臨

床

エナメル上皮線維歯牙腫の 1 例

水 谷 雄 大 西 正 俊 塩 入 重 明
 清 水 正 嗣 塩 田 重 利 小 守 昭*
 上 野 正**

東京医科歯科大学歯学部第 1 口腔外科学教室（主任：塩田重利教授）

*東京医科歯科大学歯学部口腔病理学教室（主任：石川梧朗教授）

**昭和大学歯学部第 1 口腔外科学教室（主任：上野 正教授）

（1977年10月17受付）

A Case of Ameroblastic fibro-odontoma

Yu Mizutani, Masatoshi Ohnishi, Shigeaki Shioiri, Masatsugu Shimizu,
 Shigetoshi Shioda, Akira Komori* and Tadashi Ueno**

Department of Oral Surgery I, School of Dentistry, Tokyo Medical and Dental University
 (Chief: Prof. Shigetoshi Shioda)

*Department of Oral Pathology, School of Dentistry, Tokyo Medical and Dental University
 (Chief: Prof. Goro Ishikawa)

**Department of Oral Surgery I, School of Dentistry, Showa University
 (Chief: Prof. Tadashi Ueno)

I. 緒 言

良性歯原性腫瘍の 1 つであるエナメル上皮線維歯牙腫 (ameloblastic fibro-odontoma) は歯胚の上皮成分と間葉成分の両者の増殖から成り、軟組織のみならず、硬組織すなわち象牙質およびエナメル質の形成を伴う比較的まれな腫瘍として報告、記載されている。

最近、われわれは上顎に発生した本腫瘍に対し、摘出術を含めた処置を行い臨床的に良好な結果を得たので、経過の概要および病理組織学的所見について報告する。

II. 症 例

患者： 18歳。女性。（病歴番号 1 口

外 1)

初診：1974年（昭和49年）12月20日

主訴：右上顎臼歯部の歯牙欠如

家族歴：特記すべきことなし。

既往歴：中学 3 年生のときに右側顔面神経麻痺に罹患したことがある。

現病歴：1974年 4 月、学校歯科検診の際に、右上顎臼歯部の歯牙欠如を指摘されたが無痛性のためそのまま放置。同年11月歯痛のため近所の歯科医院を受診し、右上顎歯牙欠如部のレントゲン検査の結果、異常があるとのことで紹介され当科を受診した。

現症：体格中等度、栄養状態は良好で、特に異常は認められなかった。顔貌は右頬部に軽度のびまん性腫脹がみられたほか右口角部付近には知覚

鈍麻が認められた (図1)。

図1 初診時顔貌所見

口腔内所見：右上顎臼歯部 87654 の歯牙は欠如しており，同部歯槽堤は頬側および口蓋側へ膨隆し，骨様硬で，被覆歯肉はほぼ正常な色調を呈していたが，下顎臼歯咬合面の歯牙圧痕が認められた (図2)。

図2 初診時口腔内所見，M部歯槽堤の膨隆がみられる

臨床検査所見：血液一般，血液生化学的検査，尿検査は正常範囲内であった。

X線写真所見：右上顎病変部のX線像は境界やや不明瞭で，前縁部の上顎前歯 321 の根尖部では透過性が増大し，上顎洞部では不透過性が増大するなど不規則な変化を伴って病変部上縁は右眼窩底にまで及んでおり，特に右上顎歯槽骨および同

骨体部は虫喰い状の骨吸収像を呈していた。また，同部には4根尖相当部から眼窩底後部にかけて4個の歯冠形態を思わせる硬組織像がほぼ直線的に配列しているのが認められた (図3)。

図3 オルソパントモグラム所見

初診時臨床診断：歯源性上顎腫瘍

処置ならびに経過：初診時に右上顎歯槽堤部より試験切除を行った。

病理組織学的所見 (No. 66173)：腫瘍は歯源性上皮の小塊を散在性を含む線維組織で，その中に類骨様の組織が不規則な形の塊りとしてかなりの量が形成され，これへの石灰化も認められた。そのごく一部にはエナメル質基質と思われるものがあり，この類骨様組織は異形性の象牙質と考えられ，エナメル上皮線維腫あるいはエナメル上皮線維歯牙腫との診断 (石川悟朗教授) を得た。

