歯牙様硬組織を伴った先天性エプーリスの1例

世良 仁・大関 悟・田苗正夫
本田武司・林 秀*・本川 渉*

A case of congenital epulis with tooth-like hard tissue

SERA Hitoshi · OZEKI Satoru · TANAE Masao

HONDA Takeshi · HAYASHI Minoru*

MOTOKAWA Wataru*

Abstract: We report a rare case of congenital epulis with tooth-like hard tissue. The epulis was found on the palatal gingiva of a 1-year 5-month-old boy. It was a smooth, round mass with a pedicle that may have been connected to tooth-like hard tissue. The tumor was excised with the patient under general anesthesia. It consisted of fibrous connective tissue with rich vascularity. The histopathological diagnosis was fibrous epulis.

Key words: congenital epulis (先天性エプーリス), tooth-like hard tissue (歯牙様硬組織), EPMA (エレクトロンプローブマイクロアナライザー)

緒 言

先天性エプーリスは新生児の歯肉部に生じた腫瘤に対し、1871年 Neumann¹⁾ によって命名された。その発生機序については種々に論議されているが原因はいまだ解明されていない。なかでも埋伏歯など硬組織を伴った先天性エプーリスは比較的まれで、われわれが渉猟しえたもので数例を散見する程度である^{2, 3)}。今回われわれは、1歳5か月の男児に発症した歯牙様硬組織を伴った先天性エプーリスの1例を経験したので、その概要と若干の考察を加え報告する。

症 例

患 者：1歳5か月の男児。

主 訴：口蓋歯肉部の腫瘤。

既往歴・家族歴：特記事項なし。

現病歴：母親は、生下時より口蓋正中部の腫瘤に気づいたが放置した。生後11か月より腫瘤が増大傾向を示したため近在歯科医院を受診し、同医の紹介により当科を受診した。

現 症：

全身所見：体格、栄養状態ともに良好で全身的に異常所見を認めなかった。

口腔内所見：切歯乳頭部に表面平滑で一部びらんを伴い歯肉色を呈する弾性軟の直径約4mmの有茎性の腫瘤を認めた(写真1)。また圧迫しても痛がる様子もなく哺乳、摂食等に影響はなかった。

X線所見：1|1の歯胚間に歯牙様不透過像を認めるが、1|1の歯胚、切歯管との連続性は認められなかった(写真2)。

臨床診断：先天性エプーリス。

処置および経過：全身麻酔下に腫瘤の切除を行った。手術所見としては腫瘤基部に多量の肉芽形成を認めたためそれを搔爬したところ内部に長径4mm、短径3mm程の歯牙様硬組織を認めたためそれを摘出した(写真3)。その際、A|Aの根尖、1|1の歯胚あるいは切歯孔との交通は認められなかった。創面は吸収性縫合糸にて閉鎖した。腫瘤切除後は再発、歯牙への影響等なく順調に経過している。

福岡歯科大学口腔・顎顔面外科学講座
(主任：本田武司教授)

*福岡歯科大学成長発達歯学講座
(主任：本川 渉教授)

Department of Oral and maxillofacial surgery,
Fukuoka Dental College (Chief: Prof. HONDA
Takeshi)

*Department of Oral Growth and Development,
Fukuoka Dental College (Chief: Prof. MOTOKAWA
Wataru)

受付日：2002年9月5日

採択日：2003年2月18日

写真1 手術時口腔内写真(ミラー像)

写真2 X線写真(矢印: 歯牙様硬組織)

写真3 摘出標本写真
3×4 mm の歯牙様硬組織(左)と
4×4 mm の腫瘍(右)

写真4 病理組織像
(H-E 染色, 弱拡大)

細長い上皮突起と錯角化を伴う重層扁平上皮下は、コラーゲン線維の増生からなり、一部に軽度の炎症性細胞浸潤が認められる。

病理組織学的所見: 腫瘍は主にコラーゲン線維の増生からなる有茎性の腫瘍で、一部に軽度の炎症性細胞浸潤を認めた。また表面は細長い上皮突起を伴う錯角化性の重層扁平上皮により被覆されていた(写真4)。また硬組織の脱灰標本では、象牙質様組織(写真5-A)に接してセメント質様組織を認め、その内側には歯髓様組織を認めた(写真5-B)。

electron probe micro analyzer (以下 EPMA) 所見: 摘出標本の成分は、その多くをカルシウムあるいはリンにより占められており、特に表層はエナメル質と思われるカルシウム、リンの元素濃度が高い層を認めた(写真6)。

写真5 歯牙様硬組織の病理組織像 (H-E 染色, 中拡大)

A: 象牙細管と思われる小孔を多数認める。

B: セメント質様組織に接して歯髓様組織を認める。

写真6 EPMA (X線元素分析)

外側に境界明瞭なカルシウム、リンの元素濃度が高い部分を認める。

病理組織学的診断：線維性エプーリス。

考 察

先天性エプーリスは新生児の歯肉部に生じた腫瘤に対し、1871年 Neumann¹⁾ によって命名された臨床診断名であり、病理組織学的には必ずしも一定の構造を示すものではなく、臨床的所見あるいは病理組織学的所見なども考慮し、診断が下されている。またエプーリスの多くは炎症性、あるいは反応性の炎症であって真の腫瘍ではないとされており、不良補綴物、高度の歯石沈着などの機械的慢性刺激が局所的因子とされていることが小児に少ない理由の1つであると考えられている。本症例のように歯牙様硬組織を伴ったものは比較的珍しく、われわれが渉猟したかぎりでは数例を数えるのみである^{2, 3)}。

