症例報告

右側下顎小白歯部にみられた成人の歯肉嚢胞の1例

森 紀美江¹⁾ 横 溝 一 郎^{1,2)}
山 城 正 司²⁾ 岡 田 憲 彦³⁾

抄録：成人の歯肉嚢胞は歯源性上皮の遺残に由来すると考えられ、成人の歯肉に認められる比較的稀な小嚢胞である。症例は42歳、女性、4|3間の歯肉に圧痛を伴って短期間に増大した腫瘍を認めたため局所麻酔下にて切除術を行った。病理学的診断は成人の歯肉嚢胞だった。通常、成人の歯肉嚢胞には圧痛はみられず、本症例の圧痛の原因については辺縁性歯周炎の影響が考えられた。術後1年9か月において再発はなく経過は良好である。本邦報告6例の文献的考察と共に報告した。

キーワード：成人の歯肉嚢胞、歯源性嚢胞、上皮性嚢胞

緒 言

歯肉嚢胞は歯肉に生じる小さな嚢胞で、幼児にみられるものと成人にみられるものとがあり、その頻度はShear¹⁾の報告によれば顎骨領域の嚢胞の0.5%とされ比較的まれなものである。今回われわれは短期間に圧痛を伴い増大した、成人の歯肉嚢胞の1例を経験したので報告する。

症 例

患者：42歳、女性。

初診：2008年6月。

主訴：右側下顎小白歯部歯肉の腫脹。

既往歴：子宮筋腫、卵巣嚢腫。

家族歴：父に脳梗塞。

現病歴：2008年6月初旬、4|3間の歯肉の腫脹に気づき当科を受診した。

現症：

全身所見：全身状態は良好。

口腔内所見：4|3間の頬側付着歯肉の正常粘膜上皮下に直径6×5mm大の硬い半球状の腫瘍がみられた（写真1）。口腔内の清掃状態は不良で、歯の動揺はみられないものの、両側上下顎犬歯～大臼歯部の歯周ポケットは3mm、左側上顎第1大臼歯部歯肉に出血がみられるなど、軽度の辺縁性歯周炎の状態であった。

X線所見：歯科用X線写真で5|3歯頸部の歯槽骨縁に軽度の吸収がみられたが、腫瘍相当部の明らかな骨吸収

はみられなかった（写真2）。

臨床診断：右側下顎歯肉非上皮性良性腫瘍。

処置および経過：初診時は口腔内診査と歯科用X線撮影を行い帰宅させたところ、腫瘍は初診3日目に縮小し、初診8日目に圧痛を伴い再び増大した。初診10日目の再診時の腫瘍は初診時に比べ5×3mmとやや縮小していたが（写真3）、圧痛を訴えたため早期の確定診断が必要と判断し、切除生検を予定した。同年7月上旬、局所麻酔下にて腫瘍の周囲に約1～2mmの正常粘膜と骨膜を含めて切除した。骨面からの腫瘍の剥離は容易であり、切除時に内容液の流出はみられなかった。4|には、う触や歯の変色はなく、歯科用X線写真においても根尖病巣など異常陰影がみられないことから、生活歯と判断して手術をすすめた。4|近心～頬側歯頸部の歯槽骨縁部には骨吸収がみられたが、腫瘍相当部には明らかな骨吸収はみられなかった（写真4）。4|近心にみられた炎症性肉芽組織を十分に除去し、骨バーにて歯槽骨縁部を一層削除した。4|に動揺がみられたものの軽度であったため歯は保存した。止血を確認し、サージカルパック®で創部を覆い、手術を終了した。術後2週目にサージカルパック®を除去したところ、下顎骨上に肉芽組織の形成がみられ、1か月後には上皮化した。術後4か月時の歯肉粘膜に異常はみられず（写真5）、術後1年9か月経過した現在において再発はみられない。

病理組織学的所見：歯肉粘膜上皮下結合組織中に嚢胞性病変を認め、内腔には角化物などは存在しない液体成分が貯留していた。被覆口腔粘膜上皮は角化重層扁平上皮であり、上皮脚の軽度の伸長がみられた（写真6A）。嚢胞内腔側には4～5層の細胞からなる重層扁平上皮が存在し、2層程度の細胞からなる菲薄な上皮部やブランク状に肥厚した上皮部も認められた（写真6B）。

