エナメル上皮線維歯牙腫の1例

末 永 光・手 島 貞 一・丸 茂 町 子・前 田 栄 一*

Ameloblastic fibro-odontoma: Report of a case

Hikaru SUENAGA・Teiichi TESHIMA・Machiko MARUMO・Hidekazu MAEDA*

緒 言

エナメル上皮線維歯牙腫, Ameloblastic fibro-odontoma とは, エナメル上皮線維腫様の組織像を呈する軟組織の中に, 種々の程度の差はあれ, 象牙質, または類骨象牙質と, エナメル質の形成を伴う特異な腫瘍である。

最近, われわれは, 本症の1例を経験したのでここに報告し, 併せてその本態についていささかの考察を加えたい。

症 例

患 者: 7 歳 女児

初 診: 昭和48年8月

主 訴: 左側頰部の腫脹

家族歴: 父方の祖父が胃癌で死亡した他には, 特記すべき事項はない。

既往歴: 5 歳時, 麻疹に罹患したほか, とくに著患を知らない。

現病歴: 生後4カ月で, 歯牙の萌出を認めた。3 歳の時に, $\overline{DE}$ のう蝕処置を受けている。昭和47年12月ころより, 左側顎下部から頰部にかけて, 無痛性の腫脹を認めるようになった。また, そのころ, $\overline{E}$, $\overline{6}$ のう窩より, 出血, 排膿があり, その治療を続けていたが, 顔部の腫脹が目立ってきたため, 某院歯科より当科を紹介されて来院した。

現 症: 体格, 栄養ともに中等度で, 全身的には異常所見を認めない。

臨床検査所見: 成績は表1に示すとおり, ほとんど正常範囲内にあり, とくに指摘すべき所見はない。

局所所見: 顔貌は非対称で, 左側下顎部は, 頰部の後方から外耳孔の前方にかけて, 硬く, 手拳大に腫脹していた(写真1)。開口時, 下顎はやや左方に偏位するが, 開口障害はほとんど認められず, 顎下および顎部リンパ節にも異常がなかった。

写真1 術 前 顔 貌

口腔内所見: $\frac{C}{CD}$ は C_2 , $\frac{D}{E}$ は C_4 , $\overline{6}$ は C_3 で, 多数のう蝕歯が認められた。腫瘍は, $\overline{2}$ 遠心より後方の左側下顎骨の全体にあり, その主なる範囲は, 耳下腺開口部の下方付近から後上方にかけ, 下顎枝および顎関節にまで及んでいた。骨は硬く, かつ口腔内および外側に向けて著明に膨隆し, 比較的平滑な表面を呈するが, $\overline{E}$ 部の歯肉頰移行部において羊皮紙様感を触知した。

X線写真所見: オルソパントモグラフィーでみると(写真2), 患側顎の歯牙の状態は, $\overline{126}$ はすでに萌出しており, $\overline{34}$ は未萌出であるが, それらの歯胚の位置, 構造にはとくに異常が認められない。 $\overline{5}$ は欠如し, 何処にもその歯胚を認めることができなかった。 $\overline{7}$ は歯冠部のみが形成され, 腫瘍の圧迫によるためか, 下顎下縁に近い深部に存在していた。腫瘍は境界の比較的明瞭なX線透過像を示し, 近心は $\overline{4}$ に接し, 一方遠心は, 下顎枝から関節突起, 筋突起にまで達しているため, 下顎骨は

東北大学歯学部口腔外科学教室 (主任: 林 進武教授)

* 山形大学医学部口腔外科 (主任: 前田栄一教授)
Department of Oral Surgery, Tohoku University School of Dentistry. (Chief Prof: Susumu Hayashi)

* Department of Oral Surgery, Yamagata University School of Medicine (Chief Prof: Hidekazu Maeda)

