Keratinizing and calcifying odontogenic cyst の 1 例

伊東隆三・伊東隆利・伊東武嗣・田代正博

岡 喜七郎*・谷口邦久*・北村勝也*

A case of keratinizing and calcifying odontogenic cyst

Takami ITOH・Takatoshi ITOH・Taketsugu ITOH・Masahiro TASHIRO

Kishichiro OKA*・Kunihisa TANIGUCHI*・Katsuya KITAMURA*

緒 言

Keratinizing and calcifying odontogenic cyst はGold¹⁾が嚢胞上皮の角化と石灰化に着目し命名した疾患名であり、顎骨内に発生する比較的な歯原性嚢胞である。

最近われわれは、臨床的に濾胞性歯嚢胞と診断し、摘出物を病理組織学的に検索した結果、Keratinizing and calcifying odontogenic cyst と診断された 1 例を経験したので報告する。

症 例

患 者：13歳 女性。

初 診：昭和53年10月■日。

主 訴：左側上顎犬歯部から小白歯部にかけての腫脹。

家族歴：特記事項なし。

既往歴：特記事項なし。

現病歴：昭和53年9月、左側上顎犬歯部の腫脹に気づき某歯科医を受診、X線診査の結果病変を指摘され、当院を紹介されて来院した。

現 症：体格、栄養状態ともに良好で、血液、尿などの一般検査では異常は認められなかった。

顔貌所見：左右ほぼ対称で、左側鼻翼部から頬部にかけて軽度のびまん性の腫脹が認められた（写真 1）。

口腔内所見：開口障害はなく、左側上顎乳犬歯、第 1 小白歯にう蝕等の病変は認めなかった。また電気診によ

写真 1 顔貌正面（初診時）

写真 2 口腔内所見（初診時）

伊東歯科医院（医療法人伊東会、院長：伊東武嗣）

* 福岡歯科大学口腔病理学教室（主任：北村勝也教授）

Itoh Dental clinic (Itoh Inc., Taketsugu Itoh)

* Department of Oral Pathology, Fukuoka Dental College (Chief: Prof. Katsuya Kitamura)

受付日：昭和55年8月25日

り両歯とも失活歯であった。乳犬歯歯根部相当部の粘膜はやや発赤し、側切歯から小白歯歯肉頬移行部にかけてびまん性に腫脹がみられ、触診により波動を触れ、軽い

写真3 デンタルX線所見（初診時）

写真5 デンタルX線所見（術後）

写真4 オルソパントモグラフ，X線所見（初診時）

圧痛が認められた（写真2）。

X線学的所見：左側上顎側切歯遠心より第2小臼歯近心にかけて、拇指頭大の境界明瞭なX線透過像を認め、さらに嚢胞に近接し左側犬歯と思われる埋伏歯が認められた。さらに第1小臼歯歯根は嚢胞の増大に伴う吸収像が認められた。また透過像の中に米粒大ないし粟粒大のX線不透過像が数個認められた（写真3、4）。

臨床診断：濾胞性歯嚢胞の疑い。

処置ならびに経過：摘出術にさきだち、嚢胞腔と交通している第1小臼歯の根尖切除術を行い、局所麻酔下にて嚢胞および埋伏歯の摘出を行った。創腔は Partsch の1法に準じて開放創とした。現在術後17か月を経過しているが、嚢胞腔は新生骨によりほぼ満たされ、X線所見でも骨の新生像が認められた（写真5）。

摘出物所見：嚢胞の大きさは $15 \times 20 \times 15$ mm で、ほ

ぼ球状、弾性軟を呈していた。剖面では嚢胞壁は比較的薄く、黄色の内溶液を貯溜していた。内面には米粒大ないし粟粒大の白色ないし黄白色の石灰化様物質が嚢胞壁に密着していた（写真6、7）。

