症 例

下顎臼歯部歯肉に生じた巨大な骨形成性エプーリスの 1 症例

空 閑 裕 紀 尾 原 清 司 佐々木 秀 和
田 部 眞 治 吉 村 安 郎

要旨：エプーリスは歯肉に生じた良性の限局性腫瘍の総称で、比較的良好にみられる疾患である。今回われわれは、下顎歯肉に発生した巨大な骨形成性エプーリスの 1 例を経験したので報告する。患者は 78 歳、女性。右側下顎臼歯部歯肉の腫瘍形成を主訴に来院。腫瘍は右側下顎臼歯部歯肉にあり、弾性硬、有茎性であった。表面は平滑であるが数か所の潰瘍を伴っていた。

X 線写真では、腫瘍内に小さな放射線不透過性陰影が散在し、多くの石灰化物を思わせた。また、生検組織所見は炎症性肉芽組織であった。全身麻酔下に腫瘍摘出術を行ったところ、腫瘍下に歯槽窩を確認した。摘出物は約 61×48×40mm、重さ約 50g であり、組織学的には膠原線維の増生を伴う線維性結合組織と、骨芽細胞に囲まれた層板骨が散在していた。

最近 10 年間で長径 3 cm 以上の巨大なエプーリスについて 20 症例の文献を渉猟することができ、中でもわれわれの症例は中程の大きさであった。自験例を含めこれらの報告について、患者の年齢、性別、病変の部位、大きさ、治療について考察した。

キーワード：巨大な腫瘍、骨形成性エプーリス、文献的考察

緒 言

エプーリスは歯肉部に生じた良性の炎症性、反応性限局性腫瘍の総括的臨床名として広く用いられ、まれな疾患ではない。しかし、その発生部位が歯肉部であることより、早期に発見され処置されるため大きな腫瘍となることは比較的まれである。

われわれは、巨大な骨形成性エプーリスの 1 症例を経験したので報告する。

症 例

患者： 78 歳、女性。

初診：平成 13 年 10 月 17 日。

主訴：右側下顎臼歯部の腫瘍形成。

既往歴：平成 13 年 10 月 24 日、良性髄膜腫があることが明らかとなったが特に加療しないことになった。

家族歴：特記事項なし。

現病歴：平成 12 年 4 月頃、右側下顎歯肉部に腫瘍を自覚するが疼痛を認めないため放置していた。腫瘍は次第に増大し、平成 13 年 9 月には、腫瘍と同じ部位に 1 歯残存していたが自然脱落した。腫瘍の増大が継続するため平成 13 年 10 月 4 日、近歯科医を受診し、同日精査加療目的に

当科紹介初診となった。

現症：

全身所見：体格中等度、栄養状態良好。

口腔外所見：顔貌は左右非対称で、右側頬部から下顎部の腫脹により右鼻唇溝がやや消失し、右口角が伸展されていた（写真 1, A）。

右側顎下部に大豆大、小豆大 2 個のリンパ節を、左側顎下部には大豆大リンパ節を 1 個可動性、弾性やや硬として触知した。

口腔内所見：右側下顎小臼歯部から臼後部にかけて約 60×50×40mm 大、弾性硬の有茎性、可動性腫瘍を認めた。腫瘍の表面は平滑、色調は正常粘膜色、一部に白色、発赤部が混在しており、多発性に小潰瘍を認めた（写真 1, B）。

画像所見：パノラマ X 線写真では右側下顎小臼歯部歯槽骨の腫瘍の圧迫によると思われる骨吸収像と、腫瘍内部に大小不同の X 線不透過像が散在して認められた。

CT では右側頬部から下顎にかけて辺縁比較平滑な腫瘍を認め、内部は不均一で前方内側部に石灰化物と思われる像が散在していた。有意なリンパ節腫大はなかった（写真 1, C）。