受付: 昭和51年7月21日

表 1 臨床検査所見

検 査 項 目			所 見			検 査 項 目	所 見
血 球 一 般 検 査	赤 血 球 数		466万	生 化 学 検 査	肝 機 能	黄 疸 指 数	6.2
	血 色 素		12.0g/dl			CCLF	(一)
	ヘマトクリット値		39%			ZTT	8.5
	白 血 球 数		6,250			TTT	2
	白 血 球 像	M	4			GOT	13
		L	28			GPT	2
		E	0		ALK・Ph	12	
		B	0		血 清 検 査	RA	(一)
		St	14			CRP	(一)
		Ⅱ	31			ASLO	125
	Ⅲ	21	W-R			(一)	
	Ⅳ	2	尿 検 査		蛋 白	(一)	
血 小 板 数		34.5万		糖	(一)		
網 状 赤 血 球 数		3%		ウロビリノーゲン	(±)		
出 血 時 間		2分		比 重	1,023		
凝 固 時 間		10分		沈 渣	異常なし		
毛細血管抵抗試験		(一)					
血 清	赤 沈						
	総 蛋 白		7.9g/dl				
	血質 清電 解	Na	141mEq/l				
		K	4.4 "				
		Cl	104 "

写真 2 術前オルソパントモグラフィー

全体が膨大し、骨質はほとんど吸収消失して皮質骨のみが菲薄化して認められた。また腫瘍内には、粟粒大ないし米粒大で、ときには歯冠の形態を思わせる数十個の石灰化像が散在して認められた。

手術所見、並びに術後経過：患者の年齢を考へ、また、上行枝後縁部に骨皮質が比較的良好に残存していることから、下顎骨保存の方針をたて、G.O.F 気管内挿管麻酔の下に、口腔内より腫瘍の摘出を試みた。Cより遠心側において、約5cm 程歯肉を切開し、また、CD6を抜去し剥離をすすめると、腫瘍周囲の骨は高度に吸収されており、とくに頰側、および舌側の骨壁では骨質が一部消失し、腫瘍は直接骨膜に接していた。その他の部分でも、骨は菲薄となり皮殻状を呈し、筋突起および関節突起部では腫瘍の増大に伴う骨質の吸収、膨隆を著明に認め、ほとんど原形をとどめない状態にあった。

手術は口腔内よりこれら骨皮殻を破骨鉗子で削除しながら、腫瘍を周囲から剥離して行った。腫瘍実質は灰白色で軟らかく充実性で、明らかに嚢胞状をなす所見は認められなかった。7歯胚は下方に圧迫されて下縁の近くに在存していたが、腫瘍とは直接の関連性が認められなかった。腫瘍の舌側下面では、下槽槽血管神経束が露出していたが、これを鈍的に剥離したのち、腫瘍を一塊として摘出した。鋭匙で骨面を搔爬し、腫瘍組織の残存の

ないことを確かめ、創傷縁は大部分を開放性とし、アイロタイミン軟膏塗布ガーゼタンポンを施して手術を終了した。患者の術後1か月のX線像(写真3)と術後7か月(写真4)および2年3か月(写真5)のX線像をそれぞれ比較すると、骨再生の進行が順調に増強されていることが明らかに認められ、術後2年余の現在では再発もなく、経過は良好である。

摘出物所見：7の歯胚を含めて摘出した腫瘍の大きさは、75×40×35mmで、充実性、淡桃色を呈し、硬さは弾性軟であった(写真6)。

腫瘍の断面には、大小の小石灰化物が、多数散在性に認められた。摘出標本の軟X線像では(写真7)、これらの多くは不正円形、ないし歯牙様構造を思わせる形態を示して、きわめて特徴的に観察された。

病理組織学的所見：腫瘍は、軟組織の中に硬組織の形成を見る部分が混在している。軟組織の部分の組織像はおおむね、エナメル上皮線維腫様の特徴を備えたものであり、歯原性上皮細胞が索状または濾胞状に増殖しており(写真8)、あたかもエナメル器に類似した像を呈している部分もある。上皮細胞周囲には、歯乳頭を思わせる若い結合組織が増殖している。硬組織はその大部分が、類骨様の不完全な象牙質と考えられるものであるが、まれに不完全ながら象牙細管様の所見が認められるところ

