下顎臼歯部に発生した腺性歯原性嚢胞の1例 — 国内外での比較および文献的考察 —

新川 修司¹⁾・小泉 浩一¹⁾・虎谷 茂昭²⁾
岡本 康正²⁾・小川 郁子³⁾・岡本 哲治^{1, 2)}

A case of glandular odontogenic cyst arising in the molar region of the mandible

—Comparison and review of domestic and international reports—

NIIKAWA Shuji¹⁾・KOIZUMI Koichi¹⁾・TORATANI Shigeaki²⁾
OKAMOTO Kousei²⁾・OGAWA Ikuko³⁾・OKAMOTO Tetsuji^{1, 2)}

Abstract: A glandular odontogenic cyst (GOC) is a rare odontogenic cyst occurring centrally in the jawbone. Its invasiveness and recurrence rate are high. Differential diagnosis from an ameloblastoma, keratocystic odontogenic tumor, and central mucoepidermoid carcinoma is necessary. Histopathologically, GOC is lined by epithelium of varying thickness, which contains mucous cells and glandular-like structures. We report a case of GOC arising in the molar region of the mandible and review domestic and international reports published in the literatures. The patient was a 57-year-old man. Surgical extirpation was performed. As of 2 years after the operation, his progress is good, with no evidence of recurrence.

Key words: glandular odontogenic cyst (腺性歯原性嚢胞), molar region of the mandible (下顎臼歯部), comparison of domestic and foreign reports (国内外の報告例の比較)

緒 言

腺性歯原性嚢胞 (glandular odontogenic cyst : 以下 GOC と略す) は 1988 年 Gardner ら¹⁾ によりその名称が提唱され, 1992 年に WHO 分類の歯原性発育性嚢胞の項に記載された²⁾. それ以前には mucus-producing odontogenic cyst または sialo-odontogenic cyst の名称で呼ばれていた³⁾. 本疾患は侵襲性が高く, 再発傾向の強い嚢胞であるため治

療法を考慮し, 長期間の経過観察が必要とされる¹⁾. また多房性あるいは単房性の像を示すため, 臨床的にはエナメル上皮腫や角化嚢胞性歯原性腫瘍との鑑別を要する. また, 病理組織学的には嚢胞壁内面を裏装する上皮が種々の程度に肥厚し, 粘液産生細胞や腺管様腔構造が認められることから, 骨中心性粘表皮癌との鑑別が必要とされる疾患である⁴⁾.

今回われわれは左側下顎臼歯部に発生した腺性歯原性嚢胞の1例を経験したので文献的考察を含めて, その概要を報告する.

症 例

患 者 : 57 歳, 男性.

初診日 : 2006 年 1 月.

主 訴 : 左側下顎臼歯部歯肉の腫脹.

既往歴 : 38 年前, 左側下顎骨骨折のため観血的整復固定術施行.

家族歴 : 特記事項なし.

現病歴 : 初診 3 年前より左側下顎臼歯部歯肉の腫脹および排膿を自覚するも放置していた. 初診 3 日前より同部の

¹⁾ 広島大学大学院医歯薬学総合研究科先進医療開発科学講座分子口腔医学・顎顔面外科学

(主任: 岡本哲治教授)

²⁾ 広島大学病院口腔再建外科顎・口腔外科

(主任: 岡本哲治教授)

³⁾ 広島大学病院口腔検査センター

(主任: 二川浩樹教授)

¹⁾ Department of Molecular Oral Medicine and Maxillofacial Surgery, Division of Frontier Medical Science, Graduate School of Biomedical Science, Hiroshima University (Chief: Prof. OKAMOTO Tetsuji)

²⁾ Clinic of Oral and Maxillofacial Surgery, Hiroshima University Hospital (Chief: Prof. OKAMOTO Tetsuji)

³⁾ Center of Oral Clinical Examination, Hiroshima University Hospital (Chief: Prof. NIKAWA Hiroki)

