下顎に歯牙腫と濾胞性歯嚢胞を併発し、上顎に過剰歯のみられた1例

谷 健 六

A case of follicular cyst associated with odontoma in the mandible, and with supernumerary teeth in the maxilla

Kenroku TANI

Abstract: A relatively rare case of a 13-year-old boy, who had a follicular cyst associated with odontoma in the mandible, and with supernumerary teeth in the maxilla, was reported.

Under local anesthesia, cyst and tumor were removed en bloc.

The pathological diagnosis was follicular cyst associated with compound odontoma.

Key words: follicular cyst, odontoma, supernumerary teeth

緒 言

歯源性嚢胞と歯牙腫は、まれに相隣接して同時に顎骨に発生することが報告されている¹⁻³⁾。

今回、右側下顎前歯部に、歯牙腫と濾胞性歯嚢胞が合併して発生し、上顎前歯部に過剰歯を伴った1例を経験したので報告する。

症 例

患 者： 13歳 男性。

初 診：昭和59年8月。

主 訴：過剰歯に対する処置。

既往歴：特記事項なし。

家族歴・生活歴：特記事項なし。

現病歴：以前より過剰歯が気になっていたため近くの開業医を訪れたところ当院を紹介され受診した。

現 症：臨床検査にてリンパ球を多く認めるが全身的には何ら特記事項はない。口腔外には異常所見を認めず、口腔内所見として、右上顎前歯部に過剰歯を認め(写真1)、下顎にはC1が晚期残存しており、特に、正中歯と思われる過剰歯は本来1が萌出すべき位置にある。その他の口腔軟組織などに異常所見は認めないが、右下顎C2相当舌側に軽度の腫脹を呈している。

写真1 上顎前歯部の過剰歯

写真2 オルソパントモグラム所見

X線所見：オルソパントモグラムによって、下顎に3と思われる埋伏歯、その歯冠周囲に境界明瞭な嚢胞様像を認め、C1下方に小歯牙様不透過像を認める(写

佐賀県立病院好生館歯科

(指導：岩田 康 九州厚生年金病院病理部長)

Department of Dentistry, Saga Koseikan Hospital

(Instructor: Yasushi Iwata. Department of Pathology, Kyushu Koseinenkin Hospital)

受付日：昭和60年1月7日

図1 濾胞性歯嚢胞，歯牙腫，過剰歯の位置

写真3 咬合法X線写真

真2，図1）。口腔内X線写真により埋伏歯，過剰歯，小歯牙様不透過像がさらに確認できた（写真3～5）。頭部後前撮影写真においては顔面頭蓋骨に異常所見を認めず，胸部X線写真においても鎖骨の欠損など異常所見は認めなかった。

臨床診断：濾胞性歯嚢胞，歯牙腫，過剰歯。

処置および経過：上記臨床診断のもとに，局麻下にて昭和59年8月■■■■，嚢胞摘出術，腫瘍摘出術を施行した。すなわち口腔内舌側より5-1|相当部の歯肉粘膜骨膜弁を剝離し非薄化した病変周辺骨を削除し前方は2|部まで，後方は5|部までの骨を削除して嚢胞壁を露出し鈍的に剝離していくと，2|下部で嚢胞壁の一部に腫瘍が含まれていた。嚢胞と腫瘍を摘出し，動揺が激しかった2|は咬合圧にたえないと判断し抜去した。嚢胞と骨との癒着はみられなかった。歯肉粘膜骨膜弁を元に戻して縫合し，上顎は21|を抜去し正中歯と思われる歯牙は継続歯の歯根に利用するため残した。術後の経過は良好である。

写真4 過剰歯牙X線写真

写真5 小歯牙様不透過像

摘出物所見：嚢胞壁は弾性軟，表面滑沢，赤白色を呈し，内容液は透明でやや粘稠な液状を示していた（写真6）。埋伏歯は右下側下顎犬歯と思われた（写真7）。腫瘍の大きさは $1.1 \times 0.9 \times 0.8 \text{ cm}^3$ ，重量0.15gで3個の小歯牙様硬組織を含んでおり（写真8），歯髓血管様組織を認めた。個々の大きさを表1に示す。

