

Riga-Fede 病 の 7 症 例

岩 崎 弘 治, 横 林 敏 夫

新潟大学歯学部口腔外科学第一教室 (主任: 常葉信雄教授)

佐 藤 秀 夫

佐藤歯科医院

(昭和52年8月18日受付)

Riga-Fede disease : Report of seven cases.

Hiroharu IWASAKI, Toshio YOKOBAYASHI

First Department of Oral Surgery, Niigata University School of Dentistry

(Director : Prof. Nobuo Tokiwa)

Hideo SATO

Sato Dental Clinic.

緒 言 症 例

Riga-Fede 病は、乳幼児の舌尖下部粘膜面に生ずる潰瘍、あるいは反応性の線維性肉芽組織の増生を伴う疾患名¹⁾で、時々遭遇するものである。

今回、私達は、昭和42年12月から昭和51年10月までに、新潟大学歯学部附属病院口腔外科外来にて、同疾患の7症例を経験したのでその概要を報告する。

症例は、計7症例で表(1)のごとく男児4名女児3名で、日令24日から年令1才5カ月に及び、7名中6名は生後70日以内に来院していた新生児及び乳児であった。

主訴として、第5症例の1才5カ月の幼児が食物摂取障害のみを訴えた以外は、すべて舌下面の潰瘍を主訴としており、潰瘍とともに授乳障害を

表(1) 症 例

症 例	性	日 令 (年 令)	初 診	主 訴	紹 介 診 療 科
1 三 ○ 和 ○	♂	70日	S43. 11. 26	舌 下 面 潰 瘍	小児科(本 学)
2 栗 ○ か○り	♀	31日	S45. 7. 30	舌 下 面 潰 瘍	産 科(総合病院)
3 野 ○ 千 ○	♀	41日	S47. 10. 9	舌 下 面 潰 瘍	小児科(本 学)
4 倉 ○ 寛	♂	60日	S49. 3. 13	舌下面潰瘍授乳障害	—
5 斎 ○ 和 ○	♂	1才5カ月	S49. 12. 10	食 物 摂 取 障 害	内 科(開業医)
6 高 ○ 明 ○	♀	47日	S50. 2. 19	舌下面潰瘍授乳障害	小児科(本 学)
7 米 ○ 正 ○	♂	24日	S51. 1. 5	舌 下 面 潰 瘍	保健所

訴えたものが、そのうち2名みられた。

紹介診療科は、本学小児科が3例、内科、産科、保健所が各1例づつで、当科に直接来院したものは、7名中1名しかみられなかった。

既往疾患としては、7名とも特記すべき事項はなく、また全身的にも問題となるところはなかったが、第5症例では原因不明の頤部の不規則な瘰癧が認められた。

生下時の体重は、2,500~3,420gに及んでいたが未熟児はいなく、成長も普通であった。

口腔内所見として、図(1)のごとく舌下面部に潰瘍の形成がみられ、その大きさは小豆大から大豆大のものまでで、潰瘍は浅く表面は白苔で被れ周囲は発赤し、歯牙に接触する面は、その歯牙の切縁に一致した圧痕がみられるものがあった。部位は舌小帯部が大部分であったが、2例は舌尖部まで広く潰瘍を形成していた。

潰瘍の形成時期は、新生児及び乳児では、歯牙萌出より2~3週にて潰瘍が形成されており、歯牙萌出より2カ月と遅い例は、1才5カ月の幼児にみられたものであった。表(2)

歯牙が出生時すでに萌出していたものは3例、生後3日目2例、生後約20日後1例と第5症例の8カ月目を除いては、比較的早期に萌出していた歯牙であり、いわゆる先天性歯で Massler ら²⁾のいう出産歯が3歯、新生歯が4歯みられた。

部位は、すべて下顎乳中切歯部に相当するところであり、先天性歯についてみるとA部にみられたものが3例、A部にみられたものが1例で、AAがみられたものは2例であった。

