石灰化歯源性嚢胞の2例

阿部 廣幸・藤井 俊治・高橋 達夫
真 中 信 之・金子 裕 之・扇 内 秀 樹

Two cases of calcifying odontogenic cyst

Hiroyuki ABE・Toshiharu FUJII・Tatuo TAKAHASHI
Nobuyuki MANAKA・Hiroyuki KANEKO・Hideki OGIUCHI

Abstract: The present paper reports two cases of calcifying odontogenic cyst, including a review of previously reported cases of the lesion in Japan.

Case 1: A 24-year-old woman had a painless swelling in the right maxillary incisor region. The radiographic examination showed an ovoid radiolucent area containing several small radiopaque spots. The lesion was enucleated. Histopathological findings from the specimens showed the presence of ghost cells and calcified tissues in the connective tissue around the cyst wall. The patient had an uneventful postoperative course and the follow-up radiographs were not available for study.

Case 2: A 32-year-old man was referred complaining a mental mandibular swelling which had been present for one year. The radiographic examination showed two cystic radiolucent area from the right incisor to the left second premolar area, and tooth-like appearance could be found in the left one. These cysts were enucleated and HAP was consolidated into the bone defect occurred postoperatively. Histopathological findings revealed that the epithelium of the right side cyst contained ghost cells, calcified tissues, and foreign body giant cells. The left one was complex odontoma. Postoperative courses were uneventful and no relapse was found.

Key words: calcifying odontogenic cyst (石灰化歯源性嚢胞), odontoma (歯牙腫)

緒 言

石灰化歯源性嚢胞は嚢胞壁の上皮が歯源性上皮に類似し、その上皮内に ghost cell の出現と石灰化沈着が認められる嚢胞性の疾患として、1962年 Gorlin¹⁾によって報告された。本邦においても1967年枝ら²⁾によって報告されて以来その特徴的な病理組織像と多彩な病態像により注目され、本疾患はさまざまな角度から検討が加え

られている。今回われわれは、24歳女性の上顎前歯部に生じた1例と32歳男性の下顎前歯部に複雑性歯牙腫を伴った1例の計2例の石灰化歯源性嚢胞を経験したので、若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

症例1

患者：24歳 女性。

初 診：昭和57年6月

主 訴：3—1 歯肉頬移行部の無痛性腫脹。

家族歴・既往歴：特記事項なし。

現病歴：約1か月前3—1 歯肉頬移行部の無痛性腫脹に気づき某歯科を受診、X線撮影にて同部に拇指頭大の透過像を指摘され当科に紹介来院した。

東京女子医科大学口腔外科学教室

(主任：扇内秀樹教授)

Department of Oral Surgery, Tokyo Women's
Medical College (Chief: Prof. Hideki Ogiuchi)

受付日：昭和63年11月25日

写真 1 症例 1 顔貌所見

写真 2 症例 1 口腔内所見

写真 3 症例 1 初診時X線所見

写真 4 症例 1 術後 4 年 7 か月の X 線所見

現 症：体格中等度，栄養状態は良好で，全身所見に異常は認められなかった．顔貌所見では右鼻翼部周囲に軽度の腫脹が認められ，同部の鼻唇溝はやや不鮮明であった（写真 1）．

口腔内では，3-1 歯肉頬移行部に軽度の無痛性腫脹を認めるも正常粘膜色を呈しており，骨様硬で圧痛は認めなかった．1-12 にはレジン充填がなされていたが，4321-12 は電気歯髄反応は陽性であった（写真 2）．

X線所見：3-1 根尖部に境界明瞭なほぼ円形の X 線透過像が認められ，X 線透過像内の 2-1 根尖相当部に数個の小豆大から米粒大の X 線不透過像が認められ，2-1 歯根尖は軽度の吸収が認められた（写真 3）．

臨床検査所見：一般血液検査，血清生化学検査，尿検査値はいずれも正常範囲内であった．

臨床診断：嚢胞性歯牙腫．

処置および経過：昭和 57 年 8 月入院，2-1 根管処置後，NLA 全麻下に嚢胞摘出術を施行した．3-1 頬側に切開を加え粘膜骨膜弁を剝離すると，2-1 根尖部の骨は半球状に膨隆しており骨皮質は菲薄化していた．骨削除を行うと淡黄赤色を呈した嚢胞壁を認めた．嚢胞の剝離は容易で，骨面は平滑であり，2-1 根尖との直接関係は認められなかった．創部を一次閉鎖し手術を終了した．術後の経過は良好で術後 7 日で退院した．写真 4 は術後 4 年 7 か月の X 線所見である．嚢胞摘出腔は X 線的に周囲骨組織とほぼ同程度の不透過性を示しており，再発もなく経過良好である．

