

症例報告

左側下顎臼歯部に多房性に生じた発育性歯牙腫の1例

大澤 昂 平^{1,2)}, 富永 拓也^{1,2)}, 田代 茂太^{1,2)},
小澤 知倫³⁾, 光藤 健司²⁾, 岡本 喜之¹⁾

¹⁾藤沢市民病院 歯科口腔外科

²⁾横浜市立大学大学院医学研究科 顎顔面口腔機能制御学

³⁾大和市立病院 歯科口腔外科

要旨: 発育性歯牙腫 (developing odontoma) は2017年のWHO分類で定義されたまれな良性上皮間葉混合性歯原性腫瘍である。今回われわれは少年期の左側下顎臼歯部に多房性に生じた発育性歯牙腫の1例を経験したので、その概要について報告する。患者は14歳、男児。定期検診目的でかかりつけ歯科を受診し、パノラマエックス線写真を撮影したところ、左側下顎臼歯部の透過性病変を指摘され精査目的に当科紹介受診となった。パノラマエックス線写真では左側下顎臼歯部に透過性病変を認め、CTで内部に高吸収領域を伴った境界明瞭な多房性病変が認められた。生検の結果、歯原性良性腫瘍の診断を得たため、全身麻酔下で左側下顎骨腫瘍摘出術を施行した。病理組織学的診断は発育性歯牙腫の診断であった。現在、術後6か月が経過し、再発所見なく経過良好である。

Key words: 発育性歯牙腫 (developing odontoma), 多房性 (multilocular), 少年期 (childhood)

緒言

発育性歯牙腫 (developing odontoma) は2017年のWHO分類 (第4版) で定義されたまれな良性上皮間葉混合性歯原性腫瘍である¹⁾。WHO分類 (第3版) でエナメル上皮線維歯牙腫 (ameloblastic fibro-odontoma: AFO), エナメル上皮線維象牙質腫 (ameloblastic fibrodentinoma: AFD) と定義されていた歯原性腫瘍は、いずれも歯牙腫の発育段階と考えられ、WHO分類 (第4版) で歯牙腫に統一された²⁾。歯牙腫のなかでも特徴的な結節状構造が認められるものを発育性歯牙腫として分類した。今回われわれは少年期の左側下顎臼歯部に多房性に生じた発育性歯牙腫の1例を経験したので、その概要に文献的考察を加えて報告する。

症例

患者: 14歳, 男児。
初診: 2022年11月。
主訴: 左側下顎臼歯部のエックス線透過像の精査。
既往歴: 特記事項なし。
家族歴: 特記事項なし。
現病歴: 2022年10月下旬に定期検診で紹介元かかりつけ歯科を受診した。パノラマエックス線写真を撮影したところ左側下顎臼歯部のエックス線透過像を指摘され、精査目的に当科紹介受診となった。
現症:
全身所見: 体格中等度, 栄養状態良好。
口腔外所見: 顔貌に特記事項認めず, 所属リンパ節の腫脹および圧痛は認めなかった。
口腔内所見: 左側下顎第二大臼歯の萌出障害を認めた。
画像所見: パノラマエックス線写真では埋伏した左側

