左側下顎大臼歯の根尖部に発生したエナメル上皮線維腫の1例

岡部孝一・藤元栄輔・中川清昌・山本悦秀

A case of ameloblastic fibroma at the apical region
of the left mandibular molar

Koichi OKABE・Eisuke FUJIMOTO・Kiyomasa NAKAGAWA・Etsuhide YAMAMOTO

Abstract: Ameloblastic fibroma is generally classified as an odontogenic mixed tumor and is composed of odontogenic epithelium and mesenchymal tissue, without hard tissue formation. Its occurrence is rare. Ameloblastic fibromas have been reported in only 63 patients in the Japanese literature.

We encountered an ameloblastic fibroma at the apical region of the left mandibular molar. The patient was a 24 year-old woman with a the chief complaint of a hard swelling of the left molar region. X-ray examination showed a monolocular radiolucent shadow at the apex of 「6」. The clinical diagnosis was a radicular cyst.

Enucleation of the tumor and tooth extraction of 「6」 was done under general anesthesia. There has been no evidence of recurrence.

Key words: ameloblastic fibroma (エナメル上皮線維腫), mandible (下顎)

緒 言

今回われわれは、左側下顎第一大臼歯根尖相当部に発生したエナメル上皮線維腫の一例を経験したので、その概要を報告する。

症 例

患 者：24歳・女性

初 診：1988年2月■日

主 訴：左側下顎臼歯部歯肉の腫脹

既往歴：昭和50年虫垂炎の手術

家族歴：父、膵臓癌で死亡

現病歴：昭和62年頃から左側下顎臼歯部歯肉に違和感を覚えるようになり、さらに昭和63年1月初めに、腫脹を認めるようになったため某歯科を受診したところ、左側下顎第1大臼歯根尖部の透過像を指摘され、同医の紹介にて当科来科した。

現 症

全身所見：体格は中等度で栄養状態は良好であった。

顔貌所見：左側下顎部に軽度腫脹を認めた。

口腔所見：「6」頬側歯肉に軽度の腫脹、圧痛と同歯に軽度打診痛を認めた。

X線所見：「6」根尖相当部に拇指頭大の境界明瞭で白色硬線に囲まれた透過像を認めた(写真1, 2)。

臨床診断：「6」部歯根嚢胞の疑い

処置および経過：上記診断のもと、全身麻酔下に、「6」抜歯および嚢胞摘出術の予定で手術を開始した。しかし、摘出操作を進めたところ根尖病変は充実性であったことより腫瘍性病変と考えられた。病変の骨面からの剥離・摘出は容易で、「5」や「7」との関連は認められなかった。また、「6」と腫瘍との癒着も認められなかった。術創は開放創として手術を終了した。術後経過は良好で、術後5年を経過しているが、再発の徴候は認められていない。

摘出物所見：摘出物は28×13×10mmで、歯と接していた上面に凹凸が認められたが、下面は平滑で、灰白色、薄い皮膜にて被われていた。断面は白色を呈し、充実性であった(写真3)。

病理組織学的所見：歯乳頭に似た間葉組織のなかに歯原性上皮の小塊状ないし細い索状の増殖巣が散在性

金沢大学医学部歯科口腔外科学講座

(主任：山本悦秀教授)

Department of Oral Surgery, School of Medicine,
Kanazawa University (Chief: Prof. Etsuhide
Yamamoto)

受付日：平成5年11月10日

写真1 オルソパントモグラム (初診時)

写真2 オルソパントモグラム (初診時・拡大)

写真3 左: 摘出物写真
右: 断面写真

写真4 病理組織像 (H-E 染色, 弱拡大像)

に認められた。上皮細胞巣は立方形から高円柱状の形態を呈しており、内部には星状細胞が認められた。間葉の部分は浮腫状、粘液腫状で、未熟な紡錘形細胞、星状細胞が増殖していた。また、間葉組織が上皮巣に接する部分には硝子様無構造層を認めた。間葉組織の細胞に一部、核の軽度の大小不同や過染色性が認められたが、分裂像はなく、悪性とは考えられなかった(写真4)。