1975年3月5日，GOF 全麻下にて口腔内より腫瘍の摘出を行った。術式は，右上顎歯槽頂の頬側および口蓋側に切開を加え，粘膜を鈍的に剥離して腫瘍外壁を露出，1を抜去したのち眼窩下神経，動静脈を結紮，切断し，3 2を含めてまず腫瘍の前方3/4を切断摘出した。次いで，同部位より水平に上顎後部腫瘍1/4を摘出した。

術中所見より，腫瘍は右上顎洞前壁より上縁は右眼窩底，後縁は蝶形骨付近にまで及んでいた。摘出後は開放創とし，アクロマイシン・オリーブ・ワセリン浸漬のガーゼによりタンポナードを行い，術前の有歯顎上顎石膏模型より，Omnivac吸引装置 (米国 Omnidental Corp. 社) によりあらかじめ製作し，さらに切除した歯牙歯肉部にそ

れぞれの色調の即重レジンでプレート内側に流入して審美性を整えた透明上顎プレートをガーゼ保持用に装着して、手術を終了した(図4)。

図4 術直後、上顎プレートによるガーゼタンポン保持

術後2週間目の上顎実質欠損部の石膏模型で、Omnivac 吸引装置により装用中の上顎プレートに合わせて作製した欠損陥凹部を即重レジンで接着し、即時切除義顎を完成、装着させた(図5)。

図5 透明プレートによる即時切除義顎
切除部歯肉、歯牙³²Iは内側に即重レジンを流入し審美性を整えかつ強化する

次いで、欠損部周囲組織が安定した約1年後の1976年3月、口蓋粘膜有茎弁による右上顎欠損部の鼻腔への交通部を閉鎖した(図6)。術後は即時義顎の栓塞部を切離してそのままガーゼ保持用として使用し、ガーゼ除去後は再び栓塞部のみを製作接着し、切除義顎として継続装用させた。穿孔部閉鎖術後2カ月目にアダムスクラップを使用

図6 上：腫瘍摘出後の上顎欠損、鼻腔との交通がみられる
下：鼻腔との交通部閉鎖術後所見

した永久義顎を作製し装着した。術後2年8カ月を経過した現在、患側頬部の陥没、鼻腔への飲食物などの漏出、発音障害などの不快事項もなく良好に経過している。

摘出物所見：摘出した腫瘍は $80 \times 40 \times 27$ mmの大きさで周囲組織とは比較的明瞭に境されていた。摘出物の工業用ノンスクリーンフィルムによる軟線X線写真では、腫瘍内に4個の歯冠形態類似の硬組織像とともにX線透過性の増強および低下の混在した所見が認められた(図7)。

病理組織学的所見(No. 67299)：腫瘍は埋伏歯を含んで顎骨内に増殖しており(図8)、一部は口蓋および歯肉粘膜下に及んでいた。埋伏歯の歯冠は比較的よく形成されているが、歯根の形成は不良で、特に⁵と思われる歯牙は歯冠部髓腔も象牙粒および第二象牙質でほとんど占められていた。

腫瘍の組織像は部位により多少異なり、全般的には間葉性組織が主体を占め、細胞成分に富んだ

図7 摘出物の軟線X線写真

図9 上皮性成分，胞巣中央はエナメル髓様を呈す H-E染色

図8 手術摘出材料の5を含む大切片標本 H-E染色

図10 異形成象牙質の形成 H-E染色

線維性の部，硝子様の部，変性により融解のみられる部など種々であった。上皮性成分は一般に細かい索状または小さな濾胞状で，後者では胞巣の中央部がエナメル髓様，あるいは小囊胞状のものもあった（図9）。これらの上皮性成分と関連して間葉性組織の硝子化と，それへの石灰化をきたした異形成性の象牙質に相当する硬組織像が各所に形成されていた（図10）。これらの一部にはエナメル質様の組織もあるが，高円柱状のエナメル芽細胞とともに小柱構造が明らかに認められるものはごく一部のみであった。

