先天性エプーリスの1例

野代 忠宏・入学 陽一・山田 長敬・高江洲 旭
加藤 守夫・稲沢 陽一

Congenital epulis: Report of a case

Tadahiro NODAI・Yoichi NYUGAKU・Nagayoshi YAMADA
Akira TAKAESU・Morio KATO・Yoichi INAZAWA

緒 言

先天性エプーリスは、新生児の歯肉に先天的にみられる良性腫瘍で1871年 Neuman¹⁾によって初めて記載されて以来、欧米では比較的多く報告されているが、本邦ではわたくしたちの渉猟した限りでは31例の報告をみるのみである。

わたくしたちは、今回比較的多い本症を経験したのでその概要について報告する。

症 例

患 者：■■■■ 3か月 女児。

初 診：昭和52年10月■■■■

主 訴：左側上顎前歯部歯肉の腫瘍。

家族歴：特記すべきことなし。

現病歴：妊娠中特記すべきことなく経過し、生下時より同部の腫瘍に気付くも放置していたが、拇指頭大に増大し授乳障害をきたしたため来院した。

現 症

全身所見：栄養状態、発育ともに良好で全身ならびに顔面に奇形その他の異常は認められなかった。

局所所見：左側上顎前歯部歯槽突起部にはほぼ円形で拇指頭大、有茎性の弾性硬の腫瘍を認め、色は正常粘膜色で表面は凹凸不整で滑沢であった(写真1, 2)。

X線所見：両側上顎乳中切歯および側切歯歯胚の形成状態は正常で同部の歯槽骨の吸収もみられなかった(写真3)。

臨床検査所見：血液、尿一般検査において異常は認められず、心電図、胸部X線写真などにも異常所見は認められなかった。

九州歯科大学第1口腔外科学教室

(主任：山田長敬教授)

Kyushu Dental College First Department of Oral Surgery (Chief: Prof. Nagayoshi Yamada)

受付日：昭和58年1月25日

写真1 顔 貌

写真2 口腔内所見

処置ならびに経過：昭和52年10月■■■■ 全身麻酔下にて腫瘍摘出術を施行した。摘出物の剖面は乳白色を呈し均一充実性で分葉状を呈していた。

病理組織学的所見：腫瘍は重層扁平上皮で覆われ上皮層は薄く扁平な部分と不規則に突出した部分がみられ、一部では、上皮下の腫瘍組織内に深く侵入増殖していた(写真4)。その先端部では細い上皮索を形成している(写真5)。

腫瘍組織は全体にわたって線維性結合組織よりなり線維はほぼ一定の配列をなし増殖している(写真6)。表層は毛細血管が多数認められるが中心部では少ない。線維

写真3 上顎咬合フィルム

写真4 ヘマトキシリン・エオジン染色

組織内には小さな塊状の上皮組織の封入が数個認められる(写真7)。アザン・マロリー染色では腫瘍細胞内に青く染まりはば一定の配列をなして走行する膠原線維がみられる(写真8)。以上の所見により線維様構造を示す先天性エプーリスと診断した。

