幼児の上顎正中部歯肉に発現した leiomyomatous hamartoma の1例

梶山 稔・飯野悦朗・黒川英雄

福山 宏*・上野正康*

Leiomyomatous hamartoma in the region of upper medial alveolar gingiva: Report of a case

Minoru KAJIYAMA・Etsuro IINO・Hideo KUROKAWA

Hiroshi FUKUYAMA*・Masayasu UENO*

緒 言

1904年, Albrecht¹⁾ は一種の組織奇形に基づく腫瘍様の小結節を hamartoma・過誤腫と命名, さらにある組織からその連絡を失い, 他組織内で形成される腫瘍様の組織奇形に対しては choristoma・分離腫として区別した。しかしながら, 現在では両者を区別せず一括して広義に過誤腫と呼ばれているようである²⁻⁶⁾。

過誤腫は, 肝, 脾, 腎および肺などの実質臓器にはしばしばみられるが⁷⁻¹⁰⁾, 口腔領域における発現はきわめてまれとされ, われわれの渉猟し得た範囲では, 現在まで数例の報告をみるにすぎない¹¹⁻²⁸⁾。

最近, われわれは4歳5か月の女児で, 上顎正中部歯肉に発現した, きわめてまれな1例を経験したので報告する。

症 例

患 者: 4歳5か月 女児。

初 診: 昭和57年10月。

主 訴: 上顎正中部歯肉の腫瘍。

家族歴: 特記事項なし。

既往歴: 母親が妊娠8か月頃, 全身を強打し, 流産防止の処置を受けたが, 正常分娩であった。また, 出生時

の体重は2,950gで, 他に特記すべき事項は認められなかった。

現病歴: 生後5か月頃, 母親が上顎正中部の歯肉に腫瘍を気付いた。なお, 6か月定期検診で, 同腫瘍の切除を勧められたが放置していた。その後, 某歯科医院にて, 腫瘍による将来の咬合異常を懸念され, 紹介により当科を受診した。なお, 腫瘍は全身の発育に伴いわずかに増大傾向を示したものの, 大豆大の大きさで発育をどめているとのことである。

現 症

全身所見: 栄養, 発育状態ともに良好で, 全身的にもとくに異常は認められなかった。

口腔外所見: 顔貌は左右対称で, 所属リンパ節の腫脹もなく, とくに異常を思わせる所見は認められなかった。

口腔内所見: 左右上顎乳中切歯間に大豆大, 有茎性で可動性を有する無痛性の腫瘍が認められた。腫瘍の硬さは弾性軟で, 表面は平滑, 色調は健康な歯肉粘膜色を呈し, 左右上顎乳中切歯間は約3mm 離開していた。また, 腫瘍の基底部分は上顎正中歯槽頂部より切歯窩相当部にまで及んでいた(写真1)。

X線所見: デンタルフルマウス撮影法, 上顎咬合撮影法および後前撮影法, 側方撮影法によるX線検査を行っ

写真1 術前口腔内

九州歯科大学口腔外科学第2講座

(主任: 梶山 稔教授)

* 九州歯科大学口腔病理学講座

(主任: 上野正康教授)

The Second Department of Oral Surgery, Kyushu College of Dentistry (Chief: Prof. Minoru Kajiyama)

* Department of Oral Pathology, Kyushu College of Dentistry (Chief: Prof. Masayasu Ueno)

受付日: 昭和58年3月5日

写真 2 術前のX線像（上顎咬合撮影法）
↑印は歯槽突起の癒合不全を思わせる楔状の欠損を示す。

写真 4 H-E 染色（弱拡大）

写真 3 a : 切除・摘出物 b : 剖面

た。上顎左右乳中切歯は軽度離開し、同部の歯槽突起には癒合不全を思わせる楔状のX線透過像が認められた。しかしながら、正中口蓋縫合部や、頭蓋骨の骨縫合部に癒合不全などを思わせる所見は認められなかった（写真2）。

臨床検査所見：血液一般ならびに生化学的検査，尿検査，心電図所見などで，測定値や所見に異常は認められなかった。

臨床診断：先天性線維腫あるいは先天性エプーリスの疑い。

処置ならびに経過：昭和57年11月，G.O.F 全身麻酔下にて，腫瘍を含めた周囲健康組織に切開を加え，骨膜とともに鈍的に剝離し，切除・摘出した。なお，露出した骨面には異常所見を認めなかった。

写真 5 H-E 染色（強拡大）

術後の経過は良好で，経過観察中であるが，約5か月後の現在，再発の傾向を全く認めていない。

摘出物所見：腫瘍は約15×6×7mmの長楕円球形で，表面は滑沢，健康な歯肉粘膜で被われていた。また，剖面は類円形，充実性で，基底部は暗赤褐色を呈していたが，ほかは淡紅灰白色であった（写真3a, b）。