摘出物のソフテックス写真所見：嚢胞内に大小不同の顆粒状のX線不透過像が多数認められた（写真8）。

病理組織学的所見：摘出物は10%ホルマリンで固定、20%ギ酸で脱灰後パラフィン包埋し、 6μ の切片を作製し、ヘマトキシリン・エオジン染色をほどこし鏡見した。

嚢胞壁は重層扁平上皮に被われ、上皮層内に大小不同の多量の ghost cell がみられる。ghost cell の細胞質は好酸性、顆粒状で、核は染色性に貧しく白くぬけている。基底細胞層は細胞が密に配列しているところ、あるいは疎なところがみられ細胞の形は円柱形ないし立方形、ときには紡錘形を呈している。基底細胞層に一部破壊を認め、その破壊した部位から結合組織が上皮細胞層内に侵入しているところもある。基底細胞に接する外層の結合組織には軽度の細胞浸潤をみる。嚢胞壁内には角化した ghost cell と石灰化物が認められる。上皮基底細胞層に接して未石灰化の象牙質様の石灰化物が広範囲にみられるところがある。この象牙質様の石灰化物の中には細胞が埋入されたところもみられる（写真9～11）。

考 察

calcifying odontogenic cyst は1962年 Gorlin²⁾らによって命名された歯原性嚢胞である。しかしながらGold¹⁾

写真 6 摘出物肉眼所見

写真 9 病理組織像 (H-E 染色, ×10)

写真 7 摘出物肉眼所見 (剖面)

写真 10 病理組織像 (H-E 染色, ×10)

写真 11 病理組織像 (H-E染色, ×20)

は嚢胞壁上皮層の ghost cell が角化を示し、さらに石灰化を示すことから、Keratinizing and calcifying odontogenic cyst という名称を提唱している。以来現在まで両方の名称で多くの報告がみられる。

本疾患の報告例は外国では比較的多くみられるが、本邦においては枝ら³⁾の報告が最初で、われわれが渉猟したところでは今日まで40例³⁻³⁸⁾を数えるにすぎない(表 1)。

写真 8 摘出物のソクテックスX線所見

表 1 Calcifying odontogenic cyst の報告例 (本邦)

	著 者	年	年齢	性	部 位	埋伏歯	歯牙腫	悪性化	X線透過像
1	枝 , 他 ³⁾	1967	19	♀	3-4 部	-	-	-	+
2	中 城, 他 ⁴⁾	1970	19	♀	2-5 部	3	-	-	+
3	Eda et al ⁵⁾	1971	14	♂	2-5 部	3	+	-	+
4	中島 , 他 ⁶⁾	1971			3-1 部	-	-	-	-
5	常 葉, 他 ⁷⁾	1971	19	♂	3 部	3	-	-	+
6	松 本, 他 ⁸⁾	1971	31	♀	3-5 部	4	-	-	+
7	佐 藤, 他 ⁹⁾	1971	25	♂	6-8 部	+	-	-	-
8	泉 , 他 ¹⁰⁾	1972	37	♀	6-8 部	-	+	-	+
9	青 葉, 他 ¹¹⁾	1973	21	♀	3 2 部	-	-	-	+
10	新 国, 他 ¹²⁾	1973	57	♂	1-6 部	-	-	+	-
11	猪苗代, 他 ¹³⁾	1973	13	♂	5-7 部	+	+	-	+
12	Eda et al ¹⁴⁾	1974	24	♀	1-4 部	3	+	-	+
13	Eda et al ¹⁴⁾	1974	9	♀	5-3 部	過剰歯	+	-	-
14	滝 川, 他 ¹⁵⁾	1974	17	♂	1-4 部	3	+	-	+
15	中 島, 他 ¹⁶⁾	1974	24	♀	3-4 部	-	-	-	-
16	王 , 他 ¹⁷⁾	1975			1-2 部	-	+	-	+
17	茂 木, 他 ¹⁸⁾	1975	13	♂	3 部	3	+	-	+
18	加 藤, 他 ¹⁹⁾	1975	48	♂	7-6 部	-	-	-	-
19	長谷川, 他 ²⁰⁾	1975	12	♂	1-5 部	+	+	-	+
20	小 川, 他 ²¹⁾	1975	22	♂	5-1 部	-	-	-	+
21	大 里, 他 ²²⁾	1975	12	♂	3+3 部	-	-	-	+
22	近 江, 他 ²³⁾	1976	11	♀	6-8 部	8	-	-	-
23	有 末, 他 ²⁴⁾	1976	12	♂	5 ~ 下顎枝部	8	+	-	+
24	近 藤, 他 ²⁵⁾	1977	67	♂	上顎前歯 ~ 白歯部	-	+	-	-
25	池 村, 他 ²⁶⁾	1977	48	♀	左側上顎突起 ~ 上顎洞 ~ 硬口蓋	-	-	+	+
26	平 林, 他 ²⁷⁾	1977	13	♂	7-2 部	-	+	-	+
27	喜 田, 他 ²⁸⁾	1977	16	♀	7 ~ 上行枝部	-	エナメル上皮線維腫	-	+
28	田 村, 他 ²⁹⁾	1978	73	♀	3-1 部	-	-	-	+
29	大 村, 他 ³⁰⁾	1978	12	♂	5-2 部	-	-	-	+
30	名 倉, 他 ³¹⁾	1978	12	♂	2-1 部	1	-	-	+
31	名 倉, 他 ³¹⁾	1978	20	♂	1-3 部	-	-	-	+
32	枝 , 他 ³⁴⁾	1978	12	♂	5-2 部	-	-	-	+
33	渡 辺, 他 ³²⁾	1978	71	♂	2-5 部	-	-	-	+
34	若 江, 他 ³³⁾	1979	51	♂	2-5 部	-	-	-	+
35	若 江, 他 ³³⁾	1979	13	♂	3-7 部	-	-	-	-
36	境 野, 他 ³⁵⁾	1979	19	♂	正中 ~ 15 部	-	-	-	+
37	茂 木, 他 ³⁶⁾	1979	27	♀	6-1 部	-	-	-	+
38	大 山, 他 ³⁷⁾	1979	13	♂	4+7 部	3	+	-	+
39	山 崎, 他 ³⁸⁾	1979	19	♂	1-5 部	-	-	-	+
40	著 者	1979	13	♀	3-5 部	3	-	-	+