摘出物肉眼所見：嚢胞は 19 × 15 × 13 mm 大，重さ 1.8 g，表面やや凹凸，淡黄赤色を呈し弾性を認めた．割

写真 5 症例 1 摘出物肉眼所見
下 同 断面所見

面像では、嚢胞壁は約 2 mm で白色のオカラ状物を含む漿液成分と X 線像に一致した嚢胞壁に石灰化物を認めた (写真 5)。

病理組織学的所見：嚢胞内腔側細胞間には特異な ghost cell が出現し、この淡い好酸性の ghost cell は種々の大きさで類円形を呈し、嚢胞壁には ghost cell を中心として大小の円形あるいは塊状の石灰化物が認められた。この石灰化物は、ghost cell が集合し、層板状にあるいは同心円状に、またそれらが互いに癒合して複雑な組織像を呈していた (写真 6)。

病理組織学的診断：石灰化歯原性嚢胞。

症例 2

患 者：32 歳 男性。

初 診：昭和 61 年 12 月。

主 訴：3-5 歯槽粘膜部の腫脹。

家族歴・既往歴：特記事項なし。

現症歴：約 1 年前より 3-5 歯槽粘膜部の腫脹に気づいたが、自発痛はなく放置していた。しかし同部の腫脹が徐々に増大してきたため某歯科を受診し X 線撮影を受けたところ、3-5 根尖部の X 線透過像を指摘され、某医科大学病院を紹介された。同病院にての生検診断は石灰

写真 6 症例 1 病理組織学的所見
(H-E 中拡大)

上：ghost cell がみられる部位
下：石灰化物がみられる部位

化歯原性嚢胞であったが、当科での処置を本人が希望したため紹介来院となった。

現 症：体格中等度、栄養状態は良好で、全身所見に異常は認められなかった。顔貌所見ではオトガイ部から左下顎体部にかけて骨様硬の腫脹を認め左右非対称性であったが、皮膚は健康色を呈し、下歯槽神経支配領域の異常は認められなかった (写真 7)。

口腔内では 3-5 歯槽粘膜部に鶏卵大の境界明瞭な骨様硬の腫脹を認め、3 は欠損していた。1-1 間の生検部と思われる歯槽粘膜部には、軽度の発赤を伴った瘻孔を認め、同部の周囲には一部骨の欠損と羊皮紙様感を触知し、圧迫により圧痛と黄白色、やや粘稠性の膿の流出を認めた。その他の口腔粘膜は正常色を呈していた。なお 321|1245 の各歯牙の骨植はやや不良であり、電気歯髓反応は陰性であった (写真 8)。

X 線所見：オルソパントモグラムでは正中部を境とする 4| 近心より 16 近心部にわたる大きな二房性の X 線透過像を認めた。左側の嚢胞と思われる透過像内には歯牙腫様の X 線不透過像を、その下方の下顎下縁部には 13 と思われる埋伏歯が認められた。さらに 321|1245 の歯根の軽度の吸収が認められた。咬合法では 4-6 の下顎皮質

写真 8 症例 2 口腔内所見

写真 7 症例 2 顔貌所見

上：正面
下：軸位

部より唇側に一層の薄いX線不透透像が認められた(写真9)。

臨床検査所見：一般血液検査，血清生化学検査，尿検査値はいずれも正常範囲内であった。

臨床診断：石灰化歯原性嚢胞。

処置および経過：昭和61年12月入院，術前に瘻孔からの膿の細菌検査と321|1245の抜髄，根充を行った。細菌検査結果は α -streptococcus, Bacteroides melaninogenics が検出された。なお321|1245の各歯髄は生活していた。同月 GOF 全麻下に嚢胞摘出術を行った。5-6唇側歯肉歯頸部に切開を加え粘膜骨膜弁を剝離すると，腫脹部の骨皮質は菲薄で，生検部では消失しており，嚢胞壁との癒着が一部に認められるも，他部位周囲組織と嚢胞との癒着はなかった。正中部は左右交通していたが，幅 5 mm 程度の骨皮質で境され，これを保存するため嚢胞を二分割して摘出した。下顎管は16近心

写真 9 症例 2 初診時X線所見

上：オルソパントモグラム
下：咬合法

から吸収されており，下歯槽神経血管束が嚢胞下壁に沿って走行していたためこれを剝離保存した。摘出腔骨面は平滑であったが，舌側骨に一部欠損を認めた。摘出腔内に321|1245の根尖が露出していたが，嚢胞と根尖との直接関係は認められなかった。摘出腔下方に一層の薄い骨で隔てられた13と思われる埋伏歯を確認し，これを抜歯した。埋伏歯と嚢胞との直接関係は認められなかった。摘出腔が大きいため粒状緻密体とドロキシアパタイト（以下 HAP）を約 20 g 補填し（写真10）創面を一

