

症 例 報 告

石灰化歯原性嚢胞の 1 例

A Case of Calcifying Odontogenic Cyst

東京医科大学口腔外科学講座

*東京医科大学霞ヶ浦病院病理部

井 上 雄	山 田 容 三	本 田 一 文	高 森 基 史
小 川 隆	金 子 忠 良	工 藤 泰 一	千 葉 博 茂
内 田 安 信	草 間 博*		

結 言

石灰化歯原性嚢胞はその上皮層内に特徴的な幻影細胞の出現やその石灰化が認められる比較的まれな嚢胞性疾患である。またその病態像も様々で、1992年の WHO の分類では組織内にエナメル上皮腫様の変化を示す領域を伴う場合は、例外として良性腫瘍性病変に分類されている¹⁾²⁾。今回われわれは右側下顎に発生した本症の 1 例を経験したので若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

患 者: 55 歳, 女性。

初 診: 平成 5 年 5 月。

主 訴: 右側下顎歯肉の膨隆。

既往歴: 12 歳時に腎炎に罹患し、18 歳より 20 歳まで結核のため入院加療、31 歳時に卵巣腫瘍により手術加療を受けている。

家族歴: 父親は脳梗塞、母親は子宮癌で死去している。

現病歴: 平成 5 年 3 月頃より右側下顎歯肉の膨隆を自覚し、緩徐に増大したが放置していた。その後某整形外科医院で肩関節痛の精査中、X 線写真により下顎骨の嚢胞様透過像を指摘され、精査目的のため当科を紹介され来院した。

現 症

全身所見: 体格は中等度、栄養状態は良好で、全身所見に特記事項はみられなかった。

口腔外所見: 右側下顎臼歯部にわずかな膨隆が認められた (写真 1)。

口腔内所見: 5-2 頬側歯肉に骨様の膨隆を認め、一部に羊皮紙様感を触知した。5-4 は残根状態であり、3 は欠損していた (写真 2)。

X 線所見: オルソパントモグラムでは 6-2 の骨体部に下顎下縁部におよぶ境界明瞭な卵円形の透過像がみられ、内部に石灰化物様不透過像および 3 と考えられる埋伏歯を認めた (写真 3)。

CT 所見: 下顎骨は頬舌側ともに圧迫されて菲薄化しており一部では骨皮質が消失していた (写真 4)。

臨床検査所見: 血液一般、血液生化学検査、尿検査等で特に異常値は認められなかった。

臨床診断: 右側下顎石灰化歯原性嚢胞。

処置ならびに経過: 平成 5 年 6 月 14 日、全身麻酔下に下顎骨区域切除術および腸骨と A-O 金属プレートを用いた下顎骨再建術を施行した。嚢胞は頬舌側に膨隆し、頬舌側ともに骨皮質は薄く、一部では皮質骨が欠損していた。また、病巣は下顎骨下縁までおよんでおり、一部では下縁部皮質骨の欠損がみられた (写真 5)。摘出物の軟 X 線所見では、嚢

(1994 年 6 月 30 日受付, 1994 年 7 月 29 日受理)

Key words: 石灰化歯原性嚢胞 (Calcifying odontogenic cyst), 下顎 (Mandible), 埋伏歯 (Impacted tooth)