病理組織診断：成人の歯肉嚢胞。

¹⁾ 有隣病院歯科口腔外科（主任：横溝一郎医長）

²⁾ 東京医科歯科大学大学院医歯学総合研究科顎顔面外科分野（主任：山城正司科長）

³⁾ 東京医科歯科大学大学院医歯学総合研究科

口腔病態診断科学分野（主任：岡田憲彦准教授）

〔受付：2012年3月5日、受理：2012年6月9日〕

写真 1 初診時口腔内写真

4) 3) 間頰側歯肉の健常粘膜下に、硬い6×5 mm大の腫瘍を認めた。

写真 2 歯科用X線写真

5) 3) 歯頸部の歯槽骨縁部の骨吸収はみられたが、腫瘍相当部の明らかな骨吸収はみられなかった。(白矢印：腫瘍相当部)

写真 3 初診後10日の口腔内写真

腫瘍は初診時に比べ5×3 mmとやや縮小し、圧痛を訴えていた。

写真 4 術中写真

4) 近心～頰側歯頸部の歯槽骨縁部に骨吸収がみられたが、腫瘍相当部に明らかな骨吸収はみられなかった。

写真 5 術後4か月口腔内写真

免疫組織学的所見：

サイトケラチン 19 (CK19)；口腔粘膜上皮の基底層および嚢胞裏装上皮全層に陽性所見がみられ (写真 7A)，歯原性上皮からの組織発生が示唆された。

細胞増殖マーカー (Ki-67)；口腔粘膜上皮の基底層にわずかな陽性所見がみられたが、嚢胞裏装上皮に陽性像はみられず (写真 7B)，腫瘍性疾患は否定された。

考 察

歯肉嚢胞は歯肉に生じる小さな嚢胞で、幼児にみられるものと成人にみられるものがある。成人の歯肉嚢胞は永久歯の萌出が完了した成人の歯肉に認められる小嚢胞で、遊離歯肉または付着歯肉のいずれにも生じうる²⁾。成人の歯肉嚢胞の好発年齢は 40～60 歳代、好発部位は下顎犬歯～小白歯間の頰側歯肉、嚢胞の大きさは 1 cm 以下が多く、波動性の膨隆を呈することが多いとされる²⁻⁸⁾。本症例は

写真 6 病理組織像 (HE 染色)

A : 歯肉粘膜上皮下に液体成分を貯留した嚢胞を認め、内腔に角化物などはみられなかった (×100)。
B : 一部に重層扁平上皮によるブランク様の上皮の肥厚を認めた (×100)。

写真 7

A : CK19染色：口腔粘膜上皮基底層および嚢胞上皮に広範に陽性像がみられた (濃染部) (×100)。
B : Ki-67染色：嚢胞上皮の陽性像はみられなかった (×200)。

42歳の女性で「4」「3」間の頬側歯肉に発症し、発生年齢や発生部位については典型例であったが、波動は触知せず、硬い腫瘤として確認されたため、初診時の臨床診断はエプーリスや歯肉に生じた非上皮性良性腫瘍なども考えられた。

成人の歯肉嚢胞の由来は、石川²⁾は異所性腺組織、歯堤、エナメル器または歯根膜の上皮島の遺残、増殖した上皮脚における変性、外傷性着床などを示す報告もみられるが、歯堤の遺残に由来する嚢胞が多いと報告しており、Kramerら⁶⁾は歯堤の遺残や隣接歯からの接合上皮が関与すると報告している。幼児の歯肉嚢胞の由来は歯堤の遺残であり、Serres腺とよばれる歯胚を形成したあとで、生理的に退縮する歯堤がしばしば小さな上皮巣として残存し、上皮巣から小嚢胞が発生すると石川²⁾は説明している。本症例の嚢胞の発生由来は必ずしも明確ではなかったが、Stout⁹⁾らの報告で、成人の歯肉組織266例の検索では、90例にepithelial restsとしてdental laminaの遺残が存在し、1例で真の嚢胞発生がみられたことから、本症例も歯

