下顎前歯部に発生した大きな集合性歯牙腫の1例

露木基勝・大儀和彦・今井裕一郎

青木久美子・山本一彦・桐田忠昭

A case of a large compound odontoma in the anterior region of the mandible

TSUYUKI Motokatsu · OHGI Kazuhiko · IMAI Yuichiro

AOKI Kumiko · YAMAMOTO Kazuhiko · KIRITA Tadaaki

Abstract: An odontoma is an odontogenic, tumor composed of enamel, dentine, and cementum, commonly less than 30 mm in diameter. We describe a large compound odontoma arising in the left anterior region of the mandible.

A 16-year-old boy was referred by an orthopedist to our hospital for evaluation of a radiopaque lesion in the left side of the mandible. Clinical examination revealed a bony-hard swelling in the left anterior region of the mandible at presentation. The left mandibular canine and lateral incisor were not erupted. Radiographic and CT examinations showed a large, circumscribed, radiopaque lesion, measuring 30 × 40 × 28mm and surrounded by a thin radiolucent area accompanied by two impacted teeth. There were many small tooth-like structures within the lesion. The clinical diagnosis was odontoma. The tumor and the impacted teeth were surgically removed by an intraoral approach under general anesthesia. The tumor was covered by a thin capsule and consisted of 321 small tooth-like structures. The histopathological diagnosis was a compound odontoma. The clinical course has been uneventful for 4 years 3 months after surgery.

Key words: compound odontoma (集合性歯牙腫), anterior region of the mandible (下顎前歯部), large (大きな)

緒 言

歯牙腫は歯のエナメル質、象牙質およびセメント質などの歯牙硬組織の形成を伴う歯源性腫瘍である。歯牙腫は、複雑性、集合性を問わず多くは真の腫瘍ではなく過誤腫と考えられており、ある程度の大きさになると増殖が停止し、大きさが30mmをこえる症例は5%にすぎない^{1, 2)}。しかし、ときには自律性に発育し、単に組織奇形だけでは解釈できないような大きさにまで増殖することがある。組織学的には、3:2の割合で集合性歯牙腫が多く、その発生部位も前歯部や臼歯部など多様であるが³⁾、最大径30mmを超える大きな歯牙腫に限ると、そのほとんどが複雑性歯牙腫であり、発生部位は上下顎ともに大臼歯部に集中している⁴⁾。

今回、われわれは下顎前歯部の骨体部に生じた大きな集

合性歯牙腫の1例を経験したので、その概要を若干の考察とともに報告する。

症 例

患 者: 16歳, 男性。

初 診: 2002年7月30日。

主 訴: 左側オトガイ部のX線不透過像の精査。

現病歴: 自転車で行き中に転倒し、オトガイ部を強打したため近医整形外科を受診した。同院でのエックス線検査にて左側オトガイ部にエックス線不透過像を指摘され、精査目的で当科を紹介され来院した。

既往歴: 特記事項なし。

家族歴: 特記事項なし。

現 症:

全身所見: 体格中等度, 栄養状態良好。

口腔外所見: 顔貌は面長で、左側オトガイ部に突出感がみられた(写真1)。

口腔内所見: 左側下顎側切歯、犬歯が未萌出で歯列不正を認めた。また、同部の唇側歯肉から歯肉頬移行部に最大

奈良県立医科大学口腔外科学講座

(主任: 桐田忠昭教授)

Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Nara Medical University (Chief: Prof. KIRITA Tadaaki)

受付日: 2006年11月20日

採択日: 2007年4月24日

径 43mm の骨性の無痛性膨隆が認められた。粘膜表面の異常は認められなかった。

エックス線所見：パノラマエックス線写真にて、左側オトガイ部に周囲に一層の透過像を有する境界明瞭でかつ多数の歯牙様構造物を伴うエックス線不透過像を認めた。また、未萌出であった左側下顎側切歯、犬歯は歯根まで完成した状態でエックス線不透過像の下方に埋伏していた（写真 2A）。また、不透過像と周囲骨組織との境界には透過層がみられ、部分的に透過層の拡大が認められた（写真 2B）。

CT 所見：左側オトガイ部骨体は、唇側に膨隆しており、内部には周囲を一層の low density area で囲まれた多数の歯牙様の小塊状物から成る 30 × 40 × 28mm 大の不透過像を認めた（写真 2C）。