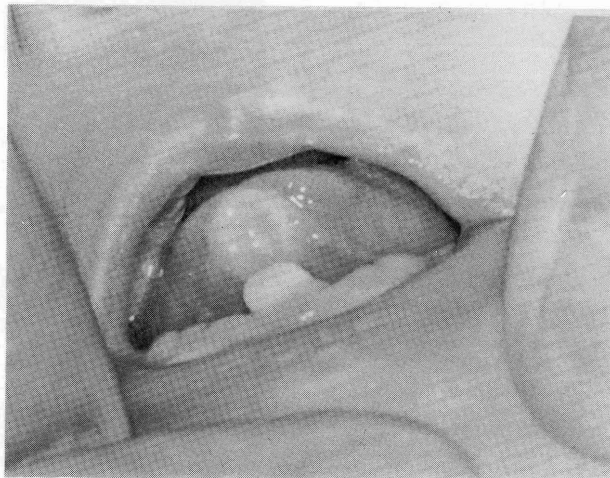
また、萌出歯牙が真性の乳歯であったものは3例で、過剰歯であったものは1例のみで他は不明であった。表(3)

処置及び経過

3例は全身麻酔、2例は局所麻酔下に萌出歯牙を抜去したが、第4、5症例の2例は、萌出歯牙切縁の削合のみを施行した。ただし、第4症例は当科にて抜歯を勧めたが、某大学小児歯科にて削

表(2) 潰瘍の大きさ、部位

症例	潰瘍の大きさ	潰瘍の部位	潰瘍の形成時期
1	大豆大	舌小帯部	?
2	5 × 8 mm	舌尖部~舌小帯上部	歯牙萌出より2週目
3	小豆大	舌尖部~舌小帯上部	〃 3週目
4	大豆大	舌小帯部	〃 3週目
5	大豆大	舌尖部~舌小帯上部	〃 2カ月目
6	φ10mm	舌小帯部	〃 3週目
7	φ6mm	舌小帯上部	〃 3週目



図(1) 口腔内写真

表(3) 原因歯の萌出時期及び分類

症例	体重 (生下時)	萌出時期	歯牙の分類	部位	真性歯か過剰歯か
1	?	出生時	出産歯	\overline{A}	?
2	2500g	生後約20日目	新生歯	\overline{A}	?
3	3380g	生後3日目	新生歯	\overline{A}	?
4	3450g	出生時	出産歯	$\overline{A/A}$	真性歯
5	3250g	生後8ヵ月目	正常萌出歯	$\overline{A/A}$	真性歯
6	3050g	出生時及び1日後	出産歯及び新生歯	\overline{A} 及び \overline{A}	過剰歯
7	3170g	生後3日目	新生歯	\overline{A}	真性歯

表(4) 処置及び経過

症例	麻酔	処置	経過
1	G O F 全身麻酔	抜歯	不明
2	10%キシロカインスプレー噴霧	抜歯	2日目に潰瘍消失 再発(-)
3	G O F 全身麻酔	抜歯	不明
4	なし	切縁削合	3日目に潰瘍消失 再発(-)
5	なし	切縁削合	1週後左舌下面の潰瘍消失, さらに、 \overline{BA} 削合にて治癒 再発(-)
6	2%キシロカイン浸麻	抜歯	3日目に潰瘍消失 再発(-)
7	笑気麻酔 $\begin{matrix} N_2O & 4\ell \\ O_2 & 2\ell \end{matrix}$	抜歯	5日目に潰瘍消失 再発(-)

合し治癒せしめたものである。

経過は、抜歯した例では2日から5日にて潰瘍が消失し、削合した例では第4症例のごとく3日目に潰瘍が消失していたが、第5症例では \overline{AB} 相当部の片側の潰瘍しか消失せず、さらに \overline{BA} の削合を加え治癒にいたらしめたものであった。表(4)

次に、最近遭遇した第7症例について詳細に報告する。

患者：米○正○，生後24日，男児 図(2)