堤の遺残に由来する可能性が考えられた。

成人の歯肉嚢胞の臨床報告例は、海外においては2009年にKelseyら⁸⁾が自験例から1936年のCahn¹⁰⁾の報告例に遡り、44の文献に記載された155症例の性別、発生部位、年齢、人種、X線所見、骨所見について検討している。本邦での報告例はわれわれが渉猟しえた限りでは、腫瘍に続発して2次的に生じた歯肉嚢胞¹¹⁾、他病変を伴った歯肉嚢胞¹²⁾、上顎に発症した歯肉嚢胞の2例^{13,14)}、下顎に生じた歯肉嚢胞の2例^{15,16)}の6症例のみであった(表1)。本嚢胞の報告例が少ない理由として岡部ら¹⁵⁾は、①歯肉膿瘍、歯周膿瘍に類似していること、②無症状で患者からの申告がないこと、③硬い場合には外骨症と誤診されること、④感染した場合には臨床的には歯肉膿瘍と区別しにくいこと、⑤人種的な差による発生頻度の低さなどを指摘している。本症例も圧痛が出現する以前は病変が小さく、疼痛などの症状がみられなかったために治療を希望せず、本嚢胞に顕著な臨床症状が示されないために治療対象になりにくいことが最も考えられた。

表 1 成人の歯肉嚢胞の本邦報告例

報告者	報告年	性別	年齢 (歳)	発症部位	大きさ	X 線所見	嚢胞相当部の骨吸収 (処置時)	処置
松本ら ¹⁶⁾	1990	女性	38	右側下顎前歯	2-3mm	歯槽骨の異常なし	浅い陥凹あり	摘出
岡部ら ¹⁵⁾	1999	男性	23	右側下顎犬歯	3mm	水平吸収	表在性の骨吸収あり	摘出
渡貫ら ¹⁴⁾	2001	女性	62	左側上顎前歯	7mm	水平吸収	骨吸収なし	摘出
薄井ら ¹³⁾	2001	男性	28	右側上顎前歯	6-9mm	骨吸収像なし	骨吸収なし	摘出
大木ら ¹²⁾	2002	男性	78	左上顎前歯～犬歯	50mm	骨吸収像なし	記載なし	開創
Hata ら ¹¹⁾	2009	女性	49	左側下顎前歯	3mm	骨吸収像なし	記載なし	摘出
本報	2011	女性	42	右側下顎犬歯～小白歯	6×5mm	歯槽骨吸収あり	骨吸収なし	摘出

本嚢胞の圧痛は一般には示されていないが^{1-4,8)}、岡部ら¹⁵⁾は圧痛がみられた症例を報告しているものの原因については検討されておらず、疾患との因果関係は不明である。本症例の初診時の腫瘍の大きさは6×5mmで、圧痛はみられず、口腔内清掃状態は不良であり、毎食後のブラッシングを指示した。初診3日目に腫瘍は縮小したが、初診8日目に圧痛を伴って再び腫大したため、初診10日目に再診された。この日の腫瘍の大きさは5×3mmと初診時に比べやや縮小し、圧痛は初診8日目とほぼ同程度だった。口腔内の清掃状態は改善されていた。病理所見においても歯肉粘膜上皮と嚢胞の間に炎症性細胞浸潤がみられた(写真6AB)ことから、辺縁性歯周炎の影響、ブラッシングによる歯肉の刺激の可能性や、嚢胞の増大時に放出される炎症性物質の可能性も否定できないと思われた。しかし、これまでの圧痛に対する報告が少ないことから、今後の症例を重ねた検討が必要と考えられた。