写真 10 症例 2 術中所見

上：嚢胞摘出

下：HAP 補填後

写真 11 症例 2 術後 1 年の顔貌軸位 (上)
と口腔内所見 (下)

写真 12 症例 2 術後 1 年の X 線所見

次閉鎖し手術を終了した。術後の経過は良好で同月29日退院した。

写真11は術後1年の顔貌軸位所見と口腔内所見である。下顎骨形態はほぼ左右対称に回復し、下歯槽神経支配領域の異常も認められない。歯肉は健康色を呈し、HAP 補填部は骨様硬を触知し、32I|1245 の骨植も強固となった。X線所見でも、HAP と周囲骨との境界が不明瞭になりつつある所見を呈しており (写真12)、再発もなく経過良好である。

摘出物肉眼所見およびX線所見：嚢胞は右側28×23×

12 mm 大、左側 38×30×15 mm 大の橢円形、表面やや凹凸不正で赤褐色を呈し、弾性を認めた。右側嚢胞内容は膿汁様の液状成分で、嚢胞壁は非常に厚く、その内面は凹凸不正であった。左側の嚢胞は充実性で、内部に歯牙様硬固物を触知した (写真13)。摘出物X線所見では左側に歯牙様石灰化組織と点状の不透過像の散在を認め、右側にも数か所の点状不透過像を認めた (写真14)。

病理組織学的所見：右側嚢胞内腔側は円柱上皮や重層扁平上皮により裏層され、上皮層の中にはエオジン好染性の核の陰影を伴う ghost cell や異物巨細胞が多数認められ、一部の ghost cell には石灰化を認めた (写真15)。左側嚢胞内には明瞭な細管構造を伴う象牙質と歯髓の部分や不規則塊状の石灰化物が散在し、大部分の ghost cell に石灰化を認めた。また部位によっては上皮の増殖もかなり認められた (写真16, 17)。

病理組織学的診断：複雑性歯牙腫を伴った石灰化歯源性嚢胞。

考 察

1962年 Gorlin ら¹⁾ は従来非定型的なエナメル上皮腫や特異な型を示す真珠腫などとして報告されていた4例と自験の11例の計15例を検討した結果、これを歯源性上

写真 13 症例 2 上：摘出物肉眼所見
下：同 断面

写真 15 症例 2 病理組織学的所見（嚢胞側）
上：弱拡大 (H-E)
下：強拡大

写真 14 症例 2 摘出物X線所見

皮由来の嚢胞性病変として分類し、石灰化歯原性嚢胞 (calcifying odontogenic cyst) と命名した。翌年, Gold⁹⁾ は同一疾患に対して keratinizing and calcifying odontogenic cyst と呼称したが、一般的には前者らの疾患名が用いられている。本疾患は嚢胞の内層である歯原性上皮が特異的な角化を起こして ghost cell を形成し、それに石灰化が起こるという特徴的な所見を示す。しかしながら報告例を通覧すると、その病態像は多彩であり、本疾患の本態が嚢胞であるのか、あるいは腫瘍性病変で

あって嚢胞は二次的なものであるのかは諸家によって見解が異なっている。

1971年の WHO の分類⁴⁾ では non neoplastic cystic lesion とされながらも、歯原性良性腫瘍の項に分類され、Fejerskov ら (1972)⁵⁾ は本疾患を嚢胞変性の強い腫瘍と考え、最も特徴的な ghost cell の名を介した calcifying ghost cell tumor なる名称を提案している。Freedman ら (1975)⁶⁾ も cystic calcifying odontogenic tumor と呼ぶべきであるとし、嚢胞様形態を示すことがあるが本質的には腫瘍性であると考えている。また Shear⁷⁾ はほかの歯原性腫瘍を備えて発育したものか、あるいはすでに存在していた腫瘍の二次的現象であろうと考えている。1981年 Praetorius ら⁸⁾ は、Gorlin とともに WHO の診断基準をみたす石灰化歯原性嚢胞 16 例を再検討し、嚢胞 (以下 Type 1) と腫瘍 (以下 Type 2) の二種の病変に分類し、Type 1 は単胞性で、これをさらに simple unicystic type (以下 Type 1A), odontome producing type (以下 Type 1B), ameloblastomatous proliferating type (以下 Type 1C) の三種に細分し、

写真 16 症例 2 病理組織学的所見 (歯牙腫側)

上: 弱拡大
(H-E)
下: 中拡大

写真 17 症例 2

上: 歯牙腫側の ghost cell と石灰化物が
みられる部位 (H-E 中拡大)
下: 星状細胞様細胞がみられる部位 (H-E
強拡大)