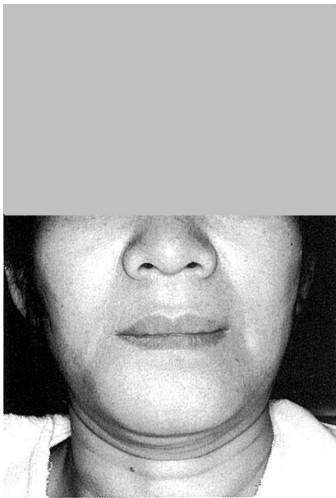


写真 1 初診時顔貌所見

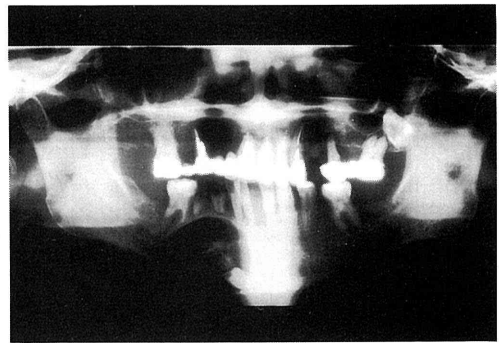


写真 3 オルソパントモグラム所見

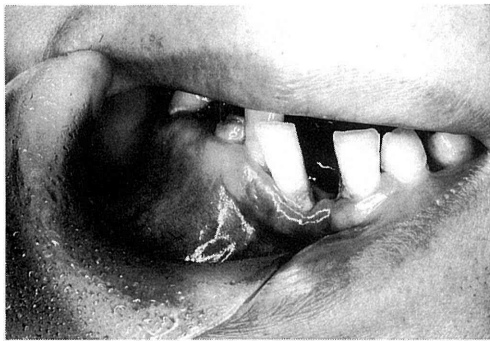


写真 2 初診時口腔内所見

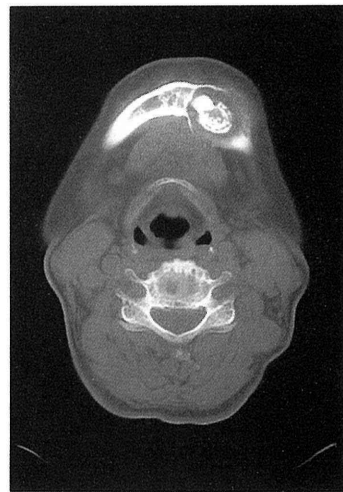


写真 4 CT 所見

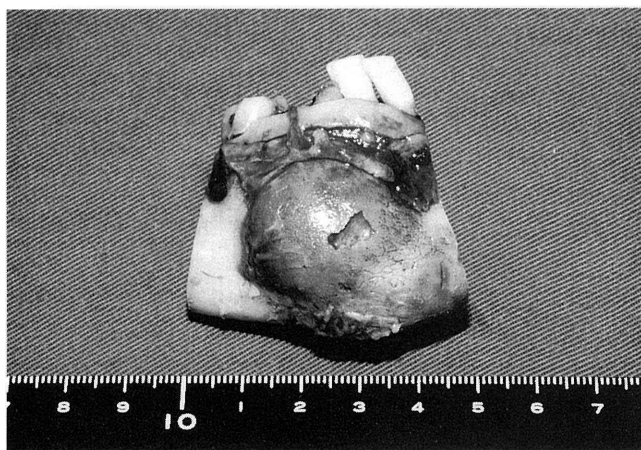


写真 5 摘出物の頬側面所見



写真 6 摘出物の軟 X 線写真



写真 7 手術後の口腔内所見

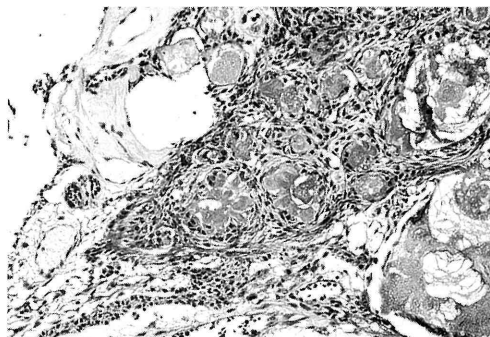


写真 9 病理組織像 (H-E 染色)