過剰歯牙所見：1|と考えられる歯牙の根尖は彎曲し

写真 6 摘出物所見

写真 7 嚢胞内に歯冠を埋伏していた歯牙

写真 8 摘出した小歯牙様硬組織。左端にみえるのは嚢胞内に埋伏していた歯牙歯冠

表 1 歯牙様硬組織の大きさと重量

	大きさ (cm)			重量 (g)
	長 径	短 径	厚 径	
I	0.50	0.31	0.24	0.15
II	0.65	0.34	0.29	
III	0.61	0.30	0.25	

(写真 8 の左より I, II, III とした)

写真 9 過剰歯

1| と思われる歯牙は根尖彎曲がみられ 2| と思われる歯牙歯冠は着色がみられる。

表 2 過剰歯, 埋伏歯の計測値 (mm)

	歯冠長	歯冠幅径	歯冠厚径	歯根長	歯の全長
1	12.6	8.6	7.7	6.4	19.0
2	11.1	7.5	7.3	10.7	21.8
5	5.0	7.4	7.0	14.6	19.6
3	10.4	7.5	8.5	11.6	22.0

病理組織学的所見：濾胞性歯嚢胞壁は上皮層と結合組織層とから形成され、上皮層は2～3層の扁平上皮よりなっていた。一部に硬組織様所見がみられた(写真10, 11)。歯牙腫の大部分は象牙質から形成されているが表層の一部にエナメル質様組織をみる。歯髓組織の一部と思われる成分を認める(写真12, 13)。

病理組織診断：濾胞性歯嚢胞, 集合性歯牙腫。

考 察

濾胞性歯嚢胞は嚢胞化が歯胚の上皮組織中に起こって発生するとされ、その時期は石川ら⁹⁾が Römer より引用し、(1) 胎児形成期(硬組織なし)、(2) 歯牙形成期(歯の形態なし)、(3) 歯冠期(歯の形態あり)の3型に分類している、本症例は3の型に該当すると考えられた。

ており、2|と考えられる歯牙の歯冠は一部褐色の着色を帯びていた。正中歯は5咬頭性であるが下顎小白歯に類似していた。濾胞性歯嚢胞内に歯冠を埋伏していた歯牙はほぼ3|と考えられた(写真9)。過剰歯, 埋伏歯の計測値を表2に示す。

写真 10 病理組織像 (H-E 染色, ×40)

写真 12 歯牙腫の研磨標本 (×40)
象牙質, エナメル質, 一部に歯髓様
組織がみられる。

写真 11 病理組織像 (H-E 染色, ×100)

写真 13 歯牙腫の研磨標本 (×40)

立花ら⁷⁾は病理組織学的に顎骨嚢胞と診断された389例のうち55例が濾胞性歯嚢胞でその50.9%を15歳以下の小児が占めて他の顎骨嚢胞に比し小児期の発症が多くみられたと報告, 男女比は男児20例, 女児8例で2.5:1で, 成人の比2:1¹⁶⁾よりやや高値を示したとしている。濾胞性歯嚢胞の発見された年齢は側方歯群交代期が多く⁷⁾本症例と一致する。濾胞性歯嚢胞の本邦における報告の最高年齢者は74歳のようである⁸⁾。

原因埋伏歯は永久歯がほとんどで, 15歳以下の小児では下顎第2小臼歯に最も多く, 次いで上顎中切歯が多く, 下顎前歯部については発生がみられなかったという例が多いが^{8,9)}、濾胞性歯嚢胞の下顎前歯部での発生は稀有ではあるが報告例はあり¹⁰⁾、本症例でも右側下顎犬歯部に発生した。一方, 成人では下顎第3大臼歯, 上顎

