

複数の埋伏過剰歯を伴った石灰化嚢胞性歯原性腫瘍の1例

齋藤 大嗣, 青村 知幸, 古城慎太郎, 香木 千尋,
羽田 朋弘, 水城 春美, 三上 俊成*, 武田 泰典*

岩手医科大学口腔外科学講座顎口腔外科学分野

(主任: 水城 春美 教授)

*岩手医科大学口腔病原因病態制御学講座口腔病理学分野

(主任: 武田 泰典 教授)

(受付: 2010年12月3日)

(受理: 2011年3月1日)

石灰化嚢胞性歯原性腫瘍(以下CCOT)は病理組織学的に, 裏装上皮内にghost cellの出現とそれらの石灰化を特徴とし, また, 歯牙腫をはじめとする歯原性腫瘍を合併することがある。さらに, CCOT症例の半数前後は埋伏歯を伴うことが知られているが, 複数の埋伏過剰歯を伴うことは稀である。今回われわれは, 歯牙腫と8本の埋伏過剰歯を伴ったCCOTの1例を経験したので, その概要を報告する。症例は40歳代の男性で, 近歯科医院を受診した際にX線検査にて右側上顎洞部に嚢胞様透過像が認められ, 精査・加療目的に当科紹介となった。初診時, 上顎右側側切歯から右側第一大臼歯部の頬側歯肉に弾性軟の腫脹を認め, 波動が触知された。CTにて, 右側上顎洞および鼻腔の下部に境界明瞭で単胞性の嚢胞様病変を認め, 病変内部に大小の石灰化像および歯牙様石灰化像を認めた。全身麻酔下にて摘出術および対孔形成術を施行した。摘出組織ではCCOTとともに歯牙腫ならびに8本の埋伏歯を認めた。病理組織学的に上皮層内にghost cellとその石灰化がみられた。

文献的に本症例のように複数の埋伏過剰歯を伴ったCCOTはきわめてまれであった。

結 言

石灰化嚢胞性歯原性腫瘍(以下CCOT)は,
以前は石灰化歯原性嚢胞と呼ばれていたが,

2005年のWHO分類¹⁾で名称が変更された。
CCOTは病理組織学的に, 裏装上皮内にghost
cellの出現とそれらの石灰化を特徴とし, また
歯牙腫をはじめとする歯原性腫瘍を合併するこ

A case of calcifying cystic odontogenic tumor with multiple impacted, supernumerary teeth.
Daishi SAITOH, Tomoyuki AOMURA, Shintaro KOGI, Chihiro KONOKI, Tomohiro HADA, Harumi MIZUKI,
Toshinari MIKAMI, Yasunori TAKEDA
Division of Maxillofacial Surgery, Department of Oral and Maxillofacial Surgery, School of Dentistry,
Iwate Medical University
(Chief: Prof. Harumi MIZUKI)
Division of Oral Pathology, Department of Pathogenesis and Control of Oral Diseases, School of Dentistry,
Iwate Medical University
(Chief: Prof. Yasunori TAKEDA)
1-3-27, Chuo-dori, Morioka, Iwate, 020-8505, Japan

とがある²⁾。さらに, CCOT 症例の半数前後は埋伏歯を伴うことが知られているが, 複数の埋伏過剰歯を伴うことはきわめてまれであり, 本邦では4例の記載をみるにすぎない³⁾。

今回われわれは, 歯牙腫と8本の埋伏過剰歯を伴ったCCOTの1例を経験したので, その概要を報告する。

症 例

患 者: 40歳代の男性。

初 診: 2009年夏。

主 訴: 近歯科医院を受診した際に上顎部の病変を指摘された。

現病歴: 1週前に近歯科医院を受診した際, エックス線検査にて右側上顎洞部に嚢胞様透過像を指摘されたため, 同医院からの紹介により当科を受診した。初診時まで自覚症状はなかった。

既往歴: 20年前から統合失調症にて加療中。

家族歴: 特記すべき口腔領域の疾患はない。

現 症:

