新生児の口蓋にみられた奇形腫の1例と口腔鼻咽腔領域の本邦報告例について

上野泰寿・寺延 治・島田勝弘
船越禎征*・島田桂吉

A case of teratoma of the hard palate in a newborn infant with a review of related Japanese literatures of teratoma of the oral and nasopharyngeal region

Yasuhisa UENO・Osamu TERANOBU・Katsuhiro SHIMADA
Yoshiyuki FUNAKOSHI*・Keikichi SHIMADA

Abstract: A case of teratoma arising from the hard palate in a new-born infant is presented. Histological findings revealed that the present tumor was consisted of two germ-layers, i.e., ecto-and meso-dermal tissues, with several tooth-germs probably in the late bell stage.

We further reviewed 63 cases of teratoma in the oral and nasopharyngeal regions so far reported in Japan, and the following findings were then obtained:

1. This type of tumor occurred predominantly in infants under one year old, and about 75% of the cases examined were female.
2. These tumors occurred most frequently in the nasopharyngeal region and in the palatal region when limited in the oral cavity.
3. Complicated deformity was often observed (21 cases), including cleft lip and palate in most cases.

Key words: teratoma, hard palate, new-born infant

緒 言

奇形腫は、日本病理学会小児腫瘍組織分類委員会^{1,2)}によれば、基本的には三胚葉性組織成分を構成要素とする腫瘍と定義されているが、その構成成分の量的割合はさまざまであるため、ある成分がごく一部にしかみられないものや、ある胚葉成分を欠くものもその範疇に入れている。

口腔領域における奇形腫の報告は少なく、今回新生児の口蓋に発生した奇形腫の1例を経験したので、病理組

織学的所見を中心にその概要を報告するとともに、本邦報告例について総括的観察を試みてみた。

症 例

患 者：生後15日目の女児。

初 診：昭和57年9月

主 訴：口腔内腫瘍による閉口不能および哺乳障害。

家族歴：特記事項なし。

現病歴：妊娠期間中母体には異常はなく、在胎39週、正常分娩で出生した。生下時体重3,000gであったが、出生直後すでに口腔内に腫瘍を認め、哺乳障害が著明であったため、生後15日目に 病院歯科を受診した。

現 病：初診時、呼吸困難や栄養状態の低下など全身状態の異常は認められなかったが、右上眼瞼に dimple、左側の下眼瞼結膜に頬上皮腫を認めた。

口腔内の腫瘍は、硬口蓋右側より有茎性に発生し、右上顎歯槽頂部にまで發育していた。表面は正常粘膜色を呈し、弾性硬で、ひょうたん型を示していた(写真1)。

神戸大学医学部口腔外科学教室
(主任：島田桂吉教授)

* 兵庫県立こども病院歯科
(主任：船越禎征医長)

Department of Oral Surgery, School of Medicine, Kobe University (Chief: Prof. Keikichi Shimada)

* Department of Pedodontics, Kobe Children's Hospital

受付日：昭和59年2月24日

写真1 初診時局所所見

写真2 側面位X線写真

写真3 摘出物の断面像

写真4 摘出物の軟X線写真

摘出物所見：腫瘍は $2.5 \times 2 \times 2$ cm の大きさで、中央でややくびれた不規則な形態を示していたが、表面の性状、色調とも正常粘膜様であった。

断面像では、中央部に歯胚と思われる数個の嚢胞様構造の集まりがみられ、それをとり囲むように灰白色の充実性の組織が認められた(写真3)。

摘出物の軟X線写真では、境界明瞭な多房性の透過像が多数認められ、その中に歯牙様構造物がみられた(写真4)。

病理組織学的所見：腫瘍は、写真5の全割切片に示すごとく、わずかな海綿骨稜を介して外向に発育する腫瘤を形成しており、重層扁平上皮に囲まれた粗な結合織中に歯胚をはじめ、種々の組織を含んで構成されていた。歯胚は数個認められ、エナメル質、象牙質を一部形成し、鐘状期後期と思われる状態を呈していた(写真6)。上皮下には、角化した重層扁平上皮の集落が散在性に多数みられ、一部に microcyst を形成しており(写真7)。この部では皮脂腺も認められた(写真8)。さらに、粗な結合織中には、dental lamina を思わせる円柱上皮の集落があり(写真9)、歯胚を境するような形で骨稜が形

X線所見：側面位で、口腔内の腫瘍と一致して口蓋部に不透過像が認められ、上下顎骨の歯胚とは関係なく、異所性に歯胚と思われる硬組織像が確認された(写真2)。

処置および経過：良性歯原性腫瘍の診断のもとにただちに入院させ、全身麻酔下に腫瘍を摘出した。腫瘍は口蓋板との癒着はなく、剝離は容易で、基底部の骨膜を含めて一塊として摘出できた。術後の経過は順調で、10日目に退院した。現在術後1年4か月を経過するが、再発もなく経過良好である。

写真 5 摘出物の全割切片 (×3.8)

左上縁 (▶印) が、本腫瘍の基底面にあたり、わずかな海面骨縁を介して、重層扁平上皮に囲まれた外向性に発育する腫瘤を形成している。粗な結合織中に歯胚が数個認められ、上皮下には micro cyst を伴う重層扁平上皮の集落 (▶印) や、dental lamina と考えられる円柱上皮の集落 (⇒印) もみられる。また、歯胚を境するような形で骨縁が存在している。