病理組織学的診断: エナメル上皮線維腫

考 察

エナメル上皮線維腫は Weiches Odontoma, soft mixed odontogenic tumor, soft mixed tumor, fibroadamantoblastoma, エナメル上皮腫の4型, 軟性繊維腫性琺瑯上皮腫などと、過去、さまざまな名称で呼ばれてきた。しかし、1952年にアメリカ口腔病理学会¹⁾が、また1971年にWHO²⁾が ameloblastic fibroma とする分類を提唱し、現在一般に使用されている。

本腫瘍は、歯源性腫瘍の中でも、その頻度はきわめて低く、Gorlin ら³⁾は、2243症例中43例(1.9%)であったと述べている。石川⁴⁾はエナメル上皮腫108症例に対し3例であったと報告している。

今回渉猟し得た本邦報告例は自験例を含め63症例で、それによると性別では男性38症例、女性25症例、男女比1.52と男性に多いという結果であった。それに対し、Slootweg⁵⁾、Shafer⁶⁾、Gorlin ら³⁾は明確な

性差を認めないが、Heusch ら⁷⁾、Trodahl ら⁸⁾は男性に多いとしている。

発現年齢は一般に若年者に多いとされており、本邦報告例63症例での年齢分布は、生後10か月から68歳までで、平均年齢は20.7歳で、20歳未満で全体の61.9%を占めていた。それに対しGorlin ら³⁾は43症例中、その年齢分布は6か月から42歳で、平均年齢は16歳、Trodahl⁸⁾は24症例で年齢分布は1.5歳から41歳で平均年齢は15.5歳と報告している。欧米の報告に比較し本邦では平均年齢は比較的高いという結果であった。

発現部位はエナメル上皮腫と同様に、下顎臼歯部に多いとされており、本邦報告例では63症例中32症例(50.8%)であった。Gorlin ら³⁾は23症例中13症例(56.5%)、Trodahl⁸⁾は24症例中15症例(62.5%)が下顎臼歯部に認められたと報告しており、本邦の報告とはほぼ一致した。さらに顎角部にまで進展した症例が5例認められた。下顎に多く認められる原因は石川⁴⁾がエナメル上皮腫において述べているのと同様に、下顎の解剖学的特徴が関係しているのではないかと考えられるが、エナメル上皮腫と比べると、上顎発生例も多く、上下顎に認められた症例を含めて本邦での63症例中15症例(23.8%)が上顎に認められた。また清水⁹⁾は上下顎と広範に発生したエナメル上皮線維腫を報告している。また、周辺性に発生したものが3例認められた。

本腫瘍は特徴的な臨床所見が乏しく、臨床的な鑑別

診断がほとんど不可能である。本症例は「6」が失活歯であったこと、同歯に軽度打診痛、根尖相当部に軽度圧痛を認めたこと、オルソパントモグラムおよび歯科X線写真において拇指頭大の境界明瞭な透過像を示し、白色硬線において囲まれ、「6」の歯槽硬線と連続していたことなどから歯根嚢胞を疑った。しかし、手術後、再度観察してみるとX線所見で歯根嚢胞と診断するには、やや透過性が低く、手術所見と相応していた。

また、本邦で報告された63症例のうち、X線所見上、多房性、単房性かの記述がある報告は44症例(69.8%)であり、そのうち単房性の症例18症例(40.9%)、多房性の症例が26症例(59.1%)で多房性の方が多いという結果であった。

また、文献上、生検の結果の記載のある症例は63症例中31症例(49.2%)であった。得られた診断の31症例の内訳は、エナメル上皮線維腫と診断された症例は24症例(77.4%)、エナメル上皮腫が3症例(9.7%)、歯原性粘液腫、歯原性線維腫、歯原性腫瘍、診断がはっきりしなかった症例がそれぞれ1症例(3.2%)であった。生検の結果が最終診断と一致しない症例が少なからず認められた。