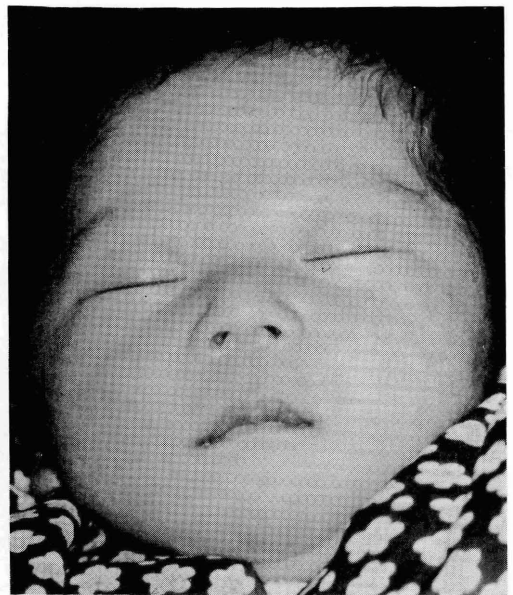
初診：昭和51年1月5日

主訴：舌下面の潰瘍

家族歴：特記すべき事項なし

既往歴：妊娠中，特に異常はなく出産も正常分娩にて，体重3,170g，来院時は3,700gで成長は良好，特に罹患した疾病もみられなかった。

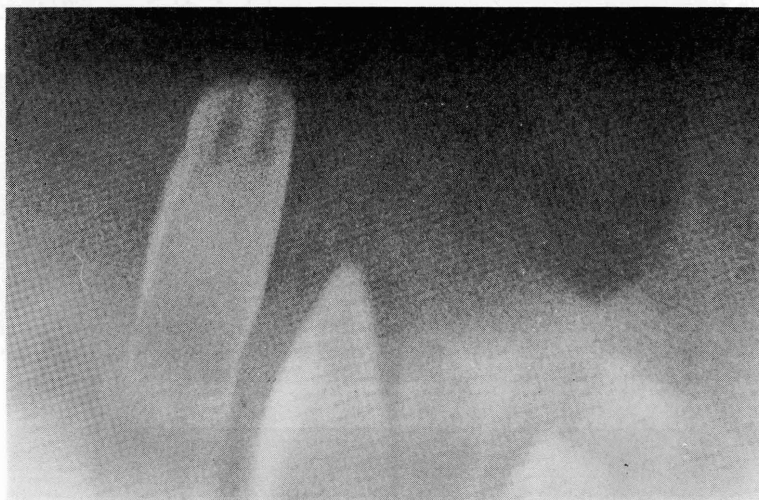
現病歴：出生後，3日目に下顎乳中切歯部に歯牙と思われる白い突起物に気がついてしたが放置



図(2) 顔貌写真



図(3) 口腔内写真(初診時)



図(4) 口腔内X線写真

約2週日より母乳を与え始め、授乳の際、乳頭部に軽い疼痛を認めた。生後21日目に舌下面の小豆大の白色円形の潰瘍に気がつき、保健所へ受診したところ、歯牙による褥創性潰瘍と診断されピオクタニンを塗布された後、当科紹介されて来院したものである。

現症：体格、栄養共に中等度、全身状態良好、顔貌には特別な所見はみられなかった。

口腔内所見：A $\bar{}$ と思われる歯牙が約2mm萌出し、動揺度大で周囲歯肉が発赤し腫張していた。

また舌尖部から舌小帯部にかける舌下面に $\phi 6\text{mm}$ のほぼ円形の境界明瞭な偽膜性白苔で被れた潰瘍がみられ、そのほぼ中央部に萌出歯牙の切縁に一致した陥凹が認められた。潰瘍部は軽度の硬結を触知でき、自発痛、接触痛はあまりないようであった。図(3)

