1歳男児の下顎前歯部に発症したエナメル上皮線維歯牙腫の1例

根岸明秀・山田隆文・岩城 博
吉増秀實・天笠光雄・岡田憲彦*

A case of an ameloblastic fibro-odontoma in the mandibular
incisal region of a one-year-old boy

Akihide NEGISHI・Takafumi YAMADA・Hiroshi IWAKI

Hidemi YOSHIMASU・Teruo AMAGASA・Norihiro OKADA*

Abstract: A 1-year-old boy with an ameloblastic fibro-odontoma in the anterior mandible is presented.

Ameloblastic fibro-odontoma is a rare odontogenic tumor composed of epithelial cells and mesenchymal stroma derived from tooth germ cells.

The patient visited our clinic for swelling on the right incisal region of the mandible. Hard swelling of the alveolar bone was found. Radiographic examination demonstrated a cystic radiolucent area with radiopaque mass-like teeth. On December 12, 1991, the mandibular tumor was extirpated under general anesthesia. Microscopically, the tumor was composed of primitive connective tissue resembling dental pulp and odontogenic epithelium as well as enamel, dentin, and tooth germ. This lesion was histologically diagnosed as ameloblastic fibro-odontoma. This case has been followed-up for 2 years 6 months and there has been no evidence of recurrence.

Key words: ameloblastic fibro-odontoma (エナメル上皮線維歯牙腫), odontogenic tumor (歯源性腫瘍)

緒 言

エナメル上皮線維歯牙腫は、歯胚の上皮成分と間葉成分の両者からなる比較的稀な混合性歯源性腫瘍である。本腫瘍の発症年齢は10歳前後であり、下顎臼歯部が好発部位とされている。今回著者らは、1歳2か月、男児の右下顎前歯部に発生した本症の1例を経験したので報告する。

症 例

患 者：1歳2か月 男児。

初 診：平成3年10月■日。

主 訴：C—A | 相当部の腫脹。

既往歴および家族歴：特記事項なし。

現病歴：平成3年■月 | AB 萌出時に、BA | が萌出せず、同部に腫脹を認めた。平成3年4月小児歯科医院受診、X線撮影不可能なため経過観察していた。腫脹の増大傾向が認められたため、精査を指示され当科を受診した。

現 症：

全身所見：体格中等度、栄養状態良好、体重9.8 kg。

局所所見： $\frac{DBA}{AB} | \frac{ABD}{AB}$ は萌出途中であった。BA | の萌出は認めず、同歯相当歯槽部は、正常粘膜色で、25×20×10mm 大の骨の膨隆を認めた。硬度は骨様硬であり、羊皮紙様感、波動、圧痛は認めなかった(写真1 A)。

X線検査所見：頭部X線正面像にてBA | 相当歯

東京医科歯科大学歯学部口腔外科学第1講座

(主任：天笠光雄教授)

*東京医科歯科大学歯学部附属病院検査部

(主任：榎本昭二教授)

First Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Faculty of Dentistry, Tokyo Medical and Dental University (Chief: Prof. Teruo Amagasa)

*Department of Clinical Laboratory, Faculty of Dentistry, Tokyo Medical and Dental University (Chief: Prof. Shoji Enomoto)

受付日：平成6年7月20日

写真1

A : 初診時口腔内写真
B : 水平断 CT 像

写真2 摘出物

A : 断面
B : 軟X線像

槽部に $17 \times 17 \text{ mm}$ の嚢胞様透過像を認め、内部に A、B が癒着したと思われる $9 \times 5 \text{ mm}$ 大の不透過像を認めた。X 線 CT 検査では、下顎骨前歯部やや右寄りに直径 15 mm 程度の周囲を骨に囲まれた、軽度の low density mass が認められ、内部に歯と思われる mass と小さな石灰化物を認めた (写真 1B)。

臨床診断：右下顎良性腫瘍の疑い

処置および経過：平成 3 年 12 月 日、全身麻酔下にて口腔内より腫瘍摘出術を施行した。摘出に先立ち膨隆部に穿刺したが内容液は吸引されなかった。さらに、腫瘍の一部を迅速凍結標本とし、エナメル上皮線維腫の診断を得たため、BA 癒合歯を含め、一塊として摘出した。摘出後の骨面は平滑であったが、骨ヤスリにて一層骨を削除後、軟膏ガーゼを挿入し、開放創として手術を終了した。術後 2 年 6 か月を経過した平成 6 年 6 月現在、腫瘍の再発は認めていない。また、CBA を除くすべての乳歯は萌出し、欠損部に対し、部分床義歯による補綴を行った。

摘出物所見：摘出物は $35 \times 30 \times 20 \text{ mm}$ 大で、表面は凹凸不整、BA 癒合歯の付着した腫瘍組織であった。断面は、白色を呈し、分葉状、充実性で弾性硬、硬組織様小塊が含まれていた (写真 2A)。また、摘出物の軟 X 線像では、腫瘍組織内に歯および石灰化物が認められた (写真 2B)。

病理組織学的所見：組織学的には、被覆上皮を有す

写真3 病理組織像

A : 幼若な間葉組織中に歯原性上皮の増殖を認める。一部にエナメル質が存在している ($\times 50$)。
B : 上皮巢の辺縁にはエナメル芽細胞、内部に星状細胞を認める ($\times 100$)。