63症例中処置に対する記載があるものは61症例でその内訳は腫瘍摘出術が46症例(75.4%)で最も多く、その他、部分切除術を施行した症例が7症例(11.5%)、下顎骨半側切除術を施行した症例が3症例(4.9%)、関節離断術を施行した症例が2症例(3.2%)であった。そのほかにも、放射線療法を施行した症例が2例、悪性腫瘍と診断され、頸部郭清術を施行した症例が1例、凍結療法を施行した症例が1例認められた。また、笠原ら¹⁰⁾は、顎骨保存の目的で本腫瘍に対し反復処置法を行い経過良好であったと報告している。

隣接歯の処置としては抜歯した症例が多いが、歯根端切除を施行し保存した症例も少なからず認められる。

本腫瘍の予後は良好で、一般にエナメル上皮腫と比較して、再発はまれであり、通常は単純摘出が行われる¹¹⁾。しかし、本邦でも4例の再発例が報告されている。Trodahl⁸⁾は24症例中10症例(41.7%)に再発が認められたと報告している。また、非常に稀であるが、エナメル上皮線維肉腫への悪性化の報告もある¹²⁾。

したがって、骨内への浸潤が認められる場合や、病変が多房性に複雑な様相を呈する場合は、不完全な摘出が行われ、再発の可能性もあるので、腫瘍の周囲骨を含めた広範囲の切除が必要となる場合も考えられる¹³⁾。

本症例の術前診断は歯根嚢胞であり、単純摘出術を行った。術後の病理組織学的所見にて浸潤性の発育を認めないため、経過を観察している。今後も定期的に経過観察の予定である。

結 語

下顎大臼歯根尖部に発生したエナメル上皮線維腫の一例を経験したので若干の考察を加え報告した。

引 用 文 献

- 1) Robinson, H.B.G.: Proceedings of the fifth annual meeting of the American Academy of Oral Pathology, Stevens Hotel, Chicago, February 4, 1951, Odontogenic tumors: A Resume of the Discussions at the Mid-Year Symposium of the Academy. Oral Surg 5: 177-178 1952.
- 2) Pindborg, J.J. and Kramer, I.R.H.: Histological typing of odontogenic tumors, jaw cysts, and allied lesions. WHO, Geneva, 1971, p18-27.
- 3) Gorlin, R.J.: Odontogenic tumors. In Gorlin, R.J. and Goldman, H.M. (eds.): Thoma's Oral Pathology I. 6th Ed, Mosby Co., St Louis, 1970, p481-513.
- 4) 石川梧朗, 秋吉正豊, 他: 口腔病理学 II. 第2版, 永末書店, 東京, 1982, 502-504頁.
- 5) 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.
- 6) Shafer, W.G., Hine, M.K., et al.: A Textbook of Oral Pathology 4th ed, W.B. Saunders Co, Philadelphia, 1983, p304-306.
- 7) Huebsch, R.F. and Stephenson, T.D.: Recurrent ameloblastic fibroma in a 3-year-old boy. Oral Surg 9: 707-714 1956.
- 8) Trodahl, J.N.: Ameloblastic fibroma. Oral Surg 33: 547-558 1972.
- 9) 清水正嗣: 上下顎に進展した悪性腫瘍を疑われたエナメル上皮線維腫の1例. 歯科広報 39: 1-9 1976.
- 10) 笠原和恵, 小林一三, 他: 反復処置法を行ったエナメル上皮線維腫の1例. 北海道歯誌 12: 40-47 1992.
- 11) 金澤正昭: 腫瘍および腫瘍類似疾患 良性腫瘍. 高橋庄二郎, 園山昇, その他編集: 標準口腔外科学. 第2版, 医学書院, 東京, 1994, 202頁.
- 12) Reichart, P.A. and Zobl, H.: Transformation of ameloblastic fibroma to fibrosarcoma. Int J Oral Surg 7: 503-507 1978.
- 13) Zallen, R.D., Preskar, M.H., et al.: Ameloblastic fibroma. J Oral Maxillofac Surg 40: 513-517 1982.