写真3 術後1か月のX線像

写真4 術後7か月のX線像

写真 5 術後2年3か月のX線像

写真 7 摘出腫瘍の超軟X線像

写真 8 歯原性上皮細胞の索状ないし濾胞状増殖 (HE 染色)

写真 6 摘出した腫瘍

写真 9 類骨象牙質の形成 (HE 染色)

もある。このような類骨象牙質は、歯原性上皮細胞索が円形に配列した歯胚様組織の周囲に接して形成されているが、象牙芽細胞層は明らかでない部分が多く、象牙質内に骨細胞様の細胞が封入されている(写真9)。また、その象牙質の内側に接して、不完全ながらもエナメル質が造られている部分があり、その内面にエナメル芽細胞様の細胞が一行に配列している(写真10)。しかし、比較的大きな歯牙様構造物の中には、写真11のように象牙

質とエナメル質の位置的関係が、ほぼ正常と同様なものもあるが、前者が後者の周囲に形成されたものもある。

なお、一部の類骨象牙質の内部およびその周囲の基質に、メラニン色素の沈着が見られた。メラニン色素をもつ細胞は主として類円形の核と豊富な細胞質を有し、その中に多数の細顆粒状の黒褐色の色素を含む細胞からな

写真 10 象牙質の内側にエナメル質の形成 (HE 染色)

写真 11 象牙質の周囲にエナメル質の形成 (HE 染色)

っていた。
病理組織学的診断：エナメル上皮線維歯牙腫
(Ameloblastic fibro-odontoma)

考 按

本症例のごとく軟組織の中に硬組織，すなわち象牙質または類骨様象牙質と，エナメル質の形成を伴う歯原腫瘍に関する確実な記載は，Frissell ら¹⁾(1953) によれば，D'Aunoy ら (1929) によるものがおそらく最初ではないかといわれている。しかしあるいはそれ以前に気付かれていたのかもしれない。わが国では生田ら²⁾(1930) による報告がおそらく最初であろうと思われる。

最近，滝川ら³⁾ (1968) は，自験例とともに内外の文献を収集し，それに基づいて種々の統計的考察を試みているが，本腫瘍に関する調査研究では多大に参考に資するものと思われる。このような文献的統計的検索を行うにあたっては，本腫瘍の本態を如何様に理解すべきか，少なくとも現時点での問題点を可及的に明らかにしておく必要があると考える。表2および表3に示した内容は，われわれが以下の指摘理由から取捨選択し，参照できた内外の主な文献によるものであるが，これに基づいて考察を試みたい。

問題点の第一は，名称の変遷についてである。すでに諸家も指摘しているように，むかし，この腫瘍は一方では充実性エナメル上皮腫の一種と考えられていた。わが国でも生田ら²⁾ (1930) は，瑛瑛腫として記載し，また斎藤⁴⁾ (1943) は「瑛瑛質を形成せる瑛瑛上皮腫」として報告している。他方，Riddett⁵⁾ (1944) の1例報告に見るように，この腫瘍を硬性歯牙腫の一種とみなす考えもあった。つまり本腫瘍の名称のちがいは，すなわち本態観の相違によるものであり，歯原性腫瘍に関する理解とともに変遷してきたものと推察される。外国では，Calcifying fibro-adamantoblastoma, Odonto-adamantoblastoma, Soft and calcified odontoma などとして種々報告されているが，Thoma ら⁶⁾ (1946) が，本腫瘍を歯原性混合腫瘍の中に位置づけて，Ameloblastic-Odontoma として発表してからは，この名称が広く用い