る腫瘍組織であり、歯乳頭に類似した幼若な間葉組織の中に、歯原性上皮の小塊状あるいは索状の増殖巣およびエナメル組織に類似した濾胞状の上皮巢が多数認められた。上皮巢の辺縁細胞は、エナメル芽細胞様であり、内部に星状細胞も認められた。一部には象牙芽細胞、象牙質およびエナメル質が存在し、乳歯と永久

歯の歯胚も認められた。上皮巢周辺の間葉組織には、鬆粗水腫性の部位や膠原線維の豊富な部分が認められた。以上の所見から、エナメル上皮線維歯牙腫と診断した(写真3A, B)。

考 察

エナメル上皮線維歯牙腫は、エナメル上皮線維腫様の上皮組織と間葉組織の両者の増殖からなる軟組織中に、エナメル質や象牙質などの歯牙腫様硬組織形成を伴う歯原性腫瘍である¹⁾。1992年WHOの国際腫瘍分類では、歯原性良性腫瘍の中で、歯原性外胚葉性間葉組織を伴った歯原性上皮由来の腫瘍に分類されている。すなわち、エナメル上皮線維腫とその関連病変に含まれているが、エナメル上皮線維腫と歯牙腫との関連性について議論されている^{1, 2)}。すなわち、臨床所見に相違がないことから、本腫瘍をエナメル上皮線維腫と同一の病変、あるいはエナメル上皮線維腫から生じた病変とする報告がある一方で、臨床所見に相違があり、エナメル上皮線維腫には再発傾向があることから区別すべきとする報告もある^{3, 4)}。また、複雑性歯牙腫の好発年齢は本腫瘍より高いことから、経過とともに歯牙腫へ移行していく同一病変であるとするものと^{4, 5)}、本腫瘍のすべてが歯牙腫へ成熟するとは考え難く、またそれを示唆する報告もないため、病変の形態学的特徴に着目して本腫瘍を分類してもよいとするものもある¹⁾。本症例では、エナメル上皮線維腫と同様の病理組織像の一部にエナメル質や象牙質だけでなく歯胚も存在していた。年齢的に若年者であり、腫脹が現れてから約1年後に摘出された病変であることから、エナメル上皮線維腫と歯牙腫の中間型の組織像であるものと考えられた。

エナメル上皮線維歯牙腫に関して、検索し得た国内における報告は、本症例を含め29例である⁶⁻⁸⁾。発症年齢は、1歳から56歳で、平均年齢10.7歳、部位は、下顎臼歯部が22例、上顎前歯部4例、上顎臼歯部2例で、下顎前歯部は本報告例の1例であった。本症例の場合、発症年齢が1歳2か月と最も低年齢であり、また部位も他に報告のない下顎前歯部であり、きわめて稀な症例と考えられた。

エナメル上皮線維歯牙腫は、一般に摘出術が行われ、予後は良好とされている。国外では、搔爬術により再

発を繰り返した結果、悪性転化したとの報告も見られ、腫瘍の残存は予後に注意を要する⁹⁾。本症例では、摘出物に被覆上皮が存在し、さらに平滑であった骨面も一層削除しており、術後2年6か月経た現在、腫瘍の再発は認められず、良好な経過をたどっている。

結 語

1歳2か月男児の下顎前歯部に発生したエナメル上皮線維歯牙腫に対し、摘出術を施行し、2年6か月後再発なく良好な結果を得ているので報告した。

本論文の要旨は、第26回日本口腔外科学会関東地方会(1992年10月17日、東京)において発表した。

引 用 文 献

- 1) 石川梧朗監修：口腔病理学Ⅱ. 改訂版、永末書店、京都、1982、502-506頁。
- 2) Kramer, I.R.H., Pindborg, J.J. et al: International histological classification of tumours. No. 5, Histological typing of odontogenic tumours. 2nd Ed., W.H.O., Geneva, 1992, p.18-19.
- 3) Regezi, J.A., Kerr, D.A. et al: Odontogenic tumors: Analysis of 706 cases. J Oral Surg 36 : 771-778 1978.
- 4) Slootweg, P.J.: An analysis of the interrelationship of the mixed odontogenic tumors-ameloblastic fibroma, ameloblastic fibro-odontoma, and the odontomas. Oral Surg 51 : 266-276 1981.
- 5) Bernhoft, C.H., Bang, G. et al: Ameloblastic fibro-odontoma. Int J Oral Surg 8 : 241-244 1979.
- 6) 白土雄司, 樋口勝規, 他: エナメル上皮線維歯牙腫の1例. 口科誌 33 : 269-278 1984.
- 7) 中川清昌, 西出雅博, 他: 下顎に発生したエナメル上皮線維歯牙腫の2例. 口科誌 39 : 973-981 1990.
- 8) 大田和亜希, 荒谷恭史, 他: エナメル上皮線維歯牙腫の1例. 日口外誌 40 : 293-295 1994.
- 9) Howell, R.M., Burkes, E.J. et al: Malignant transformation of ameloblastic fibro-odontoma to ameloblastic fibrosarcoma. Oral Surg 43 : 391-401 1977.