骨シンチグラム所見：オトガイ部付近骨体部に RI の集積が軽度認められた（写真 3）。

写真1 初診時口腔外写真
左側オトガイ部に突出感が認められた。

臨床診断：左側下顎集合性歯牙腫。

処置ならびに経過：上記臨床診断のもと、入院のうえ 2002 年 8 月 19 日全身麻酔下にて腫瘍摘出術および埋伏した左側下顎側切歯、犬歯の抜歯術を施行した。手術は口腔

写真2 術前の画像所見

- A：パノラマエックス線写真 多数の歯牙様構造物を伴うエックス線不透過像と、その下方に埋伏する左側下顎側切歯、犬歯を認めた。
- B：パノラマエックス線写真（歯牙腫部分を拡大） 不透過像と周囲骨組織との境界には透過層がみられ、部分的に透過層の拡大（矢印）が認められた。
- C：CT 画像 オトガイ部骨体が唇側に膨隆し、多数の歯牙様構造物を有する 30 × 40 × 28mm 大の不透過像を認めた。

写真3 骨シンチグラム像
病変部に RI の軽度の集積を認めた。

写真4 術中写真
軟組織に被覆された腫瘍が認められた。

写真5 摘出標本写真
歯牙様構造物が 321 個認められた。
全重量は 15g であった。

写真6 病理組織像

- A：硬組織部分 エナメル質，象牙質，セメント質の硬組織および歯髓組織から成るが歯牙様構造物がみられた（H-E 染色，×40）。
- B：軟組織部分 豊富な線維性組織中に，歯原性上皮が介在していた（H-E 染色，×40）。

写真7 術後4年3か月の所見

- A：口腔外写真 顔貌の変形は消失している。
- B：パノラマエックス線写真 再発はなく，骨欠損部の骨新生も認められる。

内より行い，粘膜骨膜弁を剥離後，骨膨隆部の被薄化した皮質骨を除去すると軟組織に被覆された腫瘍が認められた。その被覆軟組織中に多数の歯牙様構造物が存在してお

り（写真4），一塊として摘出するには困難であったため，鋭匙にて注意深く掻き出すように摘出した。摘出後その直下に存在する埋伏歯の抜歯を行った。下顎下縁と舌側の骨は保存することができたので，骨移植等は施行せず閉創し手術を終了した。

摘出標本所見：薄い被膜に覆われており，さまざまな大きさの歯牙様構造物が321個認められ（写真5），全重量は15gであった。

病理組織学的所見：硬組織は歯牙様形態を示しているものが多く，エナメル質，象牙質，セメント質等の硬組織および歯髓組織から形成されていた（写真6A）。また，軟組織は線維性組織が主体で，一部に歯原性上皮が介在していた（写真6B）。

病理組織学的診断：集合性歯牙腫。

術後経過：術後4年3か月を経過した現在，再発は認められず経過良好である。術前認められた顔貌の変形は消失し（写真7A），骨欠損部の骨新生も認められている（写真7B）。

考 察

歯牙腫の発生頻度は，歯原性腫瘍のなかではエナメル上皮腫に次いで多く約30%前後を占めている。腫瘍の大きさでは，30mm以下の症例が圧倒的に多く，全体の症例の95%を占めていると報告されている^{1, 2)}。われわれが渉猟し得た限りでは，1960年から2006年にわたる過去46年間では，最大径30mm以上の歯牙腫は，本邦において本報告例を含め30例報告されている。