X線所見：図(4)のごとく、歯根未完成のA $\bar{}$ を認めその左側にはAの歯冠の一部を認めるが、過剰歯が真性歯かは明らかにできなかった。

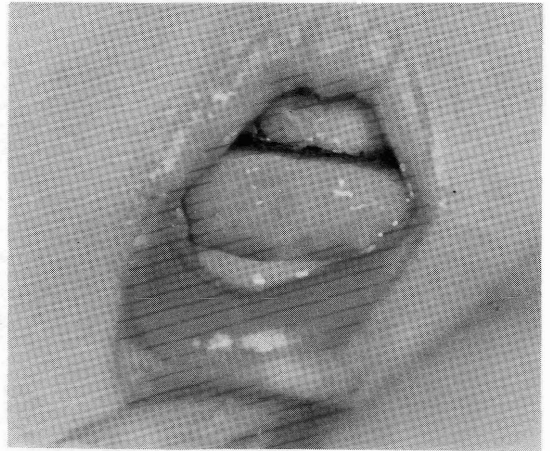
臨床診断：以上の所見より、先天性歯に起因す

る Riga-Fede 病とした。処置及び経過：笑気 4ℓ，酸素 2ℓ の麻酔下に \overline{A} を抜去した。その翌日には潰瘍は縮小しており，3日目には白苔の消失，4日目には点状の発赤を残すのみとなり5日目には潰瘍は全く消失した。図(5)，その後，潰瘍の再発はなく約10ヵ月後の51年10月25日の検診時では，同部に淡黄色を帯びた癒痕がみられたが軟かく周囲組織と変わりはなかった。図(6)

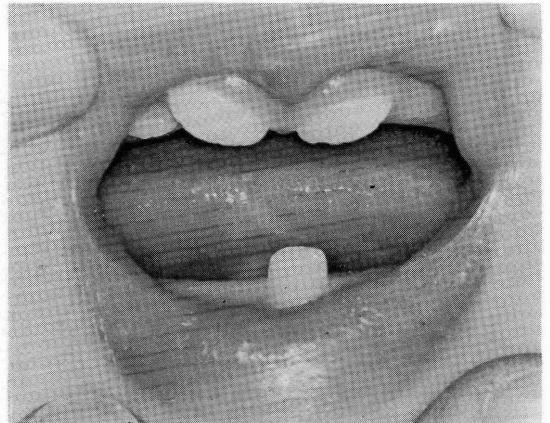
歯牙も $\frac{BA}{A} \mid \frac{A}{A}$ が萌出していたが \overline{A} が欠損しており，X線所見にも \overline{A} の欠損を認め初診時の先天性歯は真性乳歯であることが判明した。図(7)，この先天性歯は，歯根が未完成でエナメル質形成不全部があり，切縁部も鋭利で脆弱な感じを与える。またX線写真のごとく，エナメル質，象牙質がうすく歯髓腔が歯牙の大部分を占めていた。図(8)(9)

考 按

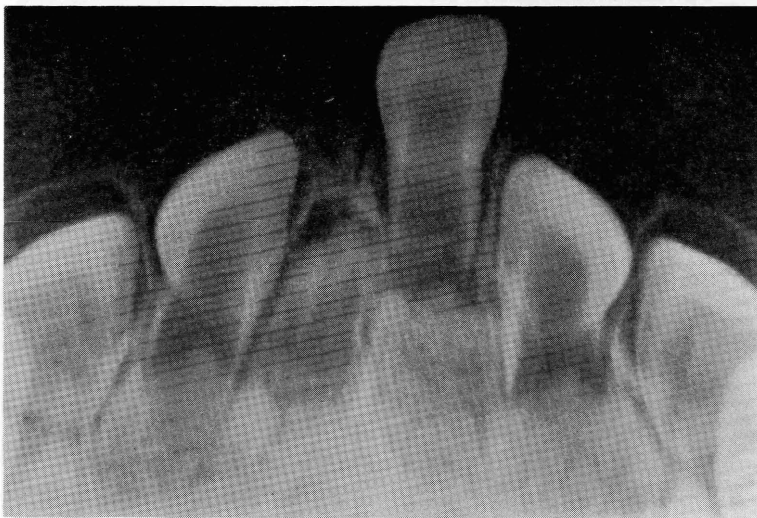
Riga-Fede 病は，イタリアの医師 Fede が1876年，Riga が1882年に南イタリア地方において乳歯萌出期の哺乳児にみられる舌下部の潰瘍について報告したことにはじまる疾患名³⁾であり，時々遭遇する。今回，観察した症例はすべて舌下部の潰瘍であるが，初期症状として粘膜の白変がみられることがあり⁴⁾，長期間放置されると組織



