

—臨床—

乳歯の萌出を障害した歯牙腫： 症例と文献的考察

藪島 桂子 富沢美恵子
野田 忠 鈴木 誠*

新潟大学歯学部小児歯科学教室

(主任：野田忠教授)

*新潟大学歯学部附属病院臨床検査室

Key words : Odontoma (歯牙腫), Primary teeth (乳歯), Disturbance of tooth eruption (萌出障害), ghost cell, Review of the literature (文献的考察)

要 旨

上顎左側乳中切歯の萌出障害を伴う集合性歯牙腫2例を報告した。症例1は1歳8か月の男児、症例2は1歳2か月の女児で、後者は埋伏乳歯を伴う歯牙腫の報告中最年少であった。X線所見では、病変は不透過性が弱く、不明瞭であった。歯牙腫摘出後2例とも埋伏歯は萌出した。病理組織学的所見では、ともに歯冠形成段階にある幼若な歯牙様物が認められ、特に症例1では歯原性上皮の増殖と石灰化を伴ったghost cellが認められた。症例2では埋伏歯の歯冠唇面に小結節があった。次いで本邦内外の乳歯の萌出障害を伴う歯牙腫の報告27症例に自験例2例を加えた計29症例について文献的観察を試みた。その結果、初診時年齢は1歳から10歳までで、平均年齢は4歳であり、性差はなかった。人種的には日本人の報告が多かった。主訴は萌出遅延が多かった。発生部位では上顎前歯部が多く、歯種では上顎乳犬歯が多かった。左右差はみられなかった。X線写真所見では、歯牙腫として典型的な所見を示すものと、不透過性が弱く、診断のつけにくいものがあった。歯牙腫はほとんど全例が外科的に摘出されていた。歯牙腫摘出の際に保存的処置を受けた乳歯の約半数がその後萌出していたが、いずれも患者は5歳以下であった。病理組織診断ではcompound odontomaが24例と多く、complex odontomaは2例で少なかった。ghost cellは4例で報告されていた。埋伏歯の形態異常は本報告の症例2の1例のみであった。

緒 言

歯牙腫は歯を構成する硬組織、すなわちエナメル質、象牙質およびセメント質の増殖からなる、歯原性腫瘍のひとつである¹⁾。

臨床的に歯牙腫は、その発生部位が歯の発育

部位と重なるため歯の萌出障害を引き起こすことが多く、また、X線写真によって偶然発見されることも多い。これまでに永久歯に関係した歯牙腫の報告は多数あるが、乳歯に関係した歯牙腫の報告は少ない。

著者らは新潟大学歯学部附属病院小児歯科外

来において、1歳児の上顎乳中切歯の萌出を障害した集合性歯牙腫を2例経験した。このうち1例は発見年齢が1歳2か月で、乳歯の萌出を障害した歯牙腫について検索した国内外の文献中最年少であった。そこでこの2症例を報告すると共に、自験例を含めた29症例について文献的観察を行った。

症 例

症例1：患者は1歳8か月の男児で、1歳半健診で上顎乳中切歯の萌出遅延を指摘され当科に来院した。家族歴および既往歴ともに特記すべき事項はなかった。口腔内所見では未萌出の上顎左側乳中切歯に相当する歯槽部に軽度の膨隆が認められた。デンタルX線写真では、埋伏している乳中切歯の歯冠に重なる数個の不透過物が認められた。埋伏した乳中切歯の歯根形成は反対側に比べやや遅れていた(図1)。以上の所見から歯牙腫と臨床診断し、1歳9か月時に局所麻酔下に腫瘍を摘出した。摘出時にはまず上顎乳中切歯部の唇側に粘膜骨膜弁を形成した。埋伏した乳中切歯歯槽頂部の骨は欠損しており、線維性被膜に覆われた硬組織塊が認められた。腫瘍は一塊として取り出すことはできず、



図1
症例1 初診時デンタルX線写真(1歳8か月)

硬組織塊と被膜を別々に摘出した。埋伏している乳中切歯は歯槽骨内で唇側に転位しており、その切縁は萌出している反対側乳中切歯の解剖学的歯頸線の高さに位置していた。

摘出物は最大径4.5mm×3mmまでの大きさの数個の硬組織塊で、その一部は軟組織に包まれていた。線維性被膜と思われる軟組織片も摘出された(図2)。

摘出物の脱灰切片をヘマトキシリン・エオジン染色した結果では、歯冠部硬組織の形成段階にある歯牙様物で、エナメル質、象牙質、象牙前質、歯髓組織が認められた。エナメル質は基質に富んでおり、エナメル小柱の走行の乱れを伴っていた。象牙質は一部で球間区が認められた。エナメル質を覆う歯嚢様軟組織内に歯原性上皮の巣状の増殖と、石灰化を伴ったghost cellが認められた(図3)。また硬組織の形成を伴わないエナメル上皮に裏打ちされた歯乳頭も認められた。歯牙腫全体を囲む線維性被膜の中にも索状ないし小島状の歯原性上皮が認められた。病理診断は集合性歯牙腫であった。

術後9カ月では唇側歯肉に乳中切歯を触知したが、萌出は認められなかったため、開窓を行った。開窓後2カ月で歯冠の1/2程度の萌出が認められた。3歳2か月時には上顎左側乳中切歯は完全に萌出し、反対側に比べわずかに唇側に転位していた(図4)。

症例2：患者は1歳2か月の女児で、上顎左側

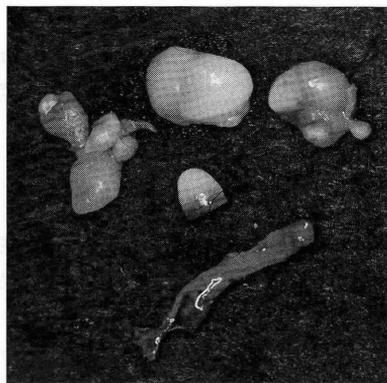


図2
症例1 摘出物肉眼所見

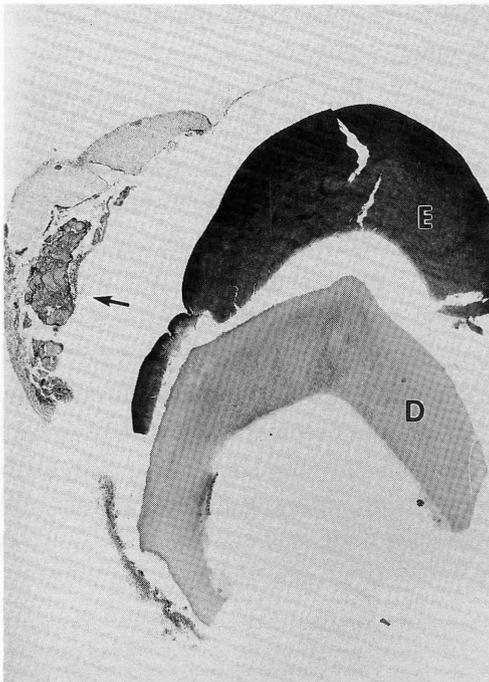


図3

症例1 摘出した歯牙腫の一部の病理組織学的所見
 矢印: ghost cell E: エナメル質
 D: 象牙質 (HE染色 ×100)