成されていた。骨組織は幼若で、一部に頬骨を形成し (写真10)、その周囲には筋組織も認められた。また、唾液腺組織 (漿液腺) も存在していた (写真11)。消化管粘膜や気管支上皮などの内胚葉性組織は認められなかった。

以上のごとく、本症例の組織学的所見は、歯胚組織を中心として分化成熟を示す二胚葉性の腫瘍で、顎骨とは異所性に存在したところから、成熟奇形腫と診断した。

考 察

すでに述べたごとく、日本病理学会小児腫瘍組織分類委員会^{1,2)}による奇形腫の定義は、「基本的には三胚葉性組織成分を構成要素とする腫瘍」としているが、奇形腫の各組織成分の占める量はさまざまで、なかにはある胚葉起源の成分はごく痕跡的にしか存在しないものもあり、さらに一方では二胚葉性のものや、時には単胚葉性のもの、あるいは単一組織から成る腫瘍の中にも奇形腫の組織成分の一つが一方的に増殖したと考えられるものなどがあり、これらの症例も奇形腫の一群の中に加えるを得ないとしている。

また、奇形腫の概念確立において、同委員会は、その発生源ならびに形成様式についての考察を行い、本腫瘍が原則として三胚葉性の成分からなるものであるから、その起源となる細胞は三胚葉に分化し、さらに各種

の組織にまで分化しうる多潜能をもつものと想定することは、発生学的諸知見を基礎とする妥当な発想であり、このような条件を満たす細胞は、発生ごく初期の分割細胞あるいは生殖細胞ということになると説明している。さらに、種々の理由により、生殖細胞起源説が最も有力で、精腫をはじめ各種の組織型の腫瘍を一括して生殖細胞起源とする説が、最も事実を包括的に説明できるものとしている。しかしながら、一方では、初生初期の多潜能を持つ分割細胞がオルガナイザーの支配を逃がれ、迷入状になったものに求める説もいまだ存在するところから、同委員会では、実際に各種の腫瘍の組織像が、同一腫瘤中に併存あるいは合体して発現すること、またそれら各種組織像の一つよりなる腫瘍が単独に生ずる場合にもそれらが好発部位を同じくするという事実に従って、発生源の問題に関与することなく、奇形腫を中心にそれら各種の腫瘍を一群にまとめ、「奇形腫群」と呼ぶことを提唱している。

以上の立場を踏まえて、同委員会はこの奇形腫群腫瘍を、Ⅰ・奇形腫、Ⅱ・奇形腫に関連のある単一型組織像腫瘍、Ⅲ・奇形腫像を欠く複合型腫瘍、Ⅳ・奇形腫から二次的に発生した悪性腫瘍、Ⅴ・奇形腫の単一成分が一方的に増殖した腫瘍、の5つに大別し、Ⅰ、Ⅱ、Ⅴ群をさらにいくつかの亜型に分類している。Ⅰ群の奇形腫は、次のように分類される。

奇形腫 teratoma

1. 成熟奇形腫 mature teratoma

2. 未熟奇形腫 immature teratoma

3. 併合奇形腫 combined teratoma

(1) 類胎芽併合奇形腫 teratoma with embryoid bodies

(2) 胎芽性癌 (異型細胞癌) 併合奇形腫 teratoma with embryonal (atypical-cell) carcinoma

(3) 卵黄囊癌併合奇形腫 teratoma with yolk-sac carcinoma

(4) 絨毛癌併合奇形腫 teratoma with choriocarcinoma

(5) 精腫 (または未分化胚腫) 併合奇形腫 teratoma with seminoma or dysgerminoma

4. 重複併合奇形腫 teratoma with two or more other components

本症例は、組織学的には、重層扁平上皮に囲まれて、筋組織を含む粗性結合織の中に幼若歯牙構造を有する数個の歯胚およびその他の多彩な組織構造を有する多質性充実性腫瘍で、扁平上皮の集落、扁平上皮に裏装された microcyst 皮脂腺、第2上皮堤と思われる dental lamina 様構造、エナメル質などの外胚葉性成分と、骨組織、平滑筋や骨格筋、唾液腺などの中胚葉性成分から構成されており、内胚葉性成分は欠如している。歯胚は、中胚葉性である歯乳頭と上皮性歯胚を袋状にとり囲

表 1

Arnold (1888)	Schwalbe (1907)	Ewing (1940)
1. 有基性の類皮腫が口蓋, 上咽頭に付着. 皮膚, 脂肪などよりなる. 有毛性ポリープとも呼ばれる.	4. 口腔内, 口蓋付近の腫瘍が混合腫の構造を有するもの.	1. 皮膚, 脂肪, 横紋筋, 軟骨, 骨などより成る. 二胚葉性の類皮腫, 有毛性ポリープ.
2. 口腔より突出する大きな奇形腫で三胚葉の成分を有するもの.	3. 三胚葉性の奇形腫が口腔より突出するもの.	2. 三胚葉性奇形腺腫.
3. 2. の奇形腫に歯牙を有するもの.	2. 四肢, 性器などを有する未分化の寄生胎児が主胎児の口腔から懸垂するもの.	3. 脂肪, 筋, 軟骨, 骨, 歯牙, 嚢腫, 神経などよりなる. 三胚葉性奇形腫, 無脳, 半頭症, 口蓋裂などを伴う.
4. 不完全な二重体で, 四肢, 指, 眼, 臍帯などを有するもの.	1. 双児様寄生胎児が臍帯で主胎児口腔に付着するもの.	4. 分化した器官, 四肢を有する寄生体, すなわち上顎体.