受付日: 2008 年 2 月 20 日

採択日: 2009 年 4 月 28 日

写真1 初診時口腔内写真

左側下顎臼歯部は欠損し、同部歯肉には瘻孔形成を伴った軽度の腫脹と発赤を認めた。

写真2 初診時X線写真

A：パノラマX線写真。左側下顎臼歯部から下顎枝にかけて境界明瞭な多房性の嚢胞様X線透過像を認めた。
B：X線CT写真。左側下顎臼歯部に隔壁様構造を有した境界明瞭な病変を認め、内部CT値はやや低値を示した。

腫脹が増大し、義歯不適を自覚し紹介元歯科医院を受診した。X線撮影にて左側下顎臼歯部の透過性病変を指摘されたため、精査・加療のため当科初診となった。

写真3 術中写真

嚢胞壁は比較的薄かったが、骨との癒着はなかった。底部には隔壁が認められた。

写真4 術後2年のパノラマX線写真

嚢胞摘出後の骨形成は良好で再発の所見はない。

現 症：

口腔外所見；体格中等度で、栄養状態は良好であった。顔貌は左右対称で、病変相当部の皮膚に腫脹・発赤を認めなかった。また左側オトガイ神経の知覚異常はなく、左側顎下部に骨折手術による瘢痕を認めた。

口腔内所見；左側下顎第一～第三大臼歯は欠損しており、同部歯肉に軽度の腫脹および軽度発赤を認めた。また左側下顎第二大臼歯相当の頬側歯肉に瘻孔形成と、同部より少量の排膿を認めた（写真1）。

X線写真所見；パノラマX線写真上、左側下顎臼歯部から下顎枝にかけて境界明瞭な多房性の嚢胞様X線透過像を認めた。また病変の前方部には、38年前の顎骨骨折手術の際に使用したワイヤーの残存を認めた（写真2A）。咬合法X線写真では頬舌側に軽度骨膨隆を認めた。X線CT画像

写真5 生検標本病理組織像

- A：嚢胞壁の裏装上皮に crypt 様の湾入や小腺管の形成がみられる (HE 染色, 弱拡大).
- B：裏装上皮は、好酸性あるいは空胞化した細胞質を有する立方細胞より成り、腺腔に面して粘液産生細胞が認められる (HE 染色, 強拡大).
- C：腔の内容物や粘液産生細胞が陽性である (Alcian blue 染色, 中拡大).

上、左側下顎臼歯部に境界明瞭な病変を認めた。内部は隔壁様構造を有しており、頬舌の膨隆は著明ではなかったが、臼後部から下顎枝前縁にかけて頬舌側の皮質骨は菲薄化し、舌側の一部には骨欠損を認めた。病変部の内部 CT 値はやや低値を示した (写真 2B)。

臨床診断：左側下顎骨嚢胞。

処置および経過：初診時、排能を認めた瘻孔部より近遠心的に切開を加え、膿汁で充満した嚢胞腔を明示し、菲薄化した嚢胞壁を生検した結果、GOC との病理組織学的診断を得た。2006 年 2 月、全身麻酔下に嚢胞摘出術を施行した。左側臼後部から下顎大臼歯部に至る S 字状歯肉切開を行い、粘膜骨膜弁を剥離すると、瘻孔部を中心に第一大臼歯相当の歯槽部から臼後部舌側にかけて骨欠損を認めた。欠損部周囲の骨を拡大削除して、嚢胞壁を十分に明示した

写真6 摘出標本病理組織像

全体的に炎症変化が強く、裏装上皮の剥離・消失や扁平上皮化生がみられ、腺管形成は生検標本と比較し減少していた (HE 染色, 弱拡大)。

後、嚢胞壁を骨より剥離した。嚢胞壁は骨との癒着もなく剥離は容易で、嚢胞を一塊として摘出した。嚢胞壁は比較的薄く、隔壁を有した多房性を呈していたが、嚢胞摘出後の創部に下歯槽神経の露出は認めなかった (写真 3)。病変部より前方の頬側皮質骨から骨折手術のワイヤーが一部露出していたが、病変との連続性はなく、またワイヤーが骨と癒着していたため除去しなかった。嚢胞摘出後に可及的に周囲の骨を搔爬し、骨の鋭縁部を削除した後、創を縫合し手術を終了した。

