

(症 例)

## 下顎に発生した腺性歯原性嚢胞の1例

竹内 優子 谷尾 俊輔 大竹 史浩

鳥取赤十字病院 歯科口腔外科

Key words : 腺性歯原性嚢胞, 歯原性嚢胞

## はじめに

腺性歯原性嚢胞は1988年にGardnerらにより提唱され、1992年にWHO歯原性腫瘍分類に初めて収載された<sup>1)</sup>。2017年のWHO分類でも含歯性嚢胞、歯原性角化嚢胞と同じ歯原性発育性嚢胞に分類されている<sup>2)</sup>。発生率は全歯原性嚢胞のうち0.012%~1.3%と稀な嚢胞で<sup>3)</sup>、画像所見や臨床症状だけでは診断が困難なため、確定診断には病理組織学的検査が必須である。また、局所侵襲性や術後再発率が高く<sup>4, 5)</sup>、悪性転化の報告もあるため<sup>6)</sup>、術後は長期にわたる経過観察が必要とされている。

今回われわれは、下顎に発生した腺性歯原性嚢胞の1例を経験したので、その概要について報告する。

## 症 例

患 者：60歳代、男性

主 訴：右側下顎臼歯部の違和感

既往歴：特記事項なし

現病歴：当科初診の1週間前に、近在歯科にて偶発的に右側下顎臼歯部のX線透過像を指摘され、精査加療目的に当科紹介となった。

家族歴：特記事項なし

現 症：

口腔外所見：体格中等度。栄養状態良好で特記所見なし

口腔内所見：右側下顎臼歯部は欠損していたが、歯肉に特記所見を認めなかった。

画像所見：パノラマX線画像にて、右側下顎臼歯部に境界明瞭な単房性類円形骨透過像を認めた(図1)。単純CT画像にて、右側下顎臼歯部に内部に石灰化物を伴う骨透過像を認めた(図2A, B)。

臨床診断：右側下顎骨腫瘍

処置及び経過：患者希望にて術前生検は行わず、2019年8月全身麻酔下に右側下顎骨腫瘍摘出術を施行した。腫瘍は骨面から容易に剥離でき、平滑な表面粘膜に被覆されており弾性軟な性状を呈していた(図3)。腫瘍は充実性で内容物は茶褐色泥状を呈していたが、内部に明らかな石灰化物を認めなかった(図4)。術後は6か月に1回パノラマX線写真による経過観察を行っており、現在2年経過したが再発なく経過良好である。

病理組織学的所見：病変は重層扁平上皮で裏装されており、内部には石灰化物の混在を認めた。部位的に肥厚した上皮を認め、上皮の渦巻き状配列や上皮内に小嚢胞構造、腺上皮の混在を伴っていた。上皮下の結合組織内には小型の上皮島を散見した(図5A-D)。

病理組織学的診断：腺性歯原性嚢胞

## 考 察

腺性歯原性嚢胞は主に顎骨に発生し、その多くが下顎骨に認められる嚢胞である。本邦においてわれわれが検索し得た範囲での報告は自験例を含めて27例だった<sup>7-31)</sup>(表1)。腺性歯原性嚢胞は無痛性に発育し、X線画像では単房性、多房性どちらも認められる。臨床的特徴のある所見はなく、歯原性角化嚢胞などの他の嚢胞との鑑別



