Graduate School of Medicine, Dentistry and Pharmaceutical Sciences (Chief: Prof. IIDA Seiji)

受付日: 2019年7月8日

採択日: 2020年9月29日

写真1 術前口腔内およびパノラマX線写真

- A：下顎咬合面観；左側口底に前後方向に紡錘形の骨様硬の膨隆を認め（矢頭），左側下顎歯肉舌側との間に陥凹があり，食渣の貯留を認める．また，右側下顎枝内側に骨様硬の膨隆を認める．
 B：上顎咬合面観；両側上顎犬歯部に歯槽裂（矢頭）を認める．
 C：パノラマX線写真；左側下顎臼歯部（矢頭）と $\overline{8}$ 埋伏歯（矢印）に重複するような不透過像を認める．

現 症：

口腔外所見；身長 149.5 cm，体重 44.2 kg，顔貌所見として内眼角贅皮，疎な毛髪を認めた．また手指の特徴として斜指，短指を認めた．

口腔内所見；左側口底に骨様硬の膨隆を触知した（写真1A）．左側下顎舌側歯肉との間に陥凹を形成し，同部に食渣の停滞を認めた．触診にて右側下顎枝内側にも骨様硬の膨隆を認めた．また，歯の先天欠損（ $\overline{432}$ ， $\overline{23}$ ），小帯の付着異常（ $\overline{432}$ ， $\overline{43}$ ， $\overline{34}$ ），上顎には歯槽裂（ $\overline{43}$ ， $\overline{34}$ ）を認めた（写真1B）．

画像所見：

パノラマX線所見；初診時のパノラマX線像では，左側下顎臼歯部と右側下顎智歯埋伏歯に重複する部位に不透過像を認めた（写真1C）．

CT所見；水平断において，左側口底に $51 \times 16 \times 5$ mm 大の前後方向に翼状に伸展する骨様組織を認めた．同部のCT値は皮質骨と同程度であった．この硬組織は，顎舌骨筋線よりも上方で $\overline{23}$ 相当部の下顎骨内側を基部とし，下顎骨に沿いながら下顎枝内側へ伸展していたが，下顎枝内側では下顎骨との連続性は認めなかった．また，右側下顎枝にも $15 \times 12 \times 6$ mm 大の骨様組織を認めた．左側と同様，CT値は皮質骨と同程度であり，顎舌骨筋線と下顎小舌の間を基部として，内方に伸長していた（写真2A～C）．

また，2012年に撮影したCT画像（写真2D，E）においても同病変を認めており（右： $15 \times 11 \times 5$ mm 大，左： $37 \times 9 \times 3$ mm 大），5年間で右側骨病変は著変ないものの，左側骨病変は明らかな増大を認めた．左側骨体部と左側骨病変との間隙の増大も認めた．

臨床検査所見；2017年12月に行った血液検査において，全血球計算，生化学検査ともに特記すべき所見は認めなかった．

臨床診断；両側下顎骨骨腫．

処置および経過；全身麻酔下にて両側下顎骨骨腫の摘出術を行った．まず，左側の摘出から行った． $\overline{234}$ 舌側歯頸部から， $\overline{7}$ 遠心に至るまでの切開を行い，粘膜骨膜弁を翻転し，骨病変を明示した（写真3A）．前方部の下顎骨体部と連続している部分をフィッシャーバーにて一部削除し，同部位に対し骨ノミ，ハンマーを用いて骨病変を離断，摘出を行った（写真4A）．骨整形を行った後，粘膜骨膜弁を復位した．右側の骨病変の摘出に際しても左側と同様に $\overline{65}$ 舌側歯頸部から切開し，外斜線に沿って切開線を設定した．切開後，骨膜下にて剥離を行い，骨病変を明示した（写真3B）．レスプロケーティングソーにて皮質骨を切離した後，骨ノミとハンマーを用いて骨病変を下顎枝から離断し，摘出した（写真4B）．摘出後は，ラウンドバーにて骨鋭縁を除去し，骨やすりにて骨表面を整形した後，骨面が滑沢であることを手指で確認した．両側とも術中に，舌神経や，下歯槽神経血管束は露出しなかった．