過剰歯, 上顎第3大臼歯の順に多いとされ下顎犬歯部にも認められる^{8,9)}。また, 下顎切痕部下方に発生した例や¹¹⁾、1960年より9例の報告で稀有ではあるが下顎上行枝再上部埋伏歯で濾胞性歯嚢胞を伴っている報告もあるが, すべて40歳以上である¹²⁾。乳歯に起因する濾胞性歯嚢胞の報告は稀有である¹³⁾。

濾胞性歯嚢胞壁は炎症のないものが多く, 上皮の増殖, 変性のないものが比較的多いが結合組織中に歯原性上皮巣がみられるものもある¹⁴⁾。濾胞性歯嚢胞はエナメル上皮腫などとの鑑別診断を要するが¹⁵⁾、濾胞性歯嚢胞が再発を繰り返しエナメル上皮腫へと変化した例¹⁶⁾や、濾胞性歯嚢胞壁からの癌発生は稀有ではあるが報告されている¹⁷⁾。

手術法としては14歳以下では濾胞性歯嚢胞の開窓療法の利点もあるが^{1,15)}、本症例は歯牙腫を伴っていたので摘出術を施行した。

歯牙腫は、Bhaskar¹⁹⁾によれば歯源性腫瘍の中では比較的発生頻度が低いとされている。石川⁶⁾、Gorlin²⁰⁾、Thoma²¹⁾らは歯牙腫を集合性歯牙腫と複雑性歯牙腫に大別し、集合性歯牙腫は多数の歯牙様構造物から、複雑性歯牙腫は象牙質、エナメル質、セメント質が不規則な配列を構成し塊状増殖物を形成していると述べている。Pindborg らは W.H.O. の分類で上記2種類のほかに ameloblastic fibro-odontoma を加えて歯牙腫を3種に分類している^{9,22,23)}。また、歯牙腫は組織奇形ないしは過誤腫とする考え方もある。

発現部位は集合性歯牙腫は上顎前歯部に多く複雑性歯牙腫は下顎臼歯部に多いようである^{20,24)}が、本症例では下顎前歯部であった。歯牙腫は永久歯の埋伏、欠如、乳歯の残存などを伴うことも少なくない⁶⁾が、本症例でもCの晩期残存を認めた。

歯牙腫の発見された年齢は集合性歯牙腫、複雑性歯牙腫とも20~30歳^{25,26)}、10~30歳²⁷⁾までが多く、本症例でも13歳であった。しかし、歯牙腫はあらゆる年齢に発現することも知られており7か月の女兒口蓋にみられた例もある²⁴⁾。

集合性歯牙腫では無痛性の骨の膨隆、歯牙の未萌出などの症状が多く偶然発見されることが多い。一方、複雑性歯牙腫は腫脹、疼痛を伴うことも多い²⁸⁾。

歯牙腫の治療については、顎骨切除がなされている巨大例²⁹⁾や、上顎洞を圧排して巨大に発育した例^{30,31)}もあるが、ほとんど拇指頭大までの大きさで、小さいものでは上田ら³²⁾の0.25gの集合性歯牙腫の経験がある。歯牙腫は早期摘出が一般的である。

過剰歯の発生原因は、隔世遺伝説、歯胚過剰形成説、組織誘導説、偶然的原因説、奇形説、第三歯堤が過剰歯になった説、祖先返りなどがいわれてきた³³⁾が、成因は歯胚の形成過多、過剰発育に求める考え方は最も一般的であるが現在のところはっきり解明されていない³⁴⁾。

西嶋ら³⁵⁾は2757の埋伏歯のうちの230例、8.34%に上顎正中部に過剰歯を認め、上顎側切歯は0.94%であったとし、そのうちの73.1%に歯間離開を認めその68%が過剰歯の直接の原因で、5.5%が小帯の異常によるとし、また、萌出方向は逆生型が順生型の2倍であったと報告している。