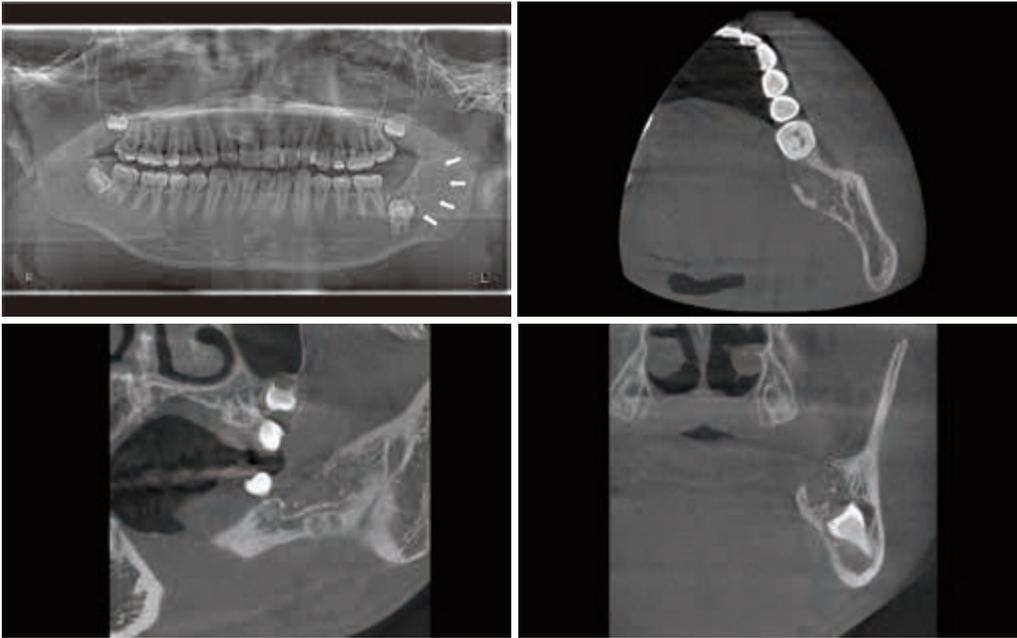


写真1 初診時画像所見
 パノラマエックス線写真で左側下顎臼歯部に透過性病変を認める(矢印). CTで10×10×8mm, 22×8×8mmの内部に高吸収領域を伴った境界明瞭な病変を認める.
 A: パノラマエックス線写真
 B: CT画像 (Axial)
 C: CT画像 (Sagittal)
 D: CT画像 (Coronal)

| | |
|------|------|
| 写真1A | 写真1B |
| 写真1C | 写真1D |



写真2 摘出標本

多房性充実性腫瘍であり, 明らかな硬組織は認めない.

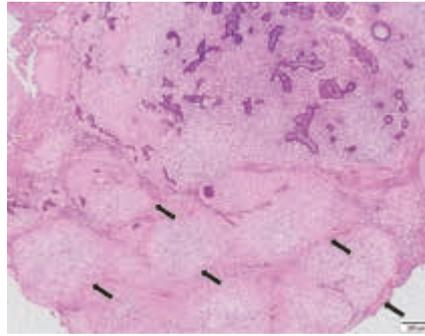


写真3A

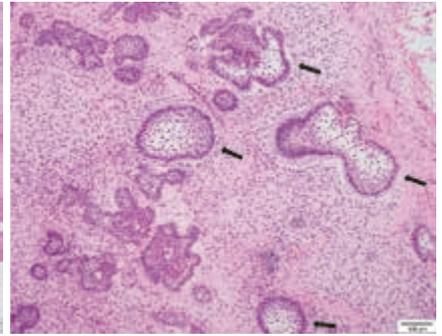


写真3B

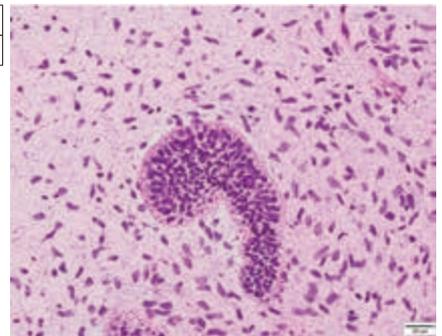


写真3C

写真3 病理組織像

A: (HE染色 低倍率) 結節構造を認める(矢印).
 B: (HE染色 中倍率) エナメル上皮様の歯原性上皮を認める(矢印).
 C: (HE染色 高倍率) 間質細胞は小型で異型は認めない.

下顎第二大臼歯の歯冠周囲および後方に透過性病変を認めた. CTでは左側下顎第二大臼歯の歯冠周囲に10×10×8mm, さらにその後方に22×8×8mmの内部に高吸収領域を伴った境界明瞭な病変を認めた(写真1A~D).

臨床診断: 左側下顎骨良性腫瘍.

処置および経過: 局所麻酔下にて生検術を施行したところ良性歯原性腫瘍の診断を得た. 上記結果を踏まえ, 同年3月, 全身麻酔下で腫瘍摘出術を施行した. 腫瘍は周囲骨から比較的容易に剥離できた(写真2). 左側下顎第二大臼歯の萌出を期待し, 創部は摘出開放創と

し, テトラサイクリン塩酸塩(アクロマイシン®)コメガーゼを創部に填入して手術を終了した. 病理組織学的診断は発育性歯牙腫の診断であった. 現在, 術後6か月が経過しているが再発を示唆する所見は認められず, 経過良好である.

病理組織学的所見: 索状の小胞巣を形成するエナメル上皮様の歯原性上皮と結節状構造が集簇するように増生する間質細胞が認められた. 明らかな硬組織の形成は認められなかった(写真3A~C).

病理組織学的診断: 発育性歯牙腫.