本疾患の原因については、いまだ明らかではないが、組織由来について、Gorlin ら²⁾、枝ら³⁾は(1)基底細胞がエナメル芽細胞に類似している、(2)類象牙質の形成がみられる、(3)嚢胞の発生と歯牙とに関連性がある、(4)基底細胞に接して星形細胞が現れる、(5)上皮および嚢胞壁結合組織の分化がすすんで歯牙腫を作ることがまれでない、ことなどから歯原性由来のものであるといっている。

本疾患の年齢について、中城ら⁴⁾、Swinson³⁹⁾は特定の傾向はないと述べているが、Altini と Farman⁴⁰⁾の文献的考察によれば、10歳台が最も多く27.4%であったと述べている。また Gorlin²⁾らによれば、21例中13例が38歳までに出現している。本邦における40例についてみると、最年少9歳から73歳までの広範囲にわたっているが、30歳台まで含めると31例79%であり、比較的若い年齢にみられるようである。

性別について Shear⁴¹⁾は、男女差は認められなかったと報告しているが、本邦においては男性24例、女性14例と男性に多くみられた。

発生部位別にみると、本嚢胞の大多数は顎骨中心性に発生するといわれているが、Gorlin ら²⁾、Shear ら⁴¹⁾は顎骨に隣接した軟組織に発生した症例を報告している。本邦の報告例は全例顎骨内に発生したものである。上下顎別にみると、Fejerskov と Krogh⁴²⁾は50例中上顎27例、下顎23例で、ほぼその差はみられなかったと報告している。本邦においても上顎24例、下顎16例と大差はみられないが、上顎の発生率がやや高いようである。なお、前歯部と臼歯部に分けてみると、本邦40例中犬歯部までに34例87%で前歯部に高率にみられた。

本疾患に埋伏歯を伴うことが多く、われわれが渉猟した40例中15例にみられ、なかでも犬歯を埋伏している場合が半数を占めた。

なお、本嚢胞は顎骨の中にX線透過像として認められ、その中に不規則な小顆粒状の石灰化物を認めることが多い。われわれの症例でも顆粒状の不透過像が認められた。このような所見は40例中31例、79%にみられた。

