エナメル上皮線維歯牙腫の2例

新田幸司・林 英司・藤澤健司・鎌田伸之
長山 勝・石丸直澄*・林 良夫**

Two cases of ameloblastic fibro-odontoma

Kouji NITTA・Eiji HAYASHI・Kenji FUJISAWA・Nobuyuki KAMATA
Masaru NAGAYAMA・Naozumi ISHIMARU*・Yoshio HAYASHI**

Abstract: We report two cases of ameloblastic fibro-odontoma, a rare odontogenic tumor. Patient 1 was a 12-year-old boy with a tumor in the right side of the mandible, and patient 2 was a 13-year-old boy with a tumor in the right side of the maxilla. The clinical diagnosis was a benign tumor of the mandible and an odontogenic tumor of the maxilla, respectively. The lesions were removed with the patients under general anesthesia. Histopathologically, the tumors showed proliferation of fibrous tissue and ameloblast-like epithelial cells. In addition, dentin-like and bone-like hard tissues were observed in the matrices of the tumors. On the basis of these findings, the tumors were diagnosed as ameloblastic fibro-odontomas. The courses of both patients were favorable with no sign of recurrence.

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

緒 言

エナメル上皮線維歯牙腫は、エナメル上皮線維腫と類似した組織像を呈し、腫瘍実質中に歯牙様硬組織の形成を伴うまれな歯源性腫瘍である。今回われわれは、下顎臼歯部および上顎臼歯部に発症した本腫瘍の2例を経験したので若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

症 例 1

患 者：12歳，男児。

初 診：平成7年6月

主 訴：右側下顎臼歯部歯肉の腫脹。

既往歴および家族歴：特記事項なし。

現病歴：約1か月前より右側頬部および「6」相当部歯肉に無痛性の腫脹をきたし、当科を受診した。

現 症：

口腔外所見：右側下顎部に骨様硬、鶏卵大の腫瘍がみられた。

口腔内所見：「6」が未萌出で「E」が晩期残存しており、「E」遠心部および「6」歯肉相当部に骨様硬の膨隆を触知した(写真1A)。

X線所見：「E」の遠心から下顎枝にかけて周囲骨とは境界明瞭な類円形の30×30mmの不透過像を認めた。下顎管および「6」の歯胚は不透過像の下方に圧排されていたが、「7」および「8」の歯胚は認めなかった(写真1B)。

臨床診断：右側下顎骨良性腫瘍の疑い。

処置および経過：平成7年7月，生検を行い，エナメル上皮線維歯牙腫との病理診断を得た。同年8月，全身麻酔下に口腔内より腫瘍摘出術を施行した。腫瘍は「E」および「6」歯肉相当部の直下に認められ、腫瘍組織と周囲骨との境界は明瞭で、比較的容易に剥離できた。「6」歯胚と腫瘍との連続性は認められなかった。「6」を保存し、完全に腫瘍を摘出した後、摘出窩内を骨バーにて一層削除し、開放創とした。術後は再発もなく経過良好である。

摘出物所見：大きさは32×28×25mmで弾性硬、表面平

徳島大学歯学部口腔外科学第一講座

(主任：長山 勝教授)

*徳島大学歯学部附属病院臨床検査室

(主任：森山啓司教授)

**徳島大学歯学部口腔病理学講座

(主任：林 良夫教授)

First Department of Oral and Maxillofacial Surgery, School of Dentistry, Tokushima University (Chief: Prof. Masaru Nagayama)

*Laboratory Medicine, Tokushima University Dental Hospital (Chief: Prof. Keiji Moriyama)

**Department of Pathology, School of Dentistry, Tokushima University (Chief: Prof. Yoshio Hayashi)

受付日：平成12年1月13日

写真1 症例 1

A: 口腔内写真

6 歯肉相当部に骨様硬の膨隆を認める。

B: パノラマ X 線写真

「E」の遠心から下顎枝にかけて境界明瞭な30×30mmの不透過像を認める。

写真2 症例 2

A: 口腔内写真

「765」は未萌出で「E」が晩期残存している。同部の歯肉にび慢性の腫脹を認め、「76」による圧痕がみられる。

B: パノラマ X 線写真

「4」から上顎結節に及ぶ類円形の境界明瞭な不透過像を認める。

写真3 病理組織像 (H-E 染色, 弱拡大)