図4

症例1 3歳2か月時の口腔内写真



図5

症例2 初診時デンタルX線写真(1歳2か月)

乳中切歯の萌出遅延を主訴に来院した。既往歴および家族歴に特記事項はなかった。口腔内所見では上顎左側乳中切歯に相当する歯槽部に軽度の膨隆が認められた。初診時のデンタルX線写真では、埋伏している乳中切歯の歯冠に重なる不透過性の弱い境界不明瞭な不透過物が認められた。埋伏歯の歯根形成は反対側に比べ、やや遅れていた(図5)。以上の所見から歯牙腫と臨床診断し、1歳2か月時に局所麻酔下にて腫瘍を摘出した。

手術にあたってまず上顎乳中切歯部の唇側および口蓋側に粘膜骨膜弁を形成した。埋伏した乳中切歯歯槽頂部と唇側の骨は欠損しており、乳中切歯歯冠が認められた。埋伏した乳中切歯の歯頸部の高さで、唇側の薄い歯槽骨と乳中切歯歯冠にはさまれた部位に、それぞれが薄い膜に包まれた最大径が3 mmまでの石灰化物が認められ摘出した(図6)。

摘出物の脱灰切片のヘマトキシリン・エオジ

ン染色では、歯冠部硬組織の比較的初期の形成段階にある歯牙様物で、エナメル質、象牙質、象牙前質および歯髄が認められた。エナメル質は基質に富んでおり、その表面に接して高円柱状のエナメル上皮の配列がみられた(図7)。象牙質は象牙細管が一般に疎であり、一部では消失しており、また象牙芽細胞の萎縮を伴う部分もみられた。一部でエナメル質の中に象牙質様硬組織の小塊が認められた(図8)。また硬組織の形成を伴わないエナメル上皮に裏打ちされた歯乳頭が認められた。病理診断は集合性歯牙腫

であった。

術後1カ月で歯冠の1/2程度の萌出が認められた。摘出後4カ月で歯冠は完全に萌出したが、右側に比べ、口蓋側に位置していた。また、歯冠唇面には小結節が認められた(図9)。小結節は歯冠唇面の近心側に、歯肉側から歯冠の約1/4の幅ではじまり、切縁側にむかって徐々にその

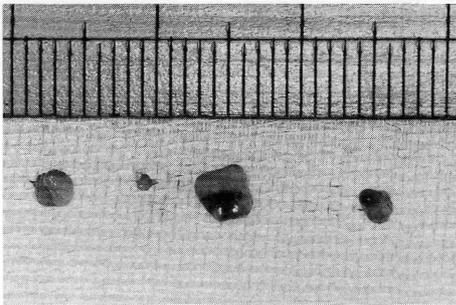


図6
症例2 摘出物肉眼所見

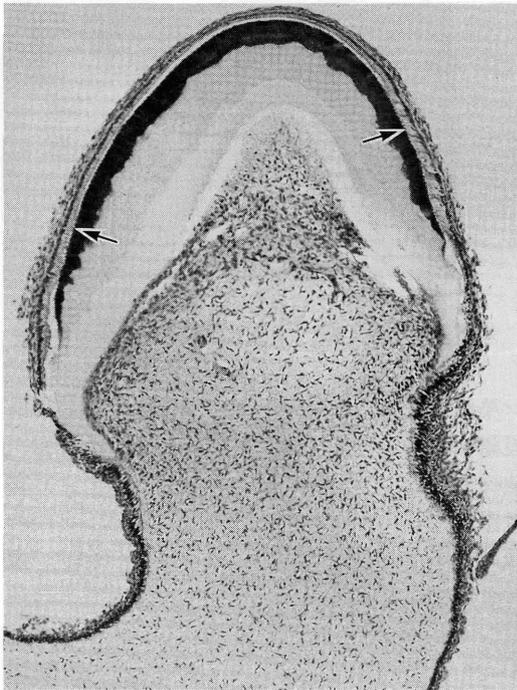


図7
症例2 摘出した歯牙腫の一部の病理組織学的所見
矢印：高円柱状のエナメル上皮 (HE染色 ×100)

幅を減少させ、切縁の約2 mm手前で高さ約1 mmの膨隆を形成していた。

文献的観察

国内外の文献より検索した乳歯の埋伏または萌出遅延を伴う歯牙腫27症例²⁻²⁶⁾に、本報告の2症例を加えた計29症例について著者名、発表年、性、年齢、埋伏歯の歯種、病理組織診断の各項目について記載したものが表1である。症例の選択にあたってはW.H.O.の分類²⁷⁾にならない、歯牙腫を基本的に compound odontoma と complex odontoma の2つに大別し、我々が ameloblastic fibro-odontoma と判断したものは除外した。病理組織診断の記載に関しては文献の記載と病理写真を参考にして compound

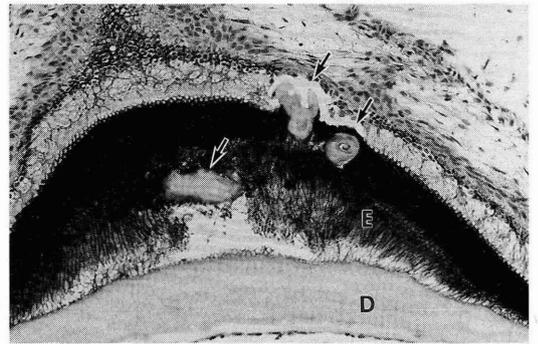


図8
症例2 摘出した歯牙腫の一部の病理組織学的所見
矢印：象牙質様物の小塊 E：エナメル質
D：象牙質 (HE染色 ×100)

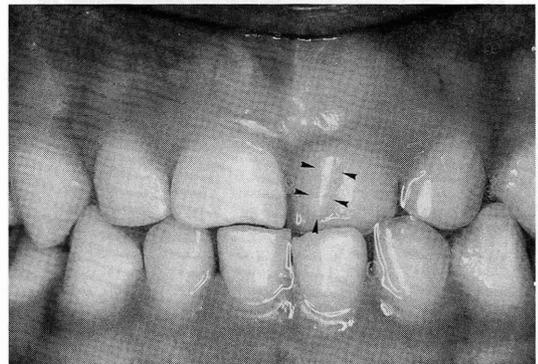


図9
症例2 2歳11か月時の口腔内写真

odontoma, complex odontoma, compound & complex odontoma, unknown の4つの診断名を用いた。また, 年齢, 性別, 人種, 発見のきっかけ, 発生部位および埋伏歯の歯種と形態, X線所見, 臨床診断, 歯牙腫および埋伏歯の処置, 摘出物所見, 病理組織学的分類, ghost cellの有無, 予後, 歯牙腫の由来について検討した。

1. 年齢

病変の発見された年齢は1歳2か月から10歳の範囲で, 平均年齢は4歳であった(図10)。発見時年齢で最も多かったのは4歳代で7症例(24%)であった。

2. 性別

13症例(44.8%)が女児で, 16症例(55.2%)が男児であった。男女比は1.2:1で, 明らかな性差は認められなかった。組織型との関係では, compound odontoma は男14例, 女10例, complex odontoma は男女それぞれ1例ずつで, 性差は認められなかった。