全身所見: 体格中等度, 栄養状態良好。

口腔外所見: 右側鼻翼側方の頬部に腫脹を認めるも, 同部位の圧痛はなかった。皮膚は健常色を示し, 眼窩下神経支配領域の知覚異常はみられず, 所属リンパ節の腫脹や圧痛は認めなかった(図1A)。

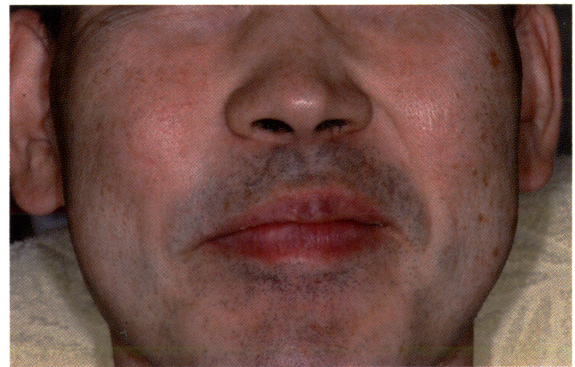
口腔内所見: 上顎右側側切歯部から右側第一大臼歯部にかけて頬側および歯槽部に弾性軟, びまん性の膨隆がみられたが, 自発痛はなく, 膨隆による歯列不正は認められなかった(図1B)。上顎右側側切歯から右側第一小臼歯および上顎右側第一大臼歯はすべて生活歯であった。なお, 上顎右側第二小臼歯は欠損していたが, この歯の治療歴は明らかでなかった。

画像所見: パノラマエックス線写真では上顎右側中切歯部から右側第二大臼歯部にかけて, 多胞性の透過像がみられ, 透過像内には石灰化様不透過像を認めた(写真2A)。CT像で右側上顎骨内に, 多胞性で境界明瞭な嚢胞様低濃度病変を認めた。病変の頬舌および内外側方向への膨隆により骨が菲薄化し, 上顎洞底および鼻腔

底は左側に偏位していた。病変内には石灰化様高濃度を呈した塊が散在しており, 埋伏歯と思われる複数の歯に類似した構造物も認められた(図2B, C)。

術前臨床診断: 上顎骨嚢胞, 歯牙腫, 埋伏過剰歯。

処置および経過: 試験穿刺にて茶褐色漿液性の内溶液が吸引され, その後臨床症状は軽減した。5週後に生検を行った結果, 病理診断は歯牙腫(複雑型)であった。術中に歯根端切除術を行うことが予想されたため, 術前に上顎右側犬歯と第一小臼歯の根管充填を行い, 全身麻酔下に摘出術および対孔形成術を施行した。上顎左側中切歯部から右側第一大臼歯部におよ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