Type 2 は嚢胞は二次的像 であるとして dentinogenic ghost cell tumor と呼ぶことを提唱している。

本疾患の発生頻度はかなりまれであり, Altini ら⁹⁾ は歯源性腫瘍と歯源性嚢胞 411 例中 8 例であったと報告し, 佐藤¹⁰⁾は顎嚢胞 853 例中 3 例, 木下¹¹⁾は歯源性腫瘍および嚢胞 230 例中 3 例, 福島¹²⁾は口腔領域の嚢胞 1,437 例中 4 例であったと報告しており, これらを総括すると, 本疾患の発生率は約 0.6% 前後と考えられる。

本邦の報告例についてみると枝ら (1967)²⁾ の報告以来, 現在まで約 100 例の報告がみられるが, われわれが学術誌に掲載された本疾患の論文を渉猟し得た報告例は 36 編^{2, 10, 11, 13-45)} 52 例であった。これに自験例 2 例を加えた 54 例を, Praetorius ら⁸⁾ の分類に準じ, 単胞性の病変で歯牙硬組織の形成を伴わない 26 例^{2, 11, 14-29, 31, 32)} (以下 I 型), 歯牙腫または歯牙硬組織の形成を伴った 22 例^{10, 11, 23, 25, 27, 29, 33-44)} (以下 II 型) とエナメル上皮腫様の病理組織像を著明に認めた 3 例^{11, 28, 45)} (以下 III 型) に分け考察を加えてみる。なお本邦例においては, Praetorius ら⁸⁾ の Type 2 に相当する症例は認められなかった。

年齢分布については, 平均発見年齢は I 型 (不明 1 例を除く) では 26 歳で, 30 歳までに発見された症例が 80%

図 1 年齢分布

であり, II 型では 18 歳で, 20 歳までに発見された症例が 73% であった。III 型の 3 例は 13 歳, 23 歳, 68 歳の症例であり, 平均は 35 歳であった (図 1)。Praetorius ら⁸⁾ は, Type 1 A は全年齢層にみられ, 最年少は 1 歳で臨床診

表 1 発生部位

部位	症例数	I 型	II 型	III 型
上顎： 前歯	5	2	0	
白歯	0	1	1	
前歯～小白歯	6	8	0	
前歯～大白歯	2	5	0	
計	13	16	1	
下顎： 前歯	2	2	0	
白歯	5	0	0	
前歯～小白歯	3	3	1	
前歯～大白歯	3	1	1	
計	13	6	2	

断が萌出性嚢胞の症例，最年長は78歳の残留嚢胞の症例で，Type 1B は10歳代が好発年齢層であるが，32歳の1例に奇形歯の出現を認め，Type 1C は47歳の1例のみに認めたと述べている．本邦例においては，I 型の最年少は9歳²⁵⁾，最年長は71歳¹⁹⁾，II 型の最年少は9歳^{29,34)}，最年長は39歳³⁸⁾であり，II 型の方が若年層により好発する傾向であった．またII 型の平均年齢は中畑ら⁴⁶⁾による歯牙腫の発見される平均年齢24歳よりも若年であった．なおII 型については症例数が少なく，分析を行うことは不適当と思われた．自験例1はI 型，24歳で好発年齢層内であったが，自験例2はII 型で32歳であり本邦例では二番目に年長であった．I 型とII 型の平均年齢の相異は本疾患に関連して発生する歯牙硬組織の分化発生時期と密接な関連があるものと思われた．

性差についてみると，I 型（不明1例を除く）は男性13例，女性12例，II 型は男性10例，女性12例，III 型は男性1例，女性2例といずれもほぼ同率であり，性差は認められないと考えられた．

発生部位については（表1），I 型は上顎，下顎13例と同数であったが，II 型は上顎16例（73％），下顎6例（27％）と，松井ら⁴⁴⁾と同様に上顎に多く認められた．III 型では上顎1例，下顎2例であった．歯種別の発生部位ではPraetorius ら⁸⁾はType 1A 5例中1例，Type 1B 7例全例が犬歯部に発生したとしており，本邦例でも犬歯部を含み発生した症例は，I 型26例中20例（77％）であり，II 型では22例中21例とほぼ全例犬歯部と何らかの関連が認められた．なおFreedman ら⁶⁾は本疾患52例中16例，Altini ら⁹⁾は75例中10例，Praetorius ら⁸⁾は16例中2例が軟組織にみられたと報告しているが本邦においては軟組織に発生した症例は報告されていない．

正中線を越えて発生した症例については，Fejerskov ら⁵⁾は骨内に発生した上顎20例中1例，下顎16例中5例と報告している．本邦例では上顎にはなく，下顎にI 型

4例^{11,23,25,28)}，II 型3例^{29,43)}発生しており，Fejerskov ら⁵⁾の報告に近似していた．自験例2は正中右側に石灰化歯原性嚢胞を左側に複雑性歯牙腫を持つ二房性の大きな嚢胞状病変であり，その大きさは歯牙腫の方が大きであった．

