上顎前歯部に発生したブドウ状歯原性嚢胞の1例

林 樹¹⁾・武田 泰典²⁾・土井田 誠³⁾
阿部幸二郎¹⁾・山下 知巳¹⁾

A case of botryoid odontogenic cyst of the anterior maxilla

HAYASHI Itsuki¹⁾・TAKEDA Yasunori²⁾・TOIDA Makoto³⁾
ABE Koujirou¹⁾・YAMASHITA Tomomi¹⁾

Abstract: We report a case of botryoid odontogenic cyst of the anterior maxilla. A 49-year-old woman with localized swelling in the anterior maxillary gingiva was referred to our department for consultation. Orthopantomography and CT revealed a well-demarcated intraosseous unilocular cystic lesion in the right anterior maxilla, separated from the central embedded supernumerary tooth. A cystectomy was performed according to the clinical diagnosis of bone cyst of the upper jaw. Histopathologically, the lesion was diagnosed as a botryoid odontogenic cyst. The postoperative course was uneventful, with no signs of recurrence four years after the surgery.

Key words: botryoid odontogenic cyst (ブドウ状歯原性嚢胞), anterior maxilla (上顎前歯部)

緒 言

ブドウ状歯原性嚢胞 (botryoid odontogenic cyst, 以下 BOC) は, 2017 年の WHO 分類で发育性嚢胞として分類され, 側方性歯周嚢胞 (lateral periodontal cyst, 以下 LPC) の亜型とされる¹⁾. 1973 年, Weathers ら²⁾により多房性を呈する X 線所見や組織学的形態から「ブドウの房状」を意味する「botryoid」を用いた病名 BOC が初めて提唱された. BOC の発生率はすべての顎骨嚢胞の 1% 未満とされており³⁾, 本邦における BOC 報告例は 3 例のみで^{4~6)}, 上顎前歯部での発生例はわれわれが渉猟し得た限りでは見当たらなかった.

今回われわれは, 上顎前歯部に発生したブドウ状歯原性嚢胞の 1 例を経験したのでその概要を報告する.

症 例

患 者: 49 歳, 女性.

初 診: 2016 年 11 月.

主 訴: 4~2 歯槽部の膨隆.

既往歴: 特記事項なし.

現病歴: 2016 年 11 月, 4~2 歯槽部の膨隆を主訴に近在歯科医院を受診し, 同月に精査加療を目的として当科初診となった.

現 症:

全身所見: 体格中等度で栄養状態は良好であった.

口腔外所見: 顔貌は左右対称であった.

口腔内所見: 4~2 歯槽部にびまん性の無痛性膨隆を認めた. 4~2 はいずれも電気歯髓診断では生活歯髓反応を示さなかったが無症状であった.

画像所見: パノラマ X 線画像では, 1 と 1 の歯根間に過剰埋伏歯 (逆生) がみられ, 4~2 根尖を含む比較的境界明瞭な単房性の嚢胞様透過像を認めた (写真 1). CT では, 右側上顎前歯部に約 30×20mm 大の単房性の骨吸収像を認め, 同部の頬側皮質骨は菲薄化していた (写真 2). また, 上顎正中部の過剰埋伏歯と嚢胞との連続性はみられなかった.

¹⁾ 厚生連高岡病院歯科口腔外科
(主任: 山下知巳部長)

²⁾ 岩手医科大学歯学部口腔顎顔面再建学講座臨床病理学分野
(主任: 武田泰典教授)

³⁾ 杉田玄白記念公立小浜病院歯科口腔外科
(主任: 土井田 誠部長)

¹⁾ Dentistry and Oral Surgery, Kouseiren Takaoka Hospital
(Chief: Dr. YAMASHITA Tomomi)

²⁾ Division of Clinical Pathology, Department of Reconstructive Oral and Maxillofacial Surgery, School of Dentistry, Iwate Medical University (Chief: Prof. TAKEDA Yasunori)

³⁾ Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Sugita Genpaku Memorial Obama Public Hospital (Chief: Dr. TOIDA Makoto)

受付日: 2021 年 3 月 13 日

採択日: 2021 年 6 月 29 日

写真1 初診時のパノラマX線写真

4～2| 根尖部を含む比較的境界明瞭な単房性の嚢胞様透過像(矢頭), 上顎正中部の過剰埋伏歯(矢印)を認める。

写真2 初診時の単純CT画像(水平断)