病理組織学的所見：摘出腫瘍をパラフィン連続切片とし，H-E 染色，Van Gieson 染色，PTAH 染色などを

表 1-1 本邦における leiomyomatous hamartoma 報告例の臨床所見について
(1960～1983年 2 月, 7 例)

番号	報告者	報告年	年 齢	性	発 現 部 位	初めて気付いた時期	大きさ (mm)
1	高橋ら	1962	2 か月半	女	上顎正中歯肉	生後20日	大豆大 (4 × 5 × 7)
2	野村ら	1967	2 歳 7 か月	女	舌背から舌縁	生下時	拇指頭大 (25 × 18 × 10)
3*	山下ら	1973	5 歳	女	舌背に 2 個	生後40日	大豆大, 小指頭大
4	翁ら	1975	19歳	女	舌背部	乳幼児期	拇指頭大
5*	代田ら	1976	7 歳 1 か月	男	舌背と舌縁(2 個)	生後15日目	(10 × 10, 20 × 15)
6	虫本ら	1982	11か月	女	上顎正中歯肉	生下時	米粒大 (5 × 5 × 7)
7	自験例	1983	4 歳 5 か月	女	上顎正中歯肉	生後 5 か月頃	大豆大 (15 × 6 × 7)

* 印は多発例を示す

表 1-2 本邦における leiomyomatous hamartoma 報告例の臨床所見について
(1960～1983年 2 月, 7 例)

番 号	X線検査所見	病 理 診 断	治 療 法	予 後
● 1	上顎正中歯槽突起の癒合不全ないし破裂	leiomyomatous hamartoma	摘 出	良好 (4 か月)
2		leiomyomatous hamartoma	摘 出	?
3*		leiomyomatous hamartoma	摘 出	良 好
4		leiomyomatous hamartoma	切 除	?
5*		leiomyomatous hamartoma	摘 出	良好 (3 か月)
● 6	異常なし	leiomyomatous hamartoma	切 除	良 好
● 7	上顎正中歯槽突起の癒合不全の疑い	leiomyomatous hamartoma	切除・摘出	良好 (5 か月)

● 印は歯肉例 * 印は多発例を示す

施して鏡検した。

腫瘍の表面は重層扁平上皮によって被われ、その下方では膠原性基質のなかに平滑筋組織が束状をなし、不規則に配列していた。なお、この平滑筋組織には活発な増殖を示すような所見はほとんど観察されなかった。また、Van Gieson 染色では黄色に染まった筋組織と、赤色に染まった膠原線維とが認められた。一方 PTAH 染色では Van Gieson 染色で黄色に染まった筋組織が青紫色ないし赤紫色に染色され、膠原線維は赤褐色に染色されていた。なお、筋組織には横紋構造が認められなかったことから、平滑筋と考えられた(写真4, 5)。

病理組織学的診断 : leiomyomatous hamartoma.

考 察

hamartoma・過誤腫は、1904年、Albrecht¹⁾ によってはじめて提唱されたものである。すなわち、正常な組織構成要素が先天的に異常をきたし、局所で種々の大きさおよび分化の程度により、腫瘍様で過剰に存在している状態を「誤った組織の混合」という意味で hamartoma

と命名した。同時に、ある組織が正常の連絡を失って分離し、ほかの組織内に入り込むことによって形成される組織奇形を choristoma・分離腫と呼び、両者を区別したが、現在ではこの両者を一括して広義に hamartoma として取り扱われているようである²⁻⁶⁾。

いずれにせよ hamartoma は一般に組織構成要素の混合異常により、小結節状を呈した腫瘍様の奇形であることに異論はない。hamartoma は肝、脾などの実質臓器には発現頻度が比較的高いが⁷⁻¹⁰⁾、口腔領域ではきわめてまれとされている。口腔領域からはこれまでに舌や歯肉、下顎骨などで数例の報告をみるにすぎない¹¹⁻²⁶⁾。一方、Baden ら (1968, 1973, 1977)²⁷⁻²⁹⁾ は歯堤の発育異常と真の腫瘍との移行型、すなわち腫瘍と hamartoma との境界病変と考えられる odontogenic gingival epithelial hamartoma という新しい概念を提唱している。このようにその概念は必ずしも明確化されていないのが現状である³⁰⁾。とくに leiomyomatous hamartoma はきわめてまれとされている^{12, 16, 20-22, 26)}。また、hamartoma は腫瘍を構成している粘液腺、皮脂腺、平滑筋、脂肪組織、膠原線維などの多寡によって組織学的な診断が付けられてい

る^{20,26)}。すなわち、hamartoma adenofibroma³¹⁾, myo-epithelial hamartoma³²⁾, fibromuscular hamartoma¹³⁾, lipomatous hamartoma¹⁵⁾, ectodermal hamartoma¹⁸⁾, cartilaginous hamartoma²³⁾ などの名称で報告されている。

