臨床報告

単純性骨嚢胞を伴い上下顎に多発した骨性異形成症の1例

木村俊介^{*,**} 足立守安^{*,***} 小熊哲史^{*,**}
片山良子^{*} 阿部厚^{*}

A Case of Multiple Osseous Dysplasia with Simple Bone Cysts in the Jaw

SHUNSUKE KIMURA^{*,**}, MORIYASU ADACHI^{*,***}, TETSUSHI OGUMA^{*,**},
YOSHIKO KATAYAMA^{*} AND ATSUSHI ABE^{*}

Abstract : We report a case of multiple osseous dysplasia with simple bone cysts in the jaw bones of both sides of the maxillary molar part, right maxillary front tooth part and part from the right lower second molar to the left lower second molar part, with long-term follow-up. The patient was a 61-year-old woman. Although she had no subjective symptoms, the patient underwent surgery because the simple bone cysts tended to enlarge during the 18-year follow-up period. The surgical treatment consisted of cystic fluid evacuation, filling the cavity with blood, and primary closure. After repeated surgery, the simple bone cysts of the patient eventually filled with normal bone tissue. We therefore consider this treatment to be effective.

Key words : osseous dysplasia (骨性異形成症), simple bone cyst (単純性骨嚢胞), long term observation (長期経過観察)

[Received Jun. 16, 2014]

緒 言

骨性異形成症は歯根尖部に生じる線維骨性病変で、骨あるいはセメント質様硬組織を含む線維性組織により顎骨が置換される疾患である。2005年のWHOの組織分類において骨性異形成症は根尖性骨性異形成症、限局性骨性異形成症、開花状骨性異形成症と家族性巨大型セメント質腫に臨床的に分類された。今回われわれは、X線所見にて嚢胞様透過像を伴う多発性の骨性異形成症に対し、嚢胞の内溶液を排出し、血液を満たし一次閉鎖を行う手術を行い、長期経過観察を行った1例を経験したので、若干の考察を加え報告する。

症 例

患者: 61歳, 女性。

初診: 2003年4月。

主訴: 両側下顎大白歯部の腫脹。

既往歴: 虫垂炎, 痔核。

家族歴: 特記事項なし。

現病歴: 自覚症状はなかったが、1995年近歯科医院で歯科治療中に撮影されたX線写真で、左側下顎第二小臼歯、第一大臼歯部の顎骨内透過像が認められた。しかし症状を認めなかったため経過観察され、2003年に紹介により来院した。

現症:

全身所見: 体格中等度, 栄養状態良好であった。

口腔外所見: 顔貌は対称であり、顔面の腫脹や知覚異常などは認めなかった。

口腔内所見: 歯や歯肉に明らかな異常所見はみられず、上下顎臼歯部相当の歯肉頬移行部付近に無痛性で骨様硬の膨隆を触知した。

初診時パノラマX線およびCT所見: 両側上顎大白歯部、

* 名古屋掖済会病院歯科口腔外科 (主任: 阿部 厚部長)

** 愛知学院大学歯学部顎口腔外科学講座 (主任: 栗田賢一教授)

*** 静岡県立総合病院歯科口腔外科 (主任: 足立守安部長)

* *Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Nagoya Ekisaikai Hospital* (Chief: Dr. ATSUSHI ABE) 4-66 Shonencho, Nakagawa-ku, Nagoya 454-8502, Japan.

** *Department of Oral and Maxillofacial Surgery, School of Dentistry, Aichi-gakuin University* (Chief: Prof. KENICHI KURITA)

*** *Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Shizuoka General Hospital* (Chief: Dr. MORIYASU ADACHI)

写真 1 初診時パノラマ X 線写真
上顎両側大臼歯部、右側前歯部および両側下顎臼歯部全体に顎骨内に多発する嚢胞様透過像を認めた。

写真 3 初診時上顎 CT 写真
上顎病変中心部の水平断 CT 像。上顎前歯部および両側臼歯部に顎骨内に多発する嚢胞様透過像を認めた。

写真 2 初診時下顎 CT 写真
下顎病変中心部の水平断面 CT 像。両側下顎前歯～臼歯部に多房性の嚢胞様透過像や歯根に接する不透過像を認めた。また、左側下顎角部にも不透過像を認めた。