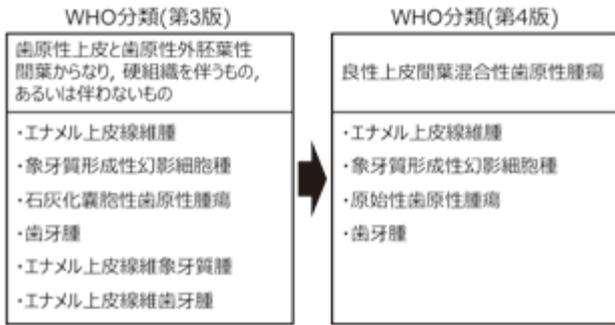


図1 WHO分類の変化

考 察

発育性歯牙腫はAFO, AFDが成長するとエナメル質や象牙質などの硬組織が形成され、歯牙腫に変化するようプログラミングされているとされ、2017年のWHO分類から新たに定義された²⁾(図1)。通常、成人における歯の形成能力は第二大臼歯と第三大臼歯の形成終了とともに停止するようにプログラミングされている³⁾。しかし、例外的に口腔上皮組織とそこに隣接する神経堤由来の外胚葉性間葉組織による相互作用によって異所性硬組織が形成されることがある。この異所性硬組織はAFO, AFDなどに認められ、歯牙腫などの過誤腫に変化することが報告されている²⁾。一方ですべてのAFO, AFDが歯牙腫の発育段階である発育性歯牙腫という点についてはいまだ議論の余地がある。Eversoleら⁴⁾はすべてのAFOが歯牙腫に成長する可能性は非常に低いと報告している。またSoluk-Tekkesinら²⁾は13歳を超え病変の大きさが21mm未満の場合、歯牙腫の発育段階である可能性が高いと報告している。自験例の場合、14歳で腫瘍の長径が22mmであったため、この報告に従うと歯牙腫の発育段階でなかった可能性も考えられる。しかし、病理組織学的所見からAFO, AFDに特徴的な硬組織形成が認められず、発育性歯牙腫に特徴的な結節状に増生する間質細胞が認められたことから発育性歯牙腫の診断に至った。

AFOは歯原性上皮組織と外胚葉性間葉組織が増生し、腫瘍内部に歯牙様硬組織の形成を認める良性上皮間葉混合性歯原性腫瘍である。まれな腫瘍であり、良性歯原性腫瘍の0.3~1.7%を占めると報告されている。好発年齢は20歳以下で、性差はなく、上下顎骨に同頻度発生するが、臼歯部に好発すると報告されている⁵⁾。無症状なものが多く、エックス線写真では境界明瞭な透過像を呈し、内部にエックス線不透過性の小腫瘤を認めるのが特徴である⁶⁾。またその多くは単房性とされており、Soluk-Tekkesinら²⁾は多房性のものは全AFOのうち21.7%と報告している。一方、AFDは歯原性上皮組織と未熟な歯原性結合組織から構成され、異形成象牙質の形成を特徴とする良性上皮間葉混合性歯原性腫瘍である⁷⁾。発生頻度は良性歯原性

腫瘍の0.1%と報告されており、まれな病変である。好発年齢は20歳以下で、男性に好発するとされ、好発部位は下顎臼歯部と報告されている。また多くは無症状とされ、歯の萌出遅延を理由に撮影したエックス線写真によって単房性透過像として発見されることが多いと報告されている⁸⁾。AFOとAFDは臨床症状、画像所見的に酷似しているとされ、相違点は病理組織学的に象牙質の形成があるかどうかという点である。自験例の場合、臨床症状は無症状で、定期検診目的でかかりつけ歯科を受診し、エックス線写真を撮影したところ病変を発見された。この点はAFO, AFDの多くの発見原因と一致しているが、画像所見は多房性であり、AFO, AFDの一般的な画像所見とは異なっていた。

治療方法は一般的に摘出術が行われる。われわれが渉猟し得た限り発育性歯牙腫の再発報告はまだないが、AFOの再発率は18%と高く、これら再発病変の35%は悪性転化を起こすと報告されている⁹⁾。またAFDの再発率は4.8%と報告されている¹⁰⁾。現在の分類では発育性歯牙腫にAFO, AFDが含まれることを踏まえると再発も考慮し、症例によっては周囲の健常組織を含めた搔把や切除などの術式検討、術後の厳重な経過観察が必要であると考えられる。また埋伏歯を伴っている場合、その対応については議論が分かれるところであるが、過去の報告では腫瘍と一緒に抜歯をする報告が散見される¹¹⁾。一方でMorning¹²⁾は歯牙腫に関連した埋伏歯の約75%が腫瘍摘出後に萌出したと報告しており、術前の埋伏歯評価は慎重に行うべきであると報告している。自験例の場合、左側下顎第二大臼歯は萌出を期待して保存方針としたが、今後も画像検査等での定期的な経過観察が重要であると考えられる。