図1 初診時パノラマX線写真  
右側下顎骨臼歯部に境界明瞭なX線透過像を認めた。

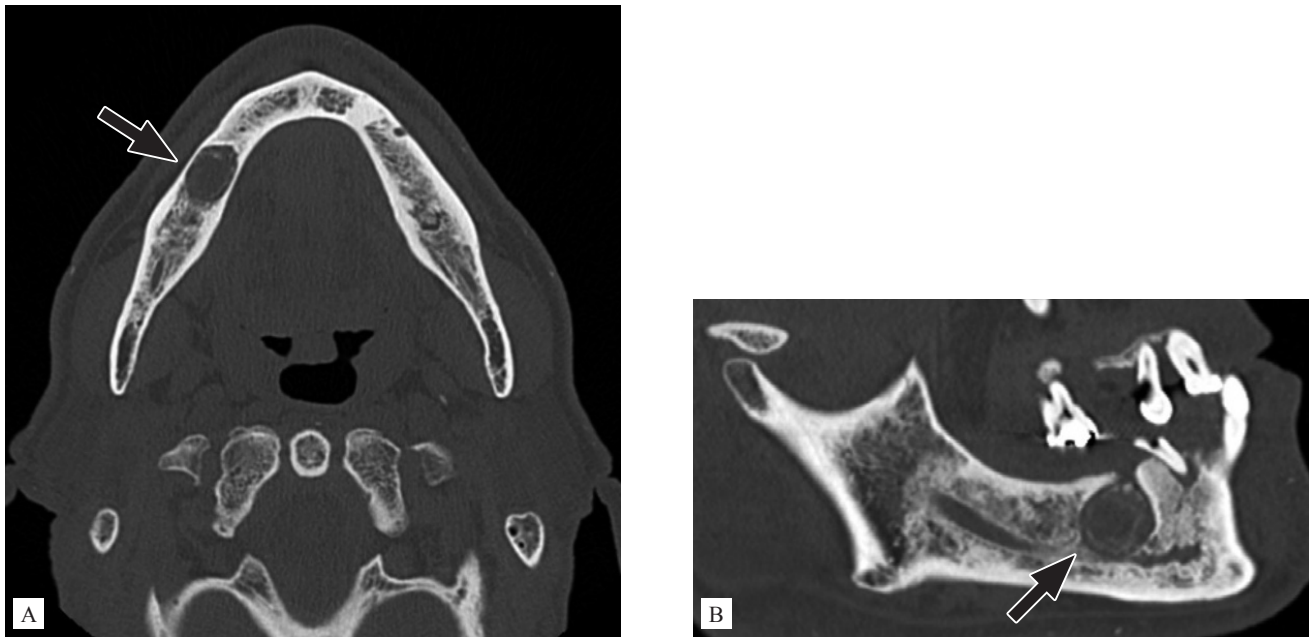


図2 初診時単純CT画像 (A: 水平断 B: 矢状断)  
内部に石灰化物を伴う骨透過像を認めた。

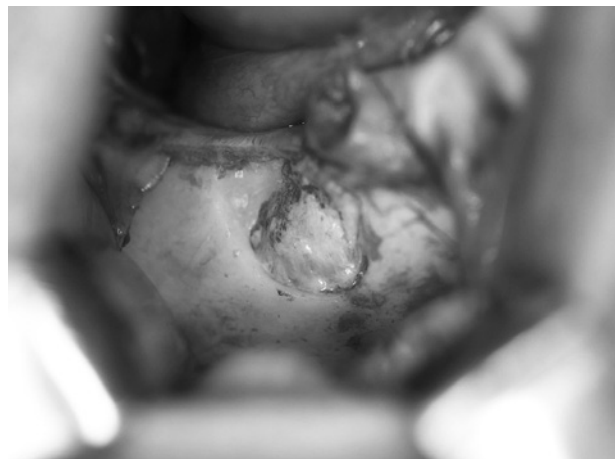


図3 手術時所見  
粘膜骨膜弁を剥離し、皮質骨を開削し病変を明示した。

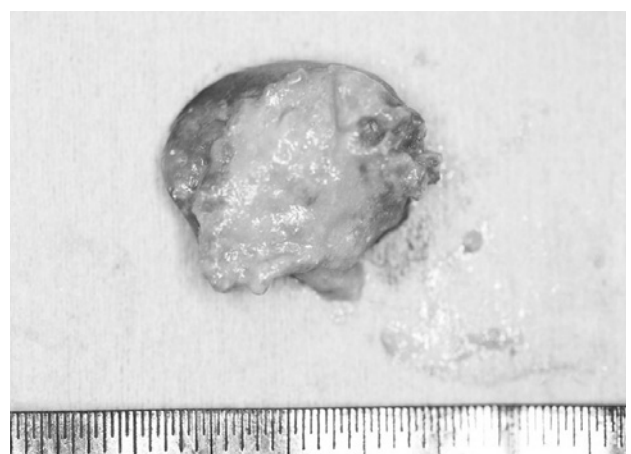
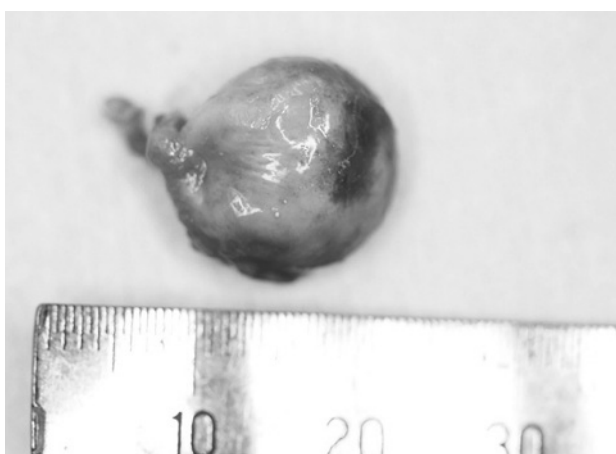