表 2

報告者	所 属	発表年	名 称	年令	性別	部 位	備 考
生田ら	京 城 大	1930	瑛瑛腫	7	女	P	Ameloblastic fibro-odontoma
斎 藤	医 歯 専	1943	瑛瑛質を形成せる瑛瑛上皮腫	15	男	M	Ameloblastic fibro-odontoma
小林ら	医 歯 大	1959	歯牙硬組織の形成を認めた軟性歯牙腫	2	男	M	Ameloblastic fibro-odontoma
長尾ら	東 歯 大	1959	Ameloblasto-Odontoma	10	男	M	Ameloblastic fibro-odontoma
佐藤ら	阪 大 耳	1964	Odontoblastoma	5	女	E	Ameloblastic fibro-odontoma
滝川ら	日 大 歯	1968	エナメル上皮歯牙腫	13	男	M	Odonto-ameloblastoma ?
滝川ら	日 大 歯	1968	エナメル上皮歯牙腫	21	男	P	Odonto-ameloblastoma ?
輻形ら	東 歯 大	1970	Ameloblastic Odontoma	2	女	CTC	Ameloblastic fibro-odontoma
服部ら	愛知学大歯	1970	Ameloblastic Odontoma	13	男	P	Odonto-ameloblastoma ?

表 3

報 告 者	発表年	名 称	年 令	性 別	部 位	備 考
Riddett ら	1944	A Composite Odontome	1	男	a	Ameloblastic fibro-odontoma
Kemper ら	1944	Adamanto-Odontoma	6	女	c	Ameloblastic fibro-odontoma
Thoma ら	1946	Ameloblastic Odontoma	16	男	I	
Frissell ら	1963	Ameloblastic odontoma	11	男	M	Ameloblastic fibro-odontoma
Silva ら	1956	Odontoameloblastoma	2	女	C	Odonto-ameloblastoma
Olech ら	1967	Ameloblastic odontoma	5	女	a	Ameloblastic fibro-odontoma
Dutta ら	1970	Ameloblastic odontoma	8	男	D E	Ameloblastic fibro-odontoma

られるようになった。しかし、それより2年前に Kemper ら⁷⁾(1944), Thoma⁸⁾(1944) すらも, Adamanto-Odontoma なる名称を用いており, 当時は未だ名称が不統一であったことが窺われる。また後年 Blake ら⁹⁾(1951) が, Ameloblastic odontoma として1例報告をしているが, それには石灰化物が存在したという記載がないので, これは今日でいう Ameloblastic fibroma にあたるものと考えられる。この事実も当時の用語上の混乱を示すもので注意を要する。

このような観点からみると, Frissel と Shafer¹⁾(1953) が発表した Ameloblastic Odontoma の1例報告は, 現時点においても価値あるものとする。以来, Olech¹⁰⁾(1967), Dutta¹¹⁾(1970) など, 同名称による報告が数多くみられるようになった。

比較的最近わが国では, 小林¹²⁾ が, 「歯牙硬組織の形成を認めた軟性歯牙腫」なる名称で1例を報告しているが, 同腫瘍の組織像は, エナメル上皮線維腫に近い組織像であり, その間に, エナメル質, 骨様象牙質の形成を認めたことが記載されている。しかし, その考察の中で, 彼らは Thoma らのいうエナメル上皮歯牙腫を含む歯原腫瘍の分類について触れてはいるが, 軟性歯牙腫の名称を用いている。これは, 本腫瘍に関する認識がわが国では当時未だ普遍化されていなかったことにもよるが, その組織像の記載からすると, 胎生期結合組織類似の組織の腫瘍性増殖が主体をなし, そのために歯牙硬組織成分が散在性に形成して認められたことから宮崎¹³⁾(1939) の概念に従ったものと考えられる。なお現在の認識からすると Ameloblastic fibro-odontoma と明確に規定される。

問題点の第二は, 組織像に関する認識である。Thoma ら⁸⁾(1946) は, 歯原性腫瘍を外胚葉系腫瘍, 中胚葉系腫瘍と混合腫瘍に大別し, Ameloblastic Odontoma は, 外胚葉系と中胚葉系の細胞が混合関与してきたものであり, 歯牙様形態を呈する小石灰化物を多数含むほか, 種々の段階における歯胚, さらにエナメル上皮細胞索をもつ特異な型の歯原腫瘍としている。また, Frissel と Shafer¹⁾(1953) も, 定型的, または, 非定型的な Ameloblastoma, Compound composite-odontoma, または,