右側上顎前歯部に約30×20mm大の単房性の骨吸収像を認め、同部の頬側皮質骨は菲薄化している(矢印)。

臨床診断：右側上顎骨嚢胞。

処置および経過：初診時から 4 3| の感染根管治療を開始し、術前に 4 3| 根管充填を施行した。2| は太いポストが挿入されており歯根破折の可能性が危惧されたため、再根管治療を施行しなかった。2017年2月、全身麻酔下で右側上顎骨嚢胞摘出術、4～2| 歯根端切除術を施行した。術中、粘膜骨膜弁を剥離翻転すると菲薄化した羊皮紙様感を呈する骨膨隆を認めた。骨バーで菲薄な骨壁を削除し、約20×15mm大の骨窓を作製した。4～2| 根尖は嚢胞腔内に存在し、歯根と嚢胞壁との連続性がみられた。嚢胞腔内に明らかな隔壁構造はみられず、嚢胞壁は周囲骨から比較的容易に剥離できた。嚢胞内容液は黄色、漿液性であった。骨面の一部に粗造な部位が存在したため、骨面を一層削除した。嚢胞摘出後、嚢胞腔内に存在した 4～2| 根尖についてはいずれも歯根端切除術を施行し、MTAセメントを用いて逆根管充填を施行した。上顎正中過剰埋伏歯は嚢胞との連続性を有さなかったため抜歯は行わず経過観察の方針とした。術後3年6か月で撮影したCTでは骨新生により病変部は平坦化している(写真3)。術後4年経過した現在まで再発所見は認めていない。

摘出標本所見：30×20mm大の単房性の嚢胞であり、嚢胞壁は0.5mm厚、桃色を呈していた。内容液は黄色の漿液性で嚢胞腔内に隔壁構造はみられなかった(写真4)。

病理組織学的所見：H-E染色では、嚢胞壁は非角化性扁平上皮から成る菲薄な裏装上皮を有し、上皮下には炎症性細胞浸潤に乏しい線維性結合組織がみられた(写真5A～D)。裏装上皮の一部には限局性肥厚(epithelial plaque)を認め、線維性結合組織内には微小嚢胞もみられた(写真5E, F)。免疫組織化学染色では裏装上皮はCK19で陽性を示した(写真6A)。また、p53陽性細胞の集簇と少数ではあるがKi-67標識細胞の存在も認めた(写真6B, C)。

病理組織学的診断：BOC。

写真3 術後3年6か月経過時の単純CT画像(水平断)
嚢胞による骨欠損部は骨新生により平坦化している(矢印)。

考 察

われわれが渉猟した限り、BOCは1973年に最初の2例²⁾が報告されて以来、海外で74例、本邦においても3例の報告を認めるのみで^{2, 4～24)}、まれな歯源性嚢胞である。報告されているBOCの発生部位は下顎62例、上顎14例、部位不詳1例で、上顎前歯部の発生例は8例のみであり、本邦における上顎前歯部に発生したBOCは本症例のみである。BOCの好発部位はLPCと同様に下顎犬歯～小白歯部と報告されているが²³⁾、上顎での発生例が下顎と比較して少ない理由はいまだ不明であり、今後の症例蓄積が必要と考えられた。

BOCの病理組織学的特徴は、多房性の病理組織学的形態、微小嚢胞の存在、上皮の限局性肥厚(epithelial plaque)、菲薄な非角化性扁平上皮による嚢胞腔内の裏装とされている²⁴⁾。BOCとLPCの病理組織学的特徴は類似しているが、病理組織学的にLPCが単房性であるのに対しBOCは嚢胞壁内に微小嚢胞を形成し多房性を示すことも多いとさ

写真4 摘出標本写真
30×20mm 大の単房性の嚢胞。

れる⁶⁾。また, Kaugars ら⁸⁾ は BOC の診断基準として, 1) LPC と同様の病理組織学的特徴および病変内の複数の嚢胞領域の実証, 2) 多房性の X 線透過像を有する場合があること, 3) 歯髄または歯周組織からの炎症性の起源の証拠がないこと, を挙げている。本症例では病理組織学的所見として epithelial plaque を伴った菲薄な非角化性扁平上皮より成る裏装上皮が確認された。また裏装上皮が CK19 陽性を示したことから, 歯原性上皮性由来である可能性も示唆された。また, 炎症性細胞の浸潤が乏しいこと

写真5 嚢胞摘出標本の病理組織像

- A: 嚢胞の全体像 (H-E 染色 ×20).
 B: 微小嚢胞が多発している嚢胞壁の弱拡大像 (H-E 染色 ×20).
 C: 嚢胞壁は菲薄な裏装上皮と線維性結合組織より成る (H-E 染色 ×40).
 D: 非角化性扁平上皮で裏装されている嚢胞壁の強拡大像 (写真 C の拡大像, H-E 染色 ×400).
 E: epithelial plaque を伴う微小嚢胞の形成 (写真 B の黒枠内の拡大像, H-E 染色 ×40).
 F: epithelial plaque の強拡大像 (矢印) (写真 E の黒枠内の拡大像, H-E 染色 ×200).

