埋伏過剰歯胚に連続して発生した先天性エプーリスの1例

齊藤美千代^{*,***}・樋口勝規^{*,**}・上月博子^{*,**}
光安岳志^{*,**}・大石正道^{***}

A case of congenital epulis associated with an impacted
supernumerary tooth germ

Michiyo SAITOH^{*,***}・Yoshinori HIGUCHI^{*,**}・Hiroko KOUZUKI^{*,**}
Takeshi MITSUYASU^{*,**}・Masamichi OHISHI^{***}

Abstract: Congenital epulis (CE) is a rare lesion, and CE associated with an impacted tooth is very rare. We encountered a case of CE attached to an impacted supernumerary tooth germ. The patient was a 1.5-year-old boy, and his parents noticed a pedunculated mass on the left anterior palatal gingiva from the time of birth. CE was diagnosed clinically. As the CE grew gradually during follow up, the mass was excised in toto. At surgery, we found CE contiguous with an impacted tooth germ, which we extracted at the same time. A radiographic examination 7 months after surgery revealed that the extracted tooth germ was a supernumerary tooth. The histopathologic diagnosis was fibrous overgrowth. Although the CE was contiguous with the tooth follicle, we found no histological evidence of CE arising from the tooth germ.

Key words: congenital epulis (先天性エプーリス), impacted supernumerary tooth (埋伏過剰歯)

緒 言

先天性エプーリスは新生児の歯肉に発生する良性・限局性の腫瘍で、1871年に Neumann によって初めて報告された。本疾患は比較的まれで、本邦での報告は堅田ら¹⁾によると65例で、歯胚に関連した報告はほとんどみられない。われわれは、埋伏した過剰歯胚に連続した本症の1例を経験したので、その概要を報告する。

症 例

患 者：1歳5か月、男児。

初 診：1997年9月■日。

主 訴：上顎左側乳切歯部口蓋歯肉の腫瘍。

既往歴：2卵性双生児の第1子で、妊娠36週で帝王切開にて出生した。乳児期の発育には問題なく、気管支喘息の他に特記事項はなかった。

現病歴：出生時より、上顎前歯部の口蓋歯肉の小腫瘍に家族が気付いていた。患者は当院の小児科で経過観察を受けていたが、腫瘍が徐々に増大してきたので、同科の紹介により当科を受診した。

現 症：

口腔外所見：特記事項なし。

口腔内所見：左上顎乳中切歯の口蓋側歯肉に、直径5mmの広基性腫瘍を認めた。表面平滑、弾性硬で、正常歯肉色であった。X線検索は患者の協力が得られず、行えなかった。

臨床診断：先天性エプーリス。

処置および経過：気管支喘息のため手術を行わず、外来で経過観察を行っていた。腫瘍は徐々に増大し、一部を下顎前歯が噛みこみ、潰瘍を生じたので、初診より5か月後の1998年2月■日、全身麻酔下に切除を施行した(写真1A)。

手術所見：腫瘍の基底部に切開を加えると、同部の口蓋

*国立病院九州医療センター歯科・歯科口腔外科
(主任：樋口勝規医長)

**国立病院九州医療センター臨床研究部
(主任：小柳左門部長)

***九州大学歯学部口腔外科学第1講座
(主任：大石正道教授)

*Department of Dentistry and Oral Surgery, National Kyushu Medical Center Hospital (Chief: Yoshinori Higuchi)

**Clinical Research Institute, National Kyushu Medical Center Hospital (Chief: Samon Koyanagi)

***1st Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Faculty of Dentistry, Kyushu University (Chief: Prof. Masamichi Ohishi)

受付日：平成12年1月19日

写真1

- A 術中写真
B 摘出物 (左: エプーリス, 右: 埋伏過剰歯)

写真2 術後デンタルX線写真

骨は欠損し、腫瘍は歯嚢に包まれた形成途中の歯胚と連続していた。そこで腫瘍と歯胚を一塊として摘出し、周囲の骨削除は行わず、表層の粘膜を縫合し可及的に閉鎖した。摘出した腫瘍は卵円形、大きさ $8 \times 6 \times 4$ mm、乳白色で、表層の一部に潰瘍を認めた。歯胚の形態は円錐状であった(写真1B)。

