1歳8か月の幼児に発生した歯原性角化嚢胞の1例

辻 洋史・小倉孝文・内田吉保
茶野珠里・松矢篤三An odontogenic keratocyst in a one-year-and-eight-month-old infant:
A case report

Hirofumi TSUJI・Takafumi OGURA・Yoshiyasu UCHIDA

Juri CHANO・Tokuzo MATSUYA

Abstract: A rare case of an odontogenic keratocyst extending from the deciduous anterior tooth region to the deciduous molar region of the left mandible in a one-year-and-eight-month-old boy is reported. Extirpation of the cyst was performed under general anesthesia.

Histological examination showed that the lining epithelium of cyst wall was stratified squamous epithelium with parakeratosis, and the connective tissue contained islands of epithelium.

The final diagnosis was an odontogenic keratocyst.

The patient's postoperative course was satisfactory.

Key words: odontogenic keratocyst (歯原性角化嚢胞), infant (幼児)

緒 言

歯原性角化嚢胞は顎骨内に発現する歯原性嚢胞のうち嚢胞上皮に角化がみられるものすべてに対して命名されたものである。性差についてはやや男性に多いとされ、発現年齢については一般に10~30歳代に多く、乳幼児においては非常にまれである。また発生部位については特に下顎智歯部から下顎枝部にかけてが好発部位とされている^{1, 2)}。

今回われわれは、1歳8か月男児の下顎乳前歯部から乳臼歯部にかけて発生した歯原性角化嚢胞の1例を経験したので若干の考察を加えて報告する。

症 例

患 者: 1歳8か月 男児。

主 訴: 左側下顎乳臼歯部腫脹。

家族歴: 特記事項なし。

大阪大学歯学部口腔外科学第一講座

(主任: 松矢篤三教授)

The First Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Osaka University Faculty of Dentistry
(Chief: Prof. Tokuzo Matsuya)

受付日: 平成8年3月21日

写真1 口腔内写真(初診時)

既往歴: 特記事項なし。

現病歴: 平成7年7月頃より「CD」部の腫脹を認めたため、近医歯科を受診し当科を紹介され来院した。

現 症:

全身所見: 体格中等度、栄養状態は良好であった。

口腔外所見: 顔貌は左右やや非対称で、左側オトガイ部から顎下部にかけての腫脹を認めた。

口腔内所見: 「C」は欠損し、「B-E」部の腫脹を認め、弾性軟であった。同部の歯肉は発赤を認めず、正常粘膜色であった(写真1)。

X線所見: 後頭前頭位撮影法では、「A」部から「E」部

写真2 X線写真(初診時)

Aは過剰歯 Bは埋伏歯

写真3 X線写真(術後3か月)

嚢胞腔の縮小が認められた。

写真4 摘出物写真

写真5 病理組織像(H-E染色×100)

にわたる境界明瞭な単房性のX線透過像が観察され、正中過剰歯および[C]の埋伏を認めた(写真2)。

臨床検査所見：一般血液検査、血清生化学検査、尿検査に異常は認められなかった。

臨床診断：下顎嚢胞。

処置および経過：平成7年11月 初診。同部の圧迫により[B]遠心部よりオカラ様の内容物が多量に流出した。[C-E]部の腫脹が増大したことで、翌日の から まで消炎および栄養管理のため入院した。上記診断下、12月 全身麻酔下にて嚢胞摘出術を施行した。

手術所見：[B]部から[E]部にわたる歯槽頂部に切開を加え粘膜骨膜弁を挙上し、嚢胞壁を露出して周囲組織より剥離し、[C]を含め摘出した。嚢胞と周囲組織との癒着はほとんど認めず、一塊として摘出できた。創部は嚢胞が比較的大きかったため開放創とした。術後の経過は良好で7日後に退院し、以後外来にて経過観察中である(写真3)。

摘出物所見：嚢胞は薄桃色を呈し、嚢胞壁は比較的厚く、内容物は帯黄色粥状あるいはオカラ状であった(写真4)。

病理組織学的所見：嚢胞内腔側は約12~14層の重層扁平上皮により裏層され、上皮は上皮脚の形成が著明で、表層は錯角化を示していた(写真5)。上皮下結合組織は比較的厚く、炎症細胞浸潤は全体的に軽度であった。また上皮下結合組織内の一部に歯堤様増殖や

上皮島を認めた。

病理組織学的診断：歯原性角化嚢胞。

考 察

歯原性角化嚢胞の発生頻度は歯原性嚢胞の3.3%³⁾から17.4%⁴⁾を占め、発現年齢は各年齢層に分布するが、一般に10~30歳代に好発するとされている。また発生部位は上顎より下顎に多く、特に下顎智歯部から下顎枝部にかけてが好発部位といわれている^{1, 2)}。自験例は1歳8か月男児の下顎乳前歯部から乳臼歯部にかけて発生した症例であった。乳幼児に発生した顎骨内嚢胞の報告例は計5例^{5~9)}しかなく、その内4例が濾胞性歯嚢胞で、歯原性角化嚢胞はN. Khaliq⁶⁾ら⁷⁾1歳児の摘出報告のみであった(表1)。またその報告も経過報告のみであり病理組織等の詳細な検討は不明であった。