む歯小囊を形成し, エナメル質, 象牙質, 歯髓組織がみられるところから, 胎生19週前後の鐘状期後期の状態と思われる. このように本症例は, 腫瘍全体が分化成熟した要素だけから構成されており, しかも組織相互の配列関係は器官形成を示しているところから, 前述した1群の奇形腫 *teratoma* の中の成熟奇形腫 *mature teratoma* と考えられる. また, 本症例は, 内胚葉性成分を欠くが, 成熟奇形腫の構成成分の量的割合はさまざまで, ある胚葉成分を欠くものもこの範疇に含まれるところから, 二胚葉性の奇形腫といえることができる.

一般に, 小児で奇形腫の最も好発する部位は仙尾部で, 次いで卵巣, 睪丸に多く, 後腹膜, 縦隔と続く²⁾が, 本邦においては, 池田³⁾の報告によると, 睪丸が最も多く全体の29.6%を占め, 卵巣(25.8%), 仙尾部(20.6%), 後腹膜(13.6%), 縦隔(3.8%)となっており, 欧米のそれとは異なっている. その他の部位では, Dehner⁴⁾によって要約されているように頭蓋内, 顔面, 鼻咽腔, 心嚢内, 肺, 胃, 肝, 腎などからの発生が報告されている.

頭頸部における奇形腫は, 頭蓋内, 顔面を含めて, そのほとんどが成熟型を示し, 日本病理学会小児腫瘍組織分類委員会の分類に従って皮様嚢胞も成熟奇形腫の一つに含むならば, その発生頻度はかなりの数になるものと思われる. しかし, 口腔および鼻咽腔領域においては, これまで先天性有毛咽頭ポリープ, 上顎体 (*epignathus*), 類奇形腫 (*teratoid*) あるいは鼻咽腔奇形腫などの病名で報告されたものに対して奇形腫という名称を用いているようである. これら名称については, 1837年 Geoffroy St. Hilaire が, 下顎に発生した比較的發育十分な重複奇形児に *epignathus* の名称を与えた⁵⁾ ことに始まり, 1904年に至って Schwalbe⁶⁾ が, 口腔領域に存在する混

合腫の構造を呈するものから, 非対称性の双児様寄生胎児と考えられるきわめて複雑なものまでを *epignathus* の名に包括して以来, 現在でも口腔もしくは鼻咽腔より発生する奇形腫に対してこの名称がよく用いられている. また, 咽頭部に発生し, 鼻腔ポリープに外観が類似した毛髪を有するものに対しては, 1888年に Arnold⁶⁾ が命名した先天性有毛咽頭ポリープという名称がよく用いられてきた. しかし, 最近では, 特に本邦においては, これらを総括して奇形腫 *teratoma* という名称が一般的に使用されているように思える.

ちなみに, 本疾患について, どの報告にもよく引用されている Arnold⁶⁾, Schwalbe⁶⁾ および Ewing⁷⁾ の分類を表1に示す (1975. 四宮⁴⁾より引用).

口腔鼻咽腔領域における奇形腫の発生機序については諸説があるが, Arnold⁶⁾ の説に代表されるように, 胎生期の發育過程において外胚葉が迷入し, それが腫瘍として發育するという迷入説で, すなわち, 胎生3週頃に口腔咽頭が内胚葉性の前腸と外胚葉の口窩が接する部分に形成され, ひきつづき咽頭膜消失前に口窩上壁から脳に向かう陥凹によって Rathke's pocket と呼ばれる脳下垂体の原基もつくられ, さらに耳管咽頭口が内胚葉性の第1内鰓溝と外胚葉性の第1外鰓溝の合致するところに形成されるところから, これらの部に組織胚葉の迷入が起こりやすく, 迷入した組織胚葉が發育すると, 二胚葉性の有毛ポリープから三胚葉性の二重体と称せられるものまで招来するという考え方が一つと, これに対して Schwalbe⁶⁾ によって説明されているように, 胎生期發育過程の早期に寄生胎児の發育と関係を絶たれた受精卵子の分裂細胞から発生した寄生体ともいふべき胚細胞が, 自生体の口腔内に發育するという二胚性發育説の2つに大別できる. 最初に述べたごとく, 奇形腫全体を考え

ると、その発生に関して生殖細胞起源説が最も有力で、ここでいう生殖細胞は発生初期に他の細胞系とは分離し、卵あるいは精祖細胞になる前には分化に対して多潜能を有するという考え方からすれば、Schwalbeの説はもっぱらこの生殖細胞起源説に見合うものと思われる。しかし、口腔鼻咽腔領域に発生する奇形腫には口蓋裂の合併が多いことから、腫瘍のため癒合不全をきたしたものと考えられ、胎生3～4週頃に本腫瘍が発生した可能性が高いとし、迷入説を支持するものも多い^{31,38,45,49}。四宮⁴⁹は、この迷入説を支持しながらも、表1の分類で示したArnoldおよびEwingの4型、Schwalbeの1, 2型は、不完全ながらむしろ発育の悪い一卵性双生児の一方が自生体の口腔に付着した、いわゆる寄生性二重体の1つのタイプと考える方が妥当で、胎生期の組織迷入説だけでは説明困難とし、Arnold, Ewingの1～3型、Schwalbeの3, 4型については組織迷入による一元発生説、それぞれの残りの型を寄生性二重体とする二元発生説で説明する折衷案を提唱している。以上のごとく、口腔鼻咽腔領域の奇形腫においても、その発生起源については最も事実を包括的に説明できる学説はないように思われる。