Complex composite odontoma が混在する腫瘍と記しているが, この記載は現在に至るまでほとんどの学者によって継承されているものである。わが国でも, 最初 Ameloblasto-Odontoma なる名称で症例を報告した長尾¹⁴⁾(1959) は, 歯牙腫の中で上皮成分が腫瘍様増殖を来とし, 一部エナメル上皮腫のような像を示したものとし, また宮崎¹³⁾の分類によるエナメル上皮腫の第4型に関する記載を引用し, 「実質は高度の分化を遂げ, 実質を形成する上皮細胞索は, エナメル器にきわめて類似し, 一部のものでは, 実質に接してエナメル質や象牙質がみられる」とのことからみて, Ameloblastic Odontoma は, 第4型よりもさらに腫瘍実質の分化の進んだものと考えられるとしている。

ところが, その後になってわが国でも, 石川, 秋吉¹⁵⁾(1971) は, 上記宮崎¹³⁾の第4型エナメル上皮腫は, エナメル上皮線維腫に相当するとして区別するようになった。またエナメル上皮歯牙腫の項には, 組織学的に軟組織の部分は, エナメル上皮腫あるいはエナメル上皮線維腫と同様の組織像を示すと記載し, 前者をエナメル上皮歯牙腫, 後者をエナメル上皮線維歯牙腫 Ameloblastic fibro-odontoma と呼ぶと記している。このような考え方は, 勿論, 以前からあったに違いないが, 明確に二つの腫瘍を区別して報告するものはなかった。すなわち, われわれが今回検討し得た前記文献例について, その記載または組織像の写真から判断すると, エナメル上皮歯牙腫として報告されたものの中には, 組織像がエナメル上皮腫様というよりむしろ, エナメル上皮線維腫様と考えられるものが多いように思われる(第2, 3表備考欄参照)。そのうちで, Silva¹⁶⁾ら(1956)が報告した Odontoameloblastoma の例は, 組織像の記載からみてエナメル上皮腫と解して良いと思われる。

ところで最近, Pindborg ら¹⁷⁾は W.H.O. の国際腫瘍組織分類で, 歯系腫瘍に関する新分類を提唱したが(表4)それには本症を, Ameloblastic fibro-odontoma と Odonto-ameloblastoma に分けている。つまり前者は Ameloblastic fibroma 様の, 後者は Ameloblastoma 様の組織像を呈するものと規定し, 前者はそれほど稀ではないが, 後者はきわめて稀なものである

表 4 Pindborg らによる歯系腫瘍の分類

1. Ameloblastoma
2. Calcifying epithelial odontogenic tumour
3. Ameloblastic fibroma
4. Adenomatoid odontogenic tumour [adeno-ameloblastoma]
5. Calcifying odontogenic cyst
6. Dentinoma
7. Ameloblastic fibro-odontoma
8. Odonto-ameloblastoma
9. Complex odontoma
10. Compound odontoma
11. Fibroma [odontogenic fibroma]
12. Myxoma [myxofibroma]
13. Cementomas
a. Benign cementoblastoma [true cementoma]
b. Cementifying fibroma
c. Periapical cemental dysplasia [periapical fibrous dysplasia]
d. Gigantiform cementoma [familial multiple cementomas]
14. Melanotic neuro-ectodermal tumour of infancy [melanotic progonoma, melano-ameloblastoma]

としている。彼らが、現在まで広く用いられている Ame-loblastic odontoma なる名称をあえて捨て、Odonto-ameloblastoma なる名称をとった理由は、明確ではないが、いずれにせよ、正確に組織像に立脚した病理学的診断を意図したものと思われ。わが国でも最近、鈴木ら¹⁸⁾(1973)は、このような考え方にならって、「エナメル上皮線維歯牙腫の1例」を報告している。