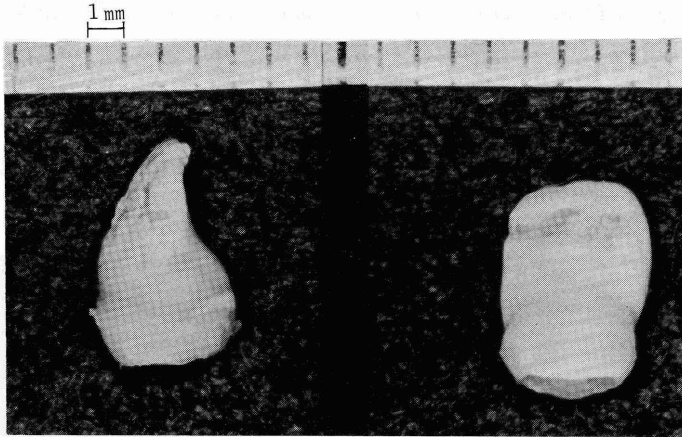
図(5) 抜歯後5日目の口腔内写真



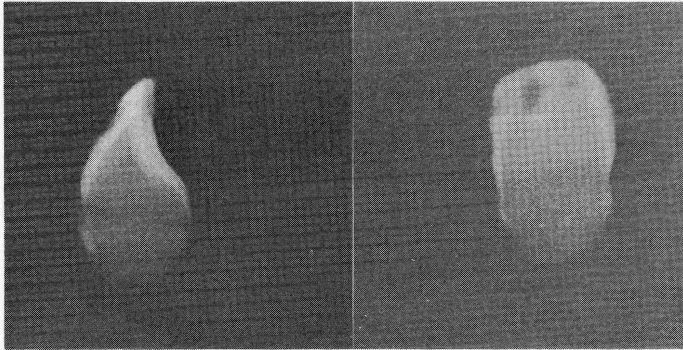
図(6) 10ヵ月後の口腔内写真



図(7) 図(6)の口腔内X線写真



図(8) 第7症例の先天性歯(真性)



図(9) 図(8)のX線写真

が反応性に増殖し円形隆起状の硬結^{5),6)},あるいは腫瘍状の形態³⁾を呈してくる。

組織学的にも、乳頭腫 (Fede, 久保), 肉芽腫 (Partsch, Pianus, Abramson), 血管腫 (Reinfach), 線維腫 (Callani, Phillipson, 笠原)の像を呈するものがあるといわれている^{3),7),8),9)}。

Riga-Fede 病の成因には、従来から表(5)のごとく考えられている。私達の症例では咳嗽を伴う疾患に罹患したことはなく、第5症例以外はいわゆる Massler (1950)ら²⁾のいう先天性歯を有する哺乳児にみられたもので、先天性歯は脆弱なエナメル質をもち、その切縁が鋭利であるので表の1, 2の原因が最も関連しさらに歯槽堤の成長も十分な時期ではなく、比較的舌小帯が短小となっていたのではないかと考えられる。

実際、堀内⁷⁾は舌小帯の付着の異常をみた症例で小帯の切除を加え治療にいたらしめた症例を報告し、舌小帯の異常が大きな誘因ではないかと考えている。Abramsonら⁹⁾も舌小帯の短小とともにみられた Riga-Fede 病の症例を報告し注目している。