本嚢胞に Odontoma を併発することがあるが、このことについて枝ら³⁾は、calcifying odontogenic cyst の裏装上皮と嚢胞壁結合組織が互いに誘導しあって分化し、歯牙硬組織を形成する能力を持ちうるようになると考えられ、したがって高度に分化したものでは嚢胞壁に Odontoma が顕著に形成され、いわゆる cystic odontoma のような像を呈するようになるのと述べている。われわれの症例では、odontoma など他の腫瘍の併発は認められなかったが、本邦においては、40例中 odontoma を併発したもの13例、Ameloblastic fibroma 1例であった。

本嚢胞の病理組織学的所見の特徴としては、Lucas⁴³⁾は嚢胞壁はエナメル上皮に類似した上皮で裏装され、さらに特有の ghost cell の存在があり、このghost cell に石灰化が起こると述べている。枝ら³⁾は嚢胞壁の結合組織内に出現する石灰化物は類骨、類セメント質ないし類象牙質に似た組織で、分化が進んだ例では、上皮成分はエナメル芽細胞になってエナメル質を作り、結合組織成分は象牙芽細胞やセメント芽細胞に分化して象牙質やセメント質を形成するようになるのと述べている。

本症例においては、嚢胞壁の上皮層内に ghost cell が

多数みられ、上皮の角化および石灰化が強く起こっていた。しかしながらエナメル質や象牙質やセメント質の形成はみられなかったが、類象牙質の形成が広範に認められた。これらの所見より、Gold¹⁾の提唱した Keratinizing and calcifying odontogenic cyst と診断した。

本嚢胞の治療法は一般に嚢胞の摘出であり、悪性化、再発は少ないと考えられており、40例中2例にみられたにすぎない。われわれの経験した症例は経過良好で再発の徴候はみられない。

ま と め

1. 13歳女子の左側犬歯部から小臼歯部に発生した Keratinizing and calcifying odontogenic cyst の1症例を経験した。

2. 摘出後の経過は良好で、再発の徴候はみられない。

3. 本邦における calcifying odontogenic cyst の報告例をまとめ、臨床統計的に文献的考察を加えた。

本論文の要旨は、昭和54年12月1日、第12回日本口腔科学会九州地方会において発表した。

引用文献

- 1) Gold, L.: The keratinizing and calcifying odontogenic cyst. *Oral Surg* 16: 1414 1963.
- 2) Gorlin, R.J., et al.: The calcifying odontogenic cyst—a possible analogue of the cutaneous calcifying epithelioma of Malherbe. *Oral Surg* 15: 1235 1962.
- 3) 枝 重夫, 他: Calcifying odontogenic cyst の組織化学的研究. *歯科学報* 67: 1003 1967.
- 4) 中城 正, 他: 左上顎犬歯部に発生した多胞性と考えられる Calcifying odontogenic cyst の1例について. *口科誌* 19: 230 1970.
- 5) Eda, S., et al.: A case of calcifying odontogenic cyst associated with odontoma. *Bull Tokyo dent Coll* 12: 1 1971.
- 6) 中島嘉助, 他: Calcifying odontogenic cyst の1例. *口科誌* 20: 678 1971.
- 7) 常葉信雄, 他: Calcifying odontogenic cyst の1例. *口科誌* 20: 892 1971.
- 8) 松本喜雄, 他: 石灰化歯原性嚢胞の1例. *日口外誌* 17: 231 1971.
- 9) 佐藤伸吾, 他: 埋伏歯を伴った石灰化歯原性嚢胞の1例. *日口外誌* 17: 574 1971.
- 10) 泉 広次, 他: 下顎角部に発生し、石灰化をともなった歯原性嚢胞と思われる1症例. *日口外誌* 18: 657 1972.
- 11) 青葉孝昭, 他: Keratinizing and calcifying odontocyst の1例. *口科誌* 22: 438 1973.