われわれは、最初本例をエナメル上皮歯牙腫 Ameloblastic odontoma として学会発表したが、今回、本症例の組織像を仔細に検討するとともに、文献的に本腫瘍の分類について慎重考察した結果、また Pindborg ら¹⁷⁾、鈴木ら¹⁸⁾にならってエナメル上皮線維歯牙腫と改めて報告することにした。

本腫瘍に関するこのような分類法が一般に容認されるか否かは、提唱以来の日が浅く、今後に待たなければならないが、いずれにしても本腫瘍は、比較的稀なものである。一研究者による多数例の集約的研究は不可能に近いことであろう。止むを得ず、文献例による統計的観察を行う際は、まず、組織像の仔細なる検討によって症例を分別することが必要ではなからうか。

第三の問題は、多様な組織像をもつこの腫瘍の成りたちについてである。本腫瘍の組織学的構造から見て、これをエナメル上皮腫から複合性歯牙腫に至る中間型と考

える学者がいるのは当然であろう。そのような考えを支持する根拠として良く引用されるのは、前述の Riddett⁵⁾の報告した1例である。すなわち、1歳10カ月の男児にみられた上唇部の腫瘍は、切除標本についての記載と写真によれば、今で言う Ameloblastic fibro-odontoma に相当する所見を示していた。しかし約10カ月後に再発したため、改めて切除したところ、前回よりも高度な硬組織の形成がみられ、組織像は Complex composite odontoma に変化したという。つまり、この腫瘍の成熟現象が認められたとするものである。

ところで、間質が胎生期の歯原性結合組織に類似し、腫瘍性増殖を示すが、その上皮分化と間葉への誘導力は、歯牙硬組織を形成するほど高度でないものをエナメル上皮腫と考えると、次の分化段階にあるエナメル上皮線維歯牙腫は、発生初期にあつては未だ歯牙硬組織を形成せず、エナメル上皮線維腫と同様の組織像を呈することもあり、それがさらに発達した段階では歯牙硬組織が形成され、最終的には、複合性歯牙腫になると Riddett⁵⁾は考えたわけである。しかし石川ら¹⁵⁾が総ての場合にそのような経過をとるか否かは、疑問の余地があるとしているのは当然であろう。エナメル上皮線維歯牙腫にみられる歯牙硬組織は、症例によって種々の程度の発達段階を示し、その所見は多様であると思われる。われわれの症例でも、歯乳頭様の構造物の周囲にしばしば、象牙質の形成を認めたが、これは、むしろ類骨組織に似ており、一部にかろうじて象牙細管様構造を認めるのみであった。このことは本腫瘍においては、象牙質の正常な形成が損なわれていることを示している。類骨象牙質の場合、正常の象牙質形成の際に見られるような象牙芽細胞が並列して配列する所見は、部分的に僅かに認めるのみで、おそらくこれは象牙芽細胞にあたるものが骨細胞のように、個々に類骨象牙質内に埋没したためであろう。このような形態をとるのは、多くの正常歯牙発生の際に見られるエナメル芽細胞と間葉組織との間の正常な誘導現象が損なわれたためと考えられる。実際われわれの症例でも、多くは類骨象牙質の形成に止まっており、正常の象牙質形成はほとんど見られなかった。

しかし一方、エナメル質の形成はかなり著明であり小柱構造も明らかに認められたが、一部でその配列が乱れているものがあつた。また、形成された歯牙硬組織をみると、正常歯冠では内層に象牙質、外層にエナメル質が形成されるのに対し、本腫瘍における歯牙様構造物では、象牙質の内面にエナメル質が形成されている。これは本腫瘍の場合は、歯胚様組織が正常の場合のように上皮層がつり鐘状になり、内外二層のエナメル上皮に分化することがなく、歯胚が球状となり歯乳頭間葉組織がエナメル髓の内部に入らず、周囲に存在するため、象牙質の内側にエナメル質が形成されたものと解釈される。

