歯牙腫を伴い上顎洞に充満した石灰化嚢胞性歯原性腫瘍の1例

橋本和彦¹⁾・矢郷 香¹⁾・新部邦透¹⁾

中川種昭¹⁾・朝波惣一郎²⁾・田中陽一³⁾

A case of a large calcifying cystic odontogenic tumor associated with odontoma

HASHIMOTO Kazuhiko¹⁾・YAGO Kaori¹⁾・NIIBE Kunimichi¹⁾
NAKAGAWA Taneaki¹⁾・ASANAMI Soichiro²⁾・TANAKA Yoichi³⁾

Abstract: Calcifying cystic odontogenic tumors classified as a tumor by the WHO International Classification of Odontogenic Tumors and Allied Lesions in 2005, are rare.

We report the case of a large calcifying cystic odontogenic tumor that arose in the maxillary sinus of a 27-year-old woman in association with odontoma and an impacted tooth.

We examined the size of the lesion by dental cone beam computed tomography. It was the largest lesion to be reported in Japan, measuring 62.2 × 53.5 × 52.6mm. Dental cone beam computed tomography was very useful for accurately measuring the size of this tumor.

Key words: calcifying cystic odontogenic tumor (石灰化嚢胞性歯原性腫瘍), odontoma (歯牙腫), impacted tooth (埋伏歯), dental cone beam computed tomography (歯科用コーンビームCT)

緒 言

石灰化嚢胞性歯原性腫瘍は、石灰化歯原性嚢胞と呼ばれていたが、2005年のWHO分類¹⁾では腫瘍と分類された。病理組織学的には、裏装上皮内にghost cellの出現と、石灰化物の沈着を特徴とする比較的まれな疾患である²⁾。

今回われわれは、歯牙腫と埋伏歯を伴い、上顎に発生した巨大な石灰化嚢胞性歯原性腫瘍の1例を経験した。本症例の大きさを歯科用X線CTで計測した結果、最大径が62.2mmと本邦において最大であった。また、この計測に

用いた画像処理ソフトCB MercuRay[®]は実物大の計測ができ、本疾患のような嚢胞性疾患の大きさの計測に非常に有用であったので、その概要を報告する。

症 例

患 者: 27歳, 女性。

初 診: 2005年8月。

主 訴: 右側頬部の腫脹。

現病歴: 2004年8月頃より、右側顔面の腫脹を自覚したが、疼痛を認めなかったため放置していた。その後、徐々に腫脹の増大を認めたため、2005年8月当科を受診した。

既往歴: 特記事項なし。

家族歴: 特記事項なし。

現 症:

全身所見: 体格中等度、栄養状態良好。

口腔外所見: 右側頬部から鼻翼部周囲に弾性軟、びまん性の腫脹を認め、鼻閉感を訴えていた。皮膚は健常色を示し、眼窩下神経支配領域の知覚異常は認められず、所属リンパ節の腫脹や圧痛は認めなかった(写真1A・B)。

口腔内所見: 上顎右側第1小臼歯から第2大臼歯にかけて、頬側および口蓋側歯肉・歯槽部に弾性軟、びまん性の

¹⁾ 慶應義塾大学医学部歯科・口腔外科学教室
(主任: 中川種昭教授)

²⁾ 国際医療福祉大学三田病院歯科口腔外科
(主任: 朝波惣一郎教授)

³⁾ 東京歯科大学市川総合病院臨床検査科病理
(室長: 田中陽一教授)

¹⁾ Department of Dentistry and Oral Surgery, School of Medicine, Keio University (Chief: Prof. NAKAGAWA Taneaki)

²⁾ Department of Oral Surgery, Mita Hospital, International University of Health and Welfare (Chief: Prof. ASANAMI Soichiro)

³⁾ Clinical Laboratory, Surgical Pathology, Ichikawa General Hospital Tokyo Dental College (Chief: Prof. TANAKA Yoichi)

受付日: 2006年12月20日

採択日: 2007年7月24日

写真1 初診時

- A・B：顔貌写真 右側頬部から鼻翼基部にかけて、びまん性の腫脹を認めた（矢印）。
- C：口腔内写真 頬側および口蓋側歯肉歯槽部にびまん性の腫脹を認めた（矢印）。