現在、術後 2 年を経過したが、経過良好である (写真 4)。

病理組織学的所見：

生検標本の病理組織学的所見：生検標本は、軽度の慢性炎症細胞浸潤を伴う線維性結合組織より成り、部分的には、表面の骨が完全に吸収され、嚢胞壁と歯肉との境界が不明瞭であった。裏装上皮は、重層化した小型の立方上皮より成り、crypt 様の湾入を示すのに加えて、しばしば小腺管の形成を示していた (写真 5A, B)。腔の内容物は、PAS や alcian blue 染色などの粘液染色により陽性に染まり、また粘液産生細胞も散見された。さらに細胞質が腔に向かって突出する apocrine 様を呈する細胞や線毛円柱上皮も混在していた (写真 5C)。以上の所見より、GOC と診断した。生検で採取された組織には、裏装上皮が扁平上皮より成る部分は認められなかった。

摘出標本の病理組織学的所見：摘出された嚢胞は、炎症性変化が強く、裏装上皮の剥離・消失や扁平上皮化生が広範に生じていたが、部分的には生検時と同様の腺管形成を示す裏装上皮が観察された。全体を観察しても、嚢胞壁内に上皮が胞巣様に増殖する像は認められなかった (写真 6)。

表1 腺性歯原性嚢胞の臨床病態に関する国内外報告例での比較

検討項目	国内報告例※	国外報告例※※
男女比	1.5 : 1	1.5 : 1
年齢 (平均)	23~72 (51.1)	14~90 (43.5)
発生部位		
上顎	1	25
前歯部	1	17
臼歯部	0	8
下顎	14	54
前歯部	7	32
臼歯部	7	22
X線像		
単房性	5	44
多房性	10	32
不明	—	3
再発率 (%)	2/15 (13.3)	10/79 (12.7)

※国内報告15例は、文献6~18に記載された内容と自験例から推計した。

※※国外報告79例は、文献1, 18~28に記載された内容から推計した。

病理組織診断：腺性歯原性嚢胞。

考 察

GOC は 1988 年に Gardner ら¹⁾ によりこの名称が提唱されたまれな嚢胞性疾患である。Gardner ら¹⁾ は GOC を病理組織学的に検討し、その特徴を以下のように報告し、このうち 1) ~ 4) の所見は GOC の診断に欠かせないものとしている。

- 1) 種々の厚さを呈する上皮の表層は好酸性の細胞から成る。
- 2) 上皮層は嚢胞腔側に向かって波状あるいは乳頭状を呈し、また上皮基底部と線維性結合組織との境界が明瞭である。
- 3) 上皮層内には好酸性で立方形の細胞に囲まれた腺管状構造が多数形成され、そのなかに粘液状物の貯留をみる。
- 4) しばしば上皮の表層に粘液産生細胞や線毛細胞がみられる。
- 5) 上皮基底側の細胞はときに空胞状を呈する。
- 6) 上皮細胞の限局性渦巻状配列や、線維性結合組織内に微小な娘嚢胞や歯原性と思われる上皮の小塊がときにみられる。
- 7) 通常は線維性結合組織内に炎症性細胞浸潤はみられない。

今回の自験例では上記項目の 1) から 5) の 5 項目に合

致する病理像を満たしていたことから GOC と確定診断された。

GOC は単房性あるいは多房性の発育様式を示す。単房性の場合、他の歯原性嚢胞や角化嚢胞性歯原性腫瘍との鑑別、また多房性ではエナメル上皮腫との鑑別診断を要する。今回の症例では多房性の X 線透過像を示していたため、エナメル上皮腫の可能性も考えられたが、生検の結果 GOC の確定診断を得た。また病理組織学的類似性から骨中心性粘表皮癌との鑑別が重要であるが、嚢胞壁内に上皮が胞巣様に増殖する像は認められなかったため、粘表皮癌は否定された。