このような歯系腫瘍の発生に付随して、すでに指摘さ

れていることであるが、同部の欠損歯について触れる必要があろう。本症例のX線像では $\overline{5}$ が先天的に欠損していたが、これが腫瘍の発生といかなる関係にあるかは、きわめて興味のあることである。寺崎¹⁹⁾(1959)は、エナメル上皮腫について、このような事実言及しているが、その自験例60例については1例も欠損歯を認めたものがなかったという。われわれがエナメル上皮歯牙腫に関して渉猟した文献のなかでは、歯牙の欠損を認めたとの記載は、生田ら²⁾の報告以外には見出せなかった。その点では、 $\overline{5}$ の欠損を認めた本症例はきわめて稀なものであると考えるが、腫瘍発生と欠損歯との因果関係については俄に断言しがたい。生田ら²⁾はその報告例において欠損して認めた $\overline{4}$ がその腫瘍の原因をなしたであろうと強く推測しているが、腫瘍発現部位と欠損歯牙の位置的関係から因果関係は一概に否定されないであろう。今後の課題と考える。

本症例において、一部ではあるがメラニン色素をもった細胞が出現しているのが認められた。1918年 Krompecher によって Kongenitales Melanokarzinom の名で記載され、その後組織発生に対する見解によって Melanotic epithelial odontoma²⁰⁾, Pigmented teratoma²¹⁾, Pigmented epulis²²⁾, Melanotic ameloblastoma²³⁾, Melanotic progonoma²⁴⁾²⁵⁾, Melanotic neuroectodermal tumor²⁶⁾, あるいは黒色エナメル上皮腫^{27)~29)}, などさまざまな名称で呼ばれている一連の腫瘍であるが、現在ではこれらの腫瘍は、歯原性の由来を否定されているものが多い。本症例はその組織学的所見から、歯原性腫瘍であることに疑念をはさむ余地はないと思われ、またいわゆる黒色エナメル上皮腫とはその組織像および患者の年齢、性別ならびに発生部位などの点から、かなり異なるものと考えられる。しかし Lurie³⁰⁾, や Duckworth と Seward ら³¹⁾(1965)の報告した歯の硬組織形成をともなった成人にみられた症例、とくに後者らによって名付けられた Melanotic ameloblastic odontoma と本例との関係については、メラニン細胞の由来とともに今後さらに検討を要する問題があらうと思われる。

本腫瘍が、エナメル上皮腫よりもさらに若年者に生じるのは、きわめて特徴的であり、本症例も7歳の女児であった。腫瘍がかなりの大きさに達するまで発見され難いことは比較的無症状の経過をとるためではあらうが、きわめて遺憾のことである。

本腫瘍の治療法は、いうまでもなく観血的処置によるべきであるが、もし不完全摘出、あるいは単なる搔爬などの姑息的療法では、当然再発のおこる可能性があり、完全摘出の望ましいことはいうまでもなからう。

しかし、本腫瘍患者は若年層に多くみられている。したがって治療は可及的に顎骨の犠牲を最小限に止める努力が要求される。このような考えに基いて従来から本腫瘍の治療には保存的な摘出術が多くとられるようになり、

その予後も一般的に良好とされている。勿論その場合、長期の経過観察が必須とされる。われわれの症例について、腫瘍の摘出により顎骨保存に終始し、他方、成長期における旺盛な造骨能を期待したが術後2年7カ月を経過した現在では幸い、術創部の骨再生は順調に認め経過は全く良好と判断される。なお下顎骨の改造に伴い、顔貌も左右対称的となり満足すべき結果といえる。

結 語

1. 7歳女児、左下顎に発生したエナメル上皮線維歯牙腫 Ameloblastic fibro-odontoma の1例を報告した。
2. 歯系腫瘍の分類の変遷、および発生機転についていささかの考察を加えた。

本症例については、第28回日本口腔科学会総会(昭和49年4月、久留米市)において、その要旨を発表した。また、本症例の病理学的所見については本学口腔病理学教室の山本肇教授ならびに松田耕策学士の御教授を頂いた。厚く感謝する。