3. 人種

今回検索した29症例のうち21症例が日本人の症例についての報告であった。

4. 発見のきっかけ

歯科受診の主訴は乳歯の萌出遅延が25症例と最も多く, 次に無痛性膨隆が2例, 腫脹, 疼痛, 排膿などの炎症所見を呈していたものが1例,

表1 乳歯の萌出を障害した歯牙腫の報告例

著者	年	性別	年齢	歯種	病理診断
Axel ²⁾	1937	♂	4歳	<u>C</u>	compound odontoma
相沢 ³⁾	1957	♂	3歳9か月	<u>ED</u>	complex odontoma
Hitchin ⁴⁾	1963	♂	4歳11か月	<u>C</u>	compound odontoma
Hitchin ⁴⁾	1963	♀	8歳7か月	<u>C</u>	compound odontoma
Noonan ⁵⁾	1971	♀	5歳	<u>C</u>	compound odontoma
渡辺 ⁶⁾	1971	♀	3歳5か月	<u>C</u>	compound odontoma*
Malik ⁷⁾	1974	♀	7歳	上下顎両側(多発性)	unknown
Levine ⁸⁾	1977	♂	2歳6か月	<u>B</u>	compound odontoma
佐々木 ⁹⁾	1978	♂	1歳10か月	<u>C</u>	compound odontoma with supernumerary teeth
富永 ¹⁰⁾	1979	♂	4歳	<u>A</u>	compound odontoma
西岡 ¹¹⁾	1981	♀	5歳3か月	<u>A</u>	compound odontoma
有田 ¹²⁾	1981	♀	8歳7か月	<u>C</u>	compound odontoma
中原 ¹³⁾	1983	♀	5歳2か月	<u>C</u>	compound odontoma
中原 ¹³⁾	1983	♀	6歳9か月	<u>E</u>	compound odontoma
渡部 ¹⁴⁾	1985	♂	10歳	<u>C</u>	compound odontoma
松本 ¹⁵⁾	1986	♂	5歳3か月	<u>E</u>	compound odontoma*
Stajcic ¹⁶⁾	1988	♂	6歳	<u>C</u>	compound odontoma
蓮沼 ¹⁷⁾	1988	♂	4歳2か月	<u>C</u>	compound odontoma
加藤 ¹⁸⁾	1988	♂	2歳8か月	<u>C</u>	compound odontoma
伊藤 ¹⁹⁾	1988	♂	6歳6か月	<u>C</u>	compound odontoma
山本 ²⁰⁾	1989	♀	4歳3か月	<u>C</u>	compound odontoma
本川 ²¹⁾	1990	♀	3歳	<u>E</u>	complex odontoma with dentigerous cyst
野村 ²²⁾	1990	♀	2歳1か月	<u>AB</u>	compound & complex odontoma
村上 ²³⁾	1991	♀	4歳6か月	<u>A</u>	compound odontoma* with calcifying odontogenic cyst
Brunetto ²⁴⁾	1991	♂	2歳	<u>C</u>	unknown
逢坂 ²⁵⁾	1992	♂	1歳4か月	<u>A</u>	compound odontoma
佐野 ²⁶⁾	1992	♂	4歳8か月	<u>E</u>	compound odontoma
自験例1	1993	♂	1歳8か月	<u>A</u>	compound odontoma*
自験例2	1993	♀	1歳2か月	<u>A</u>	compound odontoma

*ghost cell

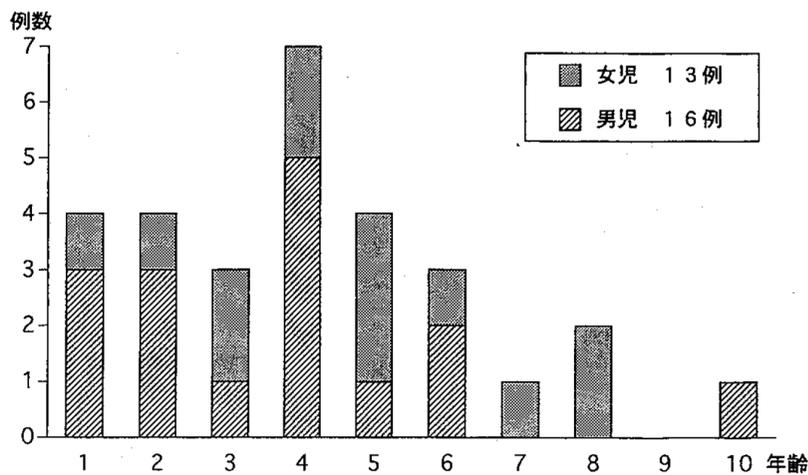


図10 歯牙腫の年齢、性別分布 (全29症例)

X線写真で偶然見つかったものが1例であった。炎症所見のあった1例は complex odontoma であった。

5. 発生部位および埋伏歯の歯種、形態

単発性は28例で多発性は1例であった。顎別でみると、上顎22症例 (75.6%)、下顎6症例 (20.7%)、両顎1症例 (3.7%) で、上顎に多く認められた(表1)。単発性の28症例を部位別でみると、上顎では切歯部7例、犬歯部13例、臼歯部2例であり、下顎では切歯部1例、犬歯部2例、臼歯部3例であった。前歯部に発生したものは23例で臼歯部は5例であった。発生頻度に左右差は認められなかった。萌出を障害された乳歯の本数は、26症例では1本ずつであったが、1歯牙腫により2本の乳歯の萌出を障害されたものが2症例あった。多発性の歯牙腫は多数の埋伏歯を伴っていたが、その歯種や数は不明であった。歯種別では上顎乳犬歯が最も多く、13症例であった。萌出障害とされていた乳歯の中には、当該歯が欠如していたものが2例^{3,16)}あった。また、埋伏乳歯の後継永久歯胚が欠如していたものは2例^{13,15)}あった。

埋伏していた乳歯の形態については、ほとんどの症例 (24症例) で記載がなかった。記載のあった5症例のうち4症例では異常がなく、1症例 (本報告の症例2) にのみ歯冠唇面に小結節が認められた。

6. X線写真所見

X線写真では粟粒大から小指頭大の不透過像が認められた。ほとんどが一層の透過帯に囲

まれた不透過像を呈する典型的な所見を示していたが、不透過性が弱い症例や、不透過物が埋伏乳歯に重なっており、診断のつけにくい症例も認められた。

7. 臨床診断

臨床診断としては歯牙腫または歯原性腫瘍と診断されていた。

8. 処置

多発性の1例の歯牙腫の処置は記載されていなかったが、単発性の28症例は外科的に摘出されていた。処置の際の麻酔方法については、局所麻酔が最も多く16例、ついで全身麻酔が9例、3例は不明であった。