GOC の組織由来としては歯堤の残存、マラッセの上皮遺残、退縮エナメル上皮など諸説が考えられているが明確ではない。GOC に出現する粘液細胞や線毛細胞の由来については、免疫組織化学的研究により多分化能を有する嚢胞上皮からの化生が有力視されている⁵⁾。GOC の高い再発率に関しては、田原ら⁶⁾ の報告によると、嚢胞の裏装上皮の増殖能が高いこと、また上皮島や娘嚢胞の形成が再発の要因になると考えられているが明確な結論は出ていない。今回の症例では過去に下顎骨骨折にてワイヤーによる観血的整復固定術を受けていたが、外傷と GOC の発生との関連性については不明である。

本疾患の治療法には、掻爬術、摘出術、顎骨部分切除術あるいは離断術などが行われている^{7, 8)}。しかし再発の危険性はあるものの術後の機能や審美性を考慮し、第一選択としては摘出術や掻爬術を行った報告が多く、今回は摘出術を選択し、さらに嚢胞摘出後に可及的に周囲の骨を掻爬した。

今回われわれは、自験例を含み国内外における本疾患 94 例 (国内 15 例^{6~18)}、国外 79 例^{1, 18~28)} の報告について、臨床統計的に比較検討した (表 1)。その結果、いずれも男性に多くみられたが、平均年齢は日本人では 51.1 歳、国外の報告では 43.5 歳と約 8 歳の差を認めた。本邦における発生部位は上顎に比べて下顎に圧倒的に多く発生していたが、国外では上顎においても比較的多く、臼歯部よりも前歯部に多く発生していた。一方、下顎においては日本人では前歯部と臼歯部の発生率は同数であったのに対して、国外では前歯部での発生率が 59.3 % (54 例中 32 例) と、前歯部に多く生じていた。X 線像は、日本人では多房性が 66.7 % (15 例中 10 例) と多かったが、国外では記載のあった 76 例のうち単房性が 44 例の 57.9 % とやや多かった。また再発率は国内の報告では 13.3 %、国外では 12.7 % とほとんど差を認めなかった。再発率は国内外とも類似しているものの、再発期間については国内では 2 例でそれぞれ 3.5 年と 12 年であったが、国外の報告ではすべて 8 年以内でありそのうちの 80 % (8 例) が 4 年以内の再発であった。

GOCは嚢胞性疾患のなかでは再発率が高く、Kaplanら²⁴⁾は7年以内の再発率は29.2%と報告しており、今回のわれわれの統計結果とは異なるが、いずれにしても術後数年間にわたって、十分な定期的経過観察が必要であると考えられた。

以上の比較検討の結果、国内外においてGOCの好発部位や発育様式に大きな違いがあることがわかった。この原因としては地理病理学的因子による違いも考えられるが、本邦での報告は15例と少なく、それによりまとめた臨床的特徴が本邦に特異なものかについては、今後の症例の蓄積による検討が必要と考える。

結 語

今回われわれは、57歳男性の左側下顎臼歯部に発生したGOCの1例を経験したので報告した。併せて行った文献的考察により国内外で好発部位、発育様式に異同があることがわかった。