写真 4 1995 年に紹介医にて撮影されたパノラマ X 線写真
両側下顎臼歯部、上顎左側大臼歯部に歯根と接する不透過像を認めた。

右側上顎前歯部および右側下顎第二大臼歯から左側下顎第二大臼歯部の下顎骨内に多発する嚢胞様透過像を認め、顎骨の膨隆をきたしていた。両側下顎臼歯部と左側上顎大臼歯部では歯根に接する不透過像を認め、嚢胞様透過像に接していた。また、左側下顎角付近に 14 × 12mm 大の境界明瞭な不透過像を認めた (写真 1, 2, 3)。

初診時骨シンチグラム所見：両側下顎臼歯部に軽度の集積を認めた。

臨床診断：開花型セメント質異形成症 (開花状骨性異形成症)。

処置および経過：紹介元で撮影した 1995 年のパノラマ X 線写真 (写真 4) では両側下顎臼歯部、左側上顎大臼歯部に歯根と接する不透過像を認め、右側下顎小臼歯部およ

び大臼歯部顎骨内には嚢胞様透過像を認めた。1995 年と初診時のパノラマ X 線写真を比較したところ、8 年間で不透過像を示した病変部は軽度増大していたが、嚢胞様透過像は著明に拡大していた。すなわち嚢胞様透過像は垂直的には下顎では歯槽頂から下顎管付近まで至り、近遠的には両側下顎大臼歯から前歯部までに拡大していた。また右側上顎前歯部と臼歯部にも X 線透過像を示す病変が出現していた。

このため、上下顎の嚢胞様透過像を示す病変に対し 2003 年 6 月、全身麻酔下で掻爬術を行った。両側下顎臼歯部と左側上顎大臼歯部では、頬側より同部にアプローチしたが、明らかな嚢胞壁は存在せず、淡黄色の内溶液を認め単純性骨嚢胞様であった。また病変内に、露出した歯根と連続した硬化性病変を認めたため、一部削除し病理組織

写真 5 2005 年 7 月の CT 写真
下顎病変中心部の水平断面 CT 像。頬側単純性骨嚢胞部は新生骨に満たされ、周囲の膨隆の縮小を認めた。

写真 7 2008 年 1 月の CT 写真
下顎病変中心部の水平断面 CT 像。下顎舌側の骨空洞部は縮小していた。

写真 6 2006 年 3 月の CT 写真
下顎病変中心部の水平断面 CT 像。下顎舌側の単純性骨嚢胞部を中心に、再び X 線透過像が増大傾向を示してきた。

写真 8 2013 年 2 月のパノラマ X 線写真
初診時と比較し、特に下顎前歯部および臼歯部において X 線透過像が減少し、歯根と連続する不透過像の著明な増大は認めなかった。

学的検査を行った。病変による骨欠損部に骨新生を図るため周囲骨を穿孔して出血を促したが、病変は多房性を示したため両側下顎大白歯部の舌側では、頬側からのアプローチでは一部で骨穿孔を行うことができなかった。術創は開放創とすると硬化性病変部が露出し、感染の危険性が高くなると考えたことから、一次閉創とした。

2005 年 7 月の CT 所見では根尖と連続する硬化性病変はやや増大したものの、両側下顎臼歯部と左側上顎大白歯部では、手術前の嚢胞様透過像に相当する部位は新生骨に満たされ、顎骨膨隆の減少がみられた（写真 5）。しかし 2006 年 3 月の CT 所見では前回手術では処置を行わなかった両側下顎臼歯部舌側および右側上顎臼歯部の嚢胞様透過像は増大傾向を認めた（写真 6）。このため 2006 年 4 月同部の単純性骨嚢胞部に対し初回と同様の手術を行った。

2008 年 1 月の CT 所見では下顎舌側の骨空洞部は縮小がみられた（写真 7）。以降現在まで明らかな骨空洞や硬化性病変の拡大は認めていない（写真 8）。また 2009 年 7 月頃より辺縁性歯周組織炎の進行に伴い、下顎両側大白歯部で硬化性病変の一部が口腔内に露出をきたしているが、動揺や腫脹、疼痛などの症状はみられない。