本邦における口腔鼻咽腔領域の奇形腫の報告例は、われわれの渉猟し得た範囲では、表2に示すごとく1908年の岩田⁸⁾の報告にはじまり現在まで63例を数えるが、これはすべて日本病理学会小児腫瘍組織分類委員会による奇形腫の定義にあてはまる症例である。ただし、皮様嚢胞については、多少異論のあるところなので除外している。これら63例について総括的な観察を試みてみた。

1. 年 齢

主として新生児および乳児期にみられ、年齢不明の1例を除いた62例中40例(約61%)が1歳未満であり、胎児期に発見された11例を加えると約82%になる。最高齢者は、片桐他⁴⁰⁾の報告による22歳であった。胎児においてはしばしば羊水過多を伴い、未熟な状態で早産を起こす例が多く、早産の時期としては7か月前後に起こるものが最も多かった。

2. 性 別

記載のなかった2例を除く61例中、女は47例、男は14例で、圧倒的に女子に多かった(約3/4)。本症例も女児であったが、女子に多い理由は不明である。

3. 発生部位

有茎性に鼻咽腔に発生することが多く、表2に示すごとく、その部位を鼻中隔、上、中咽頭、鋤骨および、口蓋弓を含めた口蓋扁桃部と表現したものをすべて鼻咽腔に包含するならば、その数は45例(約71%)にもなる。次いで多いのは、硬軟両方を合わせた口蓋部5例で、頬部4例の順となっている。まれな発生部位としては、三井ら⁴³⁾の下顎骨内に発生した症例、Hosoda³⁴⁾の上口唇の例があげられる。また、斎藤ら³⁷⁾、林ら³⁹⁾、西野ら⁵⁵⁾の例は、頬粘膜から軟口蓋または咽頭部にまで及ぶ広基

な発生部位を示すものであった。その他は、上顎、口腔、頭蓋底、口蓋裂部とおおまかな表現をしたものがおのおの1例ずつとなっている。

4. 症 状

腫瘍の大きさ、発生部位、年齢などによって異なり、時には全く無症状のものもあるが、新生児、乳児の鼻咽腔に認められるものでは呼吸障害、哺乳障害を伴うことが多い。1歳未満の鼻咽腔に発生した30症例のうち、呼吸障害のみが認められたものは12例、哺乳障害のみは5例、両方が認められたものは8例であった。乳児期以後では、鼻閉感、いびき、嚥下障害、違和感などが多くなる。腫瘍の小さいものでは、片桐ら⁴⁰⁾の報告例のように22歳まで無症状に経過するものもある。鼻咽腔以外では、口腔内腫瘍の存在およびそれに伴う違和感がほとんどであった。

5. 合併奇形

他の奇形の合併は、全報告例中21例に認められたが、そのうちの4例は胎児例である。胎児例の合併奇形の種類は、頭蓋部に三胚葉性腫瘍の合併2例、無心体の併存1例、下顎骨欠如1例であった。出生症例では、最も多いのは唇顎口蓋裂で11例に認められた(軟・硬口蓋裂6例、軟口蓋裂3例、唇顎口蓋裂2例)。その他は外耳奇形、先天性耳瘻孔、心奇形、分葉舌、顔面半側萎縮、斜頸、左肺奇形腫、眼窩内奇形腫の合併がみられた。また、2つ以上の合併奇形をもつ症例は6例であった。

6. 病理組織学的所見

組織所見を記載した報告は56例あり、そのうち三胚葉性成分を構成要素とするものは22例、外・中胚葉の二胚葉性は33例で、もう1例は、学会抄録で記載が不十分であるが、大部分が脳組織を占め一部に円柱上皮に囲まれた腔を有する外・内胚葉由来と考えられるものであった(高村ら³¹⁾)。胎児例では11例中2例を除いてすべて三胚葉性であった。これら報告された組織成分を列記すると、外胚葉性組織として、粘膜や皮膚構造(扁平上皮、毛髪、毛嚢、皮脂腺、汗腺など)、末梢神経や脳などの神経組織、唾液腺、エナメル質などが認められ、中胚葉性組織として結合織、脂肪織、筋組織、骨、軟骨、血管、リンパ組織、象牙質、歯髄などが、また内胚葉性組織としては呼吸器や消化管系の粘膜上皮、腺などが認められている。斎藤¹¹⁾の胎児例では、子宮および脾臓と思われる組織を認めたと報告している。エナメル器やその他の歯牙構造を有する例は7例報告されている。悪性像に関しては、Goto³⁾が、3回の切除手術後再発した例で、腫瘍の一部に癌性変化の認められた1例を報告している。

7. 処置および予後

発生部位、大きさによって多少異なるが、一般に有茎性のものでは年齢を問わず、切除、電気焼灼、係蹄切断などで容易に剔出されている。広基底をもつものでも、

表2(その1)