歯牙腫が存在したまま乳歯が萌出した1例⁹⁾と多発性の1例⁷⁾を除いた27例において、歯牙腫の摘出とともに埋伏乳歯を抜歯したものは7例7歯、歯牙腫のみ摘出し、埋伏乳歯を保存したものは11例12歯、歯牙腫の摘出の際に開窓したものは5例5歯、歯牙腫の摘出の際に埋伏歯に対して矯正治療を行ったものは1例1歯、記載のないものが3例4歯^{3,6,16)}であった。

9. 摘出物所見

集合性の歯牙腫の歯牙様物の個数は2個から100個以上のものまで様々であり、周囲は線維性結合組織に覆われていた。大きさについては被膜に付着して分離できないほど小さなものから数センチメートルと様々であった。

10. 病理組織学的分類

compound odontoma は24症例 (82.8%) と最も多く、complex odontoma 2症例 (6.9%)、compound & complex odontoma 1症例 (3.4%)、unknown 2症例 (6.9%、うち1例は multiple) であった。単発性28症例の組織学的分類別の発生部位についてみると、compound odontoma 24例は上顎に20例で下顎の4例の5倍、complex odontoma 2例は上下顎に1例ずつ、compound & complex odontoma は下顎切歯部に1例、unknown の1例は上顎犬歯部であった(図11)。compound odontoma は上顎前歯部、特に乳犬歯部に多く、complex odontoma は臼歯部のみにみられた。

compound & complex odontoma の症例²²⁾では、歯乳頭ないしエナメル器様の構造や、索状ないし胞巣状に増殖した歯原性上皮がみられた。

ほかの疾患との併発は、dentigerous cyst が1例²¹⁾、calcifying odontogenic cyst が1例²³⁾、過剰歯が1例⁹⁾であった。

11. ghost cell の有無

文献中4例(13.8%)にghost cellの存在が記載されていた。

12. 予 後

歯牙腫の再発が認められた症例はなかった。歯牙腫摘出の際に保存した12歯のうち、自然萌出したものは5歯、開窓してその後萌出したものが2歯、萌出が認められなかったものが5歯であった。歯牙腫摘出の際に開窓した5歯のうち、自然萌出したものは1歯、牽引して萌出したものが1歯、萌出が認められなかったものが

3歯であった。歯牙腫摘出と同時に矯正治療を行った1歯は萌出が認められた。以上より、抜歯以外の保存的処置を受けた18歯のうち、その後萌出が認められたのは10歯で、いずれも患者の年齢は5歳以下であった。

13. 歯牙腫の由来について

本報告の症例1では、乳歯の欠損や形態異常がなく、歯牙腫の位置が埋伏乳歯の上方であることと発見時期が早いことから、過剰乳歯胚由来と考えられる。症例2においては、発見時期の早いことと、特に歯牙腫の位置が埋伏乳歯の歯冠の唇側であることから、永久歯胚由来は考えにくく、過剰乳歯胚由来と考えられるが、埋伏乳歯の歯冠唇面に小結節があったことから正常乳歯胚の分芽、分裂の可能性も考えられた。文献的には記述のないものも多かったが、乳歯胚由来としているものが13症例、永久歯胚由来としているものが2症例、代生歯堤由来と

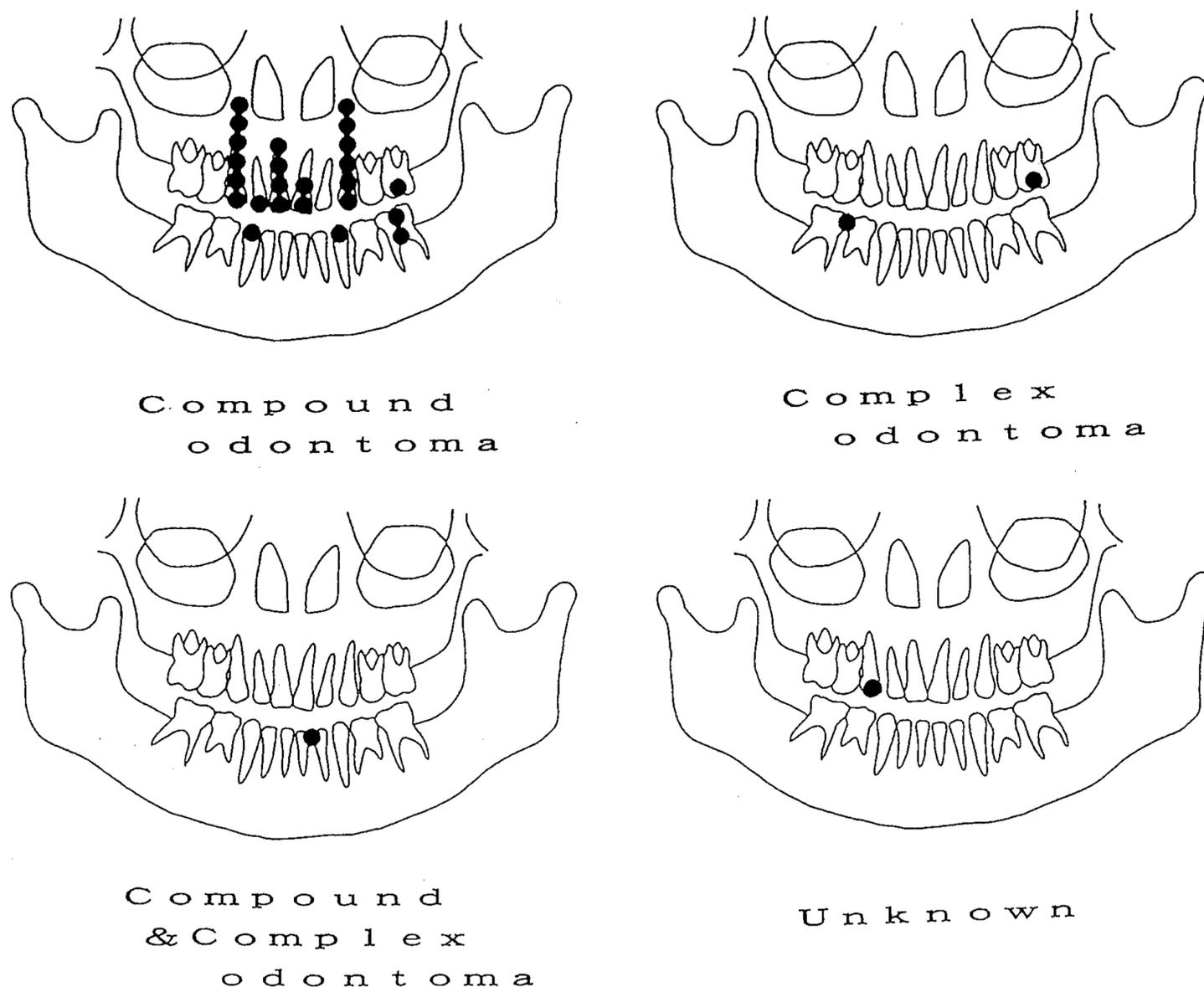


図11 病理組織学的分類と発生部位 (単発性28症例)

しているものが2症例であった。

発生時期に関しては考察していないものが多く、乳歯の萌出を障害していたのであるからその萌出時期より早くから存在していたのであろうとするもののみであった^{23,26)}。