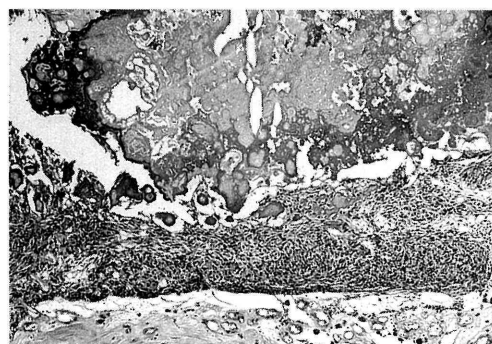


写真 8 病理組織像 (H-E 染色)

胞様透過像の内部に埋伏歯と小さな石灰化粒が塊状に集合した像がみられた (写真 6)。術後、現在まで再発等はみられず経過良好である (写真 7)。

病理組織学的所見： 嚢胞内壁を被覆する上皮は重層扁平上皮からなり、基底側は一層の円柱状細胞が

規則的に配列しており、内部には石灰化物が認められた (写真 8)。上皮層内には好酸性に濃く染色される散在性の幻影細胞がみられ、さらにその一部は石灰化していた (写真 9)。

病理組織学的診断： 埋伏歯と石灰化物を伴った石灰化歯原性嚢胞。

考 察

石灰化歯原性嚢胞は 1962 年に Gorin ら³⁾ によって命名された疾患で、WHO の組織分類では円柱形細胞からなる明瞭な基底層とその上側のエナメル髓に似た細胞の厚い層、ならびに嚢胞上皮層内あるいは線維性被膜内に 'ghost' 上皮細胞の集塊をみる嚢胞性病変である。しかも、'ghost' 上皮細胞は石灰化することがある。また、上皮基底層外側に接して異形象牙質 (dysplastic dentin) をみることもあり、症例によっては集合性、あるいは複雑性歯牙腫に似

表 1 過去 3 年間 (1990～1992 年) の本邦における石灰化歯原性嚢胞の報告例

症例	報告者	発表年	性別	年齢	発生部位	石灰化物	埋伏歯	歯牙腫	処置	備考
1	金村ら ⁷⁾	1990	M	60	<u>2 1</u>	あり			摘出術	
2	小幡ら ⁸⁾	1990	F	13	<u>3 - 6</u>	あり			摘出術	
3	武田ら ⁹⁾	1990	F	11	<u>6 7</u>				開窓術後摘出術	
4	武田ら ⁹⁾	1990	M	17	<u>3</u>				摘出術	
5	坂巻ら ¹⁰⁾	1990	F	19	<u>5 - 1</u>	あり	あり	あり	摘出術	
6	松本ら ¹¹⁾	1990	M	41	<u>7 6</u>	あり	あり		摘出術	
7	里村ら ¹²⁾	1990	F	7	<u>E - C</u>		あり		開窓術後摘出術	
8	金久ら ¹³⁾	1990	M	12	<u>1</u>	あり	あり			
9	福田ら ¹⁴⁾	1990	M	54						
10	今井ら ¹⁵⁾	1990	M	19	<u>7 - 4</u>	あり		あり	区域切除術	
11	今井ら ¹⁵⁾	1990	F	19	<u>6 - 2</u>	あり			顎骨一部切除術	
12	谷尾ら ¹⁶⁾	1990	F	11	<u>6 5 4</u>				摘出術	
13	村山ら ¹⁷⁾	1990	M	13	<u>1 - 5</u>				摘出術	
14	須永ら ¹⁸⁾	1990	M	76	<u>5 - 5</u>				開窓術後摘出術	再発癌化死亡
15	金子ら ¹⁹⁾	1990	M	19	<u>7 - 4</u>	あり			区域切除術	
16	村上ら ²⁰⁾	1991	M	4	<u>1</u>	あり		あり	摘出術	
17	谷垣ら ²¹⁾	1991	F	28	<u>5 - 3</u>	あり		あり	顎骨部分切除術	
18	中西ら ²²⁾	1991	F	22	<u>1 - 7</u>	あり		あり	摘出術	
19	藤木ら ²³⁾	1991	M	15		あり	あり	あり		
20	藤木ら ²³⁾	1991	F	22	<u>8</u>					
21	藤木ら ²³⁾	1991	M	16	<u>5 - 2</u>					
22	藤木ら ²³⁾	1991	F	55	<u>6 - 3</u>					
23	林ら ²⁴⁾	1991	F	44	<u>3 - 3</u>				摘出術	
24	畑ら ²⁵⁾	1991	M	12	下顎小白歯	あり			開窓術	
25	荒木ら ²⁶⁾	1991	M	16	<u>5 - 1</u>	あり			摘出術	
26	藤沢ら ²⁷⁾	1991	M	24	<u>4 - 1</u>	あり			摘出術	
27	藤沢ら ²⁷⁾	1991	F	7	<u>E - C</u>		あり		開窓術後摘出術	
28	藤沢ら ²⁷⁾	1991	F	22	<u>1 - 7</u>	あり		あり	摘出術	
29	塩谷ら ²⁸⁾	1991	F	39	<u>6 7</u>				摘出術	
30	佐々木ら ²⁹⁾	1992	M	55	<u>3 - 3</u>	あり			摘出術	
31	巢山ら ³⁰⁾	1992	F	72	<u>2 1</u>	あり			摘出術	
32	斉藤ら ³¹⁾	1992	M	11	<u>B C</u>	あり		あり	摘出術	
33	石川ら ³²⁾	1992	M	16	<u>6 - 1</u>	あり			摘出術	