術後7か月に患者の協力が得られ、X線検索が行えた。パノラマおよびデンタルX線写真では、永久歯胚の欠損はみられず、腫瘍とともに摘出した歯胚は過剰歯胚であることが分かった(写真2)。術後経過は良好で、1年半後の経過観察では腫瘍の再発や当該部粘膜の異常はなく、乳歯の萌出は順調であった。

病理組織学的所見: 腫瘍は膠原線維に富む線維組織の増

写真3

- A エプーリスの全体像 (HE 染色 $\times 12$)
B エプーリス基底部 (HE 染色 $\times 67$)
基底部(左側)は歯嚢に連続

生からなり、表層は重層扁平上皮で被われていた。一部では潰瘍がみられ、その下層では拡張した毛細血管と炎症性細胞浸潤が著明にみられた。腫瘍基底部は歯嚢と同じくアルシアンブルー弱陽性の線維組織を認めた(写真3A, B)。なお、顆粒細胞はみられず、Labeled Streptavidin-Biotin法 (LSAB法) にてNeuro Specific Enolase (NSE)およびS-100蛋白の免疫染色を行ったが、いずれも陽性細胞の増殖はみられなかった。過剰歯胚は、表層にエナメル芽細胞が配列し、その下層にエナメル質、象牙質がみられ、発育途中の正常な歯の構造を呈していた。

病理組織学的診断: 線維性過形成。

考 察

1. 発生頻度

エプーリスはしばしば観察される疾患の1つであるが、新生児に認められる例は非常に少なく、福田ら²⁾はエプーリスと診断された193例のうち先天性エプーリスは僅か2例であったと報告している。性差は女兒に圧倒的に多く、好発部位は前歯部で、上顎に多い^{3, 4)}。

2. 組織像

先天性エプーリスの病理組織像は以下の2群に大別される。1つは顆粒細胞の増生を呈するもの(顆粒細胞腫型)で、他は成人のエプーリスと同様に炎症性、肉芽腫性や線維性の組織像を呈する群である。欧米では顆粒細胞腫型の報告が圧倒的に多く、本邦でも顆粒細胞腫型が半数以上を占める^{4, 5)}。

顆粒細胞腫型は成人の顆粒細胞腫との類似性⁶⁾や相違性^{7, 8)}について報告があり、歯胚原説⁹⁾、筋原説¹⁰⁾、神経または神経に関連した間葉系細胞説^{11, 12)}や血管周皮細胞説⁷⁾がみられるが、未だ統一された見解はみられない。

顆粒細胞腫型以外の先天性エプーリスについては、前述のごとく成人のエプーリスと同じで線維性または線維腫性が最も多く、次に肉芽腫性、筋原性の報告がみられる^{1, 4)}。

歯胚を伴う先天性エプーリスの報告は、本邦では、われわれが渉猟しえた限りにおいて僅か2例で、いずれも埋伏過剰歯であった^{5, 13)}。田中ら⁵⁾はエプーリスと埋伏歯が一塊として摘出でき、歯胚との関連が考えられたが、組織学的には明確にできず、肉芽腫性エプーリスであったと述べている。西嶋ら¹³⁾は間葉系組織に由来した線維性エプーリスを報告し、埋伏過剰歯とは位置の関係からエプーリスの発生と関係なかったと述べている。本報告例は、組織像は線維性過形成を呈していたが、腫瘤基底部分に歯胚と連続していたことや、基底部分では歯嚢に連続してアルシアンブルー染色で弱陽性を示したことから、歯胚由来の過剰腫である可能性を検討した。しかし、歯原性上皮や歯原性を思わせる他の所見を検索し得ず、確定するにはいたらなかった。