表(5) Riga-Fede 病の成因

- | |
|-------------------------------|
| 1. 下顎乳中切歯部の先天性歯などの早期萌出歯 |
| 2. 萌出歯牙の鋭利な切縁 |
| 3. 舌小帯の短小, 付着異常 |
| 4. 咳嗽を伴う疾患 (例; 風邪, 百日咳, 喘息など) |
| 5. 粘膜の抵抗力が小さい |
| 6. 哺乳の不規則 |
| 7. 習慣性舌異常運動 (例; 弄舌癖など) |

第5症例は、先天性歯を有していなかった唯一の症例であるが、生後8カ月目に $\overline{A|A}$ の萌出のため離乳し、その後の咬舌癖のために舌小帯部に潰瘍を生じた症例であり、不規則な頤部の瘻竇との関連は不明である。

さて、私達の症例は第5症例の1才5カ月の幼児を除くすべてが生後24~70日目の新生児及び乳児に観察できたものであり、しかも先天性歯を有したものである。

市来¹⁰⁾らは、Riga-Fede病は生後6カ月頃から一年前後にみられることが多いと述べているが、少ない症例数ながらも私達の結果とは相反する。最近の報告例の4例^{8),10),11)}をみてもそのうち3例は、先天性歯を有した新生児にみられたものであり、Gorlinら¹²⁾の著書にあるように先天性歯に起因することが多いのではないと思われる。

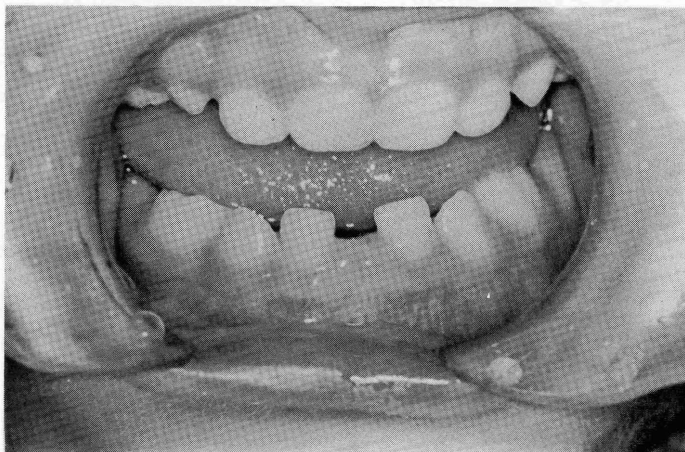
先天性歯はPlinius(1896)が初めて報告¹³⁾しMassler(1950)ら²⁾は、出生時すでに萌出している出産歯と生後1カ月以内に萌出する新生歯とに分類している。

先天性歯の発現頻度は、三村¹⁴⁾0.102%、佐藤¹⁵⁾0.187%、大藤¹⁶⁾0.059%と報告し、Pindborg¹⁷⁾Schaffer¹⁸⁾らが、著書の中でそれぞれ $\frac{1}{2000}$ ~ $\frac{1}{3500}$ 、及び $\frac{1}{5000}$ ~ $\frac{1}{10000}$ としているのをみると、外国では非常に少ないようである。しかし戸

松ら¹⁹⁾は、先天性歯の定義が一定していないため、もっと頻度は少なくなるはずとみている。男女比は、三村¹⁴⁾2:1、佐藤¹⁵⁾1:1.9、坂本²⁰⁾1:1.5となっており、諸々あるが、内村ら¹³⁾の指摘のごとく性差はないと思われる。Bodenhoff¹²⁾もおおよそ同比であると述べている。従ってRiga-Fede病が男児に女児よりも多いといわれているのは、先天性歯の性別の発生頻度と密接な関係があると考えている学者¹¹⁾もいるが、その点あまり関連はなさそうである。私達の先天性歯を有した症例でも、男女同数で、Riga-Fede病を観察することができた。

ただし、先天性歯とRiga-Fede病との発現頻度の関連を報告したものはなく、ただLober²²⁾は文献上の先天性歯を有する144名の観察の中で3名に舌潰瘍があったと述べているのみである。