写真5 ヘマトキシリン・エオジン染色

写真6 ヘマトキシリン・エオジン染色

写真7 ヘマトキシリン・エオジン染色

考 察

先天性エプーリスは新生児にみられる疾患で1871年 Neuman¹⁾ によって初めて報告された。

本邦においてはわたくたちの渉猟した限りでは、31例のみであり比較的まれなものである(表1)。

発現頻度について Fuhr²⁾ は100年間における文献報告された113例について検索し女児91例、男児12例、

表 1

No.	報告年	報告者	性別	年 齢	部 位	大 き さ, 形	病 理 組 織	そ の 他	再 発
1	1935	加 藤	♂	1 か月	上顎側切歯から第1乳臼歯	梅指頭大	不 明		1 か月なし
2	1955	田 松	♂	7 か月	上顎左乳中切歯部	大豆大, 橢円形	線維腫様組織		
3	1956	小 早	♂	3 時間	下顎前歯部	小指頭大, 橢円形, 広い基部	顆粒細胞		
4	1961	高 橋	♂	2 か月半	上顎中切歯部口蓋側	大豆大, 卵円形, 広い基部	平滑筋組織, 線維性結合組織	2 個同部に存在	
5	1963	木 村	♂	生下時	A 歯槽堤頂	大豆大, 卵円形, 広い基部	顆粒細胞筋芽腫		
6	1963	岡 村	♂	4 か月	不 明	不 明	線維性エプーリス		
7	1967	中 村	♂	4 歳	切歯乳頭部	出生時小豆大, polyp 状	Epulis fibromatosa		5 か月なし
8	1967	山 下	♀	1 歳 8 か月	E 部	出生時小豆大	膠原化を伴う線維腫		
9	1968	清水	♀	2 か月	下顎左側前歯部歯槽頂唇側	大豆大, 卵円形, 広い基部	顆粒細胞		5 か月なし
10	1968	反 町	♂	6 か月	下顎切歯部	小指頭大, 卵円形	中心部骨組織, 線維化		
11	1968	反 町	♀	4 か月	D/D	小指頭大, 球形	線維腫様		
12	1968	反 町	♀	1 か月	D/D	大豆大, 球形	不 明	左右対称 左右対称	
13	1970	坂 本	♀	2 日目	下顎左側中側切歯	大豆大ないし小指頭大, 広い基部	Granular cell, 一部筋肉様組織		
14	1970	枝 村	♀	出生直後	上顎左側乳犬歯部	直径 1 cm	顆粒細胞筋芽腫に類似	[A] 先天性歯萌出	7 か月なし
15	1971	河 村	♂	4 か月	上顎右側切歯	大豆大, 広い基部	線維性組織 (膠原組織)	[A B ext.]	4 か月なし
16	1971	嶋 崎	♂	7 か月	[A B]	16×11×7 mm	線維性エプーリス		
17	1971	増 田	♀	3 日目	上顎右乳臼歯部	小指頭大, 卵円形, 広い基部	顆粒細胞性筋芽腫		
18	1973	武 田	♀	新生時	上顎切歯部	2.2×1.8 cm, 細い基部	顆粒細胞性筋芽腫	細糸にて結紮 (生後 3 日目)	
19	1974	大 藤	♀	2 日目	上顎左前歯部	桜桃大, 1.3×1.6 cm 球状, 橢円形	顆粒細胞性筋芽腫	生後16日で自然脱落	6 か月なし
20	1976	伊 藤	♀	7 日目	下顎前歯部	1.5×1.2×1.0 cm	Granular cell tumor		
21	1976	瓜 瀬	♀	6 日	右上顎 (中間顎右)	3 mm	線維性組織	両側性唇顎裂を伴う	
22	1976	竹 中	♀	37 日	下顎前歯部	6×6×3 mm	Congenital fibromatosis		
23	1976	藤 林	♂	2 か月	上顎左第1乳臼歯	大豆大	顆粒細胞性筋芽細胞腫		3 か月なし
24	1976	門 日	♀	7 日	右下顎前歯部	直径 10 mm	線維性エプーリス		4 か月なし
25	1977	坂 井	♀	新生時	右下顎犬歯部	12×12×10 mm, 卵円形	顆粒細胞		
26	1978	石 田	♀	2 か月	上顎左側乳臼歯	大豆大, 球形, 5×5×3 mm	顆粒細胞性筋芽細胞腫に類似		
27	1979	山 田	♀	23 日	上顎左乳前歯	小指頭大, 1.2×0.7×0.7 cm 卵円形, 広い基部	顆粒細胞性筋芽細胞腫		
28	1979	本報告例	♀	3 か月	上顎左前歯部	梅指頭大, 卵円形	線維性エプーリス		
29	1980	永 瀬	♂	41 日	上顎左側乳臼歯部	3×2×1 cm, 卵円形	顆粒細胞性筋芽細胞腫		
30	1980	道 覚	♀	11 か月	A/A 部	米粒大 (5×5×7 mm)	平滑筋腫過激腫		
31	1980	福 武	♂	1 歳 2 か月	左下顎乳臼歯部	10×10 mm	顆粒細胞	粘液癌腫と Epulis の 嚢在	

表 2 性 別

男 性	女 性	不 明	計
12	19	0	31例

表 3 発生部位別

上 顎			下 顎		不 明	計
前歯部	前歯部から臼歯部	臼歯部	前歯部	臼歯部		
12	1	5	9	3	1	
18			12		1	31例

不明10例で女児は男児に比して約8倍であるとしている。発現部位では上顎80例、下顎35例、不明13例で上顎が下顎の約3倍であると報告し、上、下顎とも前歯部発現が圧倒的に多いと記載している。

本邦においては女児19例、男児12例で、女児の方がやや多いようである(表2)。発現部位は上顎18例、下顎12例、不明1例であり、上、下顎とも前歯部発現が多かった(表3)。