図4 摘出物所見  
平滑な表面粘膜に被覆されており、内部は充実性で明らかな硬固物や石灰化物を認めなかった。

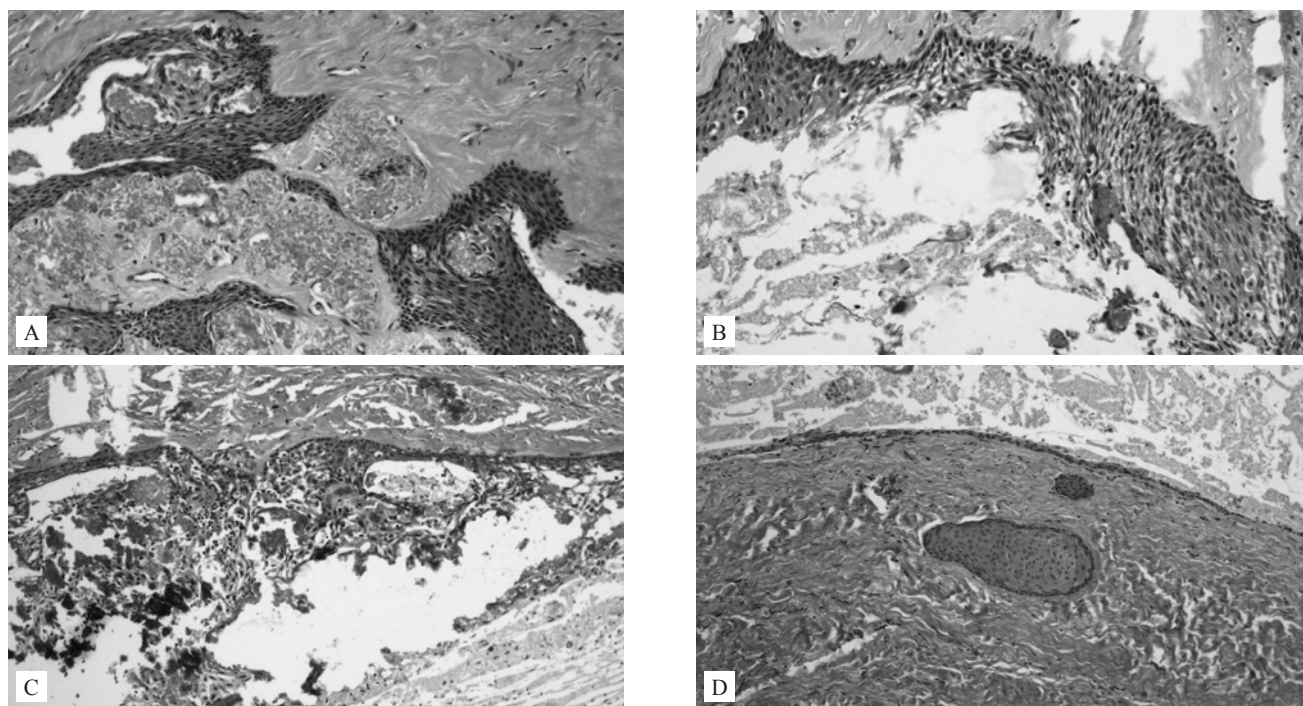


図5 病理組織学的所見 (H-E染色 A: ×10 B: ×20 C: ×10 D: ×10)

- A: 非角化重層扁平上皮により裏装されており、部位的に肥厚した上皮や乳頭状増殖を呈した。上皮内には柵状配列や渦巻き様配列を認めた。  
 B: 上皮内に粘液細胞や多数の腺管状構造を認めた。  
 C: 上皮内の腺管状構造や小嚢胞構造を認めた。  
 D: 結合組織内に小型の上皮島を認めた。

が困難なため、病理組織学的所見での確定診断が必要である。

病理組織学的診断基準については、2017年にWHOが提唱した①さまざまな厚さの扁平ないし立方上皮から成る嚢胞上皮、②導管上皮様細胞分化、③上皮内微小嚢胞、④導管上皮様細胞のアポクリン化生、⑤基底・傍基底細胞の明細胞、⑥管腔側への乳頭状突出、⑦粘液細胞、⑧渦巻き状上皮細胞、⑨線毛上皮細胞、⑩多嚢胞形成の10項目のうち7項目を満たすものとしている<sup>28)</sup>。自験例においては、①②③⑤⑥⑦⑧を満たしていた。病理組織学的に骨内原発性粘表皮癌との類似性があり、上皮内の腺組織や粘液細胞が悪性転化して発生する可能性が示唆されている<sup>31)</sup>。Nagasakiらは、再発した腺性歯原性嚢胞からの悪性転化により、切除9年後に骨内原発性粘表皮癌が発生した症例を報告している<sup>6)</sup>。