結 語

今回われわれは少年期の左側下顎臼歯部に生じた多房性発育性歯牙腫の1例を経験したので、その概要に文献的考察を加えて報告した。発育性歯牙腫は新たに定義されてから日が浅く、まだ十分な報告がないため、不明な点が多い。今後症例を蓄積し、治療ガイドライン等の作成が望まれる。

謝 辞

稿を終えるにあたり、病理診断に御協力を頂きました藤沢市民病院病理診断科 江中牧子先生に深謝致します。

本論文に関して、開示すべき利益相反状態はない。

文 献

- 1) El-Naggar. A.K., Chan. J.K.C., et al.: WHO classification of head and neck tumours. Chapter 8 : odontogenic and maxillofacial bone tumours. 4 th ed, Lyon: IARC; 2017, 205-260.
- 2) Soluk-Tekkesin. M., Vered. M.: Ameloblastic Fibro-Odontoma: At the Crossroad Between “Developing Odontoma” and True Odontogenic Tumour. *Head Neck Pathol*, **15**: 1202 – 1211, 2021.
- 3) Hovorakova. M., Lesot. H., et al.: Early development of the human dentition revisited. *J Anat*, **233**: 135 – 145, 2018.
- 4) Eversole. L.R., Tomich. C.E., et al.: Histogenesis of odontogenic tumors. *Oral Surg*, **32**: 569 – 581, 1971.
- 5) Gantala. R., Gotoor. S.G., et al.: Ameloblastic fibro-odontoma. *BMJ Case Rep*, bcr2015209739, 2015.
- 6) 大木 調, 岡 暁子, 他: 下顎第二乳白歯の萌出を障害した歯牙腫 (Developing Odontoma) に対応した 1 例. *小児歯誌*, **59** : 140 – 147, 2021.
- 7) Kramer. I.R.H., Pindborg. J.J., et al.: The WHO histological typing of odontogenic tumours. A commentary on the second edition. *Cancer*, **70**:2988 – 2994, 1992.
- 8) Sabu. A.M., Gandhi. S., et al.: Ameloblastic Fibrodentinoma: A Rarity in Odontogenic Tumors. *J Maxillofac Oral Surg*, **17**: 444 – 448, 2018.
- 9) Peters. S.M., Bergen. M.S., et al.: Ameloblastic Fibro-Odontoma in an Adolescent: A Case Report and Review of Literature. *J Clin Pediatr Dent*, **42**: 458 – 460, 2018.
- 10) Chrcanovic. B.R., Gomez. R.A.: Ameloblastic Fibrodentinoma and Ameloblastic Fibro-Odontoma: An Updated Systematic Review of Cases Reported in the Literature. *J Oral Maxillofac Surg*, **75**: 1425 – 1437, 2017.
- 11) Litonjua. L.A., Suresh. L., et al.: Erupted complex odontoma: a case report and literature review. *Gen Dent*, **52**: 248 – 251, 2004.
- 12) Morning. P.: Impacted teeth in relation to odontomas. *Int J Oral Surg*, **9**: 81 – 91, 1980.

Abstract

A CASE OF MULTILOCULAR DEVELOPING ODONTOMA
IN THE LEFT MANDIBULAR MOLAR REGION

Kohei OSAWA^{1,2)}, Takuya TOMINAGA^{1,2)}, Shigeta TASHIRO^{1,2)},
Tomomichi OZAWA³⁾, Kenji MITSUDO²⁾, Yoshiyuki OKAMOTO¹⁾

¹⁾ *Department of Dentistry and Oral & Maxillofacial Surgery, Fujisawa City Hospital*

²⁾ *Department of Oral and Maxillofacial Surgery,*

Yokohama City University Graduate School of Medicine

³⁾ *Department of Dentistry and Oral & Maxillofacial Surgery, Yamato Municipal Hospital*

A developing odontoma is a rare benign epithelial-mesenchymal odontogenic tumor defined by the 2017 WHO classification. We experienced a case of multilocular growth of odontoma that occurred in the left mandibular molar region in childhood. A fourteen-year-old boy visited his family dentist for a regular check-up, and when a panoramic X-ray was taken, a transparent lesion was pointed out in the left mandibular molar region, and he was referred to our department for a detailed examination. Panoramic X-ray showed a transparent lesion in the left mandibular posterior region, and CT showed a clearly demarcated multilocular lesion with a high-density area inside. As a result of biopsy, a benign odontogenic tumor was diagnosed, and left mandibular enucleation was performed under general anesthesia. The histopathological diagnosis was a developing odontoma. Four months after the operation, the patient is doing well with no evidence of recurrence.