臨床検査所見：WBC 9310/mm³, RBC 397×10⁴/mm³, Hgb 9.9g/dl, CRP 2.8mg/dl であった。他の血液および生化学検査において特記すべき項目は見いだせなかった。

臨床診断：右側下顎小臼歯部より臼後部にいたる歯肉エプーリス。

処置及び経過：平成 13 年 10 月 26 日腫瘍表面 3 か所よ

写真 1 初診時写真

- A : 顔貌写真
右側頬部から下顎体部へかけての腫脹をみとめる。
- B : 口腔内写真
右側下顎小白歯部から臼後部へかけて弾性硬、有茎性の大きな腫瘤が口腔内を占居している。
- C : 術前 CT 写真 (Axial)
石灰化物の存在を示唆する像 (矢印)。

写真 2 病理組織像

- A : 骨芽細胞に取り囲まれた層板構造を有した梁状の骨組織を認める (H-E 染色, ×40)。
- B : 上皮下組織は広範な線維化を示し、膠原線維の増生がある (H-E 染色, ×40)。

り生検を行ったが、病理組織学的にはいずれも「炎症性肉芽組織」であり、悪性所見は認められなかった。

同年 11 月 2 日全身麻酔下に腫瘍摘出術を施行。腫瘍は 4 3 相当部歯槽堤粘膜に基部を有し、これを含めて一塊として摘出した。腫瘍下の歯槽骨には 3 または 4 の抜歯窩

と思われる骨の陥凹を認めた。術後 8 か月の現在、再発の徴候なく経過良好である。

摘出物所見：大きさ約 61×48×40mm，重量約 50g。剖面は全体的に黄白色を呈し、充実性であった。

病理組織学的所見：上皮下組織は広範な線維化を示し、

表1 本邦における巨大なエプーリスの報告(大きい順に列挙:1991~2001)

No	報告年	性別	年齢	部位	大きさ (mm)	病歴期間	臨床診断	病理診断	処置	再発
1	中井ら 1994	F	45	右側上顎大臼歯部	100×50×35	?	良性腫瘍	線維性エプーリス	切除, 抜歯	なし
2	湯浅ら 1994	F	37	左側上顎臼歯部	80×85×45	2年2ヶ月	良性腫瘍	線維性エプーリス	摘出	なし
3	馬場ら 1999	F	54	左側下顎臼歯部	80×70×50	15年		骨形成性エプーリス	切除	なし
4	山城ら 1994	F	76	左側下顎前歯部歯肉	80×56×36	6年	エプーリス	骨形成性エプーリス	摘出	なし
5	横江ら 1996	M	56	右側上顎前歯部	80×50×45	18年	—	線維性エプーリス	摘出	なし
6	遠藤ら 1991	F	49	左側下顎大臼歯部	67×47×20	2~3年	—	線維性エプーリス	摘出	なし
7	日比ら 1999	M	44	下顎前歯部舌側歯肉	65×50×35	3年	—	線維性エプーリス	切除	なし
8	自験例 2001	F	78	右側下顎臼歯部	61×48×40	1年6ヶ月	エプーリス	骨形成性エプーリス	切除	なし
9	武田ら 1995	M	26	左側下顎臼歯部	60×50×45	11年	下顎腫瘍	骨形成性エプーリス	切除, 抜歯	なし
10	菅野ら* 1991	F	49	下顎前歯部歯肉	55×40×30	7年	良性腫瘍	エプーリス	摘出	なし
11	下山ら 1999	F	65	右側下顎臼歯部	53×50×30	2ヶ月	下顎腫瘍	骨形成性エプーリス	切除, 抜歯	なし
12	金子ら 2000	F	65	右側下顎臼歯部	53×50×28	2ヶ月	下顎歯肉腫瘍	骨形成性エプーリス	摘出	なし
13	川崎ら 1996	M	47	右側上顎臼歯部	50×47×28	5ヶ月	—	線維性エプーリス	切除	なし
14	浮谷ら 1994	M	47	6, 5] 頬側歯肉	50×30	8ヶ月	—	線維性エプーリス	摘出	なし
15	金ら 1999	F	72	上顎前歯口蓋部	50×30	20年	エプーリス	線維性エプーリス	切除, 3] 抜歯	なし
16	中村ら 1995	F	35	7] 遠心歯肉	36×25×47	9ヶ月	エプーリス	線維骨腫性エプーリス	8] 抜歯	なし
17	湯浅ら 1999	M	37	右側下顎臼歯部	45×40×30	1年6ヶ月	エプーリス	骨形成性エプーリス	摘出	なし
18	刀禰ら 1998	M	46	左側下顎臼歯部歯肉	40×35×30	3年	—	骨形成性エプーリス	切除, 15, 6] 抜歯	なし
19	菅野ら* 1991	F	41	左側下顎臼歯部	40×35×25	1年	良性腫瘍	エプーリス	切除, 17, 8] 抜歯	なし
20	川原田ら 1996	M	62	左側下顎臼歯部	40×20	3ヶ月	—	肉芽腫性エプーリス	摘出	なし
21	山本ら 1991	F	52	右側下顎臼歯部	35×30×15	—	エプーリス	骨形成性エプーリス	摘出	なし