A



B

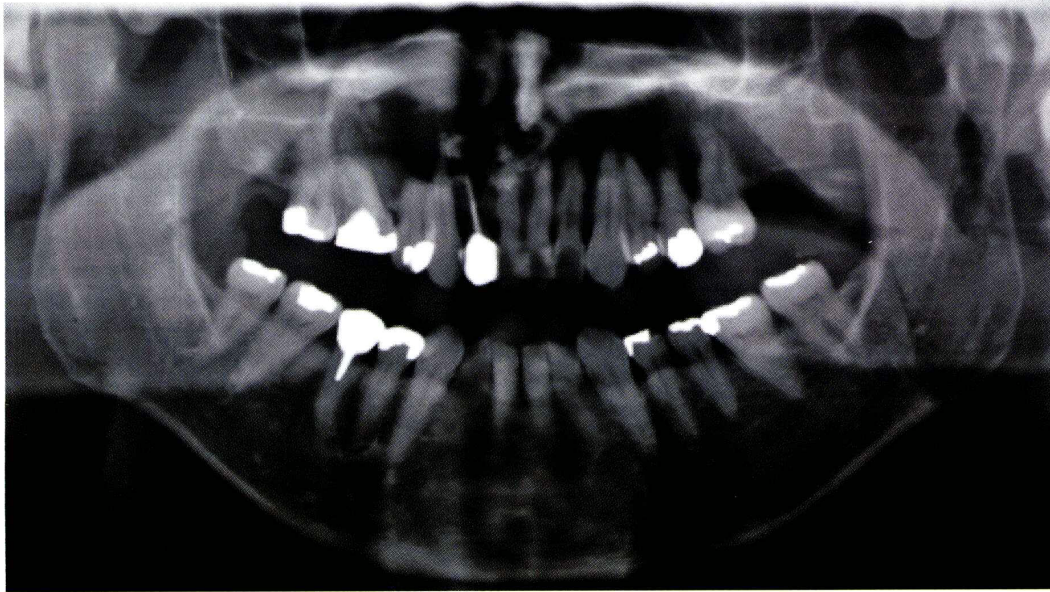
図1 初診時の顔貌および口腔内所見

A: 右側頬部の腫脹。

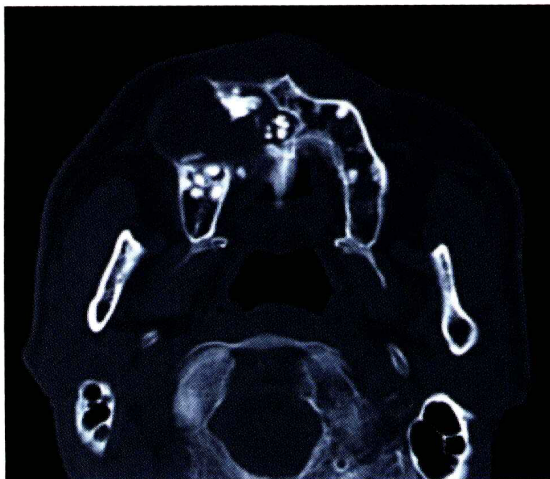
B: 上顎右側側切歯部から上顎右側第一大臼歯部にわたる頬側および歯槽部歯肉のびまん性の膨隆。

明示した。腫瘍、歯に類似した硬組織および埋伏歯を摘出した後、摘出創腔と上顎洞を一空洞化し、下鼻道に対孔を形成して手術を終了した。上顎右側犬歯および第一小白歯の根尖の露出を認めたが、軽度であったため歯根端切除術は行わなかった。

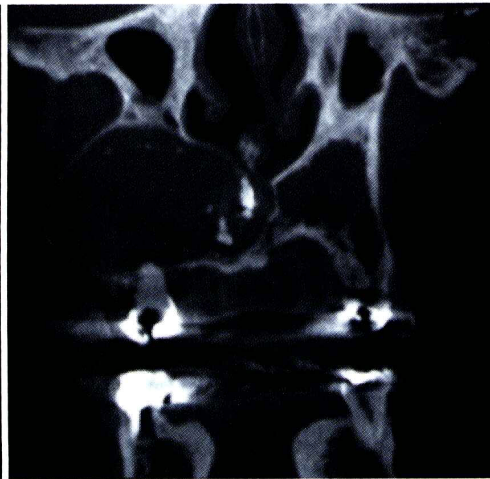
摘出組織所見：摘出組織は赤褐色の嚢胞様組織、定型小白歯の形態を呈する埋伏歯5本と矮小型を呈する埋伏歯3本および歯牙腫様組織であった（図3A,B）。定型ならびに矮小型を呈する埋伏歯は嚢胞様組織の外側に散在してみられ、これらが一塊となって皮膜に包まれているような