病理組織診断：エナメル上皮線維歯牙腫 (ameloblastic fibro-odontoma)

Ⅲ. 考 案

歯原性腫瘍は外胚葉性，中胚葉性，および混合性（両胚葉性）に分類され，さらに混合性は，1) エナメル上皮線維腫，2) エナメル上皮歯牙腫およびエナメル上皮線維歯牙腫，3) 歯牙腫，4) エナメル上皮肉腫およびエナメル上皮歯牙肉腫に分類される¹⁾。本腫瘍はエナメル上皮腫よりもさらに腫瘍実質の分化度が高く，硬組織を形成するに至ったものである。本腫瘍の名称について，従来より外国では calcifying fibro-odontoma²⁾，adamantodontoma^{3,4)}などのほか種々な名称があり⁵⁻⁷⁾，また本邦においては珙瑯腫⁸⁾，珙瑯上皮腫⁹⁾，軟性歯牙腫¹⁰⁾などの名称で報告されてきたが，Thomaら（1946）¹¹⁾が本腫瘍をエナメル上皮歯牙腫 (ameloblastic odontoma) として発表して以来，近年はほとんどこの名称が使用されてきた。しか

し、1971年 Pindborg ら¹²⁾により、WHO の歯原性腫瘍の組織分類において、Thoma らのエナメル上皮歯牙腫に変わり、ameloblastic fibro-odontoma と odonto-ameloblastoma との2つに分けて使用され、前者はさほどまれではないが、後者は非常にまれなものとされている¹³⁾。

最近では、滝川ら¹⁴⁾、末永ら¹³⁾が自検例とともに内外の報告を総括し、鈴木ら¹⁵⁾、森ら¹⁶⁾が自検例を、また外国では Sanders ら¹⁷⁾の1例、Miller ら¹⁸⁾の7例の報告がある。

以上の報告を文献的に検索すると、本腫瘍は歯原性腫瘍の中でもまれなものであり¹²⁾、おもに小児または青春期末までにみられ^{1, 13, 14, 18)}、顎骨の無痛性の膨隆、歯牙の萌出や位置異常を伴うことが多いとされている¹⁾。性別に関しては、女性よりも男性に多いとする報告^{13, 14, 18)}、あるいは逆の報告^{19, 20)}もある。部位別に関しては、上顎より下顎に多いとする報告^{19, 20)}、またその逆の報告^{21, 22)}もみられる。

臨床所見のうち、X線的には境界の明らかな嚢胞状の透過像として認められるが、その内部には通例不透過像が点在性にみられ、未萌出歯と密接に関連し、エナメル上皮腫、または濾胞性歯嚢胞との鑑別が困難とされている。本報告例のX線所見も嚢胞状の透過像を呈し、その内部には4個の歯冠形態を思わせる硬組織像が認められ、未萌出歯との関連が示唆された。

組織学的には、エナメル上皮線維腫同様の組織像を示す部分と象牙質およびエナメル質の形成をみる部分が混在しており、硬組織の部分は象牙質に富んでいるが、この象牙質は明らかな細管構造を有するもののほかに不規則な骨様構造を示し、セメント質ないし骨質との区別の困難なものもあり、また石灰化の程度も種々であると報告されている^{1, 13)}。

本報告例においても、全般的には間葉組織が主体を占め、それへの硝子化と石灰化をきたし、異形成性象牙質に相当する硬組織が形成されていた。またその一部にはあるが、エナメル芽細胞と小柱構造の明らかなエナメル質様組織も認めら