埋伏歯と本疾患の関係では，I 型は8例（31％），II 型は16例（73％），III 型は2例に埋伏歯が存在しており，歯種別では上顎犬歯がI 型3例^{21,27,29)}，II 型7例^{23,27,34-38,40,42)}，下顎犬歯がI 型1例²⁵⁾，II 型5例^{27,33,43,44)}と，犬歯の埋伏が多くみられた．本疾患に埋伏歯を伴う理由についてGorlin ら¹⁾は発育途上の歯牙あるいは未萌出のdental epithelium から発生したものと考えている．そして埋伏歯や過剰歯を伴わない症例については，枝ら²⁾は原因歯が吸収されてしまったかあるいはすでに萌出している歯牙のdental epithelium より発生したものと考えている．自験例2においては下顎犬歯の埋伏を認め，左側の複雑性歯牙腫の嚢胞内に奇形歯と思われる歯牙様硬組織を認めた．

嚢胞壁内石灰化物はI 型20例（77％），II 型20例（91％）にみられ，III 型にはみられなかった．この嚢胞壁内石灰化物は，本疾患に特徴的な所見と考えられるが，埋伏歯や歯牙腫などのX線不透過像がある場合には，初診時X線所見で確認することは困難であり，摘出時に確認されたり，摘出物のX線写真による確認の方が多いようである．自験例1では摘出物の断面の所見により，自験例2では初診時左側嚢胞内に数か所X線不透過像を認めたが，摘出後の断面所見，X線写真により右側嚢胞内にも顆粒状石灰化物を数個確認した．

メラニン色素を病理組織学的所見において嚢胞壁に認められたとする症例がI 型4例^{14,18,23,29)}，II 型5例^{11,25,29,43,44)}，III 型1例²⁶⁾に認められた．Saito ら²⁶⁾は本疾患を組織学的に1) the simple unicystic type, 2) the odontome-producing type, 3) the ghost cell-dominant type と4) the ameloblastoma-producing type に分け，後三者にメラニン色素沈着を認め，このことは後三者はより高分化であると述べている．しかし青葉ら¹⁴⁾は多胚葉性上皮由来の歯原性上皮中にメラニン色素が存在することは奇異な現象ではないと述べ，Lawson ら⁴⁷⁾は正常なヒト胎児において歯堤や歯蕾からメラニン色素を観察しており，本邦例においても各型にみられ，必ずしも特異的な所見ではないと考えられた．

歯根吸収との関係ではGold³⁾，Freedman ら⁶⁾，Altini ら⁹⁾は本疾患に高率に歯根吸収が生じるとしている．本邦例ではI 型7例^{11,15,16,21,24,29)}（27％），III 型6例^{25,33,37,39,41)}（27％）に歯根吸収がみられた．自験例1では21の根尖に，自験例2では321/1245の根尖に軽度の歯根吸収を認めた．

II 型の歯牙腫の組織学的形態について記載がみられたものは12例で，集合性歯牙腫が5例^{23,33,35,44)}，複雑性歯

牙腫が4例^{34,36)}、集合性と複雑性歯牙腫相方がみられたもの²⁵⁾と、複合性歯牙腫⁴¹⁾が各1例であった。Praetorius⁸⁾はType 1Bの組織学的特徴のうち、歯牙硬組織像について、数個から多数の歯牙様構造物が複合性歯牙腫のようにみられ、これらのodontoidは歯冠を内腔側に向け並行して突出配列し、歯髄は囊胞壁に向いている。多量の類象牙質がodontoidと混じり合って輪郭を描かれ、有管象牙質は歯髄組織から発育した象牙芽細胞から造られていると述べている。石灰化歯原性囊胞の分化の進んだ症例では、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⁴⁹⁾と述べた枝⁴⁹⁾の組織誘導説に一致する所見を述べている。本邦例では堀越³⁹⁾の報告した症例がこの組織像と同様な像と思われた。自験例2の複雑性歯牙腫の組織像は二房性の囊胞の一方の囊胞であり結合組織は他方の石灰化歯原性囊胞と共通で、内部には歯髄、象牙質が明瞭な奇形歯を含み、歯原性上皮の残遺と思われるエナメル器様細胞の小塊とghost cellがみられ大部分のghost cellに石灰化を認めた。