A



B



C

図2 パノラマエックス線およびCT像

A：上顎右側中切歯部から右側第二大臼歯部にわたる多胞性透過像と透過像内の石灰化様不透過像。

B：右側上顎骨内の多胞性、境界明瞭な嚢胞様低濃度病変。

C：鼻腔底は左側に偏位。

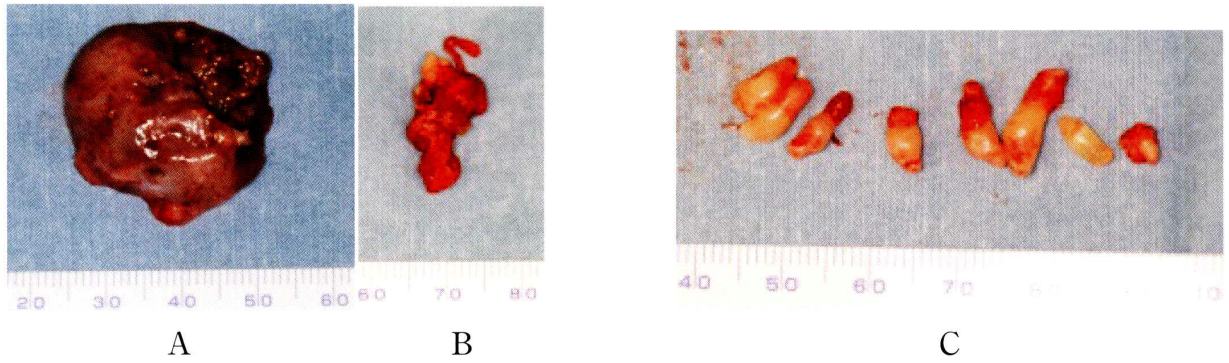


図3 摘出組織の肉眼所見

A: 赤褐色の嚢胞様組織.

B: 歯牙腫様組織.

C: 摘出組織周辺に散在していた定型小白歯の形態を呈する埋伏歯と矮小型を呈する埋伏歯.

所見は認められなかった.

病理組織学的所見: エナメル器に類する上皮層によって嚢胞状腔が形成され, 上皮層と結合組織層との間に象牙質とエナメル質の形成がみられた (図 4A). また, 上皮層内には ghost cell の集塊とその石灰化を認めた (図 4B). 歯牙腫

様組織では歯に類似した硬組織 (象牙質およびエナメル質) の不規則な配列を認め, 歯牙腫 (複雑型) の所見であった (図 4C). なお, 埋伏歯は組織標本とはしなかった.

確定診断: 石灰化嚢胞性歯原性腫瘍, 歯牙腫 (複雑型), および 8 本の埋伏過剰歯.

