下顎正中部にエナメル上皮腫を共存した単純性骨嚢胞の1例

川平 清 秀・藤波 好文・浜崎 栄作

川島 清 美・山下 佐 英

A case of simple bone cyst coexistent with ameloblastoma in the median mandibular region

Kiyohide KAWAHIRA・Yoshifumi FUJINAMI・Eisaku HAMASAKI

Kiyomi KAWASHIMA・Sukehide YAMASHITA

緒 言

単純性骨嚢胞は、外傷による顎骨内出血に起因するといわれており、その発現頻度は顎骨に発生する他の嚢胞に比してきわめてまれである。

本嚢胞は1929年、Lucas¹⁾が solitary bone cyst として報告したのが最初で、以来多くの報告をみるが、その名称は報告者によって千差万別であり、traumatic bone cyst, blood cyst, simple bone cyst, hemorrhagic bone cyst, hemorrhagic extravasation cyst, extravasation cyst, traumatic hemorrhagic cyst, progressive bone cavity, などと呼ばれている。

われわれは、最近、下顎正中部に発生し、しかもごく近接してエナメル上皮腫を共存した巨大な単純性骨嚢胞の1例を経験したので、その概要を報告する。

症 例

患 者： 35歳 男性。

初 診：昭和50年10月 日。

主 訴：下顎正中部の無痛性腫脹。

家族歴：特記すべき事項は認められない。

既往歴：中学時代および33歳の時にオトガイ部を数回打撲している。また、ビールの栓を歯牙にてあける習慣がある。

現病歴：昭和49年9月下旬頃、 $\overline{3}$ 部の冷、温水痛に気付くも放置。同年11月下旬、同部唇側にびまん性腫脹と、 $\overline{12}$ 唇側歯根相当部に大豆大で、正常歯肉色を呈する弾性硬の腫瘤に気付くも放置。その後、腫脹と腫瘍

写真 1 術前口腔内所見

は漸次増大傾向を示すために、昭和50年9月下旬、某歯科を受診するも診断不明にて当科を紹介され来院した。

現 症：

全身所見：体格中等度、栄養良好、その他特記すべき所見は認められない。また、末梢血、尿、梅毒血清反応、血清生化学検査などの諸検査にも異常は認められない。

口腔外所見：オトガイ部のびまん性腫脹が認められるも、顔貌は左右対称性で、同部の自発痛および圧痛、発赤、局所熱感などの異常所見は認められない。顎下リンパ節は左、右ともに豌豆大のものを1個ずつ触れるが、周囲組織との癒着はなく、圧痛も認められない。オトガイ下リンパ節は触れない。

口腔内所見： $\overline{3}$ から $\overline{15}$ 唇側歯根相当部にかけて、骨様硬、びまん性の無痛性腫脹が認められ、一部では弾性軟を呈している。また、 $\overline{12}$ 唇側歯根相当部に、小指頭大、弾性硬の腫瘤が認められるも、正常歯肉色を呈している。 $\overline{4}$ 部には欠損歯およびう蝕はなく、咬合状態も正常であるが、バートン電気診断器に対しては、 $\overline{3}$ $\overline{2}$ $\overline{34}$ が生活歯反応を呈していない。

X線所見：オルソパントモグラフィーでは、 $\overline{4}$ 遠心部から $\overline{15}$ 遠心部にかけて、境界明瞭な骨透過像が認め

鹿児島大学歯学部第1口腔外科学教室（主任：山下佐英教授）

First Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Kagoshima University Dental School (Chief: Prof. Sukehide Yamashita)

受付日：昭和53年11月9日

写真 2 術前X線像

写真 5 病理組織像 (単純性骨嚢胞)

写真 3 術前X線像

写真 6 病理組織像 (エナメル上皮腫)

写真 4 術後10か月口腔内所見

られるも、歯根の転位および吸収を思わせる所見は認められない。

歯科用X線写真でも、腫瘍の所見は明瞭ではない。

臨床診断：4-5 部単純性骨嚢胞。

処置ならびに経過：手術に先立ち、5-5 部の根管治療を行うも、これらの歯牙と嚢胞との交通は認められなかった。同部歯牙の根充後、11 根尖相当部より試験穿刺を行った結果、黄褐色、漿液性の内容液約 8.0 ml を吸