本疾患の由来について、Gorlin¹⁾は1)エナメル芽細胞様細胞からなる基底細胞層が存在する、2)象牙質様物質の産生がある、3)囊胞の発生部位が位置的に歯と密接な関係がある、などの点から歯原性であると述べており、さらに枝⁴⁹⁾は4)囊胞壁の基底細胞に接して星形細胞がみられること、5)上皮および囊胞壁結合組織の分化が進んで歯牙腫を作ることがまれでないことを歯原性由来の理由として追加している。自験例1では上皮の細胞壊死のため、基底細胞層の所見は不明であったが、囊胞内腔側細胞間に著明なghost cellの出現と石灰化を認め、自験例2では前述の2)の条件を除いて各条件が満たされていた。

Ghost cellが結合組織により異物のように認識されると、巨細胞により取り囲まれ¹⁾、Abrams⁴⁹⁾はこれを異物巨細胞であると述べている。本邦では中城¹³⁾の報告にみられるだけであるが、自験例2の右側の囊胞にみられた異物巨細胞については術前に生検がなされ感染を認めたことから、感染により囊胞壁がなんらかの影響を受け異物巨細胞が出現したのではないかとと思われる。

本疾患の発生機序に関して、猪狩²⁵⁾は最初上皮と結合組織間に組織誘導が起こり、歯牙硬組織成分が形成されていき、一方では上皮層中心部に複数の小さな実質囊胞の形成が起こり、それが融合して大きな囊胞になる。その過程で、歯牙硬組織成分の形成にあずかった上皮の大部分が消失し、硬組織が囊胞腔内に含まれるようになり、一方で囊胞形成に関与しなかった島状の上皮成分が、結合組織中に認められるようになると推定してお

り、囊胞が最初に形成された後に上皮成分が囊胞腔に歯牙硬組織の誘導形成を引き起こすとする枝⁴⁹⁾、Abrams⁴⁹⁾の考えを否定している。自験例1では上皮成分の所見が不明で、歯牙硬組織成分の形成もなく、発生機序については不明であったが、自験例2では二房性の囊胞の右側の石灰化歯原性囊胞より左側の囊胞の複雑性歯牙腫の方が大であり前述の組織像の所見と、その内部は充実性で奇形歯の形成は終了しており、その下方にみられた埋伏犬歯の形成も終了していた。このことより2つの囊胞の形成は、埋伏犬歯、奇形歯の歯胚の形成時期より後であろうと思われる。猪狩²⁵⁾の発生機序の推定を肯定するものと考えられる。この仮説が正しければ、本疾患の最も特徴的な所見の1つであるghost cellはエナメル上皮腫^{4,50)}や歯牙腫^{46,50)}にも存在する場合があるといわれているが、自験例2の左側の複雑性歯牙腫は石灰化歯原性囊胞が二房性に発育しその一方の囊胞内に奇形歯を含んでいたものと考えるのが良いように思われる。

本邦例にはPraetorius⁸⁾の提唱したType 2に相当する報告はないことは前述したが、Type 1の病理組織所見の中で、Type 1B、1Cでは上皮の囊胞内腔側への増殖がみられ、Type 1Aでも結合組織内へ島状、糸状に上皮が侵入していると述べ、Sauk⁵¹⁾も本疾患は上皮の基底細胞による誘導現象によって上皮下に類象牙質が形成されると報告している。本邦のI型の臨床病態でも27%に歯根吸収が生じ、囊胞内石灰化物は77%にみられ、開窓後の肉芽組織の増生²³⁾や再発²⁷⁾症例もみられる。これらのことはPraetorius⁸⁾の提唱するType 1であっても、腫瘍的性格を有するのではないと思われる。

治療法については本邦例のI型24例中(不明2例を除く)4例^{15,18,23,27)}、II型22例中1例¹⁰⁾に開窓術が施行されていたが、開窓術のみでは良好な結果が得られず、全例、後に摘出術が行われていた。千葉¹⁵⁾は、石灰化歯原性囊胞の開窓術後の病理学的検索で壁組織の改造変化の少ない部分では囊胞腔の縮小を期待することはできないと報告しており、佐藤¹⁰⁾は開窓後、開窓部に肉芽様組織が増殖してきたと報告している。したがって本疾患の治療法としては摘出術を行うべきと考える。自験例2は摘出後HAPによる補填を行った。Abe⁵²⁾は歯芽腫および顎骨囊胞15例の術後の骨欠損の補填材としてHAPを応用し良好な結果を得ていることを報告している。本例は摘出後の骨欠損部が大きく、術後に顎骨の変形が予想されたため、HAPを応用して、良好な経過を得ているが、本疾患は腫瘍的性格を有しており、今後十分な経過観察を行わなければならないと考えている。

再発については本邦例では浜田²⁷⁾、栗本³⁰⁾の症例が再発を起こしており、特に栗本の症例は20年後に再発し病巣が広範囲に及び下顎骨区域切除を余儀なくされたものであり、術後の経過は長期に渡り観察しなけ