写真6 免疫組織染色像 (A: CK19 染色 ×200 B: p53 染色 ×200 C: Ki-67 染色 ×200)

- A: 嚢胞壁の裏層上皮は CK19 陽性を示す。 B: p53 陽性細胞の集簇。 C: 少数ではあるが Ki-67 標識細胞を認める (矢印)。

や無症候性の臨床経過から非炎症性の嚢胞性病変である LPC や BOC が考えられた。さらに本症例では肉眼所見と X 線所見では LPC を窺わせる単房性を呈していたが、病理組織学的所見では複雑に分岐した嚢胞腔や微小嚢胞の存在を認めたため、非定型例であるが BOC として矛盾しない病変であると診断された。

BOC の X 線所見は、特有の病理組織学的形態から多房性透過像を示すことが多いとされるが⁵⁾、Bruno ら²⁴⁾は 64 例の BOC に関する X 線所見を解析したところ、単房性透過像が 51.6%、多房性透過像が 48.4%であったことから、単房性病変であっても BOC を鑑別疾患に挙げるべきであると述べている。顎骨内の X 線透過性病変の鑑別疾患は、一般的には単房性では歯根嚢胞、含歯性嚢胞などの歯源性嚢胞、多房性では歯源性角化嚢胞 (Odontogenic keratocyst, 以下 OKC) やエナメル上皮腫、骨内粘表皮癌などの腫瘍性病変も含めて多岐にわたる²⁴⁾。そのため、多房性の X 線透過像を示した病変に対して腫瘍性病変を疑い、開窓生検を施行した結果、BOC と診断された症例も報告されている⁵⁾。本症例においては、CT 所見で歯根との連続性を有する単房性透過像や膨張性発育が窺える皮質骨の菲薄化を伴う膨隆像から歯根嚢胞をはじめ組織侵襲性の低い歯源性嚢胞と考え、術前に開窓生検を施行しなかった。

BOC の治療法は摘出術が推奨されている³⁾。われわれが渉猟した限りでは摘出術が最も多いが、再発例に対しては辺縁切除術や区域切除術を施行した症例も報告されている^{10, 11)}。BOC の術後再発率は比較的高く、再発率の高い OKC が 17~56%であるのに対し²⁵⁾、BOC では 32.4%と報告されている²⁶⁾。再発率が高い要因として、多房性による複雑な形態と高い増殖能が報告されている^{8, 12)}。多房性を呈する BOC では病変が骨梁間に入り込むため病変の残存が生じやすく⁸⁾、再発した BOC の 81.1%が多房性の X 線透過像を示したと報告されている²⁶⁾。また、Redman ら¹²⁾により、BOC と OKC は他の歯源性嚢胞に比べて p53 陽性細胞と Ki-67 標識率が高く、高い増殖能を有することが報告されている。以上のことから、Liu ら³⁾は生検により BOC と診断された症例や再発症例では顎切除術を検討すべきであると提言している。本症例においては、嚢胞の全摘出と骨面の一層削除を施行した結果、術後 4 年経過した現在まで再発所見なく経過しているが、再発をきたす場合には健康組織を含めた顎切除も検討する予定である。また、免疫組織学的検索により p53 陽性細胞が多数存在し、わずかながら Ki-67 標識細胞も認められたため、本症例においても他報告と同様に増殖能を有するものと解釈された。なお、BOC が悪性転化した症例は報告されていない。

BOC は術後に長期間の経過観察が必要とされている。われわれが渉猟した限り、再発例は 14 例であり、再発まで

の平均期間は約 7.4 年であった^{5~24)}。再発までに 13 年を要した症例もあるため¹³⁾、少なくとも 10 年程度の経過観察が必要とされ⁹⁾、定期診察時に画像検査を行うことも推奨されている⁸⁾。本症例では、上述のように増殖能が比較的高いと考えられることも考慮に入れ、年 1~2 回の定期診察と画像検査による長期的な経過観察を行う予定である。

結 語

上顎前歯部に発生した BOC に対して嚢胞摘出術を施行し、術後 4 年間再発なく経過した症例を経験した。BOC は OKC に相当する比較的高い再発率を示すため、確実な摘出と厳重な経過観察が必要である。