写真2 デンタルおよびパノラマX線像

- 左：パノラマX線像において、6-4の歯根は短小であった。
- 右：デンタルX線像において 2 上方に埋伏歯、C-2 間に歯牙腫様の不透過像を認めた。

膨隆がみられたが、自発痛はなく、膨隆による歯列不正は認められなかった（写真1C）。上顎右側側切歯から上顎右側第2大臼歯は、すべて生活歯であり、動揺はなかった。

画像所見：パノラマX線写真では上顎右側第1小臼歯から上顎右側第1大臼歯の歯根は根未完成歯のごとく短小だった。またデンタルX線写真において、上顎右側乳犬歯と

側切歯根端部に歯牙腫様X線不透過像と上顎中切歯根端上方に右側犬歯と思われる埋伏歯が認められた（写真2）。CT像において、右側上顎洞内に充満した嚢胞様透過像を認め、著明な上顎洞前壁の膨隆、骨壁の吸収、菲薄化を伴っていた（写真3）。歯科用X線CT像で、上顎右側乳犬歯根端部に歯牙腫様のX線不透過像と右側梨状孔付近に上顎右側犬歯と思われる埋伏歯を認めた。同CT像での病変の大きさは、矢状断で62.2mm、水平断で53.5mm、冠状断で52.6mmであった（写真4）。

術前臨床診断：上顎骨嚢胞、歯牙腫、埋伏歯。

処置および経過：2005年8月、穿刺吸引にて黄褐色漿液性の内容液を認めた。上顎右側第1小臼歯から第1大臼歯歯肉頬移行部に切開を加えたところ、上顎洞前壁は菲薄化していた。骨ノミにて一部骨を削去し、同部位より生検を行った結果、石灰化嚢胞性歯源性腫瘍であった。術中に歯根端切除術および逆根管充填を行うことが予想されたため、術前に上顎右側切歯から第2大臼歯の抜歯、根管充填を行い、同年10月、全身麻酔下に腫瘍摘出術および埋伏歯抜歯術を施行した。上顎左側中切歯から右側大臼歯部に及ぶ歯肉切開を加えて、粘膜骨膜弁を剥離翻転し上顎洞前壁を明示すると、前壁の骨は菲薄化し、羊皮紙様感を認めた（写真5）。腫瘍と骨の癒着はなく剥離は容易であったが、眼窩下神経が腫瘍と癒着し、圧排され菲薄化していたため切断し、中枢側は頬部軟組織に縫合して保存した。腫瘍を一塊として摘出した後、上顎右側乳犬歯と側切歯根端間にある歯牙腫様硬組織を摘出するとともに、鼻腔側方に位置していた犬歯と思われる埋伏歯を抜去した。歯牙腫様硬組織と埋伏歯は腫瘍に近接していたが、一層の骨組織が

介在し、腫瘍内に含まれていなかった。右側鼻腔側壁の骨は一部欠損していたが、自然孔が閉鎖されていたため、下鼻道に対孔を形成した。摘出後、上顎右側乳犬歯から第2大臼歯の根端の露出を認めたが、軽度であったため歯根端切除術を行わなかった。その後骨表面を一層削除し、創部を一次閉鎖して手術を終了した（写真5）。術後、約1年経

過したが、再発や頬部知覚鈍麻を認めず経過良好である。

摘出標本所見：摘出標本は赤褐色、嚢胞様病変であった。内部に顆粒状の硬固物を含んでいた（写真6）。

病理組織学的所見：嚢胞様病変の病理組織像は、嚢胞壁を形成する線維性結合組織を認め、歯源性上皮島が散見さ

れた。腫瘍内面は重層扁平上皮によって裏装され、裏装上皮基底層には円柱状の上皮がみられた。腔内側には好酸性胞体を有する塊状の ghost cell が認められた（写真7）。