先天性歯には、真性歯と過剰歯とがある。第6症例は、Riga-Fede病の原因歯として $\overline{A|A}$ 部の先天性歯を抜去したが、その後1年8カ月を経た現在も図(10)のごとく $\overline{A|A}$ の欠損があり、抜去した先天性歯は真性歯に思われた。しかしX-P所見により真の $\overline{A|A}$ は埋伏していることが明らかになり、先天性歯は過剰歯と断定した症例である。図(11)、(12)、(13)、このような先天性乳歯過剰歯は、笠原ら²³⁾は本邦では現在まで報告されていないとし、佐久間ら²⁴⁾は参考に十分な資料はないと



図(10) 一見、真性の先天性歯を思わせる

しながら多発性にみられた $\overline{EC|E}$ 部の先天性乳歯過剰歯の1症例を報告している。佐藤¹⁵⁾は先天性歯を有した23名を観察しているが、過剰歯はなかったと報告している。この偶然にも経験し得た第6症例の先天性乳歯過剰歯はきわめてまれな例といえる。



図(11) 図(10)のX線写真

ところで、真性の乳歯か、過剰の乳歯かについては、初期において鑑別することは困難であると思われる。過剰歯の場合には、歯根の欠除、動揺、形態不全、石灰化不全があるといわれているが、Bodenhoff²¹⁾のいうように真性歯にもそれらはみられるものである。従ってX線写真が最大の鑑別手段になり得る。

処置については、Jacobs²⁵⁾は、樹脂冠を原因歯の歯冠部に被覆しているが、通常は原因歯の削合か、抜歯かを選択する。坂本²⁰⁾らは、先天性歯については過剰歯か真性歯かによって処置を考えるべきとし、他に障害を及ぼすようであれば抜去も仕方がないとしている。

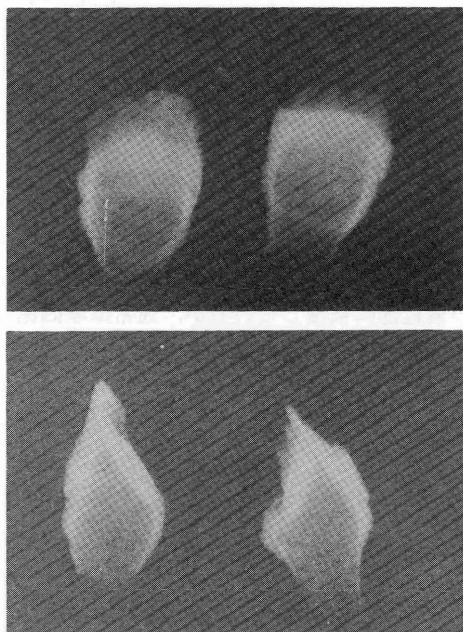
しかし三村^{14),26)}は、抜歯に関して欠損部の空隙の減少を指摘し、十分な配慮の必要性のあることを訴えている。

著者らは、先天性歯に関して第4症例を除いてすべて抜歯したが、第4症例についても当科では抜歯の予定が、某大学にて削合した結果、治癒したことを考えれば、むやみな抜歯は慎まなければならないと思われる。たとえ動揺し、歯周炎を惹起している先天性歯でも保存可能なことを内村ら¹³⁾は述べている。

抜歯について、私達の症例では特に異常はなか



図(12) 先天性過剰歯



図(13) 図(12)のX線写真

ったが、新生児では、通常生後2～5日までは hypoprombinemia がある²⁾ので、Epstein²⁷⁾は生後8日目の抜歯は異常出血をおこすので好ましくないとし、山下⁵⁾は生後1カ月以後の抜歯が望ましいとしている。