大川ら¹⁴⁾は文献の検索により手術時期による組織像の違いに着目し、手術時期が生後20日未満では全例が顆粒細胞腫型で、生後2か月以上経過した例は顆粒細胞腫型以外の例で、その間の例は両者が混在した組織像であったと報告している。これらの組織像の推移は、成長に伴うホルモンや免疫因子が内部環境の変化に応じて顆粒細胞が消失し、線維性結合組織へと置換されたものと推測している。本報告例は生後22か月で手術を行ったが、線維性過形成を示し、大川らの報告の生後2か月以上の手術例と同じ結果である。

3. 治療法

治療は外科的切除が一般的であるが、腫瘤茎部の結紮後の脱落例や自然脱落例¹⁵⁾がみられることから、哺乳、摂食障害や歯萌出障害がなければ、しばらく経過観察を行うのが望ましいと思われる。しかし、腫瘤の増大やそれに伴う口唇閉鎖の障害などがみられれば早期に切除すべきで、症例に応じた治療法の選択が必要である。予後は良好で、切除や自然脱落の後の再発の報告はない。

本報告例は術前のX線検索が出来なかったため、歯との関連の情報がないままに手術を行った。腫瘤の基底部分と連続していた歯胚を一塊として摘出したが、腫瘤茎部の結紮あるいは腫瘤のみの切除にとどめ、経過観察の後に歯胚の処置を検討しても良かったのではないと思われる。術後のX線検索で、腫瘤とともに摘出した歯胚は過剰歯胚であったが、後続永久歯胚に連続してエプーリスが発生する可能性も考えられるので、歯の処置については十分な考慮

が必要である。

結 語

われわれは、埋伏過剰歯の歯胚に連続して発生したきわめてまれな先天性エプーリスの1例を経験した。患者は1歳5か月の男児で、左側上顎前歯部口蓋歯肉にみられ、病理組織学的診断は線維性過形成であった。

文 献

- 1) 堅田 裕, 林 誠一, 他: 先天性エプーリスの1例. 日口誌 12: 210-213 1999.
- 2) 福田容子, 戸塚盛雄, 他: エプーリスの病理学的検討. 第1報 症例の概要. 岩医大歯誌 10: 136-141 1985.
- 3) Damm, D.D., Cibull, M.L., et al.: Investigation into the histogenesis of congenital epulis of the newborn. Oral Surg Oral Med Oral Pathol 76: 205-212 1993.
- 4) 亀山嘉光, 榊 祥宏, 他: 先天性エプーリスの1症例. 日口外誌 37: 106-111 1991.
- 5) 田中英一, 保津恭子, 他: 先天性エプーリスの2症例. 小児歯誌 22: 560-570 1984.
- 6) Kaiserling, E., Ruck, P., et al.: Congenital epulis and granular cell tumor. A histologic and immunohistochemical study. Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod 80: 687-697 1995.
- 7) Rohrer, M.D. and Young, S.K.: Congenital epulis (gingival granular cell tumor): Ultrastructural evidence of origin from pericytes. Oral Surg 53: 56-63 1982.
- 8) Junquera, L.M., de Vicente, J.C., et al.: Granular-cell tumors: an immunohistochemical study. British J of Oral & Maxillofac Surg 35: 180-184 1997.
- 9) Custer, R.P. and Fust, J.A.: Congenital Epulis. Am J Clin Pathol 22: 1044-1053 1952.
- 10) Zarbo, R.J., Lloyd, R.V., et al.: Congenital gingival granular cell tumor with smooth muscle cytodifferentiation. Oral Surg 56: 512-520 1983.
- 11) Takahashi, H., Fujita, S., et al.: Immunohistochemical study of congenital gingival granular cell tumor (congenital epulis). J Oral Pathol Med 19: 492-496 1990.
- 12) Ugras, S., Demirtas, I., et al.: Immunohistochemical study on histogenesis of congenital epulis and review of the literature. Pathology International 47: 627-632 1997.
- 13) 西嶋克己, 出崎邦彦, 他: 先天性エプーリスの1例. 小児歯誌 9: 5-10 1971.
- 14) 大川正直, 平本道昭: 先天性エプーリス—縮小傾向を示した一例—. 耳鼻臨床 75: 349-355 1981.
- 15) 大滝晃一, 高橋克弥, 他: 自然脱落した先天性エプーリスの1例. 日口誌 35: 401-405 1986.