過剰歯の出現部位は部分的に集中する傾向があり^{34,36)}、上顎では口蓋側、下顎では舌側に位置していることが多い³⁷⁾が本症例でも上顎前歯部に集中しており2は口蓋側であった。1が不完全埋伏歯であったのは過剰歯が集中していたため萌出余地が無かったためと考えられた。

左右中切歯間に発現するものを正中歯³⁶⁾と呼ぶ場合が

あるが、本症例では下顎小臼歯に類似していた。奥村ら³⁸⁾は上顎正中部の左右に下顎小臼歯様形態の過剰歯を報告している。久野ら³⁹⁾は13家族中2家族の父親にのみ、親子に過剰歯が上顎前歯部にみられたと報告している。

過剰歯は、円錐歯、結節状歯、円柱状歯などの不定型歯の形態をとることが多く咬合面観は解剖学的形態を失っているものもあり歯根は未完成歯根が多いこともある^{33,40)}とされているが本症例では定型に近い形態³⁶⁾であった。

濾胞性歯嚢胞と歯牙腫は発見される年齢や下顎における好発部位も類似していて相隣接して発生することも考えられる。濾胞性歯嚢胞と歯牙腫が隣接して発生した本邦報告例を、児玉ら¹⁾は文献的に整理し、6症例のうち発生部位は下顎臼歯部が4例、上顎前歯部が2例で、年齢は12~24歳、男女比1:1で、歯牙腫は5症例が複雑性、2症例が集合性で、大きさは $2.5 \times 1.5 \times 1.2 \text{ cm}^3$ 、重量5.1gが最大であったと報告している。6症例のうち2症例はそれぞれ2個の濾胞性歯嚢胞を含んでいたとしている。本症例は13歳で発現部位は下顎右側前歯部、歯牙腫の大きさは $1.1 \times 0.9 \times 0.8 \text{ cm}^3$ 、重量0.15g、集合性で、濾胞性歯嚢胞数は1、含まれた歯牙は下顎右側犬歯様であった。

乳歯根尖部の炎症が濾胞性歯嚢胞の発生に関連している⁴¹⁾とする考え方ががあるが、本症例でもCの晩期残存、根尖吸収を認めその直下に歯牙腫と濾胞性歯嚢胞が発生していたが、Cとの関連は確かではない。

歯牙腫の発生時期を推察するうえで、菱川ら⁴²⁾は3の部位に発生した歯牙腫により3の正常位置萌出が阻害され87根尖部まで転位、迷入した例をあげている。本症例でも濾胞性歯嚢胞に含まれた歯牙は3であると考えられ、その上部の歯牙腫に萌出を阻害され歯胚に対する圧迫が原因して濾胞性歯嚢胞が発生したとも考えられるが、滝川⁴³⁾は複雑性歯牙腫の35例中17例に埋伏歯を認めたと報告しており、歯牙腫が埋伏歯を伴うことは比較的多い²⁸⁾が、その埋伏歯から濾胞性歯嚢胞が発生する例は比較的少ないと考えられる。

本症例にあるような乳歯晩期残存、永久歯萌出遅延、永久歯の埋伏、過剰歯の存在は鎖骨頭蓋異骨症にもみられ^{34,44~46)}、また、姉弟に濾胞性歯嚢胞を認めた例⁴⁷⁾もあるが、どちらも本症例には認められなかった。下顎に歯牙腫と濾胞性歯嚢胞が併発し、上顎に過剰歯のみられた例は稀有であると考えられた。

結 語

1) 13歳、男性の下顎前歯部に歯牙腫と濾胞性歯嚢胞が併発し、上顎前歯部に過剰歯のみられた1例を経験したので、その概要を報告した。

2) 濾胞性歯嚢胞は右側下顎犬歯の埋伏歯牙の歯冠を包埋していた。

稿を終えるにあたり、ご指導、ご鞭撻をいただいた前九州大学口腔病理学助教授岩田康先生（九州厚生年金病院病理部長）、当院病理検査科医長宮本祐一先生に感謝の意を表します。