A: 症例1 線維性組織の中にエナメル器に類似した形態をもった歯原性上皮(矢印)や、骨様を呈した硬組織を認める。

B: 症例2 膠原線維に富んだ結合組織中に、歯堤に類似した腫瘍細胞(矢印)の増殖や、象牙質などの硬組織の形成を認める。

滑、灰白色であり周囲は一層の被膜で覆われていた。剖面は灰白色充実性であった。

病理組織学所見: 腫瘍は、エナメル器に類似した形態をもった歯原性上皮および歯乳頭の細胞に類似した幼稚な線維芽細胞様細胞からなる間葉細胞の増殖が認められた。また、豊富な硬組織が認められ、それらの硬組織の一部は象牙質様で、大部分が骨様を呈していた(写真3A)。

病理組織診断: エナメル上皮線維歯牙腫。

症 例 2

患 者: 13歳, 男子。

初 診: 平成9年8月。

主 訴: 右側上顎臼歯部の腫脹。

既往歴および家族歴: 特記事項なし。

現病歴: 平成9年8月23日, う歯の治療のため某歯科を受診した際, パノラマ X 線写真にて「765」の埋伏と右側上顎臼歯部の不透過像を指摘され, 精査を希望し紹介により当科を受診した。

現 症:

口腔外所見: 顔貌は左右対称で, 異常所見を認めなかった。

口腔内所見: 「765」は未萌出で「E」が晩期残存していた。同部の歯肉にび慢性の腫脹を認め、「76」による圧痕がみられた。さらに、「76」相当の歯槽頂部には羊皮紙様感を触知した(写真2A)。

X 線所見: 右上顎臼歯部に「4」から上顎結節に及ぶ類円形の境界明瞭な不透過像がみられた。その中には多数の不正形の石灰化様陰影と「765」と思われる像を認めた(写真2B)。

臨床診断: 右側上顎歯原性良性腫瘍の疑い。

処置および経過: 平成9年9月全身麻酔下に腫瘍摘出術および「7654E」の抜歯術を施行した。まず、「4E」を抜歯し抜歯窩より骨の開削をすすめると, 表面灰白色の腫瘍を認めた。骨からの剥離はやや困難であったが一塊として摘出した。また、「765」の埋伏歯は歯冠が腫瘍に含まれていたため同時に抜歯した。摘出窩は上顎洞と交通したため, 上顎洞と単一腔とし, さらに摘出窩骨面は一層骨削除を行ったうえ, 創は一次閉鎖した。術後は再発もなく経過良好である。

摘出物所見: 腫瘍は線維性被膜に覆われた表面灰白色, 凹凸不整で, 大きさ48×40×28mm, 弾性硬であった。剖面は, 充実性で, 腫瘍実質中に歯牙様の硬固物が点在していた。

病理組織学所見: 膠原線維に富んだ結合組織中に, 歯堤に類似した腫瘍細胞の増殖が認められた。腫瘍細胞は小塊

状ないし索状,あるいはエナメル器に類似した形態を呈し,硬組織の形成を伴っていた.硬組織中には,象牙質などが認められた(写真3B).

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は,エナメル上皮腫や歯牙腫の一種あるいはエナメル上皮歯牙腫として扱われていた.1971年WHOの国際腫瘍組織分類でPindborgら¹⁾により区別して記載されてから,独立した疾患とする考え方が一般的となっており,1992年の第2版においても歯原性良性腫瘍の中で歯原性外胚葉性間葉を伴う歯原性上皮からなる腫瘍に分類されている²⁾.組織学的には,エナメル上皮線維腫に類似した組織中に種々の量の象牙質およびエナメル質が認められるものと定義されている³⁾.エナメル上皮線維腫から本腫瘍へと移行するとする説があるが,いまだにその起源についての定説はない.Slootweg⁴⁾はエナメル上皮線維腫は再発傾向があることよりエナメル上皮線維歯牙腫とは区別すべきであると,また,エナメル上皮線維歯牙腫は歯牙腫の発育過程にある腫瘍であると主張している.一方,Bernhoftら⁵⁾は,若年者においては複雑性歯牙腫に形態分化が明らかな症例以外は,エナメル上皮線維歯牙腫から歯牙腫への移行の予測は困難であると述べている.自験例においては2例とも組織学的にエナメル器に類似した形態をもった線維性組織内に象牙質やエナメル質などの歯牙様構造物からなる硬組織が認められたことから,エナメル上皮線維歯牙腫と診断した.本腫瘍の発現頻度は,歯原性腫瘍のなかで1%以下⁶⁾と低く,まれな疾患であり,若年者に好発することが知られている.本邦における過去の報告例⁷⁻¹⁵⁾をみると,その発症年齢は10歳以下の若年者が大半を占めていた.また,男女比ではやや男性に多くみられるようであった.好発部位としては,下顎臼歯部が大半を占めていた.自験例においては,2例とも12歳,13歳の若年者の男子であり,それぞれ下顎臼歯部と上顎臼歯部に腫瘍の発現がみられた.とくに第2例はまれな上顎臼歯部での発症であった.X線写真では,嚢胞状の透過巣の中に硬組織の形成に応じた不透過像を認めるといわれている³⁾が,自験例2例においても境界明瞭な単胞性の陰影がみられ,その内部に歯牙様の不透過像がみられた.