治療法については既報告においてほとんどの症例で摘出術が選択されていた。腺性歯原性嚢胞は腫瘍性病変でないことから、術後の機能障害や審美障害を考慮して摘出術が選択されたと考えられる。しかしながら、Kaplanらは、病変が大きく多房性の場合は、摘出術のみでは再発リスクが高く、周囲骨削除や辺縁切除術を施行することを推奨している<sup>4)</sup>。

古川らは、腺性歯原性嚢胞の再発率について、既報告

例の検討から7.7%～19.6%と高率であることを報告している<sup>31)</sup>。これは歯原性角化嚢胞の再発率とほぼ同等である<sup>32)</sup>。また、再発までの平均期間は2.7～8年と報告している<sup>31)</sup>。北山らは、再発の原因としては、上皮の細胞増殖活性が他の嚢胞と比較して高いこと、嚢胞壁の結合組織内に上皮島や娘細胞の形成がみられること、皮質骨の菲薄化や浸食、穿孔により上皮の一部が残存しやすいことを報告している<sup>19)</sup>。Kaplanらは、111症例において嚢胞の大きさを2歯以上含むか否かをcut-offとし検討したところ、再発症例の86.5%が2歯以上の大きな嚢胞であり、64.3%が大きくかつ画像検査で多房性の嚢胞であったと報告している<sup>4)</sup>。自験例においては、単房性の比較的小さな病変で隣接する歯はなかったため、摘出術の方針とし追加切除は不要と判断した。