No.	報告者	報告年	年齢	性	初発部位	病名	構成組織	備考
1	岩田 ⁸⁾	1908	14歳	♂	右口蓋扁桃	奇形の腫瘍	外・中胚葉	外耳奇形, 顔面半側萎縮
2	中村	1910	40日	♀	左口蓋扁桃	奇形性ポリープ	外・中胚葉	高須 ¹⁸⁾ 岩田 ²³⁾ より引用
3	Goto, S. ⁹⁾	1912	10歳	♀	硬口蓋	Teratom	外・中・内胚葉	
4	八木澤 ¹⁰⁾	1914	3か月	♀	左口蓋扁桃	テラトイード	外・中・内胚葉	外耳奇形
5	徳岡	1916	胎生9か月	♀	左頬部	エビグナーツス	外・中・内胚葉	斎藤 ²⁷⁾ Hosoda ³⁴⁾ より引用
6	斎藤 ¹¹⁾	1921	胎生8か月	♂	鼻咽腔	エビグナーツス	外・中・内胚葉	歯胚, 分娩33分後死亡, 2つの腫瘤を形成
7	川瀬	1924	23日	♀	硬口蓋	先天性有毛ポリープ	外・中胚葉	軟口蓋裂, 高須 ¹⁸⁾ 斎藤 ²⁷⁾ より引用
8	田中, 他 ¹²⁾	1926	17歳	♀	上咽頭	奇形様腫	外・中胚葉	有毛性
9	和田	1931	不明	不明	口蓋扁桃	テラトイード	不詳	岩田 ²³⁾ より引用
10	飯塚 ¹³⁾	1932	胎生7か月	♂	口蓋	類奇形腫瘍	外・中・内胚葉	分娩3分後死亡
11	広瀬 ¹⁴⁾	1932	6歳	♀	鼻中隔	皮様腫	外・中胚葉	有毛性
12	橋爪	1932	胎生28週	♀	口蓋	Epignathus	外・中胚葉	平元 ⁴⁷⁾ Hosoda ³⁴⁾ より引用
13	多々良 ¹⁵⁾	1935	胎生7か月	♀	口腔	Epignathus	外・中・内胚葉	頭蓋底に三胚葉性腫瘍併発, 死産
14	鶴田 ¹⁶⁾	1935	15歳	♂	鼻中隔	先天性有毛ポリープ	不詳	有毛性
15	中田	1935	1日	♂	鼻中隔	奇形腫	不詳	江口 ³⁸⁾ より引用
16	渡辺	1936	胎生25週	♀	鋤骨	Epignathus	外・中・内胚葉	平元 ⁴⁷⁾ Hosoda ³⁸⁾ より引用
17	伊藤 ¹⁷⁾	1941	4歳	♂	左鼻咽腔	過誤腫	外・中胚葉	
18	高須 ¹⁸⁾	1942	7歳	♀	右鼻咽腔	奇形腫	外・中胚葉	有毛性
19	池内 ¹⁹⁾	1953	16歳	♀	右鼻咽腔	奇形腫	外・中胚葉	有毛性
20	木本, 他 ²⁰⁾	1953	1日	♂	右頬部	寄生体	外・中・内胚葉	有毛性, 左肺寄生体を併発, 術後8日(生後10日)に死亡
21	小村 ²¹⁾	1953	胎生6か月	♂	上顎	上顎体	外・中・内胚葉	胎児死亡にて人工流産, 無心体を併存
22	長沼 ²²⁾	1953	8日	♀	左後口蓋弓	先天性有毛ポリープ	外・中胚葉	有毛性
23	岩田, 他 ²³⁾	1954	3日	♀	上咽頭	類奇形腫	外・中胚葉	有毛性
24	大塚 ²⁴⁾	1957	6か月	♀	上咽頭	先天性有毛ポリープ	外・中胚葉	有毛性
25	小林, 他 ²⁵⁾	1957	18日	♀	上咽頭	奇形腫	外・中胚葉	有毛性
26	高橋 ²⁶⁾	1958	1.5歳	♀	鼻中隔	混合腫瘍	外・中胚葉	軟・硬口蓋裂, 有毛性
27	池田, 他 ²⁷⁾	1958	胎生7か月	♀	鼻中隔	上顎体	外・中・内胚葉	下顎骨欠如, 胎児死亡
28	浅井, 他 ²⁸⁾	1959	2か月	♂	上咽頭	混合腫瘍	外・中胚葉	
29	城後 ²⁹⁾	1959	2か月	♀	中咽頭	先天性良性腫瘍	外・中胚葉	
30	宮元, 他 ³⁰⁾	1959	胎生7か月	♀	右頬部	Epignathus	外・中・内胚葉	分娩30分後に死亡
31	田村, 他 ³¹⁾	1960	6か月	♂	鼻中隔	先天性有毛ポリープ	外・中胚葉	軟・硬口蓋裂, 斜頸, 有毛性
32	天沼, 他 ³²⁾	1960	6か月	♀	上咽頭	先天性有毛ポリープ	外・中胚葉	有毛性

表 2 (その2)