文 献

- 1) Frissel, C. T. et al.: Ameloblastic odontoma. OS OM OP 6: 1129 1953.
- 2) 生田信保, 他: 上顎ニ於ケル珐瑯腫ノ一例. 大日本歯医学会誌 57: 108 1930.
- 3) 滝川富雄, 他: エナメル上皮歯牙腫について. 日大歯学 42: 785 1968.
- 4) 斉藤隆吉: 珐瑯質を形成せる珐瑯上皮腫の1例. 口病誌 17: 62 1943.
- 5) Riddett, S. A.: A Composite odontome at a very early age. Brit Dent J 77: 129 1944.
- 6) Thoma, K. H. et al.: Odontogenic tumors. A classification based on observation of the epithelial, mesenchymal, and mixed varieties. Amer J Path 22: 433 1946.
- 7) Kemper, J. W. et al.: Adamanto-Odontoma. Am J Orth and Oral Surg (Oral Surg. Sect) 30: 709 1944.
- 8) Thoma, K. H. et al.: Adamanto-odontoma. Am J Orth and Oral Surg 30: 244 1944.
- 9) Blake, H. et al.: Ameloblastic odontoma. J Oral Surg 9: 240 1951.
- 10) Olech, E. et al.: Ameloblastic odontoma. OS OM OP 23: 487 1967.
- 11) Dutta, A.: Ameloblastic odontoma. Oral Surg 29: 829 1970.
- 12) 小林八州男, 他: 歯牙硬組織の形成を認めた軟性歯牙腫の1例. 口病誌 26: 2122 1959.
- 13) 宮崎吉夫, 他: 珐瑯上皮腫ノ組織由来ニ就テ 口病誌 13: 1 1939.
- 14) 長尾喜景, 他: Ameloblasto-odontoma の1例. 歯科学報 59: 1150 1959.
- 15) 石川梧朗, 他: 口腔病理学Ⅱ. 永末書店, 京都, 1971, 950 頁.

- 16) Silva, C. A.: Odontoameloblastoma. OS OM OP 9: 545 1956.
- 17) Pindborg, J. J., et al.: Histological typing of odontogenic tumours, jaw cysts, and allied lesions. W. H. O., Geneva, 1971, p. 18.
- 18) 鈴木鐘美, 他: 興味ある組織像を示した歯原腫瘍の1例について. 口科誌 22: 509 1973.
- 19) 寺崎太郎: エナメル上皮腫に関する臨床病理学的研究. 阪大歯誌 4: 1277 1959.
- 20) Mummery, J. et al.: Amelanotic epithelial odontoma in a child. Brit Dent J 47: 121 1926.
- 21) Soderberg, N. B. et al.: Two unusual melanomas of the alveolus and maxilla. Am J Orthodontics 27: 270 1941.
- 22) MacDonald, A. M., et al.: Pigmented congenital epulides of neuro-epithelial origin. Brit J Surg 41: 610 1954.
- 23) Aisenberg, M. S.: Histopathology of ameloblastomas. OS OM OP 6: 1111 1953.
- 24) Stowens, D.: A pigmented tumor of infancy (The melanotic prognoma). J Path Bact 73: 43 1957.
- 25) 上野正康, 他: いわゆる Melanotic prognoma の1例. 口科誌 24: 75 1975.
- 26) Borello, E. D. et al.: Melanotic neuroectodermal tumor of infancy: a neoplasma of neural crest origin. Cancer 19: 196 1966.
- 27) 高木 実, 他: いわゆる黒色エナメル上皮腫の病理組織学的観察. 日病誌 56: 183 1967.
- 28) Ishikawa, G., et al.: Histopathology of melanotic tumor of the jaw of the infant. J Dent Res 46: 1259 1967.
- 29) 名倉英明, 他: いわゆる黒色エナメル上皮腫の1例. 口科誌 18: 134 1967.
- 30) Lurie, H. I.: Congenital melanocarcinoma, melanotic adamantinoma, retinal anlage tumor, prognoma, and pigmented epulis of infancy; summary and review of the first case in an adult. Cancer 14: 1090 1961.
- 31) Duckworth, R. et al.: A melanotic ameloblastic odontoma. OS OM OP 19: 73 1965.