引したので、40% モルヨードル 5.0 ml を注入して嚢胞造影術を行ったところ、4-5 部の歯根相当部から歯肉頰移行部にかけて、単房性の嚢胞造影像が認められた。また、内容液を精査したところ、コレステリン結晶は認められず、また、一般細菌検査の結果も陰性であった。

次いで、G.O.P. 気管内挿管麻酔のもとに、4|から15 歯肉頰移行部にかけて弧状切開を加え、粘膜骨膜弁を鈍的に剝離したところ、嚢胞外側壁と口腔粘膜との癒着はなく、容易に剝離し得た。そこで、嚢胞に対しては、Partsch I 法に従い副口腔を形成した。また、嚢胞にごく近接して認めた112 部の腫瘍は、一塊として容易に摘出し得た。なお、嚢胞と腫瘍は完全に骨で境界されており、両者間の骨吸収が軽度ながら認められるも、完全な交通は認められなかった。摘出後は、achromycin オリーブ・ワセリン・ガーゼを挿入し、手術を終了した。現在、経過観察中であるが、予後良好である。

病理組織学的所見：嚢胞壁の H.E 染色所見では、歯槽骨に接して毛細血管に富んだ肉芽組織様嚢胞壁が認められるが、上皮は認められず、歯源性上皮細胞を示唆する所見も認められなかった。したがって、本嚢胞は顎骨嚢胞と診断された。

一方、腫瘍の H.E 染色所見では、胞巣の外周を囲む

1層の細胞は円柱状を呈し、上皮細胞が規則正しく配列している。内方の細胞は扁平ないし星状を呈し、粗に配列している。一部では、扁平ないし多形の細胞が集積して角化の傾向を示しているが、異型性は認められない。また、胞巢の内部にはろ胞状構造が認められ、間質は線維性結合組織に富んでいる。したがって、本腫瘍はエナメル上皮腫で、Pindborgら²⁾の分類のろ胞型と表皮腫型の混合型と診断された。

嚢胞と腫瘍組織との関係を見るために、5μの連続切片標本を作製し、鏡検したが、両者間の移行をうかがわせる所見は認められなかった。

考 察

単純性骨嚢胞の発生原因については、Pommer³⁾、Olechら⁴⁾、Blum⁵⁾、Whinery⁶⁾、Thoma⁷⁾らは、外傷のため顎骨内に出血が起こり、それによって骨が吸収され、凝血の器質化不全およびその液化により、嚢胞が形成されると報告しており、Jacobs⁸⁾は、さらに、出血が起こった結果、局所的な緩慢な無菌性の炎症が起こり、その中で水素イオン濃度が増加し、次いで白血球や骨髓組織、あるいは細胞がプロテアーゼを遊離し、それが骨を分解すると説明している。一方、Jaffe⁹⁾、Rushton¹⁰⁾は、原因として外傷は考えにくいとし、Jaffe⁹⁾は骨の局所的な形成発育異常に基づくとして述べ、Rushton¹⁰⁾は、外傷の頻度の高い部位と嚢胞の発生部位とは一致しないことをあげており、また、Hansenら¹¹⁾は、外傷は嚢胞発生の主たる病因ではあるが、外傷の既往をもつ人が、必ずしも嚢胞を生ずることはないので、外傷の既往と嚢胞発生の出現頻度を調べる必要があると報告している。

単純性骨嚢胞の発生年齢を見ると、Rushton¹⁰⁾は、10～19歳で68%、Poyton and Morgan¹²⁾は、10歳代で83%、Hansenら¹¹⁾は、11～20歳が58%を占めると報告し、いずれの報告も20歳以下の若年者が大半を占めているのに対し、われわれの症例では35歳であった。

性別では男性の方が外傷を受ける機会が多いことから、男性に多いといわれているが、Hansenら¹¹⁾とRushton¹⁰⁾の報告では、男女間に差異は認められない。

症状は一般に無症状で、嚢胞はX線写真で発見されることが多いが、Howe¹³⁾、Huebnerら¹⁴⁾、およびHansenら¹¹⁾は、10～33%に疼痛が認められたと報告している。