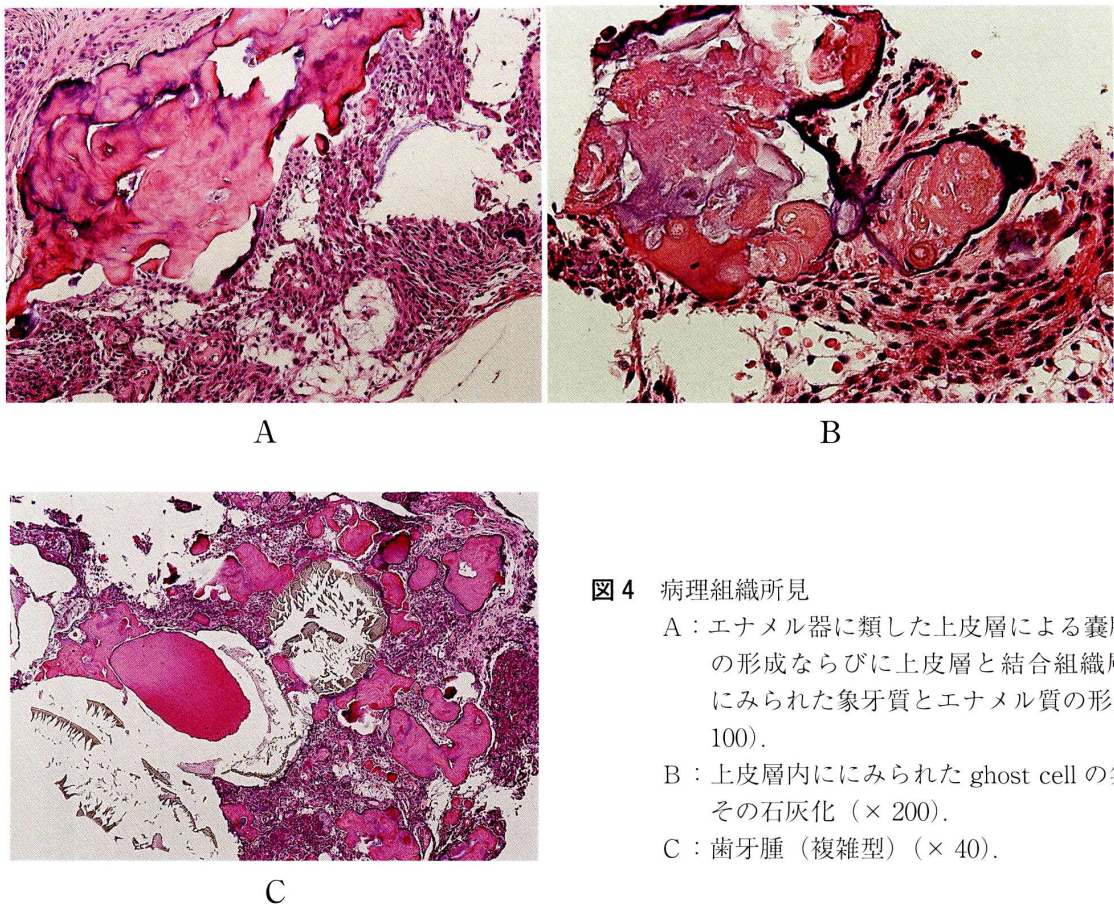


図4 病理組織所見

A: エナメル器に類した上皮層による嚢胞状腔の形成ならびに上皮層と結合組織層の間にみられた象牙質とエナメル質の形成 ($\times 100$).

B: 上皮層内にみられた ghost cell の集塊とその石灰化 ($\times 200$).

C: 歯牙腫 (複雑型) ($\times 40$).

考 察

石灰化嚢胞性歯原性腫瘍は1962年にGorlinらによって石灰化歯原性嚢胞 (calcifying odontogenic cyst) と命名された。当初は埋伏歯を伴うことの多い嚢胞性病変とみなされたが、上皮層がエナメル上皮腫と同様の所見を呈すること、かつ臨床的にもエナメル上皮腫に類する病態を呈することから、「嚢胞」という名称のまま、腫瘍性病変として扱われてきた。2005年のWHO分類において腫瘍に名称が変更され、今日に至っている¹⁾。CCOTの多くは顎骨内部に発生するが、まれに歯肉部にも生じる。上下顎別では下顎よりも上顎に好発し、前歯部から大臼歯部に発生する傾向にある。

CCOTは病理組織学的にエナメル器に類似した上皮からなり、多くは嚢胞を形成するとともに、上皮層にはghost cellの出現とその石灰化をきたす。また、上皮下と線維性結合組織との間には上皮-間葉相互作用がみられ、これによって歯牙腫の形成を伴うこともある²⁾。

CCOTは嚢胞性または充実性に増殖し、エックス線写真像では透過像を呈するとともに、埋伏歯を伴い、石灰化像や歯牙腫様不透過像を示すことから、石灰化上皮性歯原性腫瘍、腺腫様歯原性腫瘍、エナメル上皮腫、角化嚢胞性歯原性腫瘍、含歯性嚢胞との鑑別が臨床的に必要であるが、組織学的にはエナメル器に類する歯原性上皮、ghost cellやその石灰化といった特徴的な所見を呈するため、他の腫瘍や嚢胞との鑑別が可能である。

CCOTと埋伏歯との関係では、Freedmanら⁴⁾は70例中13例(18.6%)、Fejerskovら⁵⁾は52例中10例(19.2%)に埋伏歯を伴っていたと報告している。本邦では上田ら³⁾が81例中39例(48.1%)と報告しており、諸外国に比較して埋伏歯を伴うことが多いようである。さらに、埋伏歯を歯種別にみると、上田ら³⁾は上顎犬歯15例、下顎犬歯8例、上顎過剰歯4例、上顎側切歯4例、下顎第二大臼歯4例、その他の順であったとしている。

