メラニン色素沈着を伴ったエナメル上皮線維象牙質腫の1例 およびエナメル上皮線維歯牙腫の1例

和久田哲生・斉木智章・渡辺 諭
村上 慶・伊藤隆利・北野元生*

A case of pigmented ameloblastic fibroidentinoma and one of pigmented ameloblastic fibroodontoma

Tetsuo WAKUDA・Tomoaki SAIKI・Satoshi WATANABE
Kei MURAKAMI・Takatoshi ITOH・Motoo KITANO*

Abstract: A case of pigmented ameloblastic fibroidentinoma and one of pigmented ameloblastic fibroodontoma, both arising in the mandible, are reported.

Case 1: An 8-year-old girl visited our clinic for further evaluation of a radiolucent area in the left side of the mandible, found by a dentist. Radiographic examination demonstrated a circumscribed radiolucent mass at the root apex of the left second deciduous molar. The clinical diagnosis was a mandibular cyst. The lesion was removed with the patient under intravenous sedation. A postoperative pathological examination disclosed a pigmented ameloblastic fibroidentinoma. Reexamination 7 years after the operation revealed no recurrence of the lesion.

Case 2: A 10-year-old girl presented with delayed eruption of the right mandibular first molar. Radiographs revealed a multicystic radiolucent lesion, which contained some small radiopaque masses from the right second premolar to the ascending ramus. The clinical diagnosis was a mandibular tumor. The tumor was extirpated with the patient under general anesthesia. The postoperative histopathological diagnosis was a pigmented ameloblastic fibroodontoma. There has been no evidence of recurrence as of 2 years 4 months postoperatively.

Key words: ameloblastic fibroodontoma (エナメル上皮線維歯牙腫), ameloblastic fibroidentinoma (エナメル上皮線維象牙質腫), melanin pigment (メラニン色素)

緒 言

エナメル上皮線維象牙質腫とエナメル上皮線維歯牙腫はエナメル上皮線維腫に類似する歯原性上皮と間葉系組織との間に、象牙質あるいはエナメル質などの硬組織の形成が認められるもので、比較的まれなものとされている。

今回われわれはメラニン色素の沈着を認めたエナメル上皮線維象牙質腫とエナメル上皮線維歯牙腫を経験したので報告する。

症 例

症例1: 8歳, 女児。

(Chief: Takatoshi Itoh)

*Department of Oral Pathology, Kagoshima University Dental School (Chief: Prof. Motoo Kitano)

受付日: 平成10年1月6日

医療法人伊東会伊東歯科医院

(主任: 伊東隆利院長)

*鹿児島大学歯学部口腔病理学講座

(主任: 北野元生教授)

Medical Foundation Itoh Kai Itoh Dental Clinic

写真1 症例1のパノラマX線写真.

- a: (術前)「E」根尖相当部に単房性の拇指頭大, 類円形の境界明瞭なX線透過像を認める.
b: (術後) 7年経過後のパノラマX線写真において「45」は萌出し腫瘍の再発は認められず経過良好である.

写真2 症例1の病理組織像.

- a: 間葉系の組織の中に歯原性の上皮巣と象牙質様の硬組織を認める(弱拡大, H-E染色).
b: 上皮巣の中にメラニン色素を有するメラノサイトの存在(矢印)を認めた(中拡大, Fontana-Masson染色)

写真3 症例2のパノラマX線写真.

- a: (術前) パノラマX線写真にて「7」に拇指頭大の境界明瞭なX線透過像を認め, 内部には顆粒状のX線不透過像を認める.
b: (術後) 術後2年4か月経過し再発等の異常所見は認められない.

写真4 症例2病理写真像.

- a: 間葉系の組織の中に歯原性の上皮巣とエナメル質様の硬組織(矢印)を認める(弱拡大, H-E染色).
b: 上皮巣の中にメラニン色素の沈着(矢印)を認める.

初診: 年 月 日.

主訴: 左下臼歯部の痛み.

家族歴および既往歴: 特記事項なし.

現病歴: 1991年3月31日近歯科医院を受診時, X線写真で下顎骨内の異常透過像を指摘されたため同年 月 当院を紹介され受診した.

現症:

口腔外所見: 異常所見は認められなかった.

口腔内所見: 「E」部頬側のわずかな膨隆以外特に異常所見は認められなかった.

X線所見: パノラマX線写真にて「E」根尖相当部に拇指頭大, 類円形の境界明瞭なX線透過像が認められた(写真1a).

臨床診断: 下顎嚢胞.

処置および経過: 1991年4月6日. 摘出術を施行した. 摘出物は薄い皮膜に被われていたが, 断面は充実性であったため腫瘍性病変を疑い再発の危険性を考慮し創部を開放創とした. 術後経過は良好で, 現在7年経過し再発等の異常所見は認められない(写真1b).