骨の膨隆はHuebnerら¹⁴⁾によると、50%に認められているが、Hansenら¹¹⁾は、単純性骨嚢胞の発育が早期の状態ではみられず、進行性に増大し、骨皮質に達し、内圧が加わると、骨の吸収および膨隆が認められるとし、彼の集計では23%に認められている。生活歯反応では、Bennettら¹⁵⁾は、歯牙が嚢胞内に含まれているならば、歯髄は壊死するという説を述べている。しかし、

表 1 嚢胞内溶液とその発現平均時間 (Howe¹³⁾)

Contents of cavity	Average time interval before discovery
Blood	2 years, 8 months
Altered blood	2 years, 5 months
Serosanguineous fluid	2 years, 9 months
Thin serous fluid	4 years, 4 months
Fluid (type not specific)	4 years, 6 months
Empty	7 years, 8 months

Whinery⁶⁾は、嚢胞内に含まれていても、生活歯反応があるといい、また、Hansenら¹¹⁾は、失活歯は単純性骨嚢胞の病因に関係していないから、嚢胞内に歯牙が含まれても、失活歯になることはないとして述べているが、彼の集計では15%以下に失活歯反応が認められ、うち3%は生活歯および失活歯の両者が認められている。われわれの症例では、3|234が失活歯反応、42|115が生活歯反応を示した。

嚢胞内容液は、Jacobs⁸⁾によると、外傷から受診までの時間の経過とともに内容液は少なくなるという、Howe¹³⁾は、外傷からの時間の経過と内容液の関係について、表1のごとく報告している。

X線写真では、嚢胞腔は骨透過像として認められるが、歯原性嚢胞に比し鮮明でない。

好発部位は、下顎骨体部とりわけ犬歯部から後方の骨体とされているが、Hansenら¹¹⁾によると、下顎正中部と上顎前部がそれぞれ27%を占め、両者で50%以上を占めている点は注目される。

大きさは、直径1cm位のものから犬歯より下顎小舌に至るかなり大きなものまで、種々の報告がみられる。

病理組織学的には、嚢胞壁に上皮層はなく、線維性結合組織で囲まれていることが特徴である。一方、エナメル上皮腫は、好発部位として一般には下顎臼歯部から下顎角部に多いとされており、下顎正中部に発生するエナメル上皮腫は、部位的にきわめてまれなものとされ、Smallら¹⁶⁾は9%、Stanleyら¹⁷⁾は2%、新国ら¹⁸⁾は5%、平出¹⁹⁾は3%、寺崎²⁰⁾は10%に認められたと報告している。

腫瘍の大きさについては、平出¹⁹⁾は鶏卵大45例、鶯卵大28例、手拳大12例、乳児頭大3例で、そのうちの1例は970gあったと報告し、寺崎²⁰⁾も同様な報告をしている。しかし、梶山ら²¹⁾は、1|1、1|2槽間中隔に認められた小指頭大のエナメル上皮腫の1例を報告しているが、われわれの症例も同様な大きさで、部位的にも全く一致していた。

エナメル上皮腫は、その発生母地から、ろ胞性歯嚢胞との鑑別が論議されている。Stanleyら¹⁷⁾は、641例のエナメル上皮腫のうち、108例は埋伏歯を伴い、ろ胞性歯嚢胞の潜在性の可能性を認め、Krammer²²⁾は、エナ

メル上皮腫と嚢胞の関係について言及している。また、石川ら²³⁾は、嚢胞が単房性で、薄い壁に囲まれている場合は、他の顎嚢胞と区別しにくいと述べ、Aisenberg²⁴⁾は、球状上顎嚢胞の被覆上皮からエナメル上皮腫が発生すると報告している。

本症例の場合、外傷の既往があり、歯牙との関係はなく、また、内容液は黄褐色調で、嚢胞壁は薄い結合組織で形成されるも、上皮層が認められないことなどから、従来報告されている単純性骨嚢胞と診断したが、部位的に下顎正中部に出現し、年齢が35歳ということが興味深く思われた。さらに、嚢胞にごく近接してエナメル上皮腫が認められたが、臨床的にも組織学的にも、嚢胞と腫瘍との移行は認められず、両者間の因果関係はないと考えられた。なお、今回われわれが収集し得た文献では、本症例のように単純性骨嚢胞とエナメル上皮腫にごく近接した報告は1例も認められなかった。