No.	報告者	報告年	年齢	性	初発部位	病 名	構成組織	備 考
33	細田, 他 ³³⁾	1961	3 か月	♀	上咽頭	Dermoid tumor	記載なし	
34	Hosoda Y. ³⁴⁾	1963	胎生 36週	♀	上口唇	Epignathus	外・中胚葉	三胚葉性の intracranial teratoma 併発, 生後3日目死亡
35	田尻, 他 ³⁵⁾	1963	10歳	♀	鼻中隔	過剰腫	外・中胚葉	
36	河本, 他 ³⁶⁾	1964	17日	♀	上咽頭	奇形腫	外・中胚葉	有毛性
37	斎藤, 他 ³⁷⁾	1964	2 日	♀	右硬口蓋 右頬粘膜 咽頭後壁	奇形腫	外・中胚葉	有毛性
38	江口, 他 ³⁸⁾	1966	2 日	♀	鼻中隔	奇形腫	外・中胚葉	軟口蓋裂, 有毛性
39	林, 他 ³⁹⁾	1966	新生児	♀	右頬粘膜 咽頭	Epignathus	外・中・内胚葉	軟口蓋裂, 有毛性
40	片桐, 他 ⁴⁰⁾	1966	22歳	♀	左鼻咽腔	奇形腫	外・中胚葉	
41	野村, 他 ⁴¹⁾	1967	新生児	♀	上咽頭	奇形腫	外・中胚葉	先天性耳瘻孔
42	王, 他 ⁴²⁾	1968	新生児	♀	右鼻咽腔	上顎体	外・中胚葉	心奇形, 三葉舌, 生後11日で死亡 エナメル器
43	三井, 他 ⁴³⁾	1969	5 か月	♂	左下顎骨	奇形腫	外・中・内胚葉	術後5か月で死亡
44	平川, 他 ⁴⁴⁾	1970	新生児	♀	鼻中隔	Epignathus	外・中・内胚葉	有毛性
45	鈴木, 他 ⁴⁵⁾	1971	1 日	♀	上咽頭	奇形腫	外・中・内胚葉	軟・硬口蓋裂, 心奇形, 大血管転位
46	松本, 他 ⁴⁶⁾	1973	新生児	♀	左鼻咽腔	奇形腫	外・中・内胚葉	生後17時間で死亡
47	平本, 他 ⁴⁷⁾	1974	12日	♀	上咽頭	上顎体	外・中胚葉	心奇形, 二葉舌, 有毛性, 歯胚, 生後12日目で死亡
48	平本, 他 ⁴⁷⁾	1974	10日	♀	左口蓋弓	上顎体	外・中胚葉	
49	小島, 他 ⁴⁸⁾	1975	2 か月	♀	左頬部	奇形腫	外・中胚葉	
50	四宮, 他 ⁴⁹⁾	1975	25日	♀	鼻中隔	Epignathus	外・中胚葉	軟・硬口蓋裂
51	川勝, 他 ⁵⁰⁾	1975	20日	♂	頭蓋底	Epignathus	記載なし	唇顎口蓋裂, 歯胚
52	高村, 他 ⁵¹⁾	1976	1 日	♀	上咽頭	奇形腫	外・内胚葉?	
53	長本, 他 ⁵²⁾	1976	4 か月	♀	鼻中隔	Epignathus	外・中胚葉	軟・硬口蓋裂, 有毛性, 歯胚
54	船越, 他 ⁵³⁾	1978	2 日	♀	鼻中隔	上顎体	外・中・内胚葉	唇顎口蓋裂, 有毛性
55	藤 森 ⁵⁴⁾	1978	新生児	不明	上咽頭	奇形腫	記載なし	
56	西野, 他 ⁵⁵⁾	1978	1 か月	♀	左軟口蓋および左頬部	上顎体	外・中・内胚葉	
57	大久保, 他 ⁵⁶⁾	1980	2 日	♀	右鼻咽腔	奇形腫	外・中・内胚葉	歯胚, 剖検報告例
58	大久保, 他 ⁵⁶⁾	1980	胎生 32週	♀	右鼻咽腔	奇形腫	外・中・内胚葉	歯胚, 剖検報告例
59	Igarashi Y. ⁵⁷⁾	1980	1 か月	♂	軟口蓋	Teratoma	外・中胚葉	有毛性
60	樋田, 他 ⁵⁸⁾	1981	1 か月	♂	口蓋裂部	奇形腫	外・中・内胚葉	軟・硬口蓋裂, 眼窩奇形腫を併発
61	田中, 他 ⁵⁹⁾	1982	2 日	♀	上咽頭	奇形腫	記載なし	
62	深見, 他 ⁶⁰⁾	1983	8 日	♀	上咽頭	奇形腫	外・中・内胚葉	
63	中村, 他 ⁶¹⁾	1983	40日	♀	上咽頭	奇形腫	外・中胚葉	

処置方法は同じであるが、斎藤³⁷⁾の例のように術中出血が多い場合もあり注意を要する。また、三井⁴³⁾の下顎骨に発生した例で、腫瘍が大きく術中出血が多かったため全摘出ができなかったとの報告もある。発生部位によって異なるが、有茎性の場合、腫瘍が喉頭までぶら下がりが気道閉塞の危険があるため、早急に摘出術を必要とする例も多かった。気管切開を行ったものは、野村⁴¹⁾、高村³¹⁾の2例であるが、後者は直接腫瘍による気道閉鎖ではなく、腫瘍存在のため嚥下性肺炎を起こしたものである。