また、歯牙腫の病理組織像は、エナメル質や象牙質は認められるが、明らかな歯の構造を示していなかった（写真8）。

病理組織学的診断：石灰化嚢胞性歯源性腫瘍および複雑性歯牙腫。

考 察

石灰化嚢胞性歯源性腫瘍（cystic calcifying odontogenic tumor）は、1962年 Gorlin ら³⁾ によって calcifying odontogenic cyst と命名されたが、2005年に WHO 分類において腫瘍に分類された比較的まれな疾患である¹⁾。病理組織学的には、歯源性上皮に類似した裏装上皮は立方形あるいは円柱形の細胞で、上皮層に ghost cell の出現とその石灰化をきたし、上皮下に線維性結合組織の存在、歯牙様構造物を伴うこともある²⁾。

発生頻度は、本邦における歯源性腫瘍および嚢胞のうち 0.4～0.8%^{6,7)} とされ、本邦における本疾患の報告例は、われわれが渉猟し得た限りで自験例を含め、過去 21 年間に 54 例あった^{4～16)}。性別は 1：1.1 で、性差はなかった。発症年齢は

写真3 CT像

左：冠状断像 右側上顎洞に充満した嚢胞様透過像を認めた。
右：水平断像 上顎洞骨壁の吸収、菲薄化を認めた。

写真4 歯科用X線CT像

A：埋伏歯（細矢印）と歯牙腫様（太矢印）病変
B：水平断像
C：矢状断像
D：冠状断像

病変の大きさは 62.2 × 53.5 × 52.6mm であった。

写真5 術中写真

上：上顎洞の前壁は菲薄化し、羊皮紙様感を認めた。
下：摘出後。

写真6 摘出標本写真

- A：嚢胞壁は赤褐色であった。
B：内部に顆粒状の硬固物を認めた。
C：埋伏歯と歯牙腫。

写真7 病理組織像（石灰化嚢胞性歯源性腫瘍）

- 上：嚢胞壁を形成する線維性結合組織を認めた。腔内側には ghost cell が認められた（H-E 染色，×10）。
下：嚢胞は重層扁平上皮によって裏装され，歯源性上皮島が散見された（H-E 染色，×50）。

4歳から83歳で，平均23歳であり，若年者に多い傾向がみられた。発生部位は上顎にやや多く，上顎前歯～小白歯部が最も多かった。大きさは20～29mmが多く，自験例は62.2mmで最大であった。腫瘍が巨大化した理由としては，腫瘍の増殖能があげられるが，本疾患の増殖能を検討した報告は少ない¹²⁾。本例に対してKi-67の免疫染色を行ったところ，その陽性率は低かった。よって，本例は腫瘍増殖能よりも，腫瘍が上顎洞内に増大したことと，患者の

写真8 病理組織像（複雑性歯牙腫）

エナメル質や象牙質を認めるが明らかな歯の構造を示していなかった（H-E 染色，強拡大）。

病変に対する意識が低く，病悩期間が長かったことが巨大化した原因ではないかと推察した。

今回，同疾患の大きさを歯科用X線CT（日立メディコテクノロジー製CB MercuRay[®]）にて計測したが，過去に同様の計測法で本腫瘍の測定を行った報告はみられなかった。嚢胞の場合，内容物が流出すると摘出後の正確な大きさの計測が困難である。CB MercuRay[®]はコーンビームCTの原理を応用した歯顎顔面領域に特化したCT装置である。同装置は，CB MercuRay[®]用画像処理ソフト（CB Works[®]）を用いることにより3次元の観察が容易となる。また画像のVoxel sizeが1辺0.1～0.3mm（撮影モードによって異なる）であり，計測誤差は0.1～0.3mmの範囲内で収まると考えられ，ほぼ実物大の計測^{17～19)}ができる。

本疾患はしばしば埋伏歯や歯牙腫を伴う。われわれが渉猟した報告では，本疾患の59.3%が歯牙腫を併発していた。複雑性歯牙腫（71.9%）が，集合性歯牙腫（15.6%）に比較し，圧倒的に多かった。本症例も複雑性歯牙腫を併