引用文献

- 1) 児玉罔昭，平田秀一，他：歯牙腫と濾胞性歯嚢胞の合併した1例。日口外誌 24: 99-102 1978.
- 2) 安藤正一，尾沢光久，他：一顎中に濾胞性歯嚢胞と歯牙腫が連続していた症例。歯界展望 18: 734-735 1946.
- 3) 金田敏雄，行木英生，他：歯牙腫を伴った石灰化歯原性嚢胞の1症例（抄）。口科誌 29: 626 1980.
- 4) 常葉仔雄，広瀬達男，他：歯牙腫と共存したと思われる含歯嚢胞の1例（抄）。日口外誌 19: 714 1973.
- 5) 堀越 勝，力丸浩一，他：歯牙腫を伴った石灰化歯原性嚢胞の1例。日口外誌 26: 448-453 1980.
- 6) 石川悟朗，秋吉正豊：口腔病理学Ⅱ。改裝版。永末書店，京都，1973，840-847，955-960頁。
- 7) 立花忠夫，清水正嗣，他：小児顎骨嚢胞の臨牀的觀察——特にろ胞性歯嚢胞について——。日口外誌 26: 337-344 1980.
- 8) 栗沢靖之：新編口腔病理学。金原出版，東京，1977，286頁。
- 9) Pindborg, J.J. and Kramer, J.R.H.: International histological classification of tumors. No. 5, Histological typing of odontogenic tumors, jaw cysts, and allied lesions. W.H.O., Geneva, 1971, p 18, 30, 40-41.
- 10) 金子忠良，菊地和子，他：下顎前歯部に発生した多数の埋伏過剰歯を伴ったろ胞性歯嚢胞の1例。日口外誌 28: 105-108 1982.
- 11) 西嶋克巳，岸 幹二，他：下顎切痕部下方にみられた濾胞性歯嚢胞の1例。日口外誌 22: 391-395 1976.
- 12) 木澤 豊，堀部直貴，他：下顎骨筋突起にみられた濾胞性歯牙嚢胞の1例。口科誌 30: 442-447 1981.
- 13) 山中俊彦，沢黒芳生，他：乳歯に起因すると思われる濾胞性歯嚢胞の1例。日口外誌 23: 370-374 1977.
- 14) 清水典子，大井 毅，他：顎骨内嚢胞の病理組織学的検討——城西歯大における病理検査材料から——（抄）。口科誌 29: 631-632 1980.
- 15) 神谷健治，石川武憲，他：癒合した濾胞性歯嚢胞の1症例。日口外誌 21: 343-348 1975.
- 16) 武田元一，御門真二，他：濾胞性歯嚢胞壁から発生したと思われるエナメル上皮腫の一例（抄）。口科誌 30: 571-572 1981.
- 17) 仁木 寛，山崎一郎，他：ろ胞性歯嚢胞壁にみられた扁平上皮癌の1例。日口外誌 29: 890-892 1983.
- 18) 野間弘康，山根源之，他：濾胞性歯牙嚢胞に対する開窓療法の改良について。日口外誌 26: 170-173 1980.
- 19) Bhaskar, S.N.: Synopsis of Oral Pathology. 4th Ed. Mosby Co, St Louis, 1973, p 214-221, 261-264.
- 20) Gorlin, R.J. and Goldman, H.M.: Thoma's Oral Pathology. 6th Ed, Mosby Co, St Lous, 1970, p 497-501.
- 21) Thoma, K.H. and Goldman, H.M.: Odontogenic tumors. Am J Path 22: 433-471 1946.
- 22) 堀内克啓，勝井和世，他：歯牙腫の4例（抄）。口科誌 32: 785-786 1983.
- 23) 白土雄司，樋口勝規，他：エナメル上皮線維歯牙腫の1例。口科誌 33: 269-278 1984.
- 24) 篠崎文彦，早津良和，他：歯牙腫の2症例。日口外誌 28: 248-252 1982.
- 25) 塚野多四郎：「オドントーム」（硬性歯牙腫）の60例に関する臨牀的研究。日歯医会誌 85: 39-72, 86: 192-234 1937.
- 26) 亀山嘉光，牛島 進，他：複合性歯牙腫の1例。九歯会誌 22: 244-247 1968.
- 27) Gorlin, R.J. and Chaudhry, A.P.: Odontogenic tumors. Classification, histopathology, and clinical behavior in man and domesticated animals. Cancer 14: 73-101 1961.
- 28) 堀 稔，榎本武司，他：複雑歯牙腫の3症例。口科誌 33: 321-327 1984.
- 29) Waldron, C.W.: Compound composite odontoma of mandible. J Oral Surg 4: 48-55 1946.
- 30) 竹下貴久，桐山 健，他：左側上顎部に発生した巨大な複雑歯牙腫の1症例。日口外誌 29: 294-298 1983.
- 31) 堀之内康文，中村昭一，他：上顎に発生した巨大な歯牙腫の1例。日口外誌 30: 1465 1984.
- 32) 上田 忠，寺島美史，他：歯牙腫の2例。日口外誌 20: 274-277 1974.
- 33) 松本忠士，内藤謙一，他：下顎小白歯部左右両側性に3本の過剰歯を有する症例。口科誌 32: 580-588 1983.
- 34) 深沢裕文，長谷川正文，他：12歯の埋伏過剰永久歯を有する骨格型下顎前突の1症例。口科誌 32: 173-182 1983.
- 35) 西嶋克巳，田村博宣，他：当教室における最近10年間の埋伏歯および埋伏過剰歯の臨牀統計的觀察。日口外誌 27: 50-55 1981.
- 36) 伊藤秀夫，塩田重利，他：口腔病変診断アトラス 医歯薬出版，東京，1980，246-247頁。
- 37) 野坂洋一郎，伊藤一三，他：下顎小白歯部に対称的に過剰歯の出現した2例ならびに文献考