自験例は、術後2年経過し再発を認めていないが、今後も注意深く長期的な経過観察を行う必要があると考ええる。

## 結 語

今回われわれは下顎に発生した腺性歯原性嚢胞の1例を経験したのでその概要について若干の文献的考察を加えて報告した。

表1 腺性歯原性嚢胞の本邦での報告例

発表年	報告者	年齢	性別	部位	X線所見	手術法	経過観察	再発
1994	Sembaら	72	男性	下顎前歯部・臼歯部	多房性	摘出術	2年	なし
1994	Takedaら	29	男性	下顎臼歯部	単房性	切除術	1年2か月	なし
1994	Toidaら	50	女性	下顎前歯部・臼歯部	多房性	摘出術	3年2か月	なし
1995	武田	50	女性	下顎前歯部・臼歯部	多房性	開窓術	2年	なし
1996	Ideら	54	女性	下顎前歯部	多房性	摘出術	1年	なし
1997	田原ら	62	男性	下顎臼歯部	単房性	摘出術	4年	なし
2000	Hisatomiら	45	女性	下顎臼歯部	単房性	記載なし	記載なし	記載なし
2001	笠原ら	23	男性	上顎前歯部	単房性	掻爬術	1年2か月	なし
2004	平田ら	62	女性	下顎前歯部・臼歯部	多房性	摘出術	1年9か月	なし
2006	岡本ら	34	男性	下顎臼歯部	単房性	摘出術	1年1か月	なし
2006	山近ら	58	男性	下顎前歯部・臼歯部	多房性	摘出術	12年	あり
2006	岩渕ら	52	女性	下顎前歯部・臼歯部	多房性	摘出術	3年8か月	あり
2008	北山ら	55	女性	下顎前歯部・臼歯部	多房性	摘出術	4年6か月	なし
2009	新川ら	57	男性	下顎前歯部～下顎枝	多房性	摘出術	2年	なし
2009	Yokoyamaら	37	男性	下顎臼歯部	単房性	摘出術	記載なし	なし
2011	沖田ら	57	男性	下顎前歯部	多房性	摘出術	1年	なし
2012	古賀ら	57	男性	上顎前歯部・臼歯部	単房性	摘出術	1年	なし
2014	熊坂ら	75	男性	下顎前歯部	単房性	摘出術	1年8か月	なし
2014	Nozawaら	64	男性	下顎前歯部	単房性	摘出術	1年7か月	なし
2015	Motookaら	62	女性	下顎前歯部	多房性	摘出術	1年6か月	なし
2017	Oguraら	55	男性	下顎前歯部・臼歯部	単房性	摘出術	記載なし	記載なし
2017	Oguraら	74	男性	上顎前歯部	単房性	摘出術	記載なし	記載なし
2017	Oguraら	57	女性	下顎臼歯部	単房性	摘出術	記載なし	記載なし
2017	Oguraら	45	女性	上顎臼歯部	単房性	摘出術	記載なし	記載なし
2020	Mizukakiら	65	女性	下顎前歯部	単房性	摘出術	3年	なし
2020	Mizukakiら	69	男性	下顎前歯部・臼歯部	多房性	摘出術	1年2か月	あり
自験例	自験例	64	男性	下顎臼歯部	単房性	摘出術	2年	なし