*: 文献12による

骨形成の認められない腫瘍の後方部実質は膠原線維の増生をとともう線維性結合組織で満たされていた(写真2, B)。また表層から離れた歯槽骨側に、骨芽細胞に囲まれた層板構造の梁状骨組織を認めた(写真2, A)。骨形成周囲には粘液様、脂肪様変性が認められ、骨髓の形成も疑わせた。

病理組織診断: 骨形成性エプーリス

考 察

エプーリスの多くは炎症性ないし反応性の増殖物とされ、真の腫瘍であることは少ない。20~30 歳代が、全体の約40%を占め、男女比は1:2.2の割合で女性に多い。好発部位は上顎前歯部といわれている。病理組織学的には、肉芽腫性、線維性、血管腫性、線維腫性、骨形成性、巨細胞性に分類されており¹⁾、本邦での骨形成性エプーリスの全エプーリスに占める割合は、石川ら¹⁾は7.8%、石田ら²⁾は19%、好士³⁾は4.6%と報告している。今回われわれが渉猟し得た過去10年間の長径30mm以上のエプーリスの報告は、自験例を含め21例であった⁴⁻²²⁾(表1)。これら21報告例を見る限り、最小の症例でも最大径が35mm²²⁾であった。また、21例中骨形成性エプーリスは8例あり全エプーリスに占める割合に比較すると多く、これは「30mm以上のエプーリスは骨様組織を形成する物が多い」という報告^{23,24)}に矛盾しない。これら過去の報告例とその考察を検討すると、長径30mmを超えるエプーリスは、巨大という表現には議論があるところであるが、今回は30mm以上をもって巨大と定義することとした。その内、自験例の長径60mmは報告の中でも上位の大きさとなる。巨大エプーリスの性別は、男性8例、女性13例であり、全エプーリスの性差と変わらないと考えられた。発生年齢は、平均51.5歳となり、エプーリス全体から考えるとやや高齢であると思われるが、21症例のエプーリスの大きさと年齢には関係は見いだせず、病悩期間の長いものが多い傾向にあった。発生部位は好発部位といわれている上顎前歯部が最も少なく、上下顎とも臼歯部に好発している。これは上顎前歯という審美性の重視される部位では巨大になる前に処置がなされるからであろうと思われる。

臨床診断では21例中4例に悪性腫瘍が疑われた。本症例も腫瘍の増大が比較的速やかで、表面に一部潰瘍をともなっていたため、まず生検を施行し、良性であることを確認した。このような術前の精査により正しく診断し、これにより過剰な治療を防ぐことができるのではないと思われる。