た歯の硬組織形成を伴うことがあると定義されている¹⁾²⁾。

Altini ら⁴⁾によると、本疾患の発生頻度は 15 年間に経験した非炎症性歯原性疾患 411 例中 8 例で 2% であり、本邦では、守谷ら⁵⁾が歯原性嚢胞 156 例中 1 例で 0.64%、佐藤ら⁶⁾が顎骨嚢胞 858 例中 3 例で 0.35% と述べており、比較的にまれな疾患である。

本邦において 1990 年より 1992 年までの過去 3 年

間に報告された本疾患の数は、われわれが渉猟した限り 33 症例であった (表 1)。その 33 症例中、性別は男性 18 名、女性 15 名と性差はみられず、発生部位でも上顎 16 例、下顎 15 例と部位的な差はみられなかった。好発年齢では 10 歳代 (16 例, 48.5%) に集中してみられた。本疾患の既報告例によると、Freedman ら³³⁾は男性 32 例、女性 38 例、上田ら³⁴⁾は、男性 51.2%、女性 48.8%、阿部ら³⁵⁾は男性 24

例, 女性 26 例と性差はみられず, 発生部位でも Altini ら⁴⁾ は上顎 33 例, 下顎 35 例と上下顎には差はみられないが, 本邦では上田ら³⁴⁾ は上顎 53 例, 下顎 31 例と比較的上顎に多いようである。好発年齢として本疾患中に占める 10 歳代の割合は Herd ら³⁶⁾ は 50 例中 14 例, Freedman ら³³⁾ は 70 例中 20 例, Fejerskov ら³⁷⁾ は 51 例中 11 例, 上田ら³⁴⁾ は 56.1% を占めていたと報告しており, 比較的若年者に報告が多いようである。また, われわれが渉猟した 33 例の X 線所見では, 単房性 17 例, 多房性 4 例で, 石灰化物のみられるものは 20 例 (58.9%), 歯牙腫を伴うものは 8 例 (23.5%), 埋伏歯を伴うものは 6 例 (17.7%) であり石灰化物と歯牙腫の両者を認めるものは 5 例 (14.7%), 石灰化物に埋伏歯を伴うものは 2 例 (6%), 石灰化物に歯牙腫, 埋伏歯を伴うものは 2 例 (6%) であった。諸家の報告では Freedman ら³³⁾ は 70 例中埋伏歯を伴うものが 13 例, Altini ら⁴⁾ は 73 例中 19 例, 阿部ら³⁵⁾ は 51 例中 26 例, 上田ら³⁴⁾ は 81 例中 39 例, また歯牙腫を伴うものは Freedman ら³³⁾ は 70 例中 6 例, Altini ら⁴⁾ は 73 例中 8 例, 阿部ら³⁵⁾ は 51 例中 12 例, 上田ら³⁴⁾ は 85 例中 23 例であり, われわれと同様な傾向が示された。