治療法としては,腫瘍は若年者に好発し組織学的にも比較的分化度が高いことから,一般的には摘出術が良いといわれている⁸⁾.そのため過去の報告例においてもほとんどの症例に摘出術が施行されていた.われわれも若年者であることから顎発育を考慮し,臨床的にも良性腫瘍と考えられたことなどから摘出術を選択した.本腫瘍はほとんどの症例で埋伏歯を伴うことが,報告されている.症例2は腫

瘍摘出術とともに埋伏歯の抜歯を行った.しかしながら症例1の「6」に関しては,腫瘍摘出後萌出途中で,現在正常位置へ誘導中であり,腫瘍の摘出術のみならず埋伏歯の保存を十分に考慮し,対応する必要があるものと思われた.本腫瘍の予後は一般的に良好とされており,本邦では再発例は報告されていない.自験例においても,それぞれ術後4年6か月および2年3か月になるが再発もなく経過良好である.しかしながら,国外では再発,悪性転化した報告¹⁶⁾もあるため,今後も長期にわたる経過観察が必要であると思われた.

引用文献

- 1) Pindborg, J.J. and Kramer, I.R.H.: Histological typing of odontogenic tumors, jawcyst, and allied lesions. WHO, Geneva, 18-27 1971.
- 2) Kramer, I.R.H., Pindborg, J.J., et al: International Histological Classification of Tumors. 2nd ed.: WHO, Geneva, 18-19 1992.
- 3) 石川梧朗, 秋吉正豊: 口腔病理学Ⅱ. 永末書店, 東京, 1975, 461-512頁.
- 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) 安岡 忠, 奥田 考, 他: 過去15年間に当科で治療を施行した歯原性良性腫瘍 統計および臨床的検討. 日口外誌 39: 58-60 1993.
- 7) 小野寺滋也, 大島 修, 他: エナメル上皮線維歯牙腫の1例. 昭和歯誌 13: 450-453 1993.
- 8) 竹澤友子, 小峰直行, 他: エナメル上皮線維歯牙腫の一例. 小児歯誌 31: 156-161 1993.
- 9) 大多和亜希, 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.
- 10) 辻 龍雄, 文 樹民, 他: 上顎洞内に発生したエナメル上皮線維歯牙腫の1例. 日口外誌 40: 1000-1002 1994.
- 11) 葛原 武, 木下勲彦, 他: 下顎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.
- 12) Kitano, M., Tsuda, S., et al.: Pigmented ameloblastic fibro-odontoma with melano-phages. Oral Surg Oral Med Oral Pathol 77: 271-275 1994.
- 13) 根岸明秀, 山田隆文, 他: 1歳男児の下顎骨前部に発症したエナメル上皮線維歯牙腫の1例. 日口外誌 40: 1087-1089 1994.
- 14) 川中正雄, 福辻美貴, 他: 下顎骨エナメル上皮線維歯牙腫の1例. 口科誌 47: 515-520 1998.
- 15) 小牧完二, 鯉江正人, 他: 下顎に発生したエナメル上皮線維歯牙腫の1例. 愛院大歯誌 37: 367-370 1999.
- 16) Howell, R.M. and Burkes, E.J.: Malignant transformation of ameloblastic fibro-odontoma. Oral Surg 43: 391-401 1977.