経過は非常によく、原因を除去すると比較的早く潰瘍は消失する。舌にも異常はなかったが、舌尖部が欠損し短舌症になることもある。^{6),25)}

結 語

昭和42年12月から昭和51年10月までに Riga-Fede 病の7症例を観察した。

男児4名、女児3名で、先天性歯に起因した例が6症例あり、その中に過剰歯であったきわめてまれな症例も観察できた。

稿を終るに臨み、御校閲下さいました常葉信雄教授に深謝致します。

本論文の要旨は、昭和51年11月13日新潟歯学会51年度第2回例会において報告した。

文 献

- 1) 園山昇：Riga-Fede病. 歯界展望, **43** : 757-758, 1974.
- 2) Massler, M. and Sarara, B. S. : Nataland neonatal teeth, *J. Pediat.*, **36** : 349-359, 1950.
- 3) 後藤敏郎：耳鼻咽喉科学, 下巻. 2版 p1286. 医学書院, 東京 1960.
- 4) 関口洋介ほか：いわゆる先天性歯の2例. 慈医誌, **87** : 696-699, 1972.
- 5) 山下浩：小児の歯の異常. 小児科診療, **35** : 817-825, 1972.
- 6) 西嶋克巳：小児の口腔粘膜疾患とその治療. 小児科診療, **35** : 800-808, 1972.
- 7) 堀内純一：リガフェーデ氏病の一例. 耳鼻臨床, **31** : 40-42, 1936.
- 8) 木邑知義ほか：Riga-Fede 病の2症例. 口外誌, **10** : 110-111, 1964.
- 9) Abramson, M., and Dowrie, J. O. : Sublingual granuloma in infancy, *J. Pediat.* **24** : 195-198, 1944.
- 10) 市来二彦ほか：先天性歯牙に起因するリガフェーデ氏病の1例. 日歯評論, **306** : 437-438, 1968.
- 11) 園山昇ほか：Riga-Fede 病の1例. 口外誌, **20** : 659-661, 1974.
- 12) Golin, R. J. and Goldman, H. M. : *Thomas' Oral pathology 6thed., Vo 1.2, p. 780, Mosby Co., St. Louis, 1970.*
- 13) 内村万里子ほか：先天性歯の1症例. 小児歯誌, **20** : 6-11, 1975.
- 14) 三村義信：邦人に於ける先天性歯牙の頻度に就いて. 口病誌, **8** : 42-47, 1934.
- 15) 佐藤正一郎ほか：先天性歯牙23例について. 口科誌**9** : 453-454, 1960.
- 16) 大藤敬美：先天性歯牙の5症例. 医療**21** : 388, 1968.
- 17) Pindborg, J. J. : *Pathology of the dental hard tissue. 1st ed., p. 232-236. W. B. Saunders Co., Philadelphia, 1970.*
- 18) Schaffer, A. J. and Avery, M. E., : *Diseases of the newborn. 3rd. ed. p. 272-273. W. B. Saunders Co., Philadelphia and London 1971.*

- 19) 戸松功克ほか : 上顎における先天性歯の1症例. 小児歯誌, **8** : 36-40, 1970.
- 20) 坂本清ほか : 早期萌出歯牙の種々相. 歯科時報, **9** : 10-15, 1955.
- 21) Bodenhoff, J. and Gorlin, R. J., : Natal and neonatal teeth. Pediatrics, **32** : 1087-1093, 1963.
- 22) Lorber, C. G., : Zur Klinik Connataler und neonataler Zähne, Dtsch, Zahnärztl. Z. **24** : 255-262, 1969.
- 23) 笠原浩ほか : 乳歯過剰歯の1例. 小児歯誌, **8** : 33-35, 1970.
- 24) 佐久間寅治ほか : 多数の先天性歯を認めた1症例の経過観察. 小児歯誌, **11** : 84-91, 1973.
- 25) Jacobs, M. H., : Oral lesion in Childhood. OS. OM. OP. **9** : 871-881, 1956.
- 26) 三村義信 : 所謂先天性歯牙に関する私見. 歯界展望, **9** : 18-20, 1952.
- 27) Farmer, F. D. and Lawton, F. E. : Stones' Oral and dental disease. 5th ed. p. 126, E. & S. Livingstone Ltd., Edinburgh and London 1966.