表1 本邦における最大径30mm以上の上顎歯牙腫

	大きさ (mm)	年齢	性別	部 位	組織	報告者	報告年
1	55×30×30	16	女	左大臼歯部	複雑性	竹下ら ⁵⁾	1983
2	48×32×40	18	女	右大臼歯部	複雑性	望月ら ⁶⁾	2004
3	46×35×34	20	女	左大臼歯部	複雑性	下村ら ⁴⁾	1999
4	45×37×23	4	男	左大臼歯部	複雑性	鶴見ら ⁷⁾	1998
5	37×40×30	29	男	右大臼歯部	複雑性	堀ら ⁸⁾	1984
6	40×30×30	53	男	左大臼歯部	複雑性	加子ら ⁹⁾	1971
7	30×30×40	23	男	左大臼歯部	複雑性	秋山ら ¹⁰⁾	1979
8	40×30×30	9	女	右前～臼歯部	集合性	桜井ら ¹¹⁾	1990
9	40×30×20	37	男	左小臼歯部	複雑性	砂川ら ¹²⁾	1979
10	37×34×22	15	男	左大臼歯部	複雑性	児島ら ¹³⁾	1988
11	36×28×30	26	男	左大臼歯部	複雑性	滝川ら ¹⁴⁾	1971
12	25×18×35	59	男	左大臼歯部	複雑性	平井ら ¹⁵⁾	2001
13	25×35×30	20	男	左大臼歯部	集合性	山本ら ¹⁶⁾	1974
14	30×30×30	14	男	右大臼歯部	複雑性	加子ら ⁹⁾	1971
15	30×23×29	14	男	右大臼歯部	集合性	内藤ら ¹⁷⁾	1963
16	30×20×17	45	男	右大臼歯部	複雑性	滝川ら ¹⁴⁾	1971

最大径の大きさ順に掲載

表2 本邦における最大径30mm以上の下顎歯牙腫

No.	大きさ (mm)	年齢	性別	部 位	組織	報告者	報告年
1	70×50×30	19	女	右大臼歯部	複雑性	加子ら ⁹⁾	1971
2	52×21×29	29	男	左下顎枝部	複雑性	松野ら ¹⁸⁾	1994
3	50×40×30	19	男	左大臼歯部	複雑性	那須ら ¹⁹⁾	1962
4	50×40×30	24	男	左大臼歯部	複雑性	加子ら ⁹⁾	1971
5	50×40×30	14	女	左大臼歯部	集合性	原ら ²⁰⁾	1998
6	50×30×25	24	男	左大臼歯部	複雑性	滝川ら ²¹⁾	1979
7	47×32×27	8	女	左大臼歯部	複雑性	指出ら ²²⁾	1989
8	30×40×28	16	男	左前歯部	集合性	本症例	—
9	40×30×20	31	男	左大臼歯部	複雑性	松崎ら ²³⁾	1966
10	40×23×20	33	男	左大臼歯部	複雑性	大内ら ²⁴⁾	1990
11	40×20×20	56	男	左大臼歯部	複雑性	本田ら ²⁵⁾	1990
12	35×25×20	31	男	右大臼歯部	複雑性	堀田ら ²⁶⁾	1966
13	30×25×25	22	男	左大臼歯部	複雑性	佐藤ら ²⁷⁾	1965
14	30×20×20	43	男	左大臼歯部	複雑性	加子ら ⁹⁾	1971

最大径の大きさ順に掲載

上顎では、最大径が30～55mmまでの16例が報告されており^{4～17)}、部位別では大臼歯部が14例で、小臼歯部が1例、前歯から臼歯部にわたる例は1例であった。組織型別では複雑性が13例で、集合性が3例であった(表1)。

下顎では、最大径が30～70mmまでの14例が報告されており^{9, 18～27)}、部位別では大臼歯部が12例、下顎枝部が1例、前歯部は本症例のみであった。組織型別では複雑性が12例で、集合性は本症例を含め2例のみであった(表2)。

歯牙腫は、一般的には集合性と複雑性の比率がほぼ3:2の割合で集合性が多く、好発部位として集合性歯牙腫は

上顎前歯部、複雑性歯牙腫は下顎臼歯部とされている³⁾。しかし最大径30mm以上の大きな歯牙腫に限ると組織型別頻度、部位別頻度は上記と異なる。まず組織型別頻度は、複雑性歯牙腫が多く、複雑性25例に対し、集合性は本症例を含む5例のみであった。部位別頻度では、最大径30mm以上の歯牙腫の86%が上下顎大臼歯部(26例)に集中しており、下顎枝部(1例)、上顎小臼歯部(1例)、上顎前歯部から臼歯部にわたる例(1例)と続き、下顎前歯部では本症例のみであった。

また、集合性歯牙腫では、摘出標本がさまざまな形の小さな歯牙様構造物を含み、その数は数個から、ときには数百個に及ぶことがある。過去の報告において最多は4700個とされており²⁾、本邦でも泉ら²⁸⁾の250個の報告があるが、一般的には1個から19個の範囲のものが最も多く、本症例の321個は特記すべき数といえる。