本腫瘍の大きさ、形は、種々で卵円形、球形、楕円形が多く基部は比較的広いとの報告が多かった。治療法については切除除根がほとんどであるが、基部を結紮し脱落させたものや、自然脱落なども報告されている。再発について枝ら³⁾の観察7か月が最長であるが各報告者とも予後は良好で再発は認められなかったと言及している。

病理組織学的には石川ら⁴⁾によると先天性エプーリスは顆粒細胞筋芽腫に類似した像を示すものが多く、原形質内に顆粒を有する細胞からなることが特徴で、これに上皮細胞の集団が混じって認められることがあるとしている。本邦では、顆粒細胞筋芽腫と同様の組織像を示すものは15例⁵⁻¹⁸⁾報告されている。その他に顆粒細胞を認めず線維性組織の像を示すもの12例¹⁹⁻²⁸⁾、平滑筋組織を認めたもの2例^{29,30)}、不明2例^{23,31)}の報告がみられた(表4)。このように必ずしも一定の組織像を呈さないようである。本治療例は顆粒細胞は認められず腫瘍組織は膠原線維と思われる線維性組織で構成されていた。

臨床的呼び方としての先天性エプーリスは組織学的に異なるものが同一名であることは興味あることである。そのため、病因についても種々の説がみられる。大別すると歯胚原説(歯乳頭説、象牙芽細胞説、残存上皮説、エナメル器説)と非歯胚原説(外被細胞説、歯肉粘膜の基底細胞説、血管原説、筋原説、神経原説)に二分される。これについて増田⁹⁾、大藤ら¹¹⁾、松田ら¹⁹⁾、高橋ら²⁹⁾の詳細な報告がみられる。

Lauche³²⁾、Sterberg³³⁾は初めて先天性エプーリスと顆粒細胞性筋芽腫との類似性を唱え、ついで Abrikossof³⁴⁾

表 4 病理組織による分類

顆粒細胞を有する	顆粒細胞を有さない		不 明	計
	線維性組織	平滑筋組織		
15	12	2	2	31例

写真 8 アザン・マロリー染色

は両者が同一のものであると報告した。しかし Custer³⁵⁾、Blair³⁶⁾ は、先天性エプーリスと顆粒細胞筋芽腫の相違を指摘した。このように相反する意見があるようである。

顆粒細胞の由来については、筋原説、神経原説、線維芽細胞由来説、歯胚原説、組織球由来説など種々の意見があるがいまだ不明の点が多い。

腫瘍細胞内への上皮細胞の封入について腫瘍の構成要素であるとする者と偶発的に迷入したものとの説がある。Custer³⁵⁾ は47例中、17例の腫瘍細胞内の上皮細胞を認めたと報告しており本邦においては、上皮細胞の封入が観察されたとの報告は、枝ら³⁾、坂本ら⁹⁾、増田ら⁹⁾、永瀬ら¹⁰⁾、福武ら¹⁷⁾、松田ら¹⁹⁾、覚道ら³⁰⁾と自験例の8例である。松田ら¹⁹⁾は上皮細胞はエナメル器に類似した構造を示した。Malassez 残存上皮に類似の索状上皮集団を形成しており上皮巢の基底細胞は円柱状を呈し歯系を思わせたと報告しており、枝ら³⁾は上皮巢の基底細胞は円柱状を示し歯系を思わせたと述べている。自験例は腫瘍組織内に侵入した上皮索を認めその基底細胞は円柱状を示しており歯原性を思わせ、枝ら³⁾、松田ら¹⁹⁾の症例に類似していた。

なお、わたくしたちの症例はX線学的、手術時所見にて腫瘍は乳歯歯胚と関係はみられなかった。

先天性エプーリスは、その発生頻度が低くそのため、腫瘍検索の各種の準備が不十分で、わたくしたちの症例について酵素化学、電顕学的検索が行い得なかったのが本症についての性状など多くの知見は得られなかった。

結 論

わたくしたちは、3か月女児の左側上顎前歯部歯肉に発生した先天性エプーリスで病理組織学的に顆粒細胞は認められず線維腫の像を示し腫瘍組織内に上皮細胞を認めた1例について報告した。