ればならないものであると考えられた。また田中ら⁵³⁾, Ikemura ら⁵⁴⁾は本疾患の悪性化をきたした症例を報告しているが、現在のところ悪性化に関しては詳細不明である。

結 語

今回、われわれは24歳、女性の3—1|相当部に生じた石灰化歯原性嚢胞と、32歳、男性の2—1|5相当部に複雑性歯牙腫を伴った石灰化歯原性嚢胞の2例を経験したので、文献的考察を加え、その概要を報告した。

本論文の要旨は、第124回日本口腔外科学会関東地方会(昭和57年神奈川)、第32回日本口腔外科学会総会(昭和62年東京)において発表した。

引 用 文 献

- 1) Gorlin, R.J., Pindborg, J.J., et al: The calcifying odontogenic cyst—a possible analogue of the cutaneous calcifying epithelioma of malherbe. *Oral Surg* 15: 1235-1243 1962.
- 2) 枝 重夫, 山村武夫, 他: Calcifying odontogenic cyst の組織化学的研究. *歯科学報* 67: 1003-1011 1967.
- 3) Gold, L.: The keratinizing and odontogenic cyst. *Oral Surg* 16: 1414-1424 1963.
- 4) Pindborg, J.J. and Kramer, I.R.H.: Histological typing of odontogenic tumor, jaw cyst, and allied lesions. WHO, Geneve, 1971, p 28.
- 5) Fejerskov, O. and Krogh, J.: The calcifying ghost cell odontogenic tumor—or the calcifying odontogenic cyst. *J Oral Path* 1: 273-287 1972.
- 6) Freedman, P.D., Lumerman, H., et al.: Calcifying odontogenic cyst. *Oral Surg* 40: 93-106 1975.
- 7) Shear, M.: Cyst of the oral regions. John Wright & Sons, Bristol, 1976, p 59-66.
- 8) Praetorius, F., Hjørting-Hansen, E., et al.: Calcifying odontogenic cyst; range, variations and neoplastic potential. *Acta Odont Scand* 39: 227-240 1981.
- 9) Altini, M. and Farman, A.G.: The calcifying odontogenic cyst. *Oral Surg* 40: 751-759 1975.
- 10) 佐藤 修, 堀越 勝, 他: 腫瘍性増殖を伴った石灰化歯原性嚢胞の1例. *日口外誌* 28: 2101-2109 1982.
- 11) 木下鞆彦, 平井英一, 他: 石灰化歯原性嚢胞の腫瘍の性格について. *日口外誌* 29: 2080-2089 1983.
- 12) 福島祥紘, 石木哲夫: 顎骨嚢胞の新分類の提唱. *日歯医誌* 4: 50-63 1985.
- 13) 中城 正, 堀部 紘: 左上顎犬歯部に多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: 230-233 1970.
- 14) 青葉孝昭, 石田 武, 他: Keratinizing and calcifying odontogenic cyst の1例. *口科誌* 22: 438-441 1973.
- 15) 千葉 清, 工藤啓吾, 他: 年少者顎嚢胞に対する開窓療法の治療効果に関する病理学的検討. *日口外誌* 23: 771-777 1977.
- 16) 名倉英明, 堀越 勝, 他: 石灰化歯原性嚢胞の2例. *日口外誌* 24: 1193-1196 1978.
- 17) 小川裕三, 長谷川 清, 他: Keratinizing and calcifying odontogenic cyst の1症例. *阪大歯誌* 23: 182-186 1978.
- 18) 枝 重夫, 川上敏行, 他: Calcifying odontogenic cyst の1症例. *松本歯学* 4: 38-44 1978.
- 19) 渡辺 治, 斉藤武郎, 他: Calcifying odontogenic cyst の1例. *東北歯大誌* 5: 24-28 1978.
- 20) 若江秀敏, 丸尾 哲, 他: 石灰化歯原性嚢胞の2例. *口科誌* 28: 33-41 1979.
- 21) 伊東隆三, 伊東隆利, 他: Keratinizing and calcifying odontogenic cyst の1例. *日口外誌* 26: 1592-1597 1980.
- 22) 又賀 泉, 土持 真, 他: 石灰化歯原性嚢胞の1例. *日口外誌* 26: 371-377 1980.
- 23) 山崎 正, 都田芳弘, 他: 石灰化歯原性嚢胞の2例. *日口外誌* 27: 1447-1455 1981.
- 24) 藤崎 誠, 堂原義美, 他: 石灰化歯原性嚢胞の2例. *日口外誌* 28: 1270-1276 1982.
- 25) 猪狩俊郎, 越後成志, 他: 石灰化歯原性嚢胞の2症例と文献的考察. *日口外誌* 28: 1239-1246 1982.
- 26) Saito, I., Suzuki, T., et al: Calcifying odontogenic cyst, case reports, variations, and tumorous potential. *J Nihon Univ Sch Dent* 24: 69-78 1982.
- 27) 浜田幸人, 宮園和則, 他: 再発症例を含む石灰化歯原性嚢胞の3例. *日口外誌* 29: 1133-1144 1983.
- 28) 松本康博, 瀬戸皖一, 他: 2例の石灰化歯原性嚢胞の組織化学的検討. *日口外誌* 30: 994-999 1984.
- 29) 見崎 徹, 三宅正彦, 他: 石灰化歯原性嚢胞の3症例. *日口外誌* 32: 572-582 1986.
- 30) 栗本拓哉, 白砂兼光, 他: 再発した石灰化歯原性嚢胞の1例. *口科誌* 35: 278-283 1986.
- 31) 沖津光久, 江場光芳, 他: 両側下顎智歯部に発生した石灰化歯原性嚢胞の1例. *日口外誌* 32: 1460-1464 1986.
- 32) 上田新一, 中島嘉助, 他: 石灰化歯原性嚢胞の1例とその文献的考察. *日口外誌* 32: 2325-2335 1986.