歯肉嚢胞の鑑別疾患としては側方性歯周嚢胞、角化嚢胞性歯原性腫瘍などが挙げられる。歯肉嚢胞と側方性歯周嚢胞は発生源が同一であっても、骨内か骨外病変かの相違により鑑別できるとしている報告が一般的であり¹⁷⁾、X線所見が重要である。歯肉嚢胞のX線所見では骨の変化がないか、表在性の骨吸収を示唆するかすかな円形の陰影が存在する^{1,6,7)}。側方性歯周嚢胞は、生活歯の側方あるいは歯根と歯根の間の顎骨内に発生する嚢胞であるため、X線所見では歯根の側方に円形や類円形の境界明瞭な透過像がみられる^{8,18)}。本症例は歯科用X線写真において「5」-「3」歯頸部の歯槽骨縁の吸収がみられたものの、嚢胞相当部の明らかな骨吸収はみられず、骨外病変である歯肉嚢胞と診断できる所見であった。術中所見においても歯科用X線所見と同様、「4」歯頸部の歯槽骨縁の吸収はみられたものの嚢胞相当部の骨吸収はわずかであり、歯肉嚢胞と診断できる所見であった。

成人の歯肉嚢胞の組織学的所見は、嚢胞腔内面は1-2層の扁平ないし立方形細胞のきわめて薄い上皮から、上皮突起のない幾分厚めの重層扁平上皮までさまざまであり、

一部の嚢胞では側方性歯周嚢胞にみられる紡錘形細胞や水様明細胞からなる上皮性プラークに類似した所見が記載されている^{5,6,19)}。本症例の嚢胞内面には紡錘形や水様明細胞からなる上皮性プラークはみられず、重層扁平上皮によるプラークのみが認められ(写真6B)、組織学的にも側方性歯周嚢胞とは異なっていた。角化嚢胞性歯原性腫瘍との鑑別では、特徴である裏層扁平上皮の形態、角化物を含む内容物などは本嚢胞にはみられず、明らかに異なっていた。

今回、本症例を診断するにあたり、免疫組織学的検査のCK19染色および細胞増殖マーカーのKi-67染色を行った。CK19は正常口腔粘膜上皮の基底層、歯原性腫瘍実質および嚢胞の裏層上皮に発現し、歯原性上皮のマーカーになり得るとされている²⁰⁾が、本症例も口腔粘膜上皮基底層および嚢胞上皮に染色性がみられ、腫瘍組織の増殖活性を検出するKi-67染色では嚢胞上皮に陽性所見がなく、免疫組織学的所見から歯堤の遺残に由来する歯原性嚢胞と診断された。

歯肉嚢胞の治療法は嚢胞の切除であり、切除に伴い欠損した歯肉粘膜や吸収骨に対し、歯肉包帯を用いる報告¹³⁾、フリーズドライ骨の補填やコラーゲン膜を使用する報告⁸⁾などがみられる。本症例では歯肉・骨膜と共に嚢胞を切除し、歯槽骨の一層切除を行った後、歯肉包帯(サージカルバック[®])を使用して二期治癒とした。その結果、術後1か月後には創部は上皮化し、術後1年9か月においても再発はみられず経過良好である。