考 察

Odontoma は Oudet²⁸⁾以来、多くの症例報告がみられるが、そのほとんどが永久歯に伴うもので、乳歯に伴うものは少ない。これまでの歯牙腫の収集例としては、石井 (1927)²⁹⁾、塚野 (1942)³⁰⁾、Gorlin (1961)³¹⁾、松崎 (1966)³²⁾、滝川 (1971)³³⁾、久野 (1972)³⁴⁾、中畑 (1976)³⁵⁾、Regezi (1978)³⁶⁾、Toretti (1984)³⁷⁾などがある。永久歯の埋伏を伴った歯牙腫の検討としては Morning³⁸⁾の報告がある。10歳以下の歯牙腫については中畑³⁹⁾の報告があり、また小児の歯牙腫の報告としては金原⁴⁰⁾の報告があるが、どちらも乳歯に関係した歯牙腫と永久歯に関係した歯牙腫を合わせて取り扱っており、乳歯列期の歯牙腫、特に乳歯の萌出障害を起こした歯牙腫の調査はない。

今回我々は、新潟大学歯学部小児歯科外来において経験した歯牙腫の2例を報告するとともに、特に乳歯の萌出障害(埋伏または萌出遅延)を伴った歯牙腫について本邦内外の報告27症例と自験例2例の計29症例の文献的観察を行った。

1. 発見年齢およびきっかけ

乳歯の埋伏、萌出遅延はまれなものであるが、多くは過剰歯か歯牙腫を伴う²⁴⁾といわれている。本報告の症例2の1歳2か月というのは今までに報告された乳歯の埋伏を伴う歯牙腫としては最年少の症例であった。発見のきっかけについて中畑³⁹⁾は10歳以下は非炎症性の、11歳以上は炎症性の腫脹が最も多かったとしているが、今回の文献的観察では、乳歯の萌出遅延が最も多かった。

2. 性別頻度について

中畑らの報告³⁹⁾では10歳以下でも11歳以上でも明らかな性差はみられなかったとしており、

今回の文献的観察でも、性差は認められなかった。

3. 人種について

ひとつの腫瘍の発生頻度は他の腫瘍の発生頻度の影響を受けるため、単純に各施設や各国の数値を比較することはできないと思われるが、今までに歯原性腫瘍中に歯牙腫の占める割合については、石井³²⁾は10.9%、大井⁴¹⁾は14.3%、塚野³⁰⁾は18.8%、Bhasker²⁸⁾は15%、Regezi³⁶⁾は65%と報告している。歯牙腫について人種的な発生の因子があるという報告はなかったが、今回乳歯の萌出障害を伴う歯牙腫においては、日本人についての症例報告が多く、他の人種からの報告は少なかった。日本人の症例数が多い理由は不明であり、詳細は今後の統計学的研究に期待したい。

4. 発生部位について

compound odontoma は塚野³⁰⁾、Gorlin ら³¹⁾もすべての年齢を通じていずれも上顎前歯部に多いとしている。中畑³⁹⁾によれば compound odontoma は10歳以下でも11歳以上でも上顎前歯部が好発部位であるが、特に10歳以下ではその頻度が極めて高いとしている。今回上顎前歯部に発生したのは22症例(75.9%)であり、組織学的に最も多かった compound odontoma は24症例のうち18症例が上顎前歯部に発生していた。組織学的には、compound odontoma が多かったために、全体としても上顎前歯部の発生率が高かったと思われた。発生学的には上顎前歯部は過剰歯の好発部位であることや、dentigerous cyst は埋伏歯の好発部位である上顎正中部や犬歯部に好発すること⁴²⁾と一致しており、興味深いと思われた。環境要因としては、上顎前歯部は外傷の好発部位であることから、保護者に気付かれない外傷が原因となっている可能性も考えられた。一方、complex odontoma は塚野³⁰⁾、Gorlin ら³¹⁾もすべての年齢を通じていずれも下顎大臼歯部に多いとしている。今回の観察では上下顎の乳臼歯部に1例ずつ認められ、前歯部には認められなかった。

中畑³⁹⁾によれば左右別頻度では10歳以下は

右側が左側の約2倍を占め、塚野³⁰⁾はすべての年齢を通じ右側に多く見られるとしている。しかし今回の観察では左右差は認められなかった。

5. X線写真所見

歯牙腫は特徴的なX線写真所見から、最も診断のつけやすい歯原性腫瘍であると一般にいわれている⁴³⁾が、歯牙腫の大きさが小さい時や、十分に石灰化していないときには、歯牙腫の存在が疑われてもX線写真ではっきりせず²⁴⁾、診断のつけにくい症例もある。

今回の乳歯に関連した歯牙腫においても、本報告症例のように歯牙腫が埋伏歯の歯冠に重なり、不定形で、境界不明瞭な不透過性の弱い像としてみられ、診断のつけにくい所見や、見落としやすい所見を呈する場合があります。歯牙腫の形成される初期の段階では石灰化度が低いか、または不透過像を全く示さないことがある^{40,44)}ので、歯の埋伏および萌出遅延の症例においては、その原因が発育中の歯牙腫によるものかどうか、注意深くX線写真を観察することが大切であると思われた。

6. 臨床診断

ほとんどの症例が歯牙腫と診断され誤診はなかった。但し、型の分類はX線像および臨床所見でほぼ推定し得るものの、最終的には病理組織診断によらなければならないというのは、中畑ら³⁹⁾と同様である。

7. 組織型について

Morning³⁸⁾らの永久歯の埋伏をともなった歯牙腫の報告では36症例中17症例がcompound odontomaであったが、今回の文献的観察ではcompound odontomaが82.8%とcomplex odontomaに比べ多く認められ、中畑らの報告と同様の傾向であり、塚野³⁰⁾の乳歯歯胚に由来した歯牙腫は集合性が多いというのと一致する。このことより、compound odontomaの割合が高く、complex odontomaの割合が低いことが小児の歯牙腫の特徴と考えられた。

また、compound & complex odontomaとして報告された症例²²⁾の一部では、我々の判断と

しては、上皮成分に活性があり、あきらかにameloblastic fibro-odontomaの所見を呈していると考えられた。一方、今回の観察からは除外したが、軟性歯牙腫と診断されていて軟組織部分が多く、かつ、その部分がameloblastic fibro-odontomaの所見を示す症例⁴⁵⁾があった。すなわち、歯牙腫の組織学的所見においては、軟組織部分と硬組織部分の量的な問題があり、ameloblastic fibro-odontoma様の像を含むが歯牙腫として扱ったほうが良い症例や、診断は歯牙腫とされていても実際にはameloblastic fibro-odontomaの像が優勢な症例もあった。