著者らは1960年1月～1983年2月までの過去23年間で、本邦において口腔領域から報告された leiomyomatous hamartoma は自験例を含め7例を集計することができた^{12,16,20～22,26)} (表1-1, 2)。その結果、発現部位については舌に4例 (57.1%)、歯肉に3例 (42.9%) であった。舌では舌背あるいは舌縁に発現していたが、うち2例 (28.6%)^{20,22)} は多発例であった。なお、歯肉に発現した症例ではいずれもが上顎正中部歯肉であったことに注目された。次に年齢および性別についてみると、舌における19歳の女性例を除き、いずれもが生後5か月以内に気付かれたもので、7例中6例 (85.7%) が5歳未満の乳幼児期における報告例であった。また、性別では7例中6例 (85.7%) とほとんどが女性で、女性に多発していた。自験例も諸家の報告例と同様に4歳5か月の女児で、上顎正中部歯肉に発現したものであった。

なお、本疾患が生下時あるいは乳幼児期の比較的早期に発見される腫瘍様小結節で、急激な増大傾向を示すこともなく、発育はきわめて緩慢で、そのまま停止することが多いとされている⁴⁾。自験例でも、生後5か月頃に母親が腫瘍の存在を気づき、以後約4年間放置していたにもかかわらず、身体の成長に伴いわずかながらその大きさを増大したにすぎなかった。

次に歯肉に発現した hamartoma と臨床的に類似する先天性エプーリスとの鑑別が必要となってくる。いわゆる先天性エプーリスは顆粒細胞性筋芽細胞腫と類似の所見を呈するのが一般的とされている^{33～35)}。なお、hamartoma として取り扱われるか否かは、それを構成する顆粒細胞の発生由来を明らかにする必要がある³⁵⁾。先天性エプーリスの組織発生由来について幾多の説が報告されているが、おおむね歯胚原説と非歯胚原説に大別されている¹²⁾。このうち過誤腫との関係についてはこれまでに Custer ら (1952)³⁶⁾、松田ら (1955)³⁷⁾ による歯胚の過誤腫説、あるいは非歯胚原性で、平滑筋組織からなる筋原性過誤腫を高橋ら (1962)¹²⁾ が先天性エプーリスとして報告しているにすぎない。

本疾患とX線所見との関係について高橋ら (1962)¹²⁾ は上顎正中部歯肉での発現例で、上顎正中歯槽突起の癒合不全ないし破裂が認められたと報告しており、その原因として、腫瘍の形成部位が上顎正中歯槽頂部であったことや、上唇小帯附着部の異常などを推測している。自験例でも、上顎正中歯槽突起に癒合不全を思わせる楔状のX線透過像がみられたが、その原因について明らかにすることはできなかった。

次に hamartoma を構成する組織成分のなかで、比較

的多い組織に従って病理組織学的に診断が行われていることは上述したとおりである。自験例での病理組織学的所見は、膠原性基質のなかに平滑筋組織が束状をなし不規則に配列していたが、活発な増殖を示すような所見がみられなかったこと、さらには筋組織に横紋構造が観察されなかったことなどから leiomyomatous hamartoma と診断された。なお、平滑筋組織が血管壁に由来しているか否かは、明らかにすることはできなかった。

また、本疾患の悪性化についてはこれまでに、Mayer ら (1962)³⁸⁾ による hamartoma から悪性腫瘍への移行型が報告されているにすぎない。しかしながら hamartoma が自律的に増殖する真の腫瘍ではないことから^{4,39)}、悪性化には別の因子が関与しているものと考えられているようである^{3,4)}。

自験例は術後5か月を経過しているが、再発や悪性化などの傾向は認められず、今後の観察が必要である。

結 語

今回、われわれは4歳5か月、女児の上顎正中部歯肉に発現した leiomyomatous hamartoma の1例を経験し、病理組織学的ならびに文献的考察を加え、報告した。