術後は一般病棟にて，パルスオキシメータを用いた呼吸管理を行ったが， SpO_2 の著明な低下は認めず，咽頭部の狭窄や口底部の腫脹は認めなかった．また，後出血や知覚異常などの合併症も認めなかった．術後1日目より経口摂取を開始した．摂食痛を認めたものの経口摂取は良好に進み，術後4日目に食渣残留の改善を認めた．1週間の入院加療後，経過良好のため退院となった．術後12か月経過し，左側の再発は認めていないが，右側では摘出部に新生骨の再形成を認めている（写真5）．現在，本人の治療の希望もなく経過観察を行っている．

病理組織学的所見；左側骨病変は，比較的均一な層板構造の中心にハバース管がみられる皮質骨のみが認められた（写真6A）．右側骨病変は，層板構造を示す皮質骨以外に海綿骨を示す骨梁と造血細胞を認めた．骨軟骨腫などの他の骨疾患を疑うような軟骨組織は認めなかった（写真6B）．

病理組織学的診断；右側：海綿状骨腫，左側：緻密骨腫．

写真2 CT画像

- A: 2017年の水平断；右側下顎枝骨病変基部(矢印)および左側下顎前歯部骨病変基部(矢頭)。
 B: 2017年の前頭断
 C: 2017年の3次元構築画像(下顎咬合面観)；水平断において，左側口底に $51 \times 16 \times 5$ mm大の前後方向に存在するCT値が皮質骨と同様の組織を認める．右側下顎枝に $15 \times 12 \times 6$ mm大のCT値が皮質骨と同様の翼状の硬組織病変を認める．
 D: 2012年の3次元構築画像
 E: 2012年時の水平断

写真3 術中写真

- A: 左側骨病変 B: 右側骨病変
 ともに基部にて切断し，骨病変を一塊にして摘出した。

写真4 切除標本写真

- A: 左側骨病変 B: 右側骨病変

写真5 術後CT画像(水平断)
右側下顎枝内側骨病変(矢印) 右側に新生骨を認める。

写真6 病理組織写真

- A: H-E 染色, 強拡大(×400 倍)
左側骨病変は比較的均一な層板構造の中心にハバース管がみられる皮質骨のみである。
- B: H-E 染色, 弱拡大(×40 倍)
右側骨病変は層板構造を示す皮質骨と海綿骨を示す骨梁と造血細胞を認める。

考 察

骨腫は成熟した骨質の増殖から成る良性の骨病変であり, 骨内部に発生する中心性骨腫と, 骨膜下で外方に増殖する周辺性骨腫に分類される^{1,2)}。外方に増殖を示す骨病変は, 外骨症の他に外傷や炎症性刺激による骨の反応性過形成, 骨化の進んだ骨形成線維腫, 骨軟骨腫などが挙

げられる³⁾。これらの内, 骨腫と外骨症は病理組織学的に鑑別が困難な場合がある。骨腫には, 成熟した層板骨の間に骨髓組織がみられる海綿状骨腫と, 大部分が緻密な骨質から成る緻密骨腫の2種類が存在するが, 緻密骨腫と外骨症の病理組織学的な鑑別が困難である^{3~5)}。本症例では左側病変で, 外骨症との鑑別が困難であった。このような場合, 臨床所見による診断が重要となる³⁾。骨腫の臨床的特徴は, 孤発性, 有茎性であり, 増大傾向を示す^{1,5)}。外骨症は広基性であり, 上顎口蓋正中や下顎臼歯部内側を好発部位とし, また炎症や咬合力による持続的な刺激を伴う部位に発症する¹⁾。本症例と同様の鑑別診断を行ったこれまでの報告では, 炎症性刺激が少ない下顎枝内側に発症し外傷の既往がない場合³⁾, 有茎性で明らかな腫瘤の増大を認めた場合⁴⁾, さらに孤発性, 有茎性で比較的大きい場合⁵⁾に緻密骨腫と診断されていた。本症例では刺激となるような口腔習癖はなく, 左側病変の周囲に炎症所見は認めなかった。さらに, 左側病変は有茎性で比較的大きく, 増大傾向を示したことから, 上記の臨床所見に合致すると考え緻密骨腫と診断した。

