

下顎に生じたエナメル上皮線維腫の1例

横林 康男, 日出嶋 康博, 前田 美智之, 川北 小百合

富山県立中央病院歯科・口腔外科
(主任: 横林康男部長)

Ameloblastic fibroma of the mandible: Report of a case

Yasuo YOKOBAYASHI, Yasuhiro HIDESHIMA, Michiyuki MAEDA, Sayuri KAWAKITA

*Department of Dentistry, Oral and Maxillofacial
Surgery, Toyama Prefectural Central Hospital
(Chief: Yasuo YOKOBAYASHI)*

Key word: ameloblastic fibroma (エナメル上皮線維腫), mandible (下顎)

Abstract: Ameloblastic fibroma is classified in an odontogenic mixed tumor and its report is extremely rare. We experienced a case of ameloblastic fibroma of the mandible.

The patient was a 51-year-old man with a bony swelling in the incisal to the left premolar region of the mandible. Radiographic examination showed a tumorous mass consisting of a mixture of radiolucent and radiopaque lesions. Radioisotope scintigram with ^{99m}Tc showed 2 hot spots corresponding to the mass of the mandible. The clinical diagnosis of a tumor of the mandible was made. Biopsy revealed the lesion to be an ameloblastic fibroma. The tumor was removed by partial resection of the mandible with the patient under general anesthesia. The postoperative course was uneventful and 3 years later, there was no evidence of recurrence of the lesion.

Microscopically, the tumor consisted of a solid lesion with proliferation of ameloblastic cells and fibrous connective tissue and a cystic lesion with a lining of ameloblastic cells accompanied by proliferation of fibroblastic cells.

抄録: エナメル上皮線維腫は歯源性混合腫瘍で, その報告は比較的少ない。今回私たちは下顎に生じた本症の1例を経験したので報告をする。

症例は51歳の男性で, 平成5年4月22日, 下顎前歯部歯肉の腫脹を主訴として当科を受診した。現病歴では, 3年前より1~3部唇側歯肉の腫脹に気づき, 徐々に増大したため当科を受診した。現症: 全身所見では問題なく, 口腔外所見では, 左オトガイ部にビマン性の腫脹を認め, 骨様硬であった。口腔内所見では1|1~4部唇側歯肉から歯肉頬移行部にかけて腫脹を認め, 骨様硬であった。|2部舌側歯肉にも同様の腫脹を認めた。X線所見では3~1|1~5部にかけて不透過像と透過像が混在し, 一部は嚢胞様であった。CT所見では1|1~4部にかけて骨皮質は菲薄化し不鮮明となっており, 表面は不規則で外側・内側方向に突出し, 内部骨梁も不均一となっていた。Tc骨シンチ所見では, 下顎骨正中部に2個のhot spotを認めた。処置及び経過: 生検にてエナメル上皮線維腫の診断を得たため, 平成5年8月24日, 全麻下にて下顎骨部分切除術, 32歯根端切除術, 1|1234抜歯術を施行した。術後3年を経過するも再発は認めず経過良好である。組織学的には, 腫瘍はエナメル上皮様細胞と線維性結合組織の増殖よりなる充実部と線維芽細胞様細胞の増殖をともないエナメル上皮様細胞に裏層された嚢胞部よりなっていた。

混合腫瘍で, その報告は比較的少ない。

今回, 私たちは下顎に生じた本症の1例を経験したので, その概要を報告する。

緒 言

エナメル上皮線維腫は歯源性上皮と間葉組織との両者の増殖からなり, 歯牙硬組織の形成がみられない歯源性

症 例

患者：51歳，男性。

初診：平成5年4月22日。

主訴：下顎前歯部歯肉の腫脹。

家族歴：特記事項なし。

既往歴：20年前左顎下部裂傷で縫合。6年前より高血圧にて降圧剤を服用中。2か月前大腸ポリープ摘出術。

現病歴：3年前より11～3唇側歯肉の腫脹に気づくも痛みがないため放置。しかし徐々に増大したため当科を受診した。

現症：全身の所見では問題なし。口腔外所見では，左オトガイ部にビマン性の腫脹を認めるも発赤はなく，触診にて骨様硬の膨隆を触れるも知覚麻痺は認めなかつ

た。

口腔内所見では11～4部唇側歯肉から歯肉頰移行部にかけて比較的境界明瞭な腫脹を認め，触診にて骨様硬で圧痛は認めなかった。12部舌側歯肉にも同様の腫脹を認めた。(写真1)