- 12) 新国俊彦, 他: 上顎に生じた石灰化歯原性嚢胞の 1 例. 口科誌 22: 678 1973.
- 13) 猪苗代盛昭, 他: 下顎に発生した Calcifying odontogenic cyst の 1 例. 口科誌 19: 715 1973.
- 14) Eda, S., et al.: Two cases of calcifying odontogenic cyst associated with odontoma, with an electron-microscopic observation. Bull Tokyo dent Coll 15: 77 1974.
- 15) 滝川富雄, 他: 歯牙腫様増殖を伴った石灰化歯原性嚢胞の 1 例. 日口外誌 20: 321 1974.
- 16) 中島嘉助, 他: Ameloblastoma と臨床診断された Keratinizing and calcifying odontogenic cyst の 1 例. 日口外誌 20: 767 1974.
- 17) 王 德福, 他: Calcifying odontogenic cyst の 1 例. 口科誌 24: 132 1975.
- 18) 茂木健司, 他: Odontoma を合併した calcifying odontogenic cyst の 1 例. 口科誌 24: 240 1975.
- 19) 加藤譲治, 他: 特異なる病理所見を伴った下顎嚢胞の 2 例. 日口外誌 21: 904 1975.
- 20) 長谷川 清, 他: Odontoma Keratinizing and calcifying odontogenic cyst を伴った 1 症例. 阪大歯学誌 20: 154 1975.
- 21) 小川裕三, 他: Keratinizing and Calcifying Odontogenic Cyst の 1 症例. 阪大歯学誌 23: 182 1975.
- 22) 大里宏治, 他: 石灰化歯原性嚢胞の 1 症例. 歯学 64: 2 1976.
- 23) 近江啓一, 他: 下顎に発生した Calcifying odontogenic cyst の 1 例. 第 30 回口科学会総会抄録: 70 1976.
- 24) 有末 真, 他: 下顎骨に発生した石灰化歯原性嚢胞の 1 例. 日口外誌 22: 912 1976.
- 25) 近藤 強, 他: Calcifying odontogenic cyst の 1 例. 日口外誌 22: 913 1976.
- 26) 池村邦男, 他: 上顎石灰化歯原性嚢胞と癌腫の併存例. 日口外誌 23: 615 1977.
- 27) 平林みどり, 他: Complex odontoma の病理組織像を伴った石灰化歯原性嚢胞. 広大歯誌 9: 70 1977.
- 28) 喜田悦子, 他: エナメル上皮線維腫を伴う興味ある石灰化歯原性嚢胞について. 第31回日本口腔科学会総会: C-I-15 1977.
- 29) 田村正樹, 他: calcifying odontogenic cyst の症例. 日口外誌 24: 656 1978.
- 30) 大村泰一, 他: calcifying odontogenic cyst の 1 例. 小児歯誌 16: 30 1978.
- 31) 名倉英明, 他: 石灰化歯原性嚢胞の 2 例. 日口外誌 24: 1193 1978.
- 32) 渡辺 治, 他: Calcifying Odontogenic Cyst の 1 例. 東北歯大誌 5: 24 1978.
- 33) 若江秀敏, 他: 石灰化歯原性嚢胞の 2 例. 口科誌 28: 33 1978.
- 34) 枝 重夫, 他: Calcifying Odontogenic Cyst の 1 症例. 松本歯学 4: 38 1978.
- 35) 境野伸一, 他: 石灰化歯原性嚢胞の 1 例. 日口外誌 25: 1134 1979.
- 36) 茂木健司, 他: pindborg tumor への移行が考えられた calcifying odontogenic cyst の 1 例. 日口外誌 25: 437 1979.
- 37) 大山 満, 他: 歯牙腫を合併した石灰化歯原性嚢胞の 1 例. 口科誌 28: 373 1979.
- 38) 山崎嘉幸, 他: calcifying odontogenic cyst の 1 例. 日口外誌 25: 437 1979.
- 39) Swinson, T.W.: A clinico-pathological comparison of the ameloblastoma with the calcifying odontogenic cyst. Brit J Oral Surg 13: 217 1976.
- 40) Altini, M., et al.: The calcifying odontogenic cyst. Oral Surg 40: 751 1975.
- 41) Shear, M.: Cyst of the Oral Regions. ed 1, John Wright and Sons Limited Bristol, 1976, p 60.
- 42) Fejerskov, O., et al.: The calcifying ghost cell odontogenic tumor or the calcifying odontogenic cyst. J Oral Path 1: 273 1972.
- 43) Lucas, R.B.: Pathology of tumors of the Oral Tissues. J. and A. Churchill Livingstone, Edinburgh and London, 1972, p 68.