CCOTにみられる埋伏歯はほとんどが1歯であるが、ときに複数の埋伏歯を伴うことがあり、文献的には2本の埋伏歯がみられた症例が6例報告されており、そのうち4例の埋伏歯が過剰歯である。本例では定型過剰歯5本と矮小型過剰歯を3本伴っていた。このように多くの埋伏過剰歯を伴った症例の報告は今までになかった。なお、過剰歯と判断した根拠は、定型ならびに矮小型を呈する埋伏歯は嚢胞様組織の外側に散在してみられ、これらが一塊となって皮膜に包まれているような所見は認められなかったためである。したがって、歯牙腫(集合型)は否定された。

本論文の要旨は第36回日本口腔外科学会北日本地方会(仙台市)において発表した。

引用文献

- 1) 白砂兼光, 古郷幹彦: 口腔外科学. 第3版, 医歯薬出版, 東京, 216-217 ページ, 2010.
- 2) 石川達也, 内田安信, 稗田豊治, 平沼謙二, 監修: 口腔外科・病理診断アトラス. 第1版, 医歯薬出版, 東京, 108-109 ページ, 1992.
- 3) 上田新一, 中島嘉助, 田辺均, 上野泰之, 伊田正道, 福田てる代, 篠崎文彦: 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.
- 4) Feedaman, P. D., Lumerman, H., Gee, J. K.: Calcifying odontogenic cyst. Oral Surg. 40: 93-106, 1975.
- 5) Fejerskov, O. and Krogh, J.: The calcifying ghost cell odontogenic tumor - or the calcifying odontogenic cyst. J. Oral Path. 1: 273-283, 1972.
- 6) 猪狩俊郎, 越後成志, 松田耕策, 阿部洋子, 手島貞一: 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.
- 7) 児玉罔昭, 片山公則, 田縁 昭: 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.
- 8) 松井澄子, 道脇幸博, 斎藤健一, 松井義郎, 吉田広, 道 健一, 中村雄一, 山崎 亨: 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.
- 9) Barnes, L., Eveson, J.W., Reichert, P., Sidransky, D. (ed.): Pathology and Genetics of Head and Neck tumours. IARC Press, pp313-314, 2005.
- 10) 橋本和彦, 矢郷 香, 新部邦透, 中川種昭, 朝波惣一郎, 田中陽一: 歯牙腫を伴い上顎洞に充滿した石灰化嚢胞性歯原性腫瘍の1例. 日口外誌, 53: 613-617, 2007.

A case of calcifying cystic odontogenic tumor with multiple impacted, supernumerary teeth

Daishi SAITOH, Tomoyuki AOMURA, Shintaro KOGI, Chihiro KONOKI,
Tomohiro HADA, Harumi MIZUKI, Toshinari MIKAMI*, Yasunori TAKEDA*

Division of Maxillofacial Surgery, Department of Oral and Maxillofacial Surgery,
School of Dentistry, Iwate Medical University
(Chief : Prof. Harumi MIZUKI)

*Division of Oral Pathology, Department of Pathogenesis and Control of Oral Diseases,
School of Dentistry, Iwate Medical University
(Chief : Prof. Yasunori TAKEDA)

[Received : December 3, 2010 : Accepted : March 1, 2011]

Abstract : It is well known that an associated impacted tooth is seen in about half of cases with calcifying cystic odontogenic tumor (CCOT), but CCOT with two or more impacted teeth is extremely rare. This paper reports a case of CCOT with 8 impacted, supernumerary teeth. The patient is an adult male with swelling of right maxilla. X-ray examination showed a cystic lesion with calcification and with numerous impacted, supernumerary teeth. A clinical diagnosis of CCOT with odontoma was made. And surgical excised of the lesion was performed. Macroscopically, surgically excised specimen showed eight supernumerary teeth with formal and/or unformal shape were involved in the lesion, but these teeth were not enclosed by fibrous capsule. The lesion was diagnosed finally as CCOT with odontoma and with eight impacted, supernumerary teeth by pathological examination.

The review of the literature yielded CCOT with more than 3 associated supernumerary has not been documental.

Key Words : calcifying cystic odontogenic tumor, impacted supernumerary teeth, ghost cell.