本症は急速な増大傾向や再発を示すなどの腫瘍性性格を有することがあり, またきわめてまれに悪性化したとの報告もあるため, 現在のところ嚢胞性病変であるのか腫瘍性病変であるのかについては見解が定まっていない。

治療法は 33 例中摘出術が行われたものは 18 例と最も多く, はじめ開窓術が施行された (5 例) のちに摘出術が追加施行されたものが 4 例あった。また, 周囲顎骨の部分切除あるいは区域切除が施行されたものは 4 例であった。予後は 1 例に再発悪性化がみられた¹⁸⁾。

われわれの経験した症例では嚢胞による骨皮質の圧迫や菲薄化が強度で下顎骨下縁部の一部に骨欠損がみられることから, 病巣残存による再発を防止し, しかも術後の再建を容易にするため下顎骨区域切除術を選択したが, 本来は治療法として摘出術を行うのが一般的である。本疾患の場合はその性格上, 当然のことながら長期にわたる経過観察が必要である。

結 語

われわれは, 嚢胞内に埋伏歯と石灰化物が存在した比較的まれな石灰化歯原性嚢胞の 1 例を経験したのでその概要を報告した。

本論文の要旨は第 156 回日本口腔外科学会関東地方会 (平成 5 年 11 月 13 日, 東京) において発表した。

文 献

- 1) Kramer IRH, Pindborg JJ, Shear M: Histological typing of odontogenic tumours: WHO International Histological Classification of Tumours. 2nd ed. Springer Verlag, Heidelberg, 1992.
- 2) Kramer IRH, Pindborg JJ, Shear M: The WHO histological typing of Odontogenic tumours. A commentary on the second edition. *Cancer* **70**: 2988~2994, 1992.
- 3) Gorlin, R.J., Pindborg, J.J., et al.: The calcifying odontogenic Cyst-A Possible analogue of the cutaneous calcifying epithelioma of malherbe. *Oral Surg* **15**: 1235~1243, 1962.
- 4) Altini, M. and Farman, A.G.: The calcifying Odontogenic cyst. *Oral Surg* **40**: 751~759, 1975.
- 5) 守谷友一, 他: 最近 5 年間の顎骨嚢胞に関する臨床統計的観察. *日口外誌* **27**: 931~939, 1981.
- 6) 佐藤 修, 他: 腫瘍性増殖を伴った石灰化歯原性嚢胞の 1 例. *日口外誌* **28**: 2101~2109, 1982.
- 7) 金村成智, 他: 上顎に発生した石灰化歯原性嚢胞の 1 例. *日口外誌* **39**: 46~51, 1990.
- 8) 小幡和郎, 他: 上顎に発生した歯牙腫を伴った石灰化歯原性嚢胞の 1 例 (抄). *日口外誌* **39**: 256, 1990.
- 9) 武田泰典, 他: メラノサイトの出現をみた石灰化歯原性嚢胞の 2 例. *病理と臨床* **8**: 115~119, 1990.
- 10) 坂巻秀明, 他: 石灰化歯原性嚢胞の 1 例. *昭和歯会誌* **10**: 66~70, 1990.
- 11) 松本 憲, 他: 石灰化歯原性嚢胞の 1 例 (抄). *日口外誌* **36**: 1577, 1990.
- 12) 里村一人, 他: 小児に発生した石灰化歯原性嚢胞の 1 例 (抄). *日口外誌* **39**: 787, 1990.
- 13) 金久純也, 他: 非定型的な病理組織像を呈した石灰化歯原性嚢胞 (抄). *日口外誌* **39**: 830, 1990.
- 14) 福田広志, 他: 貧血にみられた石灰化歯原性嚢胞の 1 例 (抄). *日口外誌* **36**: 2633, 1990.