本論文の要旨は第54回日本口腔科学会中国・四国地方部会(平成18年11月、広島市)において発表した。

引 用 文 献

- Gardner, D.G., Kessler, H.P., et al.: The glandular odontogenic cyst: an apparent entity. *J Oral Pathol* 17: 359-366 1988.
- Kramer, I.R., Pindborg, J.J., et al.: The WHO histological typing of odontogenic tumours. A commentary on the second edition. *Cancer* 70: 2988-2994 1992.
- Waldron, C.A. and Koh, M.L.: Central mucoepidermoid carcinoma of the jaws: report of 4 cases with analysis of the literature and discussion of the relationship to mucoepidermoid, sialodontogenic and glandular odontogenic cysts. *J Oral Maxillofac Surg* 48: 871-877 1990.
- Padayachee, A. and Van Wyk, C.W.: Two cystic lesions with features of both the botryoid odontogenic cyst and the central mucoepidermoid tumor: sialodontogenic cyst? *J Oral Pathol* 16: 499-504 1987.
- 玄 景華, 笠井唯克, 他: 線毛上皮を有する下顎歯根嚢胞の1例—ケラチン免疫組織化学的研究—. *口病誌* 37: 857-863 1991.
- 田原孝之, 松田耕策: 右下顎枝部に発生した glandular odontogenic cyst の1例. *口科誌* 46: 270-274 1997.
- 平田 康, 岩本康弘, 他: 下顎前歯部に発生した腺性歯原性嚢胞の1例. *日口外誌* 50: 27-30 2004.
- 岡本善之, 川田賢介, 他: 右側下顎智歯部に発生した腺性歯原性嚢胞の1例. *日口外誌* 52: 11-14 2006.
- Toida, M., Nakashima, E., et al: Glandular odontogenic cyst: A case report and literature review. *J Oral Maxillofac Surg* 52: 1312-1316 1994.
- 武田泰典: 腺性歯原性嚢胞 Glandular Odontogenic Cyst の1例. *病理と臨床* 13: 871-875 1995.
- 衛藤洋平, 佐々木 朗, 他: 下顎に発生した Glandular Odontogenic Cyst の1例 (抄). *日口外誌* 42: 1364-1365 1996.
- 前田由紀子, 南雲正男, 他: 下顎骨に発生した Glandular odontogenic cyst の1例. *昭和歯会誌* 20: 127-128 2000.
- 笠原慎太郎, 瀬川 清, 他: 上顎前歯部に発生した腺性歯原性嚢胞の1例. *日口外誌* 47: 688-691 2001.
- 高橋由美子, 櫻井一成, 他: 下顎に発生した腺性歯原性嚢胞の1例 (抄). *日口外誌* 48: 872-873 2002.
- 小松祐子, 山本一彦, 他: 下顎骨に生じた腺性歯原性嚢胞の1例. *口科誌* 53: 41-42 2004.
- 山近重生, 中川洋一, 他: 術後12年で再発を認めた下顎骨体部腺性歯原性嚢胞の1例. *日口外誌* 52: 527-531 2006.
- 岩淵博史, 岩淵絵美, 他: 下顎骨に発生した腺性歯原性嚢胞の1例. *日口外誌* 52: 703-707 2006.
- Koppang, H.S., Johannessen, S., et al.: Glandular odontogenic cyst (sialodontogenic cyst): report of two cases and literature review of 45 previously reported cases. *J Oral Pathol Med* 27: 455-462 1998.
- High, A.S., Main, D.M., et al.: The polymorphous odontogenic cyst. *J Oral Pathol Med* 25: 25-31 1996.
- Norffke, C. and Raubenheimer, E.J.: The glandular odontogenic cyst: clinical and radiological features: review of the literature and report of nine cases. *Dentomaxillofac Radiol* 31: 333-338 2002.
- Ertas, U., Büyükkurt, M.C., et al.: A large glandular odontogenic cyst of the mandible: report of case. *J Contemp Dent Pract* 4: 53-58 2003.
- Tran, P.T., Cunningham, C.J., et al.: Glandular odontogenic cyst. *J Endodon* 30: 182-184 2004.
- Qin, X.N., Li, J.R., et al.: The glandular odontogenic cyst: clinicopathologic features and treatment of 14 cases. *J Oral Maxillofac Surg* 63: 694-699 2005.
- Kaplan, I., Gal, G., et al.: Glandular odontogenic cyst: treatment and recurrence. *J Oral Maxillofac Surg* 63: 435-441 2005.
- Kasaboglu, O., Basal, Z., et al.: Glandular odontogenic cyst presenting as a dentigerous cyst: a case report. *J Oral Maxillofac Surg* 64: 731-733 2006.
- Sittitavornwong, S., Koehler, J.R., et al.: Glandular odontogenic cyst of the anterior maxilla: case report and review of the literature. *J Oral Maxillofac Surg* 64: 740-745 2006.
- Velez, I.: Glandular Odontogenic Cyst: Report of two cases and review of the literature. *NY State Dent J* 72: 44-45 2006.
- Thor, A., Warfvinge, G., et al.: The course of a long-standing glandular odontogenic cyst: marginal resection and reconstruction with particulated bone graft, platelet-rich plasma, and additional vertical alveolar distraction. *J Oral Maxillofac Surg* 64: 1121-1128 2006.