れた。上皮成分は一般に細かい索状または小濾胞状であった。さらに、腫瘍内埋伏歯の歯冠は比較的良好に形成されていたが、歯根の形成は不良であった。

本腫瘍と埋伏歯および欠損歯牙との関係については、末永ら¹³⁾の報告にみられるごとく、歯牙の欠損はきわめてまれなものとされている。本報告例では部位を断定することはできないが、欠損歯牙が1歯あり、本腫瘍発生部位と考えあわせるとその因果関係については今後の検索が必要であろう。また、埋伏歯牙に関しても、本報告例において埋伏歯歯冠部エナメル質に接して腫瘍の存在が認められる部分もあるが、やはり腫瘍との因果関係は定かではない。

本腫瘍の治療法は、腫瘍の単独摘出、顎骨部分切除あるいは下顎骨半側切除摘出などがあげられているが、そのうちでも摘出術が大半を占めており¹⁴⁾、不完全摘出、搔爬などの姑息的処置では当然再発の可能性がある²³⁾、また悪性化の報告もある²⁴⁾。本報告例も既往のそれらと同様、上顎骨に相当広範囲に発育した良性腫瘍として切除摘出を行った。

これら腫瘍摘出後、特に上顎の実質欠損に対しては従来より切除義顎などの装着が行われている。しかし、その製作の煩雑なこと、創部の治療過程において欠損部の形態が経時的に変化することなどの理由により切除義顎の製作・装着がなされない場合も少なからずみられており、その間の飲食物などの鼻腔への漏出、咀嚼、発音などの機能障害のほか、頬部の陥没変形などの審美障害などもしばしばみられる。

これらのことを考慮し、われわれは Omnivac 吸引装置による術前石膏模型からの上顎プレートを用いた簡便な即時切除義顎製作法²⁵⁾を考案し、臨床上用いている。

本義顎は、1)有歯顎では咬合面を除く歯牙全体とその歯肉境移行部まで床縁でおおい保持する無鉤部分床義歯のため、クラスプなどは不要で、製作ならびに構造が簡単である。2)軽量である。3)術前・術後の石膏模型からいくつでも再製作が可能

であり、欠損陥凹部のみの再製作で、欠損部形態の変化に対応しうる。4)透明プレートを使用しており、床部の適合状態が透視しうる。5)安価である、などの特徴を有す。臨床では、まず上顎プレートを術直後の欠損部へのガーゼ保持に使用し、経過をみて欠損陥凹部の栓塞子を二次的に接着し、切除義顎としてそのまま装用させるか、あるいは永久義顎作製までの間、用いている。使用経過も良好で、暫間義顎としてのみならず永久義顎として使用中の症例もある。

本報告例は有歯顎患者であったが、本法による即時切除義顎製作法は無歯顎症例あるいは有歯顎であっても術前の模型のない症例にも応用しうるもので、顎切除症例の術後のリハビリテーションにその製作の簡便さも相まって、臨床上有用であると考えられる。

IV. 結 語

われわれは、18歳女子の右上顎に発生したエナメル上皮線維歯牙腫に対して摘出術を施行し、さらに術直後のガーゼ保持に使用した Omnivac 吸引装置による透明上顎プレートを即時義顎へと応用して装用せしめ、良好な効果を得たので、その病理組織所見ならびに臨床経過の概要を報告した。

稿を終わるに当たり、病理組織学的検索においてご指導、ご教示頂いた東京医科歯科大学歯学部口腔病理学教室、石川梧朗教授に深く感謝の意を表します。

なお、本論文の要旨の一部は昭和52年3月、第20回日本形成外科学会総会、昭和52年6月、第108回日本口腔外科学会関東地方会、昭和52年10月、日本口腔外科学会総会にて発表した。