8. ghost cell について

ghost cellはcalcifying odontogenic cystに特徴的な細胞であるが、ameloblastic fibro-odontomaやcompound odontomaおよびcomplex odontomaでも認められる⁴⁶⁾。

ghost cellは歯原性上皮に由来すると考えられるので以下にその意義について考察してみる。歯牙腫の病理所見においては、歯牙腫の周囲や歯牙様物間の線維性結合組織中に歯原性上皮を認めることはまれではない¹⁾。また歯原性上皮から変化したghost cellの上皮島に、異形成性の石灰化が認められることもある。異形成性の石灰化は歯牙腫のエナメル質を覆って認められることもある⁴⁷⁾。しばしばghost cellと関係する退縮エナメル上皮を層状の異形成性の石灰化が覆っていることもある。このように歯牙腫の周囲つまり歯牙腫を覆う線維性結合組織や歯牙様物の間の線維性結合組織には2次的な石灰化が認められることがあり、ghost cellはこのような異形成性の石灰化に関与していたかもしれない。つまり、ghost cellは歯牙腫の初期の段階で認められ、異形成性の石灰化が進行するに従い徐々に認められなくなることが考えられる。

Levy⁴⁸⁾によればghost cellは歯牙腫の約20%にみられ、標本作成過程で十分脱灰されなかったosteodentinと類似しているために見逃されやすいという。今回乳歯の萌出障害を起こした歯牙腫においては29症例中4症例で

ghost cellの記載があった。今後も小児の歯牙腫において病理学的にghost cellの成因や消長について検索されることが望まれる。

9. 歯牙腫および埋伏歯の処置について

永久歯を伴った歯牙腫においてはしばしば歯牙の萌出障害や隣接歯に影響を及ぼすことが知られている。たとえば埋伏、萌出遅延、乳歯の晩期残存、隣接歯の傾斜や偏位などである³⁸⁾。今回の観察では、特に歯牙腫が乳歯の埋伏を伴っている場合には上記の障害以外にも、隣在歯の欠損部への移動により、埋伏歯の萌出余地不足¹²⁾や、歯牙腫の顎骨内の位置による影響として埋伏乳歯と永久歯の転位^{12,22)}や傾斜⁸⁾が起こることがあった。また、乳臼歯が未萌出である場合には、第一大臼歯の萌出の際に近心傾斜を起こすこともあった¹³⁾。以上より、乳歯列において埋伏歯を伴う歯牙腫を放置することは、乳歯列が完成せず、発育途上の小児において容貌、発音、咀嚼能率、ひいては永久歯列の配列に望ましくない影響を与えることが考えられる。よって、乳歯列においても、埋伏歯を正常な位置へ自然萌出させ、発育中の歯列に対する悪影響を少なくするために、歯牙腫の早期発見、診断、摘出は、重要である。

今回の観察では、単発性の歯牙腫全例で外科的摘出が行なわれていた。一方、埋伏歯に対する処置としては、抜歯、保存、開窓、牽引などが行われていた。

歯牙腫による埋伏永久歯の処置については、以前は萌出時期をかなり過ぎて発見される場合が多かったため歯牙腫とともに抜歯される症例が多かったが、最近では早期発見により埋伏歯は保存される傾向にあり、萌出余地の確保、埋伏歯の開窓、誘導を行い良好な結果を得られたとの報告がみられる⁴⁰⁾。今回の観察における埋伏乳歯の抜歯の理由は、年齢が高いため¹¹⁾と、埋伏歯の歯嚢が歯牙腫を取り囲む線維性結合組織と連続していたため^{17,18)}であった。

Morning³⁸⁾は保存的処置を受けた埋伏永久歯は歯牙腫摘出のみで45% (19/42)が萌出し、2次的処置後では77% (13/17)が萌出し、結局76%

(32/42)の歯が萌出したと述べているが、今回の調査では最終的に萌出した歯は56% (10/18)で、すべて5歳以下であった。

歯牙腫は良性の腫瘍で再発はまれであることや、今回の文献的観察でも保存した乳歯の約半数は萌出していることから、埋伏歯は極力保存して経過を観察し、萌出傾向が認められない場合には開窓を試み、患者の協力が得られる場合には牽引誘導を行うことも有効である。

歯牙腫によって埋伏した永久歯の形態について、Morning³⁸⁾は62% (26/42)が正常であったと述べており、今回の文献的観察では記載のあった症例数は少ないが、80% (4/5)が正常な形態であった。これは石川ら¹⁾が永久歯に比べて乳歯の形態異常は少ないといっていることと一致する。本報告の症例2における歯冠の小結節は乳歯の形態異常としても珍しく、また、この小結節は歯牙腫と近接していたので歯牙腫の発育と何らかの関係があったことも示唆されるが、詳細は不明である。

10. 歯牙腫の由来について

歯牙腫の発生原因については従来、外傷（による歯牙亀裂説⁴⁹⁾、炎症、家族性遺伝関係説⁴⁹⁾、（早期の歯胚の）歯牙の発育異常、過剰歯胚からの発生、エナメル質原始隆起の過剰説^{12,30)}、エナメル器の分裂による小歯胚の発育説¹²⁾などが述べられているが、今回文献的に原因の明らかな症例はなかった。

一般に、歯牙腫の由来については、乳歯の欠如を伴う場合^{3,16)}には発生原基が乳歯歯胚に由来するものと判断することが可能であるが、歯胚の欠如がない場合には歯牙腫の位置で判断しているものがほとんどである²⁶⁾。松本¹⁵⁾野村²²⁾は乳歯に関連して発生した歯牙腫と判定する根拠としては、当該あるいは隣接の乳歯が未萌出や欠損などの異常を示し、その未萌出歯の歯冠部に連続または付着して歯牙腫が存在することであると述べている。また歯牙腫を囲む線維性結合組織と埋伏歯の歯嚢が連続していた¹⁴⁾こと、歯牙腫が埋伏歯の歯嚢上に接して存在していた¹¹⁾ために乳歯歯胚の関与したものであると

述べているものもある。Hitchin⁴⁾は摘出腫瘍の歯牙様形態の完成度、すなわち歯根完成度の高いのは乳歯由来であろうと考えている。

乳歯は永久歯に比して発育異常が少ない¹⁾ことから乳歯歯胚に由来する歯牙腫は、永久歯歯胚によるものより少ないと考えられている。今回の観察では、その由来について考察しているもののうち乳歯由来としているものは13症例であり、永久歯由来や、代生歯堤由来としているものは各2例であった。特に、蓮沼ら¹⁷⁾の報告のように、発生時期が早く、位置的に埋伏している乳犬歯の上方にありながら、埋伏した乳犬歯の歯小囊組織が正常であったことから乳歯胚由来とは考え難く、かつ永久犬歯歯胚とは位置的になり離れているうえに、永久歯胚に形成異常が認められなかったために永久歯胚由来とも考えられず、その由来を乳歯から永久歯へと連なる代生歯堤に求めた症例もあり、これは単に歯牙腫の位置的關係や発現年齢から歯牙腫の由来を特定することが難しいこと、歯牙腫を包む線維性組織や埋伏歯の歯囊の病理組織学的検索が重要であることを示していると思われた。