生化学検査結果：初回手術時、単純性骨嚢胞様病変部から採取した淡黄色の内溶液を生化学検査に提出した（表 1）。本人の血清生化学検査値と比較したところアルカリフォスファターゼ値の上昇が著明であった。

病理組織学的検査：初回手術時、下顎右側第一大臼歯歯根と連続する硬組織病変の病理組織学的検査を行った。線維性結合組織中に線維骨様硬組織の形成を認めたが、開花性骨性異形成症でみられる無細胞性硬組織ではなく、有細

表 1 血清と囊胞内溶液の生化学的検査結果
血清と比較し、囊胞内溶液のアルカリフォスファターゼ値の上昇が著明であった。

	採血値	囊胞内溶液
TP (g/dl)	8.0	7.2
アルブミン (g/dl)	4.5	3.6
Na (mEq/l)	140	142
K (mEq/l)	3.6	3.8
Cl (mEq/l)	101	107
Ca (mEq/l)	8.7	8.2
アルカリフォスファターゼ (IU/l)	261	4621
アミラーゼ (IU/l)	42	30
GPT (IU/l)	41	16
GOT (IU/l)	39	7

写真 9 硬組織病変の病理組織像 (H-E 染色×100)
線維性結合組織中に線維骨様硬組織の形成を認めた。

胞性硬組織であった (写真 9)。

病理組織学的診断：限局性セメント質・骨異形成症 (限局性骨性異形成症)

考 察

骨性異形成症は中年の女性に好発するとされ、2005 年の WHO 分類において、下顎前歯根尖部に限局性に生じる根尖性骨性異形成症、臼歯部に限局性に生じる限局性骨性異形成症、下顎に両側性あるいは上下顎全域に生じる開花状骨性異形成症、常染色体優性遺伝性疾患である家族性巨大型セメント質腫の 4 種に分類されている¹⁾。以前は顎骨の線維性異形成症およびセメント・骨異形成症として根尖性セメント質異形成症、限局性セメント質・骨異形成症、開花型セメント質異形成症、巨大型セメント質腫、家族性セメント質腫に分類されていた。

今回、家族歴に問題がなく、上下顎骨に病変が多発しているため、開花状骨性異形成症と臨床診断した。しかし病理組織学的検査において硬組織病変は、開花状骨性異形成症でみられる無細胞性硬組織ではなく、有細胞性硬組織であったこと。また経過中に著明な増大が見られなかったことなどを考慮し、多発した限局性骨性異形成症と確定診断した。

本疾患の多くは徐々に増大し無症状に経過するが、感染により疼痛、腫脹、排膿を来することがある。治療方針として通常、無症状の場合は外科的処置を行わず、硬化性病変への感染に注意しつつ経過観察を行うことが多い。田中ら²⁾は外科的処置を行う理由として硬化性病変への感染が最も多く、他に局所の腫脹や膨隆感、抜歯や根管治療後の局所の違和感などによるものを挙げている。また硬化性病変への感染の原因は、辺縁性菌周炎の波及が最も多く、病変部の抜歯、歯髄感染の波及、歯槽突起の骨吸収による硬化性病変の口腔内への露出の順であったと報告している。

骨性異形成症はしばしば単純性骨嚢胞を伴うが³⁻⁷⁾、本症例では単純性骨嚢胞が比較的大きく多房性で、顎骨膨隆をきたしていた。骨性異形成症に単純性骨嚢胞を伴う理由に関し、Melrose ら⁴⁾は骨性異形成症によって形成された硬組織により組織液の流れが閉塞され、嚢胞様変化をきたすと考察している。

本症例における単純性骨嚢胞部の淡黄色内溶液は、生化学的検査にてアルカリフォスファターゼの値が血清と比べて非常に高かった。単純性骨嚢胞の内溶液も本症例と同様にアルカリフォスファターゼ値が高いとの報告が散見される^{8,9)}。アルカリフォスファターゼは骨の破壊新生の指標ともされ¹⁰⁾、本症例における内溶液の性状からも骨代謝の亢進や硬化性病変の増大との関連を疑わせる。笠原ら¹¹⁾らは長期観察中の骨性異形成症病変部の一部に、嚢胞化をきたした症例があったと報告している。本症例においても 1995 年のパノラマ X 線写真では明らかな嚢胞様透過像は認めず、その後嚢胞様透過像が多発しており、本疾患では定期的な長期観察の必要があると考えられる。