- 33) Eda, S., Kawahara, H., et al: A case of calcifying odontogenic cyst associated with odontoma. Bull Tokyo dent Coll 12: 1-7 1971.
- 34) Eda, S., Yanagisawa, Y., et al: Two cases of calcifying odontogenic cyst associated with odontoma, with an electron-microscopic observation. Bull Tokyo dent Coll 15: 77-90 1974.
- 35) 長谷川 清, 谷岡博昭, 他: Odontoma に Keratinizing and calcifying odontogenic cyst を伴った一症例. 阪大歯誌 19: 154-161 1974.
- 36) 平林みどり, 仁井谷 究, 他: Complex odontoma の病理組織像を伴った石灰化歯原性嚢胞の一症例. 広大歯誌 9: 70-73 1977.
- 37) 境野伸一, 井上温雄, 他: 石灰化歯原性嚢胞の1例. 日口外誌 25: 1134-1136 1979.
- 38) 沼田与志晴, 佐々木正道, 他: Odontoma を合併し, 多量の石灰化物を形成した石灰化歯原性嚢胞の一症例. 岩医大歯誌 4: 125-136 1979.
- 39) 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.
- 40) 高田和雄, 長田正信, 他: 石灰化歯原性嚢胞の1例. 日口外誌 26: 654-664 1980.
- 41) 児玉罔昭, 片山公則, 他: 歯牙腫に合併した石灰化歯原性嚢胞の臨床的および病理組織学的検討. 日口外誌 28: 1698-1709 1982.
- 42) 今井正人, 梅田浩輔, 他: 3) の異所性埋伏および歯牙腫を伴った石灰化歯原性嚢胞の1例. 九州歯会誌 40: 317-322 1986.
- 43) 町野 守, 中田公人, 他: 歯牙腫を伴った石灰化歯原性嚢胞. 日口外誌 33: 777-782 1987.
- 44) 松井澄子, 道脇幸博, 他: 歯牙腫を伴った歯原性嚢胞の2例とその文献的考察. 日口外誌 34: 2223-2230 1988.
- 45) 安藤俊史, 埜口五十雄, 他: エナメル上皮腫増殖および腺様歯原性腫瘍様増殖を伴った石灰化歯原性嚢胞の1例. 日口外誌 31: 1930-1941 1985.
- 46) 中畑範彦, 金子賢司, 他: 本邦における歯牙腫の臨床病理学的検討. 日大口腔科学 2: 178-191 1976.
- 47) Lawson, W., Abaci I.F., et al.: Studies on melanocytes. Oral Surg 42: 375-380 1976.
- 48) 枝 重夫: Calcifying odontogenic cyst その臨床所見と病理組織像. 松本歯学 2: 1-11 1976.
- 49) Abrams, A.B. and Howell, F.V.: The calcifying odontogenic cyst, report of four cases. Oral Surg 25: 594-606 1968.
- 50) Regezi, J.A., Cortney, R.M., et al.: Keratinization in odontogenic tumors. Oral Surg 39: 447-455 1975.
- 51) Sauk, J.J.: Calcifying odontogenic cyst. J. Oral Surg 30: 893-897 1972.
- 52) Abe, H., Manaka, N., et al: Application of sintered synthetic hydroxyapatite particles to maxillofacial bone defects. J Nihon Univ Sch Dent 28: 272-286 1986.
- 53) 田中 博, 滝川富雄, 他: 悪性化を来した石灰化歯原性嚢胞の1例(抄). 日口外誌 21: 664 1975.
- 54) Ikemura, K., Horie, A., et al: Simultaneous occurrence of a calcifying odontogenic cyst and its malignant transformation. Cancer 56: 2861-2864 1985.