予後に関しては、摘出できたものは再発も少なく一般に良好であったが、術後死亡した例が2例^{30, 44)}報告されている。ほかに、出生後死亡したものが3例あり、その内の2例^{43, 47)}は心奇形を伴っていた。胎児例では、当然死産が多いが、Hosoda³⁴⁾の報告のように頭蓋内奇形腫を併発しているのにもかかわらず、3日間生存した例もあった。

結 論

- 1) 生後15日の女児で、口蓋部に発生した奇形腫の1例を報告した。
- 2) 本症例は、外・中胚葉の二胚葉性の腫瘍で、胎生19週前後の鐘状期後期と思われる歯胚を含んでいた。
- 3) 口腔鼻咽腔領域に発生する奇形腫に対する考え方を考察するとともに、本邦における口腔鼻咽腔領域の本腫瘍例について総括的な観察を加えてみた。

本論文の要旨は、第28回日本口腔外科学会総会において報告した。

引 用 文 献

- 1) 遠城寺宗知, 恩村雄太, 他: 奇形腫群腫瘍の組織分類. 日小外誌 13: 919-937 1977.
- 2) 日本病理学会小児腫瘍組織分類委員会: 小児腫瘍組織分類図譜, 第3篇 奇形腫群腫瘍. 金原出版, 東京, 1978.
- 3) 池田恵一: 小児の悪性固形腫瘍, 奇形腫群腫瘍. 小児科診療 43: 85-91 1980.
- 4) Dehner, L.P.: Intrarenal teratoma occurring in infancy. Report of a case with discussion of extragonadal germ cell tumors in infancy. J Ped Surg 8: 369-378 1973.
- 5) Schwalbe, E.: Der Epignathus und seine Genese. Ziegler's Beiträge z. pathol. Anatomie u. allgem Pathologie 36: 242-272 1904.
- 6) Arnold, J.: Ueber behaarte Polypen der Rachen- Mundhöhle und deren Stellung zu den Teratom. Virchow's Arch Path Anat 111: 176-210 1888.
- 7) Ewing J.: Neoplastic Diseases. 4th Ed, WB Saunders, Philadelphia, 1941.
- 8) 岩田 一: 口蓋扁桃=発生セル珍奇ナル畸形的腫瘍ノ一例ニ就テ. 大日耳鼻 12: 101-124 1908.
- 9) Goto, S.: Ueber einen seltenen Fall von Teratom des Oberkiefers (Epignathus). Arch f Chir 25: 1137-1150 1912.
- 10) 八木澤文吾: 外耳畸形ニ合併セル口蓋扁桃腺「チラトイド」ノ一例. 大日耳鼻 20: 765-780 1914.
- 11) 斎藤 治: 畸形児「エピグナトゥス」ノ一例. 岡山医誌 378: 371-383 1921.
- 12) 田中文男, 山本本一: 咽頭畸形様腫. 耳鼻臨床 20: 389-393 1926.
- 13) 飯塚禎三: 胎児口蓋部ヨリ発生セル類畸形的腫瘍ノ一例. 北海道医誌 9: 198-202 1932.
- 14) 廣瀬 渉: 鼻咽腔皮様腫(抄). 耳喉科 5: 564 1932.
- 15) 多々良 實: 脳水腫ヲ有スル Epignathus ノ一例(抄). 近婦会誌 18: 2104-2106 1935.
- 16) 鶴田治平: 先天性有毛咽頭「ポリープ」ノ一例. 耳喉科 8: 445-449 1935.
- 17) 伊藤吾一: 鼻咽腔過剰腫の一症例. 耳喉科 14: 275-277 1941.
- 18) 高須照男: 鼻咽腔畸形腫の一症例. 耳喉科 15: 423-431 1942.
- 19) 池内教子: 鼻咽腔畸形腫および声帯下腔血管腫の各一例. 耳鼻臨床 46: 259-261 1953.
- 20) 木本哲夫, 酒井 晃, 他: 上顎寄生体. 岡山医誌 16: 2239-2247 1953.
- 21) 小村 端: 上顎体及び無心体よりなる多胎例. 北海道婦会誌 4: 65-69 1953.
- 22) 長沼雅子: 新産児にみた先天性有毛咽頭ポリープの1例. 耳喉科 25: 393-395 1953.
- 23) 岩田逸夫, 土居君子: 鼻咽腔類畸形腫の1例. 耳喉科26: 292-294 1954.
- 24) 大塚武啓: 先天性有毛咽頭ポリープの1例. 耳喉科 29: 704-706, 1957.
- 25) 小林孝良, 稲守浩一郎: 初生児上咽頭畸形腫. 耳鼻臨床 50: 824-825 1957.
- 26) 高橋宏明: 口蓋破裂を伴った鼻中隔混合腫瘍の1例. 耳鼻臨床 51: 215-217 1958.
- 27) 池田猪三郎, 中野純治, 他: 非対称性二重体「上顎体」の1例について. 臨婦産科 12: 568-572 1958.
- 28) 浅井良三, 長谷部英雄: 上咽頭混合腫瘍の1例(抄). 日耳鼻, 12: 1649 1959.
- 29) 城後俊明: 新生児にみたる先天性咽頭部良性腫瘍の1例. 小児科診療 22: 1295-1297 1959.
- 30) 宮元和衛, 加藤典二: 非対称性二重体「上顎体」の1例. 産婦人科の世界 11: 785-789 1959.
- 31) 田村浩通, 佐藤朋也, 他: 所謂先天性有毛咽頭「ポリープ」に就て. 耳鼻臨床 55: 43-47 1960.
- 32) 天沼拘子, 及川富美子: 先天性有毛咽頭ポリ-