ま と め

我々は1歳児の上顎左側乳中切歯の萌出障害を伴う集合性歯牙腫2例に遭遇した。

1. 症例1の患者は初診時1歳8か月の男児、症例2の患者は初診時1歳2か月の女児で、後者は埋伏乳歯を伴う歯牙腫の報告中最年少の症例であった。
2. X線所見では、ともに、埋伏した上顎左側乳中切歯の歯冠に重なる数個の不透過物が認められたが、その不透過性は弱く、境界は不明瞭であった。
3. 病理組織学的検査の結果、症例1では歯冠部硬組織の形成段階にある歯牙様物でエナメル質、象牙質、象牙前質、および歯髓が認められた。エナメル質を覆う歯囊様軟組織内に歯原性上皮の巣状の増殖と、石灰化を伴ったghost cellが認められた。症例2では歯冠部硬組織の比較的初期の形成段

階にある歯牙様物で、エナメル質、象牙質、象牙前質、および歯髓が認められた。一部でエナメル質の中に象牙質様硬組織の小塊が認められた。

4. 症例1では歯牙腫摘出後、開窓を行い、上顎左側乳中切歯は歯列内に自然萌出した。症例2では歯牙腫摘出後4カ月で、上顎左側乳中切歯は歯列内に自然萌出した。また症例2の上顎左側乳中切歯の歯冠唇面には、小結節が認められた。

次いで、本邦内外における乳歯の萌出を障害した歯牙腫の文献例27症例に自験例2例を加えた計29症例について文献的観察を試み、以下のような結果を得た。

1. 初診時年齢は1歳から10歳までで、平均年齢は4歳であった。
2. 性差は認められなかった。
3. 人種的に日本人が21症例と多かった。
4. 発見のきっかけとしては萌出遅延が多くみられた。
5. 発生部位としては上顎前歯部が多く、歯種では上顎乳犬歯が多かった。左右差はみられなかった。
6. X線写真所見としては、歯牙腫として典型的な所見を示すものと、不透過性が弱く診断のつけにくいものがあった。
7. 歯牙腫はほとんど全例が外科的に摘出されていた。歯牙腫摘出の際に保存的処置を受けた乳歯の約半数がその後萌出していたが、いずれも患者年齢は5歳以下であった。
8. 病理組織診断ではcompound odontomaが24例と多くみられ、complex odontomaは2例で少なかった。
9. ghost cellは4例で報告されていた。
10. 埋伏歯の形態異常が認められたものは本報告の症例2の1例のみであった。

本論文の要旨は平成4年度第10回日本小児歯科学会北日本地方会大会および総会（平成4年10月25日山形県山形市）において発表した。

文 献

- 1) 石川梧朗ほか：口腔病理学II. 461-512頁, 末永書店, 京都, 1984.
- 2) Axel, A. L.: Supernumerary Teeth In Cyst: Report of Case. J. Am. Dent. Assoc., 24: 457, 1937.
- 3) 相沢一男, 祝原豊章, 城山剛彦, 高須 淳, 扇谷太一: 乳歯簇に発生せる歯牙腫の一例. 日歯会誌, 10: 92-94, 1957.
- 4) Hitchin, A. D., Dekonor, E.: Two Cases of Compound Composite Odontomes Associated with Deciduous Teeth. Brit. Dent. J., 114: 26-28, 1963.
- 5) Noonan, R. G.: Abbreviated case report; A compound odontoma associated with a deciduous tooth. Oral Surg., 32: 740-742, 1971.
- 6) 渡辺邦一, 天羽 峻, 村田雄一, 高須 淳, 今井一彦: 乳歯に関与した compound composite odontoma の1例. (抄)日口外誌, 17: 574-575, 1971.
- 7) Malik, S. A., Khalid, M.: Odontomatosis (multiple odontomas)—a case report. Brit. J. Oral Surg., 11: 262-264, 1974.
- 8) Levine, N., Stoneman, D. W.: Compound odontome associated with the primary dentition. Ontario Dentist, 54: 12-14, 1977.
- 9) 佐々木仁弘, 野坂久美子, 甘利英一, 畠山節子: 経年的観察を行った集合性歯牙腫の1症例. 小児歯誌, 16: 137-143, 1978.
- 10) 富永二三子, 錦織美晴, 中川正明, 清水達郎, 小島正明, 高橋利典: 乳歯列にみとめられた複合性歯牙腫の1症例. 臨床歯科, 273: 57-59, 1979.
- 11) 西岡哲二, 森本忠三, 上仲 均, 白数力也, 山田隆造, 古跡孝和: 乳歯に関係したと思われる集合性歯牙腫の1例. 歯科医学, 44: 276-281, 1981.
- 12) 有田信一, 中川幹夫, 川越 仁, 藤田信儀, 伊東隆三, 松本光夫, 岡喜七郎, 北村勝也: 乳犬歯の萌出を妨げていた集合性歯牙腫の一例. 福歯大誌, 8: 216-222, 1981.
- 13) 中原世津子, 副島嘉男, 塚本末廣, 本川渉, 吉田 讓: 乳歯の萌出を妨げていた歯牙腫の2例. 福歯大誌, 9: 780-789, 1983.
- 14) 渡部好造, 宮本博一, 玉川健三: 乳歯胚に関連して発生した歯牙腫の1例. 口科誌, 34: 689-693, 1985.
- 15) 松本康博, 久米攸子, 佐藤淳一, 瀬戸皖一: 乳歯に関連した歯牙腫の一例. 鶴見歯学, 12: 15-18, 1986.
- 16) Stajcic, Z. Z.: Odontoma associated with a primary tooth. J. Pedodontics, 12: 415-420, 1988.
- 17) 蓮沼一郎, 渡辺ヒロ子, 田口 洋, 富沢美恵子, 野田 忠, 福島祥紘: 乳歯の萌出を障害した集合性歯牙腫の1例. 新潟歯学会誌, 18: 95-101, 1988.
- 18) 加藤一栄: 幼児に発生した集合性歯牙腫の1例. (抄)日口科, 37: 819, 1988.
- 19) 伊藤慶司, 皆川幸俊, 徳本憲道: 6歳男児にみられた集合性歯牙腫の1症例. (抄)小児歯誌, 26: 706-707, 1988.
- 20) 山本雅也, 横林敏夫, 峯村伸児, 堀 和則, 刀根川容子: 乳歯の萌出を障害した集合性歯牙腫の1例. (抄)口科誌, 38: 791, 1989.
- 21) Motokawa, W., Braham, R. L., Morris, M. E., Tanaka, M.: Surgical exposure and orthodontic alignment of an unerupted primary maxillary second molar impacted by an odontoma and a dentigerous cyst: a case report. Quintessence International, 21: 159-162, 1990.
- 22) 野村雅久, 江崎正人, 清見原正騎, 小原勝, 石川武憲, 下里常弘: 乳歯に関連した歯牙腫の1例. 広歯大誌, 22: 374-377, 1990.
- 23) 村上充子, 新谷誠康, 泉谷 明, 大嶋 隆, 祖父江鎮雄, 石田 武: 乳歯の萌出を障害した歯牙腫を伴う石灰化歯原性嚢胞の1