- 察. 口科誌 25: 296-323 1970.
- 38) 奥村英彦, 鶴 素子, 他: 上顎前歯部に2歯の過剰歯内歯を含んだ5埋伏歯のまれなる1例. 日口外誌 28: 128-131 1982.
- 39) 久野吉雄, 佐藤田鶴子, 他: 家族的にみられた上顎前歯部の過剰歯2例(抄). 日口外誌 23: 964 1977.
- 40) 大森桂二, 古本克磨, 他: 上下顎左右側小臼歯部に発現した埋伏過剰歯例. 日口外誌 30: 1210-1215 1984.
- 41) 守田裕啓, 武田泰典, 他: 濾胞性歯嚢胞の病理学的検討—第1報—(抄). 口科誌 30: 585-586 1981.
- 42) 菱川幹夫, 立松憲親, 他: 3| の転位, 迷入を来した Compound odontoma の1例(抄). 日口外誌 23: 337 1977.
- 43) 滝川富雄: 上顎に生じた複雑歯牙腫の2例. 日大歯学 45: 1-7 1971.
- 44) 梶 隆一, 連 利隆, 他: 鎖骨頭蓋異骨症の1例. 日口外誌 27: 774-779 1981.
- 45) 亀谷昭秀, 野村寿男, 他: 鎖骨頭蓋異骨症の1例. 口科誌 29: 483-492 1980.
- 46) 水野智之, 北島晴比古, 他: 多数の埋伏歯を伴った鎖骨頭蓋骨異形成症の1例. 日口外誌 29: 2333-2341 1983.
- 47) 福田順子, 玉井健三, 他: 姉弟の下顎両側にみられた巨大な歯嚢性歯牙嚢胞. 日口外誌 15: 58-61 1969.
-