本論文に関して、開示すべき利益相反状態はない。

引用文献

- 1) Speight P, Fantasia JE, et al : Lateral periodontal cyst and botryoid odontogenic cyst. In El-Naggar AK, Chan JKC, eds; WHO Classification of Head and Neck Tumours, 4th ed. IARC Press, Lyon, 2017, p236-237.
- 2) Weathers DR and Waldron CA : Unusual multilocular cysts of the jaws (botryoid odontogenic cyst). Oral Surg Oral Med Oral Pathol 36: 235-241, 1973.
- 3) Liu C, Samani M, et al : Conservative management of botryoid odontogenic cysts using Carnoy's solution. Br J Oral Maxillofac Surg 58: 245-247, 2020.
- 4) 松本堅太郎, 世良 仁, 他 : ブドウ状歯源性嚢胞 botryoid odontogenic cyst の 1 例. 福岡歯大会誌 24: 309-313, 1997.
- 5) 森 一将, 竹島 浩, 他 : ブドウ状歯源性嚢胞の 1 例. 日口外誌 50: 372-375, 2004.
- 6) 小松祐子, 川井 忠, 他 : 上顎右側臼歯部に発生したブドウ状歯源性嚢胞の 1 例. 日口診誌 33: 248-252, 2020.
- 7) Lynch DP and Madden CR : The botryoid odontogenic cyst. Report of a case and review of the literature. J Periodontol 56: 163-167, 1985.
- 8) Kaugars GE : Botryoid odontogenic cyst. Oral Surg Oral Med Oral Pathol 62: 555-559, 1986.
- 9) Greer RO Jr and Johnson M : Botryoid odontogenic cyst: Clinicopathologic analysis of ten cases with three recurrences. J Oral Maxillofac Surg 46: 574-579, 1988.
- 10) Phelan JA, Kritchman D, et al : Recurrent botryoid odontogenic cyst (lateral periodontal cyst). Oral Surg Oral Med Oral Pathol 66: 345-348, 1988.
- 11) Heikinheimo K, Happonen RP, et al : A botryoid odontogenic cyst with multiple recurrences. Int J Oral Maxillofac Surg 18: 10-13, 1989.
- 12) Redman RS, Whitestone BW, et al : Botryoid odontogenic cyst. Report of a case with histologic evidence of multicentric origin. Int J Oral Maxillofac Surg 19:

- 144-146, 1990.
- 13) Lindh C and Larsson A : Unusual jaw-bone cysts. *J Oral Maxillofac Surg* 48: 258-263, 1990.
 - 14) De Sousa SO, Campos AC, et al : Botryoid odontogenic cyst: report of a case with clinical and histogenetic considerations. *Br J Oral Maxillofac Surg* 28: 275-276, 1990.
 - 15) Gurol M, Burkes EJ Jr, et al : Botryoid odontogenic cyst: analysis of 33 cases. *J Periodontol* 66: 1069-1073, 1995.
 - 16) Carter LC, Carney YL, et al : Lateral periodontal cyst. Multifactorial analysis of a previously unreported series. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 81: 210-216, 1996.
 - 17) Weibrich G, Kleis WKG, et al : Cytokeratin expression in botryoid odontogenic cyst. A rare differential keratocyst and ameloblastoma diagnosis. *Mund Kiefer Gesichtschir* 4: 309-314, 2000.
 - 18) Uçok O, Yaman Z, et al : Botryoid odontogenic cyst: report of a case with extensive epithelial proliferation. *Int J Oral Maxillofac Surg* 34: 693-695, 2005.
 - 19) Chbicheb S, Bennani A, et al : Botryoid odontogenic cyst. *Rev Stomatol Chir Maxillofac* 109: 114-116, 2008.
 - 20) Farina VH, Brandão AA, et al : Clinical and histologic features of botryoid odontogenic cyst: a case report. *J Med Case Rep* 260: 1-4, 2010.
 - 21) Hethcox JM, Mackey SA, et al : Case report: Diagnosis and treatment of a botryoid odontogenic cyst found in the maxillary anterior region. *J Endod* 36: 751-754, 2010.
 - 22) Santos PP, Freitas VS, et al : Botryoid odontogenic cyst: a clinicopathologic study of 10 cases. *Ann Diagn Pathol* 15: 221-224, 2011.
 - 23) Arora P, Bishen KA, et al : Botryoid odontogenic cyst developing from lateral periodontal cyst: A rare case and review on pathogenesis. *Contemp Clin Dent* 3: 326-329, 2012.
 - 24) Bruno V, Ivana U, et al : Botryoid cyst, a rare type of odontogenic cyst. *Acta Clin Croat* 55: 510-514, 2016.
 - 25) Blanas N, Freund B, et al : Systematic review of the treatment and prognosis of the odontogenic keratocyst. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 90: 553-558, 2000.
 - 26) Méndez P, Junquera L, et al : Botryoid odontogenic cyst: clinical and pathological analysis in relation to recurrence. *Med Oral Patol Oral Cir Bucal* 12: 594-598, 2007.