- 例. 小児歯誌, 29: 181-185, 1991.
- 24) Brunetto, A. R., Turley, P. K., Brunetto, A. P., Regattieri, L. R., Nicolau, G. V.: Impaction of a primary maxillary canine by an odontoma: surgical and orthodontic management. *Pediatric Dentistry*, 13: 301-302, 1991.
- 25) 逢坂亘彦, 清水良昭, 池松秀峰, 田辺盛光, 吉村 讓, 五嶋秀男: 上顎右側乳中切歯の萌出を妨げた歯牙腫の一例. (抄)小児歯誌, 30: 502, 1992.
- 26) 佐野正之, 田辺盛光, 佐藤直芳, 諸星孝夫, 吉村 讓, 岡藤正樹, 巢瀬賢一, 鹿田裕子, 五嶋秀男: 歯牙腫により上顎左側第二乳臼歯が埋伏した一例. 小児歯誌, 30: 1048-1055, 1992.
- 27) Kramer, I. R. H., Pindborg, J. J., Shear, M.: *Histological Typing of Odontogenic Tumours*, 2nd ed., Springer-Verlag, Berlin, 1992.
- 28) Basker, S. N.: *Synopsis of oral pathology*. 5th ed., P. 270, C. V. Mosby, St. Louis, 1977.
- 29) 石井 正: 歯系腫瘍に関する研究. 大日本耳鼻咽喉科会報, 33: 1036-1100, 1927.
- 30) 塚野多四郎: 「オドントーム」(硬性歯牙腫)の60例に関する臨床的研究. 大日歯医会誌, 85: 39-72, 1937, 86: 192-234, 1938.
- 31) Gorlin, R. J., Chaudhry, A. P., Pindborg, J. J.: *Odontogenic tumors, Classification, Histopathology, and Clinical Behavior in Man and Domesticated Animals*. *Cancer*, 14: 73-101, 1961.
- 32) 松崎久, 稲川俊文, 八橋陸治: 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.
- 33) 滝川富雄, 高沢延幸, 飯田喜八郎, 林裕, 中島敏之, 松本隆彦: 上顎に生じた複雑歯牙腫の2例. 日大歯学, 45: 1-7, 1971.
- 34) 久野吉雄, 比喜実盛, 高橋秀太郎, 本多洋之: 複合性歯牙腫26例の臨床的考察. 日口外誌, 18: 405-410, 1972.
- 35) 中畑範彦, 金子賢司, 川上裕永, 中村武夫, 渡部正吾, 柴田朝美, 内堀仁一朗, 佐藤保信, 保高茂美, 柿沼平八郎, 里吉里美, 東郁也: 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.
- 36) Regezi, J. A., Kerr, D. A., Courtney, R. M.: *Odontogenic tumors: analysis of 706 cases*. *J. Oral Surg.*, 36: 771-778, 1978.
- 37) Toretta, E. F., Miller, A. S., Peezick, B.: *Odontomas: an analysis of 167 cases*. *J. Pedodontics*, 8: 282-284, 1984.
- 38) Morning, P.: *Impacted teeth in relation to odontomas*. *Int. J. Oral Surg.*, 9: 81-91, 1980.
- 39) 中畑範彦, 金子賢司, 川上裕永, 中村武夫, 渡部正吾, 内堀健二, 田所英之, 井出文雄, 柿沼平八郎, 里吉里美, 国分征二, 東郁也: 本邦における歯牙腫の臨床病理学的検討—補追—10歳以下の年少者における歯牙腫について. 日大口腔科学, 2: 192-199, 1976.
- 40) 金原奈々子, 中倉邦子, 富沢美恵子, 野田忠: 小児の歯牙腫16例の臨床的観察. 小児歯誌, 27: 546-555, 1989.
- 41) 大井 清, 岩沢 力: 過去二ケ年間ニ於ケル東京医科歯科医学専門学校付属医院外科外来患者, 統計的観察. 歯科学報, 32: 1058-1071, 32: 1135-1151, 1927.
- 42) Shafer, W. G., Hine, M. K., Levy, B. M., Tomich, C. E.: *A Textbook of Oral Pathology*. 4th ed., p 260-261, W. B. Saunders Co., Philadelphia, 1983.
- 43) Hunter, B., Hunter, M. L., Pizarro, K, A.: *Complete eruption of a malformed mandibular permanent molar following extraction of a complex odontome*. *Int. J. Paediat. Dent.*, 1: 31-34, 1991.
- 44) 上原智恵子, 登内喜美江, 野田 忠, 福島祥紘: 形成過程を経時的に観察した集合性

- 歯牙腫の1例. 小児歯誌, 22: 698-705, 1984.
- 45) 小林八州男, 川上英世, 好士和夫: 歯牙硬組織の形成を認めた軟性歯牙腫の1例. 口病誌, 26: 2122-2167, 1959.
- 46) Shafer, W. G., Hine, M. K., Levy, B. M., Tomich, C. E.: A Textbook of Oral Pathology, 4th ed., p 274-275, W. B. Saunders Co., Philadelphia, 1983.
- 47) Gardner, D. G., Dort, L. C.: Dysplastic enamel in odontomas. Oral Surg., 47: 238-246, 1979.
- 48) Levy, B. A.: Ghost cells and odontomas. Oral Surg., 36: 851-855, 1973.
- 49) 堀田 一, 大塚輝裕, 井上担平, 平川恒男, 河合 宏: 歯牙腫の6症例について. 口科誌, 15: 395-402, 1966.

Odontomas Causing Impaction of Primary Teeth: Case Report and Review of the Literature

Keiko HAISHIMA, Mieko TOMIZAWA,
Tadashi NODA, and Makoto SUZUKI*

*Department of Pedodontics, School of Dentistry, Niigata University
(Chief: Prof. Tasashi NODA)*

**Clinical Laboratory, Niigata University Dental Hospital*

Abstract

We reported two cases of compound odontoma causing impaction of maxillary primary central incisor in 1 year-old children. Radioopacity of these lesions was not quite distinct. Histological examination of two cases revealed immature dental tissue. In case 1, odontogenic epithelium in the tumor was accompanied with "ghost cells". Case 2, the youngest case so far reported of odontoma causing impaction of primary tooth, showed a small longitudinal ridge on the labial surface of the incisor.

We reviewed literatures dealing with 29 cases of odontoma in total, which caused impaction or delayed eruption of primary teeth, including our 2 cases.

The results were as follows:

1. Patients' age at first visit ranged from 1 to 10 years-old, with the mean of 4 years.
2. No sex predilection was seen in incidence.
3. Twenty one cases were reported on Japanese patients.
4. The most common complaint was unerupted primary teeth.
5. Most lesions occurred in the maxilla, especially in the area of primary cuspids. Incidence was equal between right and left sides.
6. On radiographic examination, some cases showed the radio-opacity, typical of the usual odontoma, while others were difficult to diagnose as odontoma because of their low radio-opacity.
7. In most of the cases, odontoma was removed surgically. In half of the reported cases, the impacted primary teeth, which were left in situ, erupted subsequently. The patients' age of the erupted cases were under 5 years old.
8. Twenty four cases were compound odontoma histologically. Two cases were complex odontoma.
9. Ghost cells were reported in 4 cases.
10. Morphological abnormality of crown of impacted primary teeth was noted in only one case.