本症例のように、下顎前歯部に発生し、歯牙様構造物を321個も含んでいた30×40×28mm大の大きな集合性歯牙腫は、部位、大きさ、歯牙様構造物の数の多さの点からまれな症例であると考えられる。

歯牙腫は、30mm以下の大きさの症例が95%を占め、一種の組織奇形、すなわち過誤腫に属するものと考えられており、硬組織の形成がある程度まで進むと増殖が停止するのが普通である。しかし、自律性発育や発育途中の病変にもしばしば遭遇し、単に組織奇形だけでは解釈できない症例^{20, 22, 31)}もみられる。石川²⁾は周辺部の軟組織が増殖を続け、歯牙腫全体の自律的発育が認められる歯牙腫は過誤腫というより真の腫瘍(過誤芽腫)と解釈すべきであると述べている。過誤芽腫の範疇に入れられる歯牙腫に関する明確な診断

基準はないが、歯牙腫が硬組織間や周辺でいまだ発育の途中であるか否かに関しては、諸家の報告において以下のような特徴が述べられている。

歯牙腫の周囲にある透過層の状態:歯牙腫は周囲に透過層を有し^{29, 30)}、骨組織との境界は明瞭である。樋口ら³¹⁾は、この透過層に着目し歯牙腫が発育途中にあるか否かは、透過層の状態から推察でき、透過層が広い場合ほど発育増大の可能性が高いと述べている。本症例においても、明瞭で広い透過層が認められた。

骨シンチグラムでの集積像:指出ら²²⁾は、シンチグラ

ムの性格上成熟した硬組織を主体とする歯牙腫では RI の取り込みがほとんどなく, RI 集積像を認める歯牙腫では, 活発な硬組織形成の一過程にあることが考えられ, 発育途中の可能性が高いと述べている. 本症例においても, 軽度ではあるものの病変部位に RI の集積像が認められた.

病理組織学的所見: 樋口ら³¹⁾は, 硬組織間に介在する被膜の線維性組織において上皮細胞や石灰化が認められる症例は, 発育増大の可能性が高いと述べている. 本症例においても, 豊富な線維性組織中に歯原性上皮が介在していた.

歯牙腫の埋伏歯との関係については, 中畑ら³⁾は, 歯牙腫の 66 % に埋伏歯が認められ, 埋伏歯を伴う症例は, 伴わない症例の 2 倍であったと述べている. 歯牙腫摘出時に埋伏歯を抜歯するか否かの判断は難しい. われわれの症例では, 左側下顎側切歯, 犬歯は歯根完成した状態で, 下方に圧排され埋伏していた. 歯牙腫を摘出しても, 埋伏歯の萌出は期待できないものと考え, 抜歯を選択した.

歯牙腫の予後は, 一般的に良好と言われている²⁾. 摘出後 4 年 3 か月経過するが, 再発はなく, 骨の新生も認められ経過良好である.

結 語

1. 今回, われわれは, 顔貌の変形を伴った下顎に発生した大きな集合性歯牙腫の 1 例を経験した.

2. 本症例は, 30mm を超える大きな歯牙腫としてはまれな下顎前歯部に発生しており, また歯牙様構造物を 321 個も含むなどの特徴を有していた.

3. 本症例は, 諸家が発育途中の歯牙腫の特徴として述べているエックス線所見や骨シンチ所見, 病理診断学的所見を有していた.

4. 摘出後 4 年 3 か月経過するが, 再発はなく, 骨の新生も認められオトガイ部の突出感も改善されている.

本論文要旨は, 第 57 回日本口腔科学会総会 (2003 年 5 月, 福岡市) において発表した.

引 用 文 献

- 1) 三村将文, 天笠光雄, 他: 歯牙腫の臨床的研究. 日口外誌 37: 1784-1790 1991.
- 2) 石川悟郎監修: 口腔病理学 II. 改訂版, 末永書店, 京都, 1982, 507-512 頁.
- 3) 中畑範彦, 金子賢司, 他: 本邦における歯牙腫の臨床病理学的検討. 日大口腔科学 2: 178-191 1976.
- 4) 下村泰代, 横井基夫, 他: 巨大な複雑性歯牙腫の 1 症例—最大径 30mm を超える歯牙腫報告の検討—. 口腔腫瘍 11: 35-41 1999.
- 5) 竹下貴久, 桐山 健, 他: 左側上顎部に発生した巨大な複雑歯牙腫の 1 症例. 日口外誌 29: 294-298 1983.
- 6) 望月美江, 新井直也, 他: 大きな上顎歯牙腫の 1 例.