- ブの一例, 耳鼻と臨床 6: 273-275 1960.
- 33) 細田忠四郎, 貝塚 仇, 他: 上咽頭 Dermoid tumor の1例, (抄)耳鼻臨床 54: 213, 1961.
 - 34) Hosoda, Y.: A case of epignathus associated with intracranial teratoma in a new-born infant. With a review of related Japanese literature. Keio Journal of Medicine 12: 61-75 1963.
 - 35) 田尻 益, 森本良二: 稀有なる鼻咽腔腫瘍の1例——過眼腫 (抄), 日耳鼻 67: 1037 1964.
 - 36) 河本和友, 千葉正敏, 他: 上咽頭畸型腫の1症例, 耳喉科 36: 455-457 1964.
 - 37) 斎藤純夫, 沢口重徳, 他: 新生児の呼吸および哺乳困難を伴った巨大口腔内奇形腫の一治験例, 手術 18: 251-256 1964.
 - 38) 江口実美, 鶴 真佐信, 他: 新生児にみられた上咽頭畸形腫症例 (並びに本邦における報告例について), 耳鼻と臨床 12: 126-130 1966.
 - 39) 林 一, 鷺津邦雄, 他: 巨大な口腔内奇形腫 Epignathus の1例 (抄), 口科誌 15: 185 1966.
 - 40) 片桐圭一, 若山利夫, 他: 鼻咽腔奇形腫症例 (抄), 日耳鼻 69: 2127 1966.
 - 41) 野村 和, 富田英寿, 他: 新生児上咽頭畸型腫, 耳鼻と臨床 13: 185-187 1967.
 - 42) 王 秋雲, 岡野順子, 他: 上顎体の一例 (抄), 先天異常 8: 84-85 1968.
 - 43) 三井吉郎, 八島敏彦, 他: 乳児下顎骨に発生した奇形腫の1症例, 広歯誌 1: 54-56 1969.
 - 44) 平川正輝, 西 正勝, 他: Epignathus の手術経験ならびに病理組織学的観察 (抄), 口科誌 19: 411-412 1970.
 - 45) 鈴木省吾, 加藤邦二: 口蓋裂児にみた鼻腔畸形腫症例, 耳鼻臨床 64: 741-747 1971.
 - 46) 松本一仁, 木村正方, 他: 新生児鼻咽頭奇形腫の1症例, 小児科臨床 26: 713-716 1973.
 - 47) 平本道昭, 斎藤春雄, 他: 鼻咽頭奇形腫「上顎体」の2例, 耳鼻臨床 67: 1351-1357 1974.
 - 48) 小島通宏, 原田寿利, 他: 稀有な頬部奇形腫の1症例 (抄), 形成外科 18: 359 1975.
 - 49) 四宮真男, 本庄 巖, 他: 口蓋裂を伴ったいわゆる Epignathus の1症例, 日耳鼻 78: 1286 1293 1975.
 - 50) 川勝寛作, 藤田訓也, 他: Epignathus と思われる一症例 (抄), 口科誌 24: 259-260 1975.
 - 51) 高村善夫, 佐藤武男, 他: 小児鼻咽頭腔奇形腫の一例 (抄), 日耳鼻 79: 948 1976.
 - 52) 長本考一, 大西正俊, 他: Epignathus の1治験例 (抄), 日口外誌 22: 603 1976.
 - 53) 船越啓右, 浦郷篤史, 他: 上顎体を伴った新生児とその麻酔管理, 日口外誌 24: 892-899 1978.
 - 54) 藤森春樹: 新生児上咽頭奇形腫の一例 (抄), 日耳鼻 81: 966 1978.
 - 55) 西野千郷, 小林 尚, 他: 上顎体の一症例 (抄), 日小外誌 14: 1032 1978.
 - 56) 大久保 勉, 岡部治男, 他: 上顎体——鼻咽頭部奇形腫——の2剖検例 (抄), 日病会誌 69: 326 1980.
 - 57) Igarashi, Y. and Suzuki, J.: Nasopharyngeal teratoma. —Report of a case—. Auris Nasus Larynx 7: 73-79 1980.
 - 58) 樋田哲夫, 武田晶子, 他: 上顎体に合併した眼窩奇形腫の1例, 眼紀 32: 1712-1719 1981.
 - 59) 田中寿一, 加納 滋, 他: 新生児の上咽頭にみられた奇形腫 (抄), 日耳鼻 85: 843 1982.
 - 60) 深見雅也, 滝野賢一, 他: 上咽頭奇形腫, 耳展 26: 61-64 1983.
 - 61) 中村 賢, 平野敏一, 他: 乳児の上咽頭奇形腫の1症例, 耳展 26: 168-170 1983.

写真 6 象牙質が一部形成され、鐘状期後期の状態を呈する歯胚。

写真 7 角化した重層扁平上皮の集落。一部に micro cyst を形成している。

写真 8 矢印に示すごとく、皮脂腺が認められる。

写真 9 dental lamina と思われる円柱上皮の集落。

写真 10 骨組織は幼若で一部に類骨形成を認める。

写真 11 唾液腺（漿液腺）と、その周囲に筋組織を形成。