結 語

今回「4」「3」部歯肉に発生した成人の歯肉嚢胞で経過中に縮小後、短期間に再び腫大した症例について、本邦文献例の考察と共に報告した。

謝辞 病理組織写真撮影の御協力をいただいた、昭和大学歯学部口腔病理学教室の河野葉子准教授に感謝いたします。

文 献

- 1) Shear M and Seward GR: Cyst of the Oral regions (3rd Ed). Wright, Oxford, 1992, pp. 51-60.
 - 2) 石川 梧朗監修：口腔病理学Ⅱ. 改訂版, 永末書店, 京都, 1982, 381-383 頁.
 - 3) 塩田重利監修：口腔顎顔面外科治療学. 永末書店, 京都, 1996, 173 頁.
 - 4) 道 健一, 久野吉雄, 野間弘康編集：カラーアトラス口腔外科の臨床. 医歯薬出版, 東京, 1985, 124 頁.
 - 5) 石川 梧朗編：口腔病理カラーアトラス. 医歯薬出版. 第1版, 東京, 1983, 136 頁.
 - 6) Kramer IRH, Pindborg JJ and Shear M: Histological typing of odontogenic tumors (2nd Ed). Springer, New York, 1992, pp. 37-38.
 - 7) 日本口腔病理学会訳：WHO 歯源性腫瘍の組織学的分類. 医歯薬出版, 東京, 1996, 34 頁.
 - 8) Kelsey WP, Kalmar JR and Tatakis DN: Gingival cyst of the adult: Regenerative therapy of associated root exposure. A case report and literature review. J Periodontol 80 : 2073-2081, 2009.
 - 9) Stout FW, Lunin M, and Caloni PEB: A study of epithelial remnants in the maxilla. Abstracts of the 46th General Meeting of the International Association for Dental Research. Abstracts P142-143 1968.
 - 10) Cahn LR: The histopathology of some common oral mucous membrane lesions. Cosmos 78 : 51-57, 1936.
 - 11) Hata T, Irei I, Hosoda M, et al: Secondarily-developed gingival cyst of the adult: A case report. 川崎医学会誌, 35 : 333-335, 2009.
 - 12) 大木宏介, 山口晃史, 熊本裕行, 他：黄色肉芽腫性病変を伴った成人の歯肉嚢胞の1例. 日口外誌 48 : 471-474, 2002.
 - 13) 薄井智美, 土屋玲子, 山本 剛, 他：上顎に発生した成人の歯肉嚢胞の1例. 昭歯誌 21 : 292-294, 2001.
 - 14) 渡貫 圭, 青木紀昭, 武川寛樹, 他：上顎歯肉に認められた成人の歯肉嚢胞の1例. 日口外誌 47 : 61-63, 2001.
 - 15) 岡部孝一, 坂下英明, 宮田 勝, 他：下顎に発生した成人の歯肉嚢胞の1例. 日口外誌 45 : 536-538, 1999.
 - 16) 松本康博, 瀬戸皖一：成人の歯肉嚢胞の1例. 日口診誌 3 : 158-161, 1990.
 - 17) Wysocki GP, Brannon RB, Colonel L, et al: Histogenesis of the lateral periodontal cyst and the gingival cyst of the adult. OSOMOP 50 : 327-334, 1980.
 - 18) 塩田重利監修：口腔顎顔面外科治療学. 永末書店, 京都, 1996, 328-329 頁.
 - 19) Regezi JA, Sciubba JJ, and Jordan RCK: Oral Pathology: Clinical Pathologic Correlations (5th Ed). Saunders Elsevier, St. Louis, 2008, pp. 240-242.
 - 20) 桑原広明, 伊藤範明, 佐藤 勝, 他：口腔の各種上皮組織と上皮性病変のサイトケラチンの発現性. 岐歯学誌 36 : 73-84, 2009.
- 別冊請求先：森紀美江 〒156-0055 東京都世田谷区船橋 2-15-38
有隣病院歯科口腔外科

A Case of Gingival Cyst of Adults in the Right Mandibular Premolar Region

Kimie MORI¹⁾, Ichiro YOKOMIZO^{1,2)},
Masashi YAMASHIRO²⁾ and Norihiko OKADA³⁾

¹⁾ *Yurin Hospital, Oral Surgery*

(Chief: Dr. Ichiro YOKOMIZO)

²⁾ *Maxillofacial Surgery, Graduate School, Tokyo Medical and Dental University*

(Chief: Dr. Masashi YAMASHIRO)

³⁾ *Diagnostic Oral Pathology, Graduate School, Tokyo Medical and Dental University*

(Chief: Associate Prof. Norihiko OKADA)

J. Jpn. Oral Medicine, 18 : 14 ~ 19, 2012

Abstract : Gingival cyst of adults is a small cyst arising from odontogenic epithelial remnants involving the gingiva. This cyst is very rare. The patient was a 42-year-old woman, who had compliant of a mass lesion at the gingiva between the right canine and the 1st premolar region of the mandible. The mass enlarged in a short period with tenderness, so we excised the mass under local anesthesia. Histopathological diagnosis was gingival cyst of adults case. The clinical report on this cyst accompanied by tenderness is uncommon. The cause of tenderness in this case may have been due to marginal periodontitis. There is no recurrence at the time of 1 year 9 months after the surgery. Our case and the review of 6 cases in Japanese literatures were discussed.

Key words : Gingival cyst of adults, Odontogenic cyst, epithelial cyst

Reprint requests to Kimie MORI, Yurin Hospital, Oral Surgery, 2-15-38, Funabashi, Setagaya-ku, Tokyo, 156-0055, Japan.

[Received March 5, 2012 : Accepted June 9, 2012]