X線所見：3～111～5部にかけて不透過像と透過像が混在しており，一部は嚢胞様の透過像となっていた。23の歯根は離開し，病巣は3～111～5部の歯根間にまで及んでいた。(写真2, 3)

CT所見：111～4部にかけて骨皮質は菲薄化し不鮮明となっており，表面は不規則で外側・内側方向に突出し，内部骨梁も不均一となっており，一部は嚢胞様であった。(写真4)

^{99m}Tc骨シンチ所見：下顎骨正中部に2個のhot spotを認めるも，他領域には異常はみられなかった。(写真5)



写真1. 口腔内所見

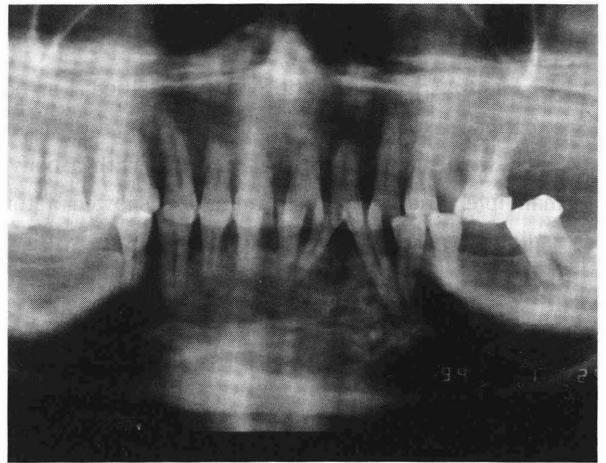


写真2. パノラマX線所見



写真3. デンタルX線所見



写真4. CT所見

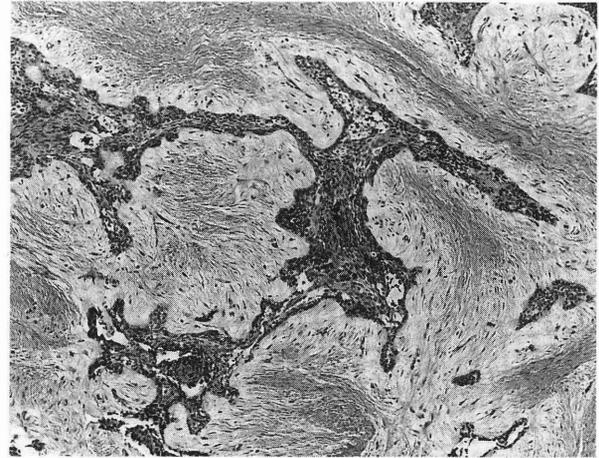


写真7. 病理組織学的所見 (H E 染色×20)

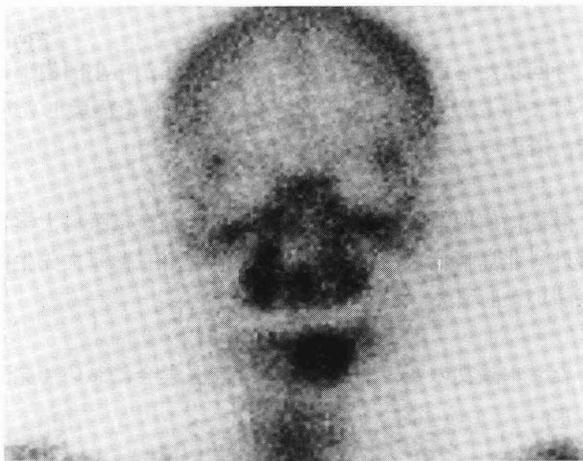


写真5. ^{99m}Tc 骨シンチ所見



写真8. 病理組織学的所見 (H E 染色×50)