本症例では腫瘤の基部に歯牙様硬組織を認めたが、摘出された歯牙様硬組織は形態が不規則であり、形態のみでは歯牙であると判断することが不可能であった。その摘出標本が病理組織学的、EPMAでの成分分析の結果、エナメル質、象牙質、セメント質、歯髓の構造をもつ歯牙様硬組織であると判断できた。

先天性エプーリスの過去の報告では組織由来については多くの論議がなされており筋原説⁴⁾、神経原説^{5, 6)}、線維原説⁷⁾など種々の要因が挙げられているが、いまだ統一された見解は得られていない。また顆粒細胞腫と同様の組織像を呈することも多いとされている⁷⁻⁹⁾。両者に共通する

ものとして国内外の報告を問わず、およそ3:1で女児に多く、しかも大きな腫瘍が多いのに対し、男児には比較的小さなものが多く傾向が認められ^{10, 11)}、この性差については胎児が産成するエストロゲン、プロゲステロンなど性ホルモンが関与していると考えられている^{12, 13)}。また、大川ら¹⁴⁾は手術時の年齢により組織学的に顆粒細胞の出現が左右されることから、成長ホルモンや免疫因子が影響しているのではないかと推察している。しかし、いずれも現在のところ原因は明らかではない。本症例では病理組織学的に顆粒細胞の所見はなく、表面は細長い上皮突起を伴う錯角化性の重層扁平上皮により被覆されていた。またコラーゲン線維の増生と毛細血管に富み、部分的に炎症性細胞の浸潤が認められていた。これは腫瘍に哺乳、摂食時の乳首、舌などの機械的刺激が影響したのではないかと考えられた。また本腫瘍の切除の際、腫瘍基部から連続する肉芽形成が認められ、その内部に歯牙様硬組織が含まれていた。このことから、本症例はこの歯牙様硬組織に起因し発生した可能性が示唆された。しかし、その組織由来について明らかにすることはできなかった。

エプーリスの治療、経過としては切除、結紮脱落、放置などがあるが、一般的に外科的切除で再発なく良好な結果が得られている。切除の際は、腫瘍と原因菌との関連により歯牙、および、歯根膜、骨膜を含めて腫瘍を除去するのが原則であるとされている。自然脱落した例も報告されているが^{14, 15)}、哺乳障害、摂食障害等の機能的な障害を引き起こすまで増大する例も報告されていることから^{11, 13)}、腫瘍を発見した場合、早期に処置を行うべきであると考えられる。

結 論

1歳5か月の男児に発生し、手術所見、病理組織学的所見より歯牙様硬組織を伴った先天性エプーリスの1例を経験し、その病態を報告した。

本論文の要旨は、第13回小児口腔外科学会総会(2001年11

月、札幌)において発表した。

引 用 文 献

- 1) Neumann, E: Ein Fall von congenitaler Epulis. Arch Heik 12: 189-190 1871.
- 2) 西嶋克巳, 出崎邦彦, 他: 先天性エプーリスの一例. 小児歯誌 9: 5-10 1971.
- 3) 斎藤美千代, 樋口勝規, 他: 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. 日口外誌 46: 313-315 2000.
- 4) Zarbo, R.J., Lloid, R.V., et al.: Congenital gingival granular cell tumor with smooth muscle cytodifferentiation. Oral Surg 56: 512-520 1983.
- 5) Lack, E.E., Crawford, B.E., et al.: Gingival granular cell tumors of the newborn (congenital "epulis"): a clinical and pathologic study of 21 patients. Am J Surg Pathol 5: 37-46 1981.
- 6) Ugras, S., Demirtas, I., et al.: Immunohistochemical study on histogenesis of congenital epulis and review of the literature. Pathol Int 47: 627-632 1997.
- 7) 日坂照幸, 菅田辰海, 他: 先天性エプーリスの一症例. 口科誌 29: 119-124 1980.
- 8) Abrikossoff A.I.: Über Myome ausgehend von der quergestreiften willkürlichen Muskulatur. Virchow Arch Path Anat 260: 215-233 1926.
- 9) 磯部昌継, 小林 裕, 他: 口腔領域に発生した顆粒細胞腫の臨床的検討. 日口外誌 46: 286-288 2000.
- 10) 福屋安彦, 重原岳雄, 他: 先天性エプーリスの一例. 形成外科 28: 230-237 1985.
- 11) 藤井研一, 吉田 広, 他: 哺乳障害を伴った巨大な先天性エプーリスの1例. 日口外誌 28: 1539-1544 1982.
- 12) 足立忠文, 加島由紀子, 他: 先天性エプーリスの1例. 日口外誌 47: 273-275 2001.
- 13) 江幡晃治, 柴田 稔, 他: 哺乳障害が予測された巨大先天性エプーリス. 日口外誌 34: 2271-2276 1988.
- 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. 口科誌 35: 401-405 1986.