病理組織学的特徴は上皮層は通常菲薄で上皮脚を欠き、角質層は主に錯角化で波状を呈し、基底細胞層はよく発達し円柱状または立方状の細胞からなり、有棘細胞層は非常に薄く空胞変性をきたす場合が多い。また嚢胞壁は薄く、通常炎症を伴わないとされている。自験例においては嚢胞壁は比較的厚く、約12~14層の重層扁平上皮で裏層され、表層は錯角化を呈し、上皮脚の形成は著明であった。また上皮下結合組織内の一部に歯堤様増殖や上皮島を認めた。

X線所見において一般には単房性で境界明瞭なX

表 1 乳幼児に発生した顎骨内嚢胞の報告例

報告者 (報告年)	年 齢	性別	発生部位	内 容 液	診 断 名	処置	経過予後
岸本ら ⁵⁾ (1988)	5 か月	男	<u> D </u>	血性の内容液	濾胞性歯嚢胞	開窓	歯牙萌出
Kusukawa ら ⁶⁾ (1992)	2 歳	男	<u> E </u>	(-)	濾胞性歯嚢胞	開窓	歯牙萌出
N.Khalique ら ⁷⁾ (1992)	1 歳	女	<u> C-E </u>	(-)	歯原性角化嚢胞	摘出	良好
富永ら ⁸⁾ (1994)	3 歳	男	<u> E </u>	(-)	濾胞性歯嚢胞	開窓	歯牙萌出
三木ら ⁹⁾ (1996)	1 歳 9 か月	男	<u> C-E </u>	乳白色の内容液	濾胞性歯嚢胞	開窓	歯牙萌出
自験例 (1996)	1 歳 8 か月	男	<u> A-E </u>	帯黄色粥状あるいは オカラ状内容物	歯原性角化嚢胞	摘出	良好

線透過像を示すことが多いとされ、60～80%が単房性を示し、20～40%が多房性を示していると報告しているものが多い^{2, 10)}。歯牙との関連は一般に歯根吸収を起こすことはまれで、むしろ歯の移動を示すことが多いといわれている。また本嚢胞は埋伏歯を伴うことが多いことが知られている。Brannon²⁾は26.6%、梶山ら¹⁰⁾は40%にそれぞれ埋伏歯を随伴していたと報告している。自験例では後頭前頭位撮影法において A 部から E 部にわたる境界明瞭な単房性の X 線透過像を認め、同部に乳歯の埋伏歯を含んでいた。

嚢胞は比較的大きかったものの、周囲組織との癒着もほとんど認めず、外科的侵襲も少なくできたため、嚢胞は摘出し創部は開放創とした。

再発はもとより顎発育・歯牙萌出に関して経時的に経過観察する必要があると思われる。

結 語

今回われわれは、1 歳 8 か月男児の下顎乳前歯部から乳臼歯部にかけて発生した歯原性角化嚢胞の 1 例を経験したので若干の考察を加え報告した。

引 用 文 献

1) Browne, R.M.: The odontogenic keratocyst. Histological features and their correlation with clinical behaviour. Brit Dent J 131: 249-259 1971.

2) Brannon, R.B.: The odontogenic keratocyst. A Clinicopathologic study of 312 cases. Part I. Clinical features. Oral Surg 42: 54-72 1976.

3) Pindborg, J.J. and Hansen, J.: Studies on odontogenic cyst epithelium. 2. Clinical and roentgenologic aspects of odontogenic keratocysts. Acta Pathol Microbiol Scand 58: 283-294 1963.

4) Radden, B.G. and Reade, P.C.: Odontogenic cysts. A review and a clinicopathological study of 368 odontogenic cysts. Aust Dent J 18: 218-225 1973.

5) 岸本宏史, 原田利夫, 他: 生後 5 か月の乳児に発生した乳臼歯濾胞性歯嚢胞の 1 症例. 日口外誌 34: 1394-1398 1988.

6) Jingo, K., Koji, I., et al.: Dentigerous cyst associated with a deciduous tooth. Oral surg oral med oral pathol 73: 415-418 1992.

7) Khalique, N. and Rippin, J.W.: Odontogenic keratocyst in an infant. Brit Dent J 172: 282-283 1992.

8) 富永恭弘, 村瀬博文, 他: 歯牙腫を伴った乳歯濾胞性歯嚢胞の 1 例. 日口外誌 43: 56-60 1994.

9) 三木貴司, 立川敬子, 他: 乳歯胚より発生した含歯性嚢胞の 1 例. 日口外誌 42: 206-208 1996.

10) 梶山 稔, 黒川英雄, 他: 最近の教室における良性疾患の臨床的観察—歯原性角化嚢胞—. 日口外誌 30: 1920-1928 1984.