本論文の要旨は第35回日本口腔外科学会九州地方部会で発表した。

引用文献

- 1) Neuman, E.: Ein Fall von congenitaler Epulis. Arch Heilk 12: 180 1871. 16) より引用.
- 2) Fuhr, A.H., et al.: Congenital epulis of the newborn: Centennial review of the literature and a report of case. J Oral Surg 30: 30 1972.
- 3) 枝 重夫, 他: 先天性エプーリスの1症例. 病理組織学および電子顕微鏡的研究. 歯科学報 70: 1469 1970.
- 4) 石川悟朗, 秋吉正豊編: 口腔病理学Ⅱ. 永末書店, 京都, 1969, 749頁.
- 5) 小早川康造, 他: 先天性エプーリスの1例について. 日口外誌 5: 331 1956.
- 6) 木村一雄, 他: 先天性エプーリスの1例. 口外誌 9: 308 1963.
- 7) 清水正嗣, 他: 先天性エプーリスの1例. 口病誌 35: 682 1968.
- 8) 坂本忠幸, 他: 新生児下顎前歯部に見られた先天性エプーリスについて. 日口外誌 16: 243 1970.
- 9) 増田正樹, 他: 先天性エプーリスの1例. 日口外誌 17: 54 1971.
- 10) 武田英雄, 他: 先天性エプーリスの1例. 産婦人科の世界 25: 53 1973.
- 11) 大藤敏美, 他: 先天性エプーリスの1例. 日口外誌 20: 116 1974.
- 12) 伊藤清子, 他: 新生児の歯肉に見られた顆粒細胞腫の1例. 日口外誌 22: 64 1976.
- 13) 日坂照幸, 他: 先天性エプーリスの一症例. 口科誌 29: 119 1980.
- 14) 石井博正, 他: 先天性エプーリスの1例. 日口外誌 24: 152 1978.
- 15) 山田隆一, 他: 先天性エプーリスの1例. 日口外誌 25: 212 1979.
- 16) 永瀬 守, 他: 巨大な先天性エプーリスの1例. 口科誌 29: 148 1980.
- 17) 福武公雄, 他: 先天性エプーリスの一症例. 歯科学報 80: 173 1980.
- 18) 藤林孝司, 他: 先天性エプーリスの1例. 日口外誌 22: 144 1976.
- 19) 松田繁一郎, 他: 先天性エプーリスの1例について. 日病誌 22: 193 1955.
- 20) 岡 光夫, 他: エプーリス45例について. 口科誌 9: 125 1963.
- 21) 中村保夫, 他: 切歯乳頭部に発生した先天性 Epulis を疑わしめる歯肉 polyp の一例. 日口外誌 13: 113 1967.
- 22) 山下真彦, 他: いわゆる先天性エプーリスの1例. 形成外科 10: 142 1967.
- 23) 反町 實: 乳幼児の口腔疾患. そのⅡ 先天性エプーリスについて. 北関東医学 18: 388 1968.
- 24) 河村正昭, 他: 先天性エプーリスの1例. 口科誌 20: 896 1971.
- 25) 西嶋克己, 他: 先天性エプーリスの1例. 小児歯科学会雑誌 9: 5 1971.
- 26) 広瀬 晃, 他: 先天性エプーリスの1例. 日口外誌 22: 964 1976.
- 27) 門 有二, 他: 先天性エプーリスの1例. 歯科学報 61: 557 1976.
- 28) 竹中將純, 他: 先天性エプーリスの1例. 日口外誌 22: 212 1976.
- 29) 高橋庄二郎, 他: 先天性エプーリスの1例. 歯科学報 61: 557 1961.
- 30) 覚道健治, 他: Congenital epulis の1例. 口科誌 29: 611 1980.
- 31) 加藤清治: 先天性に発生せる歯齦腫の1例. 日本之歯界 186: 503 1935.
- 32) Lauche, A.: in discussion of F. Klinge: Über die sogenannten unreifen, nicht quergestreiften Myoblastenmyome. Verhandl d deutsch path. Gesellsch 23: 276 1928. 19) より引用.
- 33) Steruberg, C.: in discussion of F. Klinge: Über die sogenannten unreifen, nicht quergestreiften Myoblastenmyoma. Verhandle d deutsch path Gesellsch 23: 138 1928. 19) より引用.
- 34) Abrikossof, A.J.: Weitere Untersuchungen über Myoblastome. Virchows Arch path Anat 280: 723 1931. 19) より引用.
- 35) Custer, R.P., et al.: Congenital epulis. Amer J Clin Path 11: 1044 1952. 19) より引用.
- 36) Blair, A.E., et al.: Congenital epulis of the newborn. Oral Surg 43: 687 1977.