Woldenberg ら⁶⁾は, 口腔顎顔面領域における骨腫の発生頻度は, 下顎骨が64%, 上顎骨7%, 側頭骨22%, 上顎洞は7%であると報告している。下顎骨では下顎角内外側, オトガイ部下縁, 臼歯部の舌側に発生することが多く, 下顎枝での発生は少ない。下顎枝内側はさらに少なく, 細尾ら⁷⁾は下顎枝に発生した骨腫10例において, 内側に発生したものは3例であったと報告している。大きさに関しては, 下顎骨周辺性骨腫50例において, 40mmを越えるものは9例であったと報告されている⁸⁾。球状や楕円形の形態を呈し^{7,9)}, 片側性および単発性に発生することが多い⁵⁾。まれな形態として, 下顎骨臼歯部頰側と下顎枝外側にそれぞれ棒状とL字型の骨腫を認めた症例の報告⁴⁾があるものの, 本症例のように下顎骨臼歯部舌側に翼状の形態の骨腫が両側に発生したという報告は, われわれが渉猟し得た限り認めなかった。同側の下顎骨体部と下顎枝に2つの骨腫を認めた症例¹⁰⁾や下顎骨下縁部に3つの骨腫を認めた症例¹¹⁾と同様に, 本症例のような両側の下顎枝内側に骨腫が発生した症例は非常にまれだと考えられる。

口・顔・指症候群は, 口腔の異常, 特異な顔貌や指趾の異常を主徴¹²⁾とし, 1954年, Papillon-Léage ら¹³⁾により初めて報告された。発生頻度は, 25~50万人に1人と推定されている^{12,14~17)}。これまで臨床的に14型が分類されていたが, その後, 原因遺伝子の解明と共に統合され, 11型が存在する¹²⁾。最も頻度が高いのは, I型で次にII型である¹²⁾。I型はX連鎖優性遺伝形式であり, 原因遺伝子は, CX-ORF5である。本症例では遺伝子検査は施行していないが, 臨床症状からI型と考えられた。口腔所見として, 小帯

表1 下顎骨に発症した骨腫の再発症例

症例	報告年	報告者	性別	部位	初回手術時年齢	初回手術時大きさ(mm)	初回手術時処置	初回手術時組織像	再発時年齢	再発時大きさ(mm)	再発時処置	再手術時組織像
1	1971	Bosshardt et al ³⁰⁾	女	左側下顎下縁	23	39×22×18	摘出術	緻密骨腫	32	50×12×10	切除術	緻密骨腫
2	2000	野村ら ²⁴⁾	女	左側顎角部	11	不明	摘出術	海綿状骨腫	40	47.5×20.5 38×22	骨膜を含めて切除術	海綿状骨腫
3	2014	川崎ら ²³⁾	女	右側下顎骨体部	36	不明	摘出術	緻密骨腫	46	24×24×10	骨膜を含めて切除術	緻密骨腫
4	2015	Shetty et al ²⁶⁾	女	左側下顎枝舌側	8	不明	摘出術	不明	16	40×30	切除術	海綿状骨腫
5	2018	Hernando et al ²⁷⁾	女	左側下顎舌側	24	不明	摘出術	不明	69	30×30	切除術	緻密骨腫
6	2020	本症例	女	右側下顎枝舌側	15	15×12×6	摘出術	海綿状骨腫	17	6×5×4	経過観察	なし

の異常, 分葉舌, 舌裂, 舌結節, 舌過誤腫が挙げられる^{14~16)}. 以前に当科からこのような症状に対する治療の報告を行っている¹⁸⁾. しかし, われわれが渉猟し得た限り OFD 症候群に下顎骨骨腫を認めたとする報告はなく, OFD 症候群と下顎骨骨腫の関連は明らかではない. これまで本症例には, 0 歳時に舌過誤腫の摘出と 8 歳時に小帯形成術を行っている. 舌過誤腫は舌尖および両側舌縁に認めた径 5~7 mm 程度のものを摘出した. 小帯形成は, 21), 34), 45) 部頰側の頰小帯を V-Y 伸展術にて延長した. 本症例にはこのような口腔内手術の既往があるものの, 下顎骨体部から下顎枝の内側に手術侵襲は加わっておらず, 口腔内手術の既往が骨腫の発症に影響したとは考えにくかった.

多発性骨腫を特徴とする疾患として, Gardner 症候群がある^{17, 19, 20)}. Gardner 症候群は, 骨腫, 皮下の軟部腫瘍などを伴う大腸腺腫症である¹⁹⁾. 常染色体優性遺伝疾患で, 原因遺伝子は APC 遺伝子である¹⁹⁾. Gardner 症候群患者の 46~93% に骨腫が認められ, そのうちの 26~46% は 3 つ以上の骨腫を認める²⁰⁾. しかしながら Gardner 症候群における骨腫の好発部位は下顎角, 頰骨弓, 関節突起部とされ, 本症例の発症部位と一致しない. また本症例では, 皮下腫瘍や大腸腺腫症に伴う腹部症状も認めていない.