エプーリスの発生原因は未だ明らかではなく、全身的因子としては先天性の体質的素因やホルモンの関与が挙げられ、局所的因子としては不良補綴物、歯の鋭縁、口腔衛生上の環境的因子も考えられている²⁴⁾。本症例では口腔清

掃状態が悪く、エプーリス発生部位に、自然脱落する様な歯が存在していたこと、またエプーリス基部歯槽骨に歯槽窩が確認できたことより、残存していた歯と、口腔清掃不良による慢性刺激がエプーリス発生になんらかの役割を果たしたと考えられる。

エプーリスにおける硬組織形成の成因はさまざまな報告があり、未だ解明されていない。歯根膜組織中の骨形成能を有する細胞に由来するという説²⁶⁾、潰瘍が治癒する過程で石灰化や骨化をともないつつ線維芽細胞様細胞が成熟して線維性組織になるという説^{24,27)}などがある。また最近、エプーリスの一つである calcifying fibroblastic granuloma の石灰化、骨形成は、様々な条件によって非造血器系の周皮細胞より直接形成されていることを示唆する結果が、免疫組織染色を用いて示された²⁸⁾。本症例においては、エプーリス発生時に歯が残存していたこと、骨形成部位が歯槽骨に近く、歯槽窩相当部であったことより歯根膜組織中の骨形成能を持った細胞の関与が大きいように思われたが、線維成分の豊富な領域に比較し、骨形成領域では血管成分が豊富であることは興味深い。

結 語

今回われわれは、巨大な骨形成性エプーリスの1症例を経験したので報告した。

文 献

- 1) 石川梧朗 監修; 口腔病理学Ⅱ, 改訂版, 永末書店, 京都, 1982, 229-240 頁.
- 2) 石田 武, 長谷川清, 他: エプーリスの分類と自験例 160 例の集計観察. 口科誌 30: 14-23, 1981.
- 3) 好士和夫: エプーリスの臨床的ならびに組織学的研究. 口病誌 26: 1662-1682, 1959.
- 4) 中井道明, 紀平晋也, 他: 巨大な線維性エプーリスの一例. 京府医大誌 103: 243-248, 1994.
- 5) 湯浅秀道, 村田晴彦, 他: 顔貌変形をきたすほど巨大化したエプーリスの1例. 日口外誌 40: 807-809, 1994.
- 6) 馬場信行, 松尾長光, 他: 顔貌変形をきたした巨大な骨形成性エプーリスの1例. 口科誌 48: 92-96, 1999.
- 7) 山城正司, 藤井英治, 他: 下顎に発生した巨大なエプーリスの1例(抄). 日口外誌 40: 563, 1994.
- 8) 横江秀隆, 青木洋大, 他: 口腔を占有する巨大な上顎線維性エプーリスの1例(抄). 口科誌 45: 338, 1996.
- 9) 遠藤美智子, 植木輝一, 他: 巨大な線維性エプーリスの1例(抄). 日口外誌 37: 2375, 1991.
- 10) 日比英晴, 中井英貴, 他: 下顎に発生した巨大なエプーリスの1例(抄). 日口外誌 45: 149, 1999.
- 11) 武田幸彦, 加藤譲治: 下顎に生じた骨形成性(骨腫性)エプーリスの1例. 日口外誌 41: 835-837, 1995.
- 12) 菅野和彦, 山野井弘充, 他: 下顎に生じた巨大なエプーリスの2例. 日口外誌 37: 1393-1394, 1991.
- 13) 下山哲夫, 金子貴広, 他: 巨大な骨形成性エプーリスの1例. 日大歯学 74: 229-232, 2000.