単純性骨嚢胞を伴った開花状骨性異形成症の外科的処置に関して安河内ら¹²⁾は、経過観察のみ行った症例において単純性骨嚢胞内で不透過性病変が増大したことを報告している。一方、単純性骨嚢胞部に血液を満たして一次閉鎖した症例では空洞部は正常骨組織に置換し、硬化性病変の発育増大を防止できたと考察している。また外科的処置を行った方が病変の感染の危険性を下げ、もし感染しても摘出による大きな顎骨欠損を防止できる可能性があるとして述べている。本症例でも単純性骨嚢胞部の搔術を行った上で一次閉鎖し、同部が、新生骨で満たされたと考えられる。

本疾患では経年的な辺縁性菌周炎に伴い口腔内に硬化性病変が露出し、感染等による病変摘出の必要が生じる可能性もある。本症例でも初診より約 10 年、少なくとも初発

より18年特に症状なく経過しているが、今後は硬化性病変部への感染の可能性が考えられ、定期的な口腔清掃管理や指導、経過観察が重要と考える。

結 語

今回初診より約10年、少なくとも初発より18年経過した単純性骨嚢胞を伴う多発性の骨性異形成症の症例を経験した。単純性骨嚢胞部の搔把術を行った上で一次閉鎖する術式は比較的低侵襲であり、単純性骨嚢胞部を正常骨組織に置換し、硬化性病変の発育増大を防止するのに有効な治療法であったと考える。

謝辞ならびに利益相反 本論文について利益相反はありません。

引用文献

- 1) 武田泰典, 高田 隆: WHOによる菌原性腫瘍の新たな組織分類, 病理と臨床, 23: 867-873, 2005.
- 2) 田中健雄, 佐藤 徹, 野上喜史, 他: セメント質骨異形成症の臨床的, 病理学的検討, 口科誌, 54: 247-252, 2005.
- 3) Melrose,R.J., Abrams,A.M., Nedleman,G., et al.: Multiple osseous dysplasia with concomitant simple bone cyst. J South Calif Dent Assoc, 39: 386-389, 1971.
- 4) Melrose,R.J., Abrams,A.M., Mills,B.G., et al.: Florid osseous dysplasia: a clinical-pathological study of thirty-four cases. Oral Surg Oral Med Oral Pathol, 41: 62-82, 1976.
- 5) Musella,A.E. and Slater,L.J.: Familial florid osseous dysplasia: A case report. J Oral Maxillofac Surg, 47: 636-640, 1989.
- 6) 小幡和郎, 武田泰典, 鈴木克典, 他: 根尖性セメント質異形成症と共存した単純性骨嚢胞の1例(抄), 日口外誌, 47: 849, 2001.
- 7) 成田真人, 大平貴士, 重政理香, 他: 長期経過観察をし得た骨性異形成症の1例, 歯科学報, 111: 163-169, 2011.
- 8) 金井正雄, 松浦正朗, 松本康博, 他: 単純性骨嚢胞の2例, 鶴見歯学, 4: 29-35, 1978.
- 9) 上松隆司, 氣賀昌彦: 最近の症例から(8)単純性骨嚢胞, 松本歯学, 15: 349-350, 1989.
- 10) 石橋大海: ALPとアイソザイム, 西崎 統, 村上純子, 他 編著: 検査値の読み方・考え方, 第1版, 総合医学社, 東京, pp.86-88, 2008.
- 11) 笠原和恵, 山本栄治, 松沢祐介, 他: 顎骨に生じた骨性異形成症の臨床的検討, 北海道歯誌, 28: 76-82, 2007.
- 12) 安河内康史, 窪田泰孝, 中村誠司, 他: 単純性骨嚢胞を伴ったFlorid cemento-osseous dysplasiaに対する外科的治療法の予後(抄), 日口外誌, 49: 435-436, 2000.