骨腫の治療法は, 外科的摘出か, 無症状の場合は経過観察である. しかし, 骨腫が顎下腺やワルトン管を圧迫することによって顎下腺炎類似症状を生ずることがある²¹⁾. また, 骨腫の増大から気道スペースが減少し, 睡眠障害²²⁾を呈した症例も報告されているため, 予防的摘出も検討する必要がある. 本症例では, 左側病変は口底における食渣の残留を改善する目的で摘出を行った. 右側では病変の増大によって, なんらかの症状を発症する可能性が考えられたため, 予防的摘出を選択した.

下顎枝内側に生じた骨腫でも, 基部が下顎角に近い場合は口腔外アプローチが必要となる⁷⁾. 本症例では, 骨腫の

基部が左側病変では顎舌骨筋線より上方に位置し, 右側病変でも顎舌骨筋線と同程度の高さであったため, 両側とも口腔内アプローチを選択した. 病変が両側とも下顎小舌付近まで進展していたため, 舌神経および下歯槽神経血管束を損傷しないよう注意を要した. 術後は創部腫脹による気道狭窄や嚥下障害が懸念されたが, 問題となるような症状は認めなかった. その理由として, 粘膜骨膜弁の挙上の際に, 骨膜の損傷が生じなかったことや骨表面からの出血が少量であったことが考えられた. 術後は, 術前に認めた左側口底部の陥凹が消失し, 同部への食渣残留は改善した.

周辺性骨腫の外科治療後の再発について, 思春期に摘出を行った場合は再発しやすいとされる^{4, 23, 24)}. 本症例においては, 術後 12 か月経過し, 左側では再発を認めていないが, 右側では切除を行った骨腫の基部に新生骨を認めた. 骨腫の再発原因は, 多くの場合不明である. 川崎ら²³⁾は, 再発の原因として, 腫瘍の残存, 筋・筋膜が骨膜に及ぼす牽引力, 近接する歯の根尖性歯周炎を挙げている. 本症例では, 術直後の画像はないものの, 手術所見から腫瘍の残存は考えにくい. また, 骨腫では腫瘍の残存は再発の原因にはならないという報告^{25~27)}もある. 再発に対する歯の炎症の関与については, 本症例では右側骨腫に近接した歯に炎症所見は認められなかったことから否定的と考えられた. 大岡ら²⁸⁾, Ishikawa ら²⁹⁾は, 筋および筋膜が骨膜に及ぼす牽引力が骨腫の発症の要因になると述べている. 本症例では, 右側骨腫の基部は内側翼突筋粗面および顎舌骨筋線に近接していた. このことから, 右側病変の再発には, これらの筋の牽引力が関与した可能性が推察された. また, 本症例は左右の病変で病理組織像が異なっていたが, 海綿状骨腫である右側病変のみ再発を認めた. しかし過去の報告では, 海綿状骨腫, 緻密骨腫の再発率に明らかな差は認めない(表 1)^{23, 24, 26, 27, 30)}. 現在, 患児において自覚症状がなく, 再摘出の希望がないため, 経過観察を行っている.