写真6. 摘出物所見

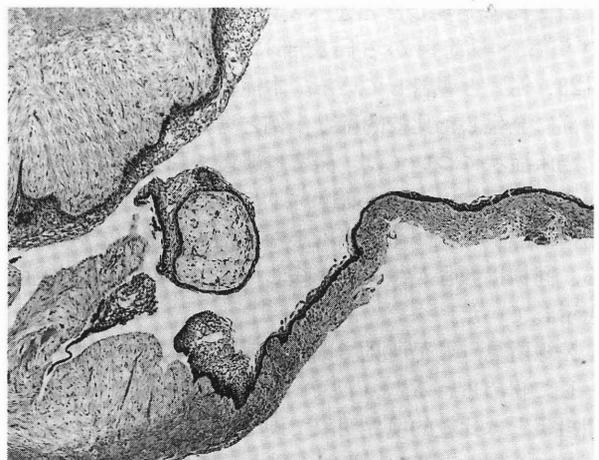


写真9. 病理組織学的所見 (H E 染色×10)

臨床診断：下顎腫瘍

処置及び経過：平成5年5月10日，生検にてエナメル上皮線維腫の診断を得たため，8月23日入院，8月24日全麻下にて下顎骨部分切除術，32歯根端切除術，1|1234抜歯術を施行した。4～1|1～5に切開を加え歯肉骨膜弁を剝離した。1|1～3根尖部から下顎骨体下縁部にかけては骨膜と腫瘍が癒着し剝離は困難であった。また2|1～5部下方および45部下方に嚢胞様組織を認めたため摘出した。術後3年を経過するも再発は認めず経過良

好である。

摘出物所見：1|1～4部唇側および1|12舌側に骨様硬の膨隆を認め，表面は粗造であった。嚢胞様の組織も認められた。(写真6)

病理組織学的所見：下顎骨の中に不規則にのびる腫瘍の増殖があり，被膜の形成はなくその境界は明らかではなかった。腫瘍は充実性部分と嚢胞性部分とから成り，

充実性部分はエナメル上皮様の細胞とその間をうめる線維性結合組織の不規則な増殖からなっていた。後者は種しゅの程度の線維芽細胞様細胞を含み、密な膠原線維束の形成を伴っていた。上皮細胞にはエナメル髓様の分化がみられた。また嚢胞性部分の内壁はエナメル上皮様細胞で被われていた。(写真7, 8, 9)

考 察

エナメル上皮線維腫の発現頻度は、きわめて稀で、エナメル上皮腫に比べてはるかに少なく¹⁾、石川²⁾はエナメル上皮腫108例に対し3例、Regezi³⁾は歯原性腫瘍706例中15例、Gorlinら⁴⁾は歯原性腫瘍2,243例中43例であったと報告している。本邦での報告例は1993年までに38例を数える⁵⁾にすぎない。

好発年齢については、20歳前後までの若い人に多い¹⁾といわれている。Gorlinら⁴⁾は6か月から42歳で平均16歳、Trodahl⁶⁾は1.5歳から41歳で平均15.5歳であったと述べている。本邦38例のうち40歳以上の症例は7例と比較的少なく⁵⁾、本症例のように中年期に発現したものはきわめて稀であった。

性別では性差はない¹⁾⁴⁾というものと、男性に多い⁶⁾⁷⁾⁸⁾というものがある。本邦では男性が多く、本症例も男性であった。

好発部位については、下顎の臼歯部に多いという報告¹⁾が多い。Trodahl⁶⁾は約60%、植田ら⁸⁾は約53%は下顎の臼歯部に発現したと述べている。鎌倉ら⁵⁾は本邦38例のうち下顎前歯から臼歯部に発生したものは9例(23.7%)と報告している。本症例は下顎前歯部から臼歯部に発生した比較的稀な1例と考えられた。