日口外誌 50: 235-238 2004.

- 7) 鶴見邦夫, 神谷博昭, 他: 小児の上顎に生じた巨大な複雑性歯牙腫の 1 例. 小児口外誌 8: 38-41 1997.
- 8) 堀 稔, 榎本武司, 他: 複雑性歯牙腫の 3 症例. 口科誌 33: 321-327 1984.
- 9) 加子竜一郎, 広瀬典富, 他: 硬性歯牙腫 27 例の臨床的検討. 日口外誌 17: 417-422 1971.
- 10) 秋山芳夫, 阿部本晴, 他: 左上顎に発生した比較的大きな歯牙腫の 1 例. 愛院大歯誌 27: 519-523 1989.
- 11) 桜井希己江, 佐藤充弘, 他: 9 歳女兒の上顎にみられた巨大な歯牙腫の 1 例. 千葉医誌 66: 280 1990.
- 12) 砂川 元, 他: 左上顎洞部に発生した Complex Odontoma の 1 例. 北海道歯科医師会誌 34: 31 1979.
- 13) 児島三津男, 齊藤 進, 他: 上顎に生じた巨大な歯牙腫の 1 症例. 口科誌 36: 1076 1988.
- 14) 滝川富雄, 高沢延幸, 他: 上顎に生じた複雑性歯牙腫の 2 例. 日大歯学 45: 1-7 1971.
- 15) 平井経一郎, 村松泰徳, 他: 巨大な左側上顎複雑性歯牙腫の 1 例. 岐歯学誌 28: 111-114 2001.
- 16) 山本美朗, 北川武彦, 他: 巨大な歯牙腫の 1 例. 臨歯 276: 60-61 1974.
- 17) 内藤 清, 磯村 豊, 他: 上顎の複合性歯牙腫の 1 例. 日口外誌 9: 36-39 1963.
- 18) 松野智宣, 熊澤康雄, 他: 特異な組織構造を呈した複雑性歯牙腫の 1 例. 日口外誌 40: 1190-1192 1994.
- 19) 那須英司, 他: 巨大な歯牙腫の 1 例について. 日病誌 29: 187 1962.
- 20) 原 巖, 松本堅太郎, 他: 顎骨形態温存を計った比較的大きな下顎集合性歯牙腫の 1 例. 口腔腫瘍 10: 28-33 1998.
- 21) 滝川富雄, 小野正道, 他: 内部に大きな嚢胞腔の形成をみた複雑性歯牙腫の 1 例. 日大歯学 53: 567-570 1979.
- 22) 指出 豊, 塩入重彰, 他: 興味あるエックス線像を呈した下顎複雑性歯牙腫の 1 例. 日口外誌 35: 1982-1987 1989.
- 23) 松崎 久, 稲川俊文, 他: 硬性歯牙腫の 1 症例ならびに最近 10 年間の本邦歯牙腫の統計的観察. 耳鼻臨床 59: 679-683 1966.
- 24) 大内 肇, 芽沼悦子, 他: 下顎枝に発生した巨大な Odontoma の 1 例. 千葉医誌 66: 279 1990.
- 25) 本田武司, 小野 肇, 他: 比較的大きな複雑性歯牙腫の 1 例. 口腔腫瘍 4: 101-105 1992.
- 26) 堀田 一, 大塚輝裕, 他: 歯牙腫の 6 症例について. 口科誌 15: 395-402 1966.
- 27) 佐藤 匠, 三木 毅, 他: 大きな複合性歯牙腫の 1 例. 京大口科紀要 5: 24-31 1965.
- 28) 泉 広次, 工藤逸郎, 他: 集合性歯牙腫の 1 例. 歯月報 34: 624-625 1960.
- 29) 久野吉雄: 歯牙腫. 歯科ジャーナル 14: 621-626 1981.
- 30) Gibilisco, J.A.: Stafne's Oral Radiographic Diagnosis. 5th Ed, W.B. Saunders, Philadelphia, 1985, p197-p199.
- 31) 樋口勝規, 中村典史, 他: 歯牙腫の臨床病理学的検索その 2: X 線学的, 病理組織学的検討. 日口外誌 36: 1498-1505 1990.