本論文の要旨は第30回NPO法人日本口腔科学会・近畿地方部会(2018年12月,大阪府)において発表した。

論文掲載にあたり本人の同意を得た。

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) 伊藤秀夫, 塩田重利, 他: 口腔病変診断アトラス, 第1版, 医歯薬出版株式会社, 東京, 1980, 200-205頁.
- 2) 石川梧朗, 秋吉正豊: 口腔病理Ⅱ, 改訂版, 永末書店, 京都, 1952, 592-593頁.
- 3) 大木宏介, 鈴木幸一郎, 他: 下顎枝内側に発生した巨大な周辺性骨腫の1例. 日口外誌 59: 791-795, 2013.
- 4) 佐藤栄需, 長谷川 博, 他: 下顎骨に発生した単発性周辺性骨腫の2例. 日口外誌 59: 765-769, 2013.
- 5) 成松花弥, 飯田明彦, 他: 下顎角内側に生じた周辺性骨腫の2例. 口科誌 66: 298-302, 2017.
- 6) Woldenberg Y, Nash M, et al: Peripheral osteoma of the maxillofacial region. Diagnosis and management: A study of 14 cases. Med Oral Patol Oral Cir Bucal 10 Suppl 2: E139-142, 2005.
- 7) 細尾麻衣, 五島秀樹, 他: 下顎枝前縁に発生した周辺性骨腫の1例. 日口外誌 46: 623-627, 2016.
- 8) 本田雅彦, 寺門正昭, 他: 下顎骨舌側部にみられた鶏卵大周辺性骨腫の1例. 日口外誌 46: 436-438, 2000.
- 9) 関根栄子, 佐藤 徹, 他: 口底を占拠した周辺性骨腫の1例. 日口外誌 42: 920-922, 1996.
- 10) 堀之内康文, 篠原正徳, 他: 右下顎骨体部と下顎枝に発生した周辺性骨腫の1例. 日口外誌 45: 706-708, 1999.
- 11) 沖田美千子, 針谷靖史, 他: 下顎骨に発生した周辺性骨腫の1例. Hosp Dent Oral-Maxillofac Surg 20: 57-60, 2008.
- 12) 石和田稔彦, 井田博幸: 小児の症候群. 小児科診療 79 (増刊号): 51-52, 2016.
- 13) Papillon-Léage M and Psaume J: Une malformation héréditaire de la muqueuse buccale: Brides et freins anomaux. Rev Stomatol 55: 209-227, 1954.
- 14) 池田正一, 黒木良和: 口から診える 症候群・病気, 第1版, 一般社団法人 日本障害者歯科学会, 東京, 2012, 30頁.
- 15) Gonzalez MG, Castro MP, et al: Oral-facial-digital syndrometype I: Surgical approach and a case report. J Plast Reconstr Aesthet Surg 67: 396-398, 2014.
- 16) Fantasia JE: Syndromes with Unusual Dental Findings or Gingival Components. Atlas Oral Maxillofac Surg Clin North Am 22: 211-219, 2014.
- 17) Hennekam RCM, Krantz ID, et al: Gorlin's syndromes of the head and neck. Oxford University Press, Inc, New York, 2010, p526-533, p923-936.
- 18) 北村龍二, 西尾順太郎, 他: Oro-facial-digital(OFD) 症候群Ⅰ型の1例. 日口外誌 36: 1348-1352, 1990.
- 19) 石和田稔彦, 井田博幸: 小児の症候群. 小児科診療 79 (増刊号): 204, 2016.
- 20) 吉田祥子, 岸本晃治, 他: Gardner 症候群患者に認められた巨大な下顎骨骨腫の1例. 日口外誌 62: 466-470, 2016.
- 21) 宮本 猛, 星名秀行, 他: 下顎角部外骨症が原因で口底部に炎症症状が発現した1例. 日口外誌 45: 402-404, 1999.
- 22) Tarsitano A and Marchetti C: Unusual presentation of obstructive sleep apnea syndrome due to a giant mandible osteoma: case report and literature review. Acta Otorhinolaryngol Ital 33: 63-66, 2013.
- 23) 川崎康大, 西野 仁, 他: 再発した下顎骨周辺性骨腫の1例. 日口外誌 60: 619-623, 2014.
- 24) 野村幸恵, 柿澤 卓, 他: 下顎角部に発生した長期間経過後に再発した周辺性骨腫の1例. 日口外誌 46: 87-89, 2000.
- 25) Selva D, White VA, et al: Primary bone tumors of the orbit. Surv Ophthalmol 49: 328-342, 2004.
- 26) Shetty SK and Biddappa L: Recurrence of a giant peripheral osteoma of mandible. J Maxillofac Oral Surg 14: 452-456, 2015.
- 27) Hernando J, Aguilar-Salvatierra A, et al: Piezosurgery for Treatment of Large Recurrent Mandibular Osteoma. J Craniofac Surg 29: e219-221, 2018.
- 28) 大岡俊夫, 石川武憲, 他: 下顎下縁に発生した周辺性骨腫の1例とその発生に関する考察. 日口外誌 35: 2515-2519, 1989.
- 29) Ishikawa T, Yashima S, et al: Osteoma of the lateral pterygoid plate of the sphenoid bone. Int J Oral Maxillofac Surg 15: 786-789, 1986.
- 30) Bosshardt L, Gordon RC, et al: Recurrent peripheral osteoma of mandible: report of case. J Oral surg 21: 446-450, 1971.