なお、本論文の要旨は第42回日本口腔外科学会九州地方部会 (昭和58年2月、北九州市) において発表した。

引 用 文 献

- 1) Albrecht, H.: Uber Hamartome. Dtsch Pathol Ges 7: 153 1904.
- 2) 緒方知三郎, 他: 病理学総論. 中巻, 南山堂, 東京, 1931, 171頁.
- 3) Willis, R.A.: Pathology of Tumor. ed 3, Butterworth, London, 1960, p 7.
- 4) 菅野春夫, 他: 腫瘍病理学. 第6刷, 朝倉書店, 東京, 1970, 27頁.
- 5) Anderson, W.A.D., et al.: Pathology. ed 7, Mosby Co, St Louis, 1977, p 640.
- 6) 武田勝男: 新病理学総論. 第13版, 南山堂, 東京, 1981, 419頁.
- 7) Bogdan, R., et al.: Leiomyomatous hamartoma of the kidney. A clinical and pathologic analysis of 20 cases from the Kidney tumor registry. Cancer 31: 462 1733.
- 8) 久野修資, 他: 脾ハマルトーマの1治験例. 外科診療 15: 154 1973.
- 9) 大石弘人, 他: 血管異常 (肺動脈瘤, 門脈一門脈間吻合, 肝動脈一門脈間吻合) および肝 hamartoma を合併した原発性肺高血圧症の1剖検例. 内科 36: 876 1975.
- 10) Shirakusa, T., et al.: A resected case of

- pulmonary multiple fibro-leiomyomatous hamartoma,—light and electron microscopic study—. *Jpn J Surg* 9: 141 1979.
- 11) 宮田壽一：まれなるハマルトームの一症例。米子医誌 3: 54 1951.
 - 12) 高橋庄二郎，他：先天性エプリースの1例。歯科学報 62: 55 1962.
 - 13) Bolognesi, C., et al.: Su di un caso di hamartoma fibro-muscolare della lingua. *Minerava Otolinolaring* 12: 166 1962.
 - 14) Hinshaw, C.T.: Unusual lesion of the tongue, Hamartoma. *J Kans Med Soc* 64: 154 1963.
 - 15) 飯田信長，他：舌 hamartoma の1例。日大医誌 24: 1086 1965.
 - 16) 野村 和，他：珍らしい舌平滑筋腫の一症例。耳鼻 13: 105 1967.
 - 17) Duncan, H.: Tumor of the tongue. *J Tenn Med Assoc* 61: 48 1968.
 - 18) Ishii, T., et al.: Hamartoma of the tongue. *Arch Otolaryngol* 88: 171 1968.
 - 19) Stuteville, O.H., et al.: Hamartoma of mandible: report of case. *J Oral Surg* 28: 295 1970.
 - 20) 山下佐英，他：舌に発生した Hamartoma の1例。日口外誌 19: 69 1973.
 - 21) 翁 玉香，他：舌に発生した間葉性過誤腫の走査並びに透過電子顕微鏡的観察。日口外誌 23: 757 1975.
 - 22) 代田正道，他：舌に発生した平滑筋腫の1例。耳鼻 22: 410 1976.
 - 23) 戸塚盛雄，他：舌に生じた cartilaginous hamartoma の1例。日口外誌 23: 418 1977.
 - 24) 山下一郎，他：口唇部に発生した Lipomatous hamartoma の1例。口科誌 29: 616 1980.
 - 25) 原 徹，他：舌に胃粘膜様組織がみられた過誤腫の1例。日口外誌 27: 258 1981.
 - 26) 虫本浩三，他：歯肉にみられた leiomyomatous hamartoma の1例。日口外誌 28: 493 1982.
 - 27) Baden, E., et al.: Odontogenic gingival epithelial hamartoma. *J Oral Surg* 26: 702 1968.
 - 28) Baden, E., et al.: Odontogenic gingival epithelial hamartoma. *J Oral Surg* 31: 932 1973.
 - 29) Baden, E., et al.: L'Hamartome gingival epithelial odontogénique étude d'un nouveau cas et essai de classification. *Bull Group Int Rech Sci Stomatol Odontol* 20: 17 1977.
 - 30) 浅田洗一，他：第1大臼歯の萌出遅延をきたした歯堤過誤腫の1例 —Odontogenic gingival epithelial hamartoma に関連して— 日口外誌 27: 1178 1981.
 - 31) Stamm, C., et al.: Hamartoma of the tongue. *Laryngoscope* 55: 140 1945.
 - 32) Perri, F.A.: Myoepithelial hamartoma of the tongue. *Arch Otolaryngol* 64: 289 1956.
 - 33) Abrikossoff, A.I.: Weiter untersuchungen über Myoblastenmyoma. *Virchows Arch (Pathol Anat)* 208: 723 1931.
 - 34) Neumann, E.: Ein Fall von congenitaler Epulis. *Arch Heilk* 12: 189 1871.
 - 35) 日坂照幸，他：先天性エプリースの1例。口科誌 29: 119 1980.
 - 36) Custer, R.P., et al.: Congenital epulis. *Am J Clin Pathol* 22: 1044 1952.
 - 37) 松田繁一郎，他：先天性エプリースの1例について。口病誌 22: 193 1955.
 - 38) Mayer, I., et al.: Über des maligne Hamartoma der Lunge. *Krebsarzt* 17: 102 1962.
 - 39) Lynch, M.A.: *Burket's Oral Medicine*. ed 7, Lippincott Co, Philadelphia, 1977, p 140.