- 15) 今井隆生, 他: 石灰化歯原性嚢胞の 2 例. 日口外誌 **36**: 2604~2611, 1990.
- 16) 谷尾和彦, 他: 石灰化歯原性嚢胞の 1 例 (抄). 日口外誌 **36**: 3021~3022, 1990.
- 17) 村山高章, 他: メラニン色素顆粒を認めた石灰化歯原性嚢胞の 1 例 (抄). 日口外誌 **36**: 3021, 1990.
- 18) 須永芳弘, 他: 石灰化歯原性嚢胞摘出部に発生した下顎癌の 1 例 (抄). 日口外誌 **39**: 1160~1161, 1990.
- 19) 金子道生, 他: 石灰化歯原性嚢胞の 1 例 (抄). 日口外誌 **39**: 1189~1190, 1990.
- 20) 村上充子, 他: 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.
- 21) 谷垣信吾, 他: 歯牙腫を伴った石灰化歯原性嚢胞の自験例と文献的考察. 日口外誌 **37**: 694~703, 1991.
- 22) 中西宏彰, 他: 歯牙腫を伴った石灰化歯原性嚢胞の 1 例 (抄). 日口外誌 **37**: 917~918, 1991.
- 23) 藤木知一, 他: 石灰化歯原性嚢胞の X 線診断学的検討 (抄). 歯放線 **31**: 50~51, 1991.
- 24) 林 優亘, 他: 石灰化歯原性嚢胞の 1 例 (抄). 日口外誌 **37**: 1201, 1991.
- 25) 畑 毅, 他: 開窓療法を行った石灰化歯原性嚢胞の 1 例 (抄). 日口外誌 **40**: 684, 1991.
- 26) 荒木晴美, 他: 石灰化歯原性嚢胞の 1 例 (抄). 日口外誌 **37**: 1552, 1991.
- 27) 藤沢健司, 他: 石灰化歯原性嚢胞の 3 例. 日口外誌 **40**: 900~911, 1991.
- 28) 塩谷健一, 他: 石灰化歯原性嚢胞の 1 例 (抄). 日口外誌 **40**: 1007~1008, 1991.
- 29) 佐々木泰裕, 他: 石灰化歯原性嚢胞の 1 例 (抄). 日口外誌 **38**: 158, 1992.
- 30) 巢山 達, 他: 義歯不適合により発見された石灰化歯原性嚢胞の 1 例 (抄). 日口外誌 **38**: 157, 1992.
- 31) 斉藤 桂, 他: 歯牙腫を伴った石灰化歯原性嚢胞の 1 例 (抄). 日口外誌 **38**: 157, 1992.
- 32) 石川 誠, 他: 上顎骨に発生した石灰化歯原性嚢胞の 1 例. 日口外誌 **38**: 305~306, 1992.
- 33) Freedman, P.D., Lumerman, H. and GEE, J. K.: Calcifying odontogenic cyst. Oral Surg **40**: 93~106, 1975.
- 34) 上田新一, 他: 石灰化歯原性嚢胞の 1 例とその文献的考察. 日口外誌 **32**: 2325~2335, 1986.
- 35) 阿部廣幸, 他: 石灰化歯原性嚢胞の 2 例. 日口外誌 **35**: 208~218, 1989.
- 36) Herd, J.R.: The calcifying odontogenic cyst. Aust Dent J **17**: 421~428, 1972.
- 37) Fejerskov, O., Krogh, J.: The Calcifying ghost cell odontogenic tumour or the calcifying odontogenic cyst. J oral Path **1**: 273~287, 1972.
- (別刷請求先: 〒 300-03 稲敷郡阿見町中央 3-20-1 東京医科大学霞ヶ浦病院歯科口腔外科 井上 雄)