病理組織学的所見: H-E染色で浮腫状の間葉系の組織のなかに, 歯原性の上皮が塊状ないし, 索状をなして散在していた. 上皮巣の周囲には, 象牙質様の組織が認められた(写真2a). Fontana-Masson染色では, 上皮巣の中にメラニン色素を有するメラノサイトの存在が確認された(写真2b).

病理組織診断: エナメル上皮線維象牙質腫.

症例2: 10歳, 女児.

初診: 1996年5月13日.

主訴: 「6」萌出遅延.

家族歴および既往歴: 特記事項なし.

現病歴: 1996年5月13日「6」の萌出遅延が気になり当院を受診した.

現症:

口腔外所見: 特に異常所見はなかった.

口腔内所見: 異常所見は認めら

れなかった。

X線所見；パノラマX線写真にて右側下顎枝から5]遠心にかけて、多房性に拇指大の境界明瞭なX線透過像が認められ、内部には、顆粒状のX線不透過像が認められた(写真3a)。

臨床診断：下顎腫瘍の疑い。

処置および経過：1996年5月24日、腫瘤摘出術を行い開放創とした。摘出物は薄い線維性の皮膜に被われており、断面は充実性で顆粒状の石灰化様物を含んでいた。術後経過は良好で現在2年4か月経過し、再発等の異常所見は認められない(写真3b)。

病理組織学的所見：H-E染色で間葉性組織の中に、索状や塊状を成す歯原性の上皮細胞巣と歯胚様構造物を示す硬組織が散在していた(写真4a)。上皮巣の基底細胞層は円柱状あるいは立方形的上皮細胞からなり、内部はエナメル髓に類似した星状細胞が網目状に存在していた。Fontana-Masson染色では、上皮巣の中にメラノサイトの存在とメラニン色素の沈着が確認された(写真4b)。

病理組織診断：エナメル上皮線維歯牙腫。

考 察

エナメル上皮線維歯牙腫とエナメル上皮線維象牙質腫はX線的に嚢胞状の透過像の中に、硬組織の形成に応じた不透過像を認めるとされる。しかしながら、第1例のパノラマX線写真においては明らかな不透過像は認められなかった。

組織学的にはエナメル上皮腫と同様な組織の中に、象牙質のみあるいはエナメル質と象牙質の硬組織が存在するとされている。しかしながら、第1例および第2例ともに上皮巣の中にメラノサイトの存在とメラニン色素の沈着が認められた。このような報告は非常に少なく¹⁻⁴⁾、特にエナメル上皮線維象牙質腫については、われわれが文献を検索した範囲では、報告は認められなかった。メラニン色素を伴う歯原性嚢胞や腫瘍の発現については白人よりも黒人に多く認められているが、胎児の歯胚におけるメラノサイトの発現は白人と黒人に相違はなく、歯の成長していく過程においてメラノサイトの発現に違いがおけると報告されている³⁾。これらのことから腫瘍の成長していく過程にお

いてメラノサイトが突然上皮の周囲に組み込まれたりマクロファージにより貪食され移行し、運び込まれたものと考えられている⁴⁾。

治療方法としては、下顎骨を区域切除した例⁵⁾や再発後悪性転化した例⁶⁾があるため、単純な摘出術だけでは不十分になることもあり得ると考えられる。

本症例の場合は単純な摘出術を行っており、周囲骨を一層削除したがおよ長期的な経過観察が必要であると考えている。

結 語

今回われわれは非常にまれな、メラニン色素の沈着を伴うエナメル上皮線維象牙質腫とエナメル上皮線維歯牙腫の2例を経験した。とくに、メラニン色素沈着のみられるエナメル上皮線維象牙質腫は報告例としてはわれわれの渉猟した範囲では他に報告は見あたらなかった。そこで若干の考察を加え報告した。

引 用 文 献

- 1) 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.
- 2) Eda, S., Tokue, S., et al.: A melatonin ameloblastic fibro-odontoma. Bull Tokyo Dent Coll 18: 119-128 1977.
- 3) Lowson, W., Abaci, If., et al.: Studies on melanocytes. V. The presence of melanocytes in the human dental primordium: an explanation for pigmented lesions of the jaws. Oral Surg Oral Med Oral Pathol 42: 375-80 1976.
- 4) Kitano, M., Tada, S., et al.: Pigmented ameloblastic fibro-odontoma with melanophages. Oral Surg Oral Med Oral Pathol 77: 271-5 1994.
- 5) 葛原 武, 木下鞆彦, 他：下顎骨に生じたエナメル上皮線維歯牙腫の1例. 口科誌 43: 78-83 1994.
- 6) Howell, R.M. and Burkes, E.J.: Malignant transformation of ameloblastic fibro-odontoma to ameloblastic fibrosarcoma. Oral Surg 43: 391 1977.