発していた。また、55.6 %に埋伏歯を伴い、歯牙腫と埋伏歯の両方を伴った症例は40.7 %だったことから、本疾患と歯牙腫および埋伏歯の関連性が推測されている^{4, 6, 10)}。歯牙腫を伴った石灰化嚢胞性歯原性腫瘍の発生機序については、腫瘍が生じてそれが嚢胞化し、その嚢胞壁の組織誘導によって歯牙腫が形成される組織誘導説⁴⁾、歯牙腫の発生途上で上皮の嚢胞化が起こることによる歯牙腫の嚢胞化説⁵⁾の二つに大別される。しかし、自験例においては歯牙腫と埋伏歯は腫瘍に近接していたが、一層の骨組織が介在し、腫瘍内に含まれていなかったため、腫瘍と歯牙腫および埋伏歯の関連性はないと思われた。

術式は摘出が83.3 %と最も多く、開窓術(11.1 %)や、顎骨切除(5.6 %)の選択例は少なかった。再発率は7.5 %で、開窓術を施行した症例が多かった。本疾患における開窓術の再発率は50 % (6例中3例)、摘出術の再発率は2.2 % (45例中1例)と、開窓術は再発しやすいことが示唆された。本症例は、開窓術の再発率が高いこと、本疾患が腫瘍であることより摘出術を施行した。

本疾患では、再発例に悪性化した症例^{20, 21)}の報告があり、今後厳重な経過観察が必要であると思われた。

結 語

今回われわれは、歯牙腫を伴い上顎洞に充満した石灰化嚢胞性歯原性腫瘍を経験したので、文献的考察を加え報告した。

引 用 文 献

- 1) Barnes, L., Eveson, J.W., et al.: Pathology and Genetics of Head and Neck Tumours. International Agency for Research on Cancer (IARC) 2003, p313-314.
- 2) 石川達也, 内田安信, 他監修: 口腔外科・病理診断アトラス. 第1版, 医歯薬出版, 東京, 1992, 108-109頁.
- 3) Gorlin, R.J., Pindborg, J.J., et al.: The calcifying odontogenic cyst-a possible analogue of the cutaneous calcifying epithelioma of malherbe. Oral Surg Oral Med

Oral Patho 15: 1235-1243 1962.

- 4) 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.
- 5) 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.
- 6) 冲津光久, 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: 1461-1464 1986.
- 7) 阿部廣幸, 藤井俊治, 他: 石灰化歯原性嚢胞の2例. 日口外誌 35: 1014-1024 1989.
- 8) 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.
- 9) 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.
- 10) 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.
- 11) 松井澄子, 道脇幸博, 他: 歯牙腫を伴った石灰化歯原性嚢胞の2例とその文献的考察. 日口外誌 34: 2223-2230 1988.
- 12) 金村成智, 奥田正人, 他: 上顎に発生した石灰化歯原性嚢胞の1例. 口科誌 39: 46-51 1990.
- 13) 藤澤健司, 中西宏彰, 他: 石灰化歯原性嚢胞の3例. 口科誌 40: 900-911 1991.
- 14) 濱尾 綾, 重松久夫, 他: 下顎骨に発生した石灰化歯原性嚢胞の1症例. 明海大歯誌 26: 286-293 1997.
- 15) 中山周子, 佐々木 朗, 他: 歯牙腫を伴った石灰化歯原性嚢胞の1例. 日口外誌 45: 709-711 1999.
- 16) 内田堅一郎, 早津良和, 他: 13歳児にみられた石灰化歯原性嚢胞の1例. 小児口腔外科 10: 102-106 2000.
- 17) 馬場理香: コーンビーム CT (システム概要). 総合臨床 51: 2678-2686 2002.
- 18) 瀬尾邦彦, 山本一雄, 他: 歯顎顔面用コーンビーム X線 CT装置 CB MercuRay の開発. MEDIX 28: 40-45 2002.
- 19) 荒木和之, 船橋逸雄, 他: 歯顎顔面用コーンビーム X線 CT装置 (CB MercuRay) の使用経験. MEDIX 38: 4-7 2003.
- 20) 新国俊彦, 滝川富雄, 他: 上顎に生じた石灰化歯原性嚢胞の1例 (抄). 口科誌 22: 678 1973.
- 21) 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