文 献

- 1) 石川梧朗, 秋吉正豊: 口腔病理学 (後編). 京都, 1970, 永末書店, 908-909.
- 2) Field, H. J. & Ackerman, A. A.: Calcifying fibro-adamantoblastoma. *Am. J. Orth. Oral Surg.*, 28: 543-545, 1942.
- 3) Thoma, K. H., Johnson, F. G. & Cascario, N.: Adamanto-odontoma. *Am. J. Orth. Oral Surg.*, 30: 244-248, 1944.
- 4) Kemper, J. W. & Root, R. W.: Adamanto-odontoma. *Am. J. Orth. Oral Surg.*, (Oral Surg. Sect.), 30: 709-714, 1944.
- 5) Riddett, S. A.: A composite odontoma at a very early age. *Brit. Dent. J.*, 77: 129-131, 1944.
- 6) Silva, C. A.: Odontoblastoma. *OS. OM. OP.*, 9: 545-552, 1956.
- 7) Villa, V. G. et al.: Calcification of the epithelial tissue element in soft mixed odontoma. *OS. OM. OP.*, 9: 1218-1223, 1956.
- 8) 生田信保, 増田二郎: 上顎に於ける珐瑯腫ノ1例 (会) 大日本歯科医学会誌, 57: 108-110, 1930.
- 9) 斉藤隆吉: 珐瑯質を形成せる珐瑯上皮腫の1例. 口病誌, 17: 62-66, 1943.
- 10) 小林八州男, 川上英世, 好土和夫: 歯牙硬組織の形成を認めた軟性歯牙腫. 口病誌, 26: 2122-2127, 1959.
- 11) Thoma, K. H. & Goldman, H. M.: Odontogenic tumors. A classification based on observation of the epithelial, mesenchymal, and mixed varieties. *Am. J. Path.*, 22: 433-471, 1946.
- 12) Pindborg, J. J., et al.: Histological typing of Odontogenic Tumors. Jaw Cysts, and allied lesions. Geneva, 1971, W. H. O., p. 18.
- 13) 末永 光, 手島貞一, 丸茂町子, 他1名: エナメル上皮線維歯牙腫の1例. 口外誌, 22: 702-710, 1976.
- 14) 滝川富雄, 児玉 学, 山口 堯, 他5名: エナメル上皮歯牙腫について. 日大歯学, 42: 785-799, 1968.
- 15) 鈴木鍾美, 宮沢秋裕, 藤岡幸雄, 他3名: 興味ある組織像を示した歯原腫瘍の1例について. 口科誌, 22: 509, 1973.
- 16) 森 喜郎, 古田正彦, 田川俊郎, 他2名: Odontoameloblastoma の2症例と文献的考察. 口外誌, 22: 575-584, 1976.
- 17) Sanders, D. W., Kolodny, S. C. & Jacoby, L. K.: Ameloblastic fibro-odontoma. *J. Oral Surg.*, 32: 281-285, 1974.
- 18) Miller, A. S., Lopez, C. F. & Pullon, P. A., et al.: Ameloblastic fibro-odontoma. *Oral Surg.*, 41: 354-356, 1976.
- 19) Gorlin, R. J., Chaudhry, A. P. & Pindborg, J. J.: Odontogenic tumors classification, histopathology, and clinical behaviour in man and domesticated animals. *Cancer*, 14: 73-101, 1961.
- 20) Cina, M. T., Dahlin, D. C. & Gores, R. J.: Odontogenic mixed tumors. A review of the mayo clinic series. *Proc. Mayo Clinic*, 36: 664-678, 1961.

- 21) Bhaskar, S.: Synopsis of Oral Pathology, 1st. ed. St. Louis, 1961, Mosby, pp. 226-227.
- 22) Lucas, R. B.: Pathology of Tumors of the Oral Tissues. Boston, 1964, Little, Brown and Company, pp. 69-71.
- 23) Frissel, C. T. & Shafer, W. G.: Ameloblastic odontoma. OS. OM. OP., 6: 1129-1133, 1953.
- 24) Howell, R. M. & Burkes, E. J.: Malignant transformation of ameloblastic fibro-odontoma to ameloblastic fibrosarcoma. Oral Surg., 43: 391-401, 1977.
- 25) 大西正俊, 水谷 雄, 塩入重明, 他 2 名: 上顎切除義顎の簡易製作法とその保持に関する考案. 形成外科, 20: 473-474, 1977.