結 語

35歳男性の下顎右側第1小臼部より左側第2小臼歯部にわたるかなりの大きい単純性骨嚢胞と、下顎左側中・側切歯部唇側歯肉部に小指頭大のエナメル上皮腫が共存して認められたきわめて興味ある症例について、文献的考察を加え、その概要を報告した。

なお、本論文の要旨は昭和51年2月14日、第28回日本口腔外科学会九州地方部会にて発表した。

引 用 文 献

- 1) Lucas, C.D.: Discussion, in Blum: Do all cysts of the jaw originate from the dental system, JADA 16: 646 1955.
- 2) Pindborg, J.J., Kramer, I.R.H.: International Histological Classification of Tumours, No. 5 Histological typing of odontogenic tumours, jaw cysts, and allied lesions. W.H.O., Geneva, 1971, p 18.
- 3) Pommer, G.: Zur Kenntnis der progressiven Hämatom-und Phlegmasieveränderungen der Röhrenknochen auf Grund der mikroskopischen Befunde im neuen Knochenzystenfall. H.V. Haberer's Arch Orth Unfall-Chir 17: 17 1920.
- 4) Olech, E., Sicher, H., Weinmann, J.P.: Traumatic Mandibular Bone Cysts. OS OM OP 4: 1160 1951.
- 5) Blum, T.: An additional report on traumatic bone cysts. OS OM OP 8: 970 1955.
- 6) Whinery, T.G.: Progressive bone cavities of the mandible. OS OM OP 8: 903 1955.
- 7) Thoma, K.H.: Editorial: A symposium on bone cysts. OS OM OP 8: 899 1955.
- 8) Jacobs, M.H.: The traumatic bone cyst. OS OM OP 8: 940 1955.
- 9) Jaffe, H.L.: Giant cell reparative granuloma, traumatic bone cyst, and fibrous (fibro-osseous) dysplasia of the jaw bones. OS OM OP 6: 159 1953.
- 10) Rushton, M.A.: Solitary bone cysts in the mandible. Brit Dent J 81: 37 1946.
- 11) Hansen, L.S., Sapone, J., Sproat, R.C.: Traumatic bone cysts of jaws. Oral Surg 37: 899 1974.
- 12) Poyton, H.D., Morgan, G.A.: The simple bone cyst. OS OM OP 20: 188 1965.
- 13) Howe, G.L.: "Haemorrhagic cysts" of the mandible. Brit J Oral Surg 3: 55 1965.
- 14) Huebner, G.R., Turlington, E.G.: So-called traumatic (hemorrhagic) bone cysts of the jaw. Oral Surg 31: 354 1971.
- 15) Bennett, I.B., Chilton, N.W.: Traumatic cysts of the mandible: Report of a case. JADA 32: 51 1945.
- 16) Small, I.A., Waldron, C.A.: Ameloblastomas of the jaw. OS OM OP 8: 281 1955.
- 17) Stanley, H.R., Diehi, D.L.: Ameloblastoma potential of follicular cysts. OS OM OP 20: 260 1965.
- 18) 新国俊彦, 他: エナメル上皮腫に就いての2, 3の観察. 日口外誌 1: 29 1955.
- 19) 平出経布: エナメル上皮腫の臨床的ならびに病理学的研究. 日口外誌 4: 214 1958.
- 20) 寺崎太郎: エナメル上皮腫に関する臨床病理学的研究. 阪大歯誌 4: 1277 1959.
- 21) 梶山 稔, 他: 歯周嚢胞を疑った下顎前歯部におけるエナメル上皮腫の一治験例. 日口外誌 20: 462 1974.
- 22) Krammer, I.R.H.: Ameloblastoma, a clinicopathological appraisal. Brit J Oral Surg 1: 13 1963.
- 23) 石川裕朗, 他: 口腔病理学Ⅱ. 永末書店, 京都, 1971, 912頁.
- 24) Aisenberg, M.S.: Ameloblastoma arising within a globulomaxillary cyst. OS OM OP 13: 1352 1960.