- 14) 金子貴広, 村上起人, 他: 巨大な骨形成性エプーリスの1例 (抄). 日口外誌 46: 1054, 2000.
- 15) 川崎一慶, 石倉信造, 他: 急速な発育を示し, 口蓋の半側を占めた線維性エプーリスの1例 (抄). 口科誌 45: 344, 1996.
- 16) 浮谷得子, 高森康次, 他: 上顎に発生した巨大なエプーリスの1例 (抄). 日口外誌 40: 563, 1994.
- 17) 金 建三, 連 利隆, 他: 口腔を占有した巨大エプーリスの1例 (抄). 日口外誌 45: 947, 1999.
- 18) 中村英治, 小野貢伸, 他: 巨大な線維骨腫性エプーリスの一例. 口科誌 44: 147-150, 1995.
- 19) 湯浅秀道, 杉浦正幸, 他: 柱状の骨形成を伴う巨大な下顎エプーリスの1例. 日口外誌 45: 718-720, 1999.
- 20) 刀襠大輔, 林 優, 他: 巨大な骨形成エプーリスの1例 (抄). 口科誌 47: 434, 1998.
- 21) 川原田裕子, 中瀬 実, 他: 巨大なエプーリスの一例 (抄). 日口外誌 42: 629, 1996.
- 22) 山本道直, 田渕順治, 他: 下顎臼歯部に発生した巨大な骨形成性エプーリスの1例 (抄). 口科誌 40: 683, 1991.
- 23) 福田容子, 戸塚盛雄, 他: エプーリスの病理学的検討 第3報: 硬組織形成性エプーリス. 日口外誌 34: 175-178, 1988.
- 24) 川崎五郎, 空閑祥浩, 他: エプーリスの臨床統計学的観察およびいわゆる骨形成性エプーリスについて. 口科誌 45: 80-85, 1996.
- 25) 森 恵造, 浜川裕之, 他: 骨形成性エプーリスの1症例. 日口外誌 34: 1399-1405, 1988.
- 26) 照屋正信, 山代正宏, 他: 上顎に生じた巨大な周辺生化骨性線維腫について. 日口外誌 29: 920-925, 1983.
- 27) Southam J.C. and Venkataraman B.K.: Calcification and ossification in epulides in man (excluding giant cell epulides). Arch Oral Biol 18: 1243-1253, 1973.
- 28) Dayoub S., Devlin H., et al.: Evidence for the formation of metaplastic bone from pericytes in calcifying fibroblastic granuloma. J Oral Pathol Med 32: 232-236, 2003.

A case of a large osteoplastic epulis on the mandibular gingiva

Yuki Kuga, Seiji Obara, Hidekazu Sasaki,
Shinji Tanabe and Yasuro Yoshimura

Department of Oral and Maxillofacial Surgery,
Shimane Medical University, School of Medicine
(Chief : Prof. Yasuro Yoshimura)

Abstract

Epulis is a general term for inflammatory hyperplasia of the gingiva. It is a common disease in the oral region. We reported a case of large epulis on the right premolar to molar gingiva of the mandible in a 78-year-old female. She complained of tumor formation on the right molar gingiva of the mandible, which was elastic hard, pedunculate, and had a smooth surface with multiple small ulcers.

Radiographically, small radiopaque areas were scattered in the mass, suggesting that the tumor had many calcified areas. Tissue biopsy revealed an inflammatory granulation tissue containing calcified bodies. After simple extirpation of the epulis, alveolar fossa was confirmed under the tumor.

Histopathologically, the specimen, which was $61 \times 48 \times 40$ mm in size and 50 g in weight, showed fibrous connective tissue including proliferation of collagen fiber and scattered lamellar bones surrounded by osteoblasts.

We could identify 20 previous reports of large epulides over the past 10 years, and our case proved to be of medium size among them. In this paper we reviewed patient's age, sex, position, size, and treatment of the previously reported cases.

Key words : large mass, epulis osteoplastica, review of literature

Requests for reprints to : Dr. Kuga Y., Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Shimane Medical University School of Medicine, 89-1, Enya-cho, Shimane, 693-8501 Japan.