臨床症状については、発育は緩慢で膨張性に発育し、顎骨を膨隆させるといわれている¹⁾。本症例も3年前に歯肉の腫脹に気づくも痛みがないため放置していたところ、同様に顎骨が徐々に膨隆してきており、特徴的症状を示していた。

X線所見、CT所見では境界明瞭な単胞性の骨透過像として認められる¹⁾といわれている。多胞性のものや、周囲組織とは比較的境界明瞭で硬・軟組織が混在する病変としてみられる⁵⁾こともある。また埋伏歯や未萌出歯との関連も示唆¹⁾されている。本症例は、鎌倉ら⁵⁾の症例に類似していたが、埋伏歯や未萌出歯はみられなかった。

病理組織学的には、歯乳頭を思わせる若い結合組織のなかに歯原性上皮の小塊状ないし索状の増殖が散在性にみられるのが特徴であり、エナメル上皮腫の場合のような明らかな嚢胞は生じないのが普通であるとされている¹⁾。しかし、大きな嚢胞を認めたとの報告もある⁹⁾。本症例では上皮部分に生じた大きな嚢胞様組織を認めた。

治療法については、摘出術が一般的に行われており、顎骨切除術や顎骨離断術などが施行されることもある。本症例では病巣がかなり大きいので、顎骨部分切除術を行った。

再発率は、エナメル上皮腫に比べてかなり低いといわれており、本症例も現在のところ認めない。しかしTrodahl⁶⁾は43.5%、Zallen¹⁰⁾は18.3%と再発率が高いと述べており、周囲健全骨を含む比較的広範囲の切除すなわち根治的な手術法を選択すべきことを示唆している。またエナメル上皮線維肉腫への悪性化の報告⁴⁾もあり、術後の長期にわたる経過観察が必要と思われる。

結 語

今回私たちは、51歳男性の下顎前歯部から臼歯部にかけて生じたエナメル上皮線維腫の1例を経験したので、若干の文献的考察を加え報告した。

最後に病理組織学的診断をいただいた東京医科大学口腔外科北島晴比古先生、本院臨床病理科三輪淳夫先生に深謝いたします。

なお本論文の要旨は、第48回北陸医学会において発表した。

引 用 文 献

- 1) 石川悟朗, 秋吉正豊: 口腔病理学II, 改訂版. 502-504頁, 永末書店, 京都, 1982.
- 2) 石川悟朗: 歯原性腫瘍について, とくに病理学的方面から(その2) 口病誌, 27: 317-321, 1955.
- 3) Regezi, J. A., Kerr, D. A., et al.: Odontogenic tumors; analysis of 706 cases. J. Oral Surg., 36: 771-778, 1978.
- 4) Gorlin, R. J. and Goldman, H. M.: Thoma's Oral Pathology I, 6th Ed., 493-496, Mosby Co., St Louis, 1970.
- 5) 鎌倉慎治, 川村仁, 他: 下顎前歯部・臼歯部に発生したエナメル上皮線維腫の1例, 日口外誌, 39: 911-913, 1993.
- 6) Trodahl, J. N.: Ameloblastic fibroma; A survey of cases from the armed forces institute of pathology. Oral Surg., 33: 547-558, 1972.
- 7) 枝重夫, 川上敏行, 他: 稀有なるAmeloblastic Fibromaの1症例, 口科誌, 26: 285-290, 1977.
- 8) 植田章夫, 鹿毛俊孝, 他: エナメル上皮線維腫の1症例—光学顕微鏡および電子顕微鏡の観察—, 日口

- 外誌, 32 : 848-853, 1986.
- 9) 林俊子, 中村千仁, 他 : 大きな実質嚢胞を形成した
エナメル上皮線維腫の1症例—光学顕微鏡ならびに
電子顕微鏡的観察—, 日口外誌, 28 : 123-130, 1982.
- 10) Zallen, R. D., Preskar, M. H., et al. : Ameloblastic
Fibroma. J. Oral Maxillofac. Surg., 40 : 513-517,
1982.