## 文 献

- 1) Gardner, D.G. et al : The glandular odontogenic cyst: an apparent entity. J Oral Pathol 17 (8) : 359–366, 1988.
- 2) Write, J.M. et al : Update from the 4th Edition of the World Health Organization Classification of Head and Neck Tumors. Head Neck Pathol 11 (1) : 68–77, 2017.
- 3) Krishnamurthy, A. et al : Glandular odontogenic cyst: report of two cases and review of literature. Head Neck Pathol 3 (2) : 153–158, 2009.
- 4) Kaplan, I. et al : Glandular odontogenic cyst: a challenge in diagnosis and treatment. Oral Dis 14 (7) : 575–581, 2008.
- 5) Fowler, C.B. et al : Glandular odontogenic cyst: analysis of 46 cases with special emphasis on microscopic criteria for diagnosis. Head Neck Pathol 5 (4) : 364–375, 2011.
- 6) Nagasaki, A. et al : Central mucoepidermoid carcinoma arising from glandular odontogenic cyst confirmed by analysis of MAML2 rearrangement: A case report. Pathol Int 68 (1) : 31–35, 2018.
- 7) Semba, I. et al : Glandular odontogenic cyst: analysis of cytokeratin expression and clinic-pathological features. J Oral Med Pathol 23 (8) : 377–382, 1994.
- 8) Takeda, Y. : Glandular odontogenic cyst mimicking a lateral periodontal cyst: a case report. Int J Oral Maxillofac Surg 23 (2) : 96–97, 1994.
- 9) Toida, M. et al : Glandular odontogenic cyst: a case report and literature review. J Oral Maxillofac Surg 52 (12) : 1312–1316, 1994.
- 10) 武田泰典 : 腺性歯原性嚢胞 glandular odontogenic cyst の1例. 病理と臨床 13 (6) : 871–875, 1995.
- 11) Ide, F. et al : Glandular odontogenic cyst with hyaline bodies: an unusual dentigerous presentation. J Oral Med

- Pathol 25 (7) : 401–404, 1996.
- 12) 田原孝之 他：右下顎枝部に発生したglandular odontogenic cystの1例. 口科誌 46 (3) : 270–274, 1997.
  - 13) Hisatomi, M. et al : A case of glandular odontogenic cyst associated with ameloblastoma: correlation of diagnostic imaging with histopathological features. Dentomaxillofac Radiol 29 (4) : 249–253, 2000.
  - 14) 笠原慎太郎 他：上顎前歯部に発生した腺性歯原性嚢胞の1例. 日口外誌 47 (11) : 688–691, 2001.
  - 15) 平田 康 他：下顎前歯部に発生した腺性歯原性嚢胞の1例. 日口外誌 50 (1) : 27–30, 2004.
  - 16) 岡本喜之 他：右下顎智歯部に発生した腺性歯原性嚢胞の1例. 日口外誌 52 (1) : 11–14, 2006.
  - 17) 山近重生 他：術後12年で再発を認めた下顎骨体部腺性歯原性嚢胞の1例. 日口外誌 52 (10) : 527–531, 2006.
  - 18) 岩渕博史 他：下顎骨に生じた腺性歯原性嚢胞の1例. 日口外誌 52 (12) : 703–707, 2006.
  - 19) 北山若紫 他：下顎骨に生じた腺性歯原性嚢胞の1例. 日口外誌 54 (3) : 164–168, 2008.
  - 20) 新川修司 他：下顎臼歯部に発生した腺性歯原性嚢胞の1例—国内外での比較及び文献的考察—. 日口外誌 55 (7) : 359–363, 2009.
  - 21) Yokoyama, M. et al : Glandular odontogenic cyst of the mandible: a case report and immunohistochemical study. J Oral Med Pathol 13 : 111–114, 2009.
  - 22) 沖田美代子 他：下顎前歯部に発生した腺性歯原性嚢胞の1例. 日口外誌 57 (3) : 109–113, 2011.
  - 23) 古賀 誠 他：上顎に生じた腺性歯原性嚢胞の1例. 日口外誌 58 (7) : 434–438, 2012.
  - 24) 熊坂 士 他：下顎前歯部に発生した腺性歯原性嚢胞の1例. 日口外誌 60 (7) : 446–450, 2014.
  - 25) Nozawa, H. et al : Glandular odontogenic cyst arising in the posterior region of the mandible. J Oral Maxillofac Surg Med Pathol 26 : 468–471, 2014.
  - 26) Motooka, N. et al : A case of glandular odontogenic cyst in the mandible treated with the dredging method. Odontology 103 (1) : 112–115, 2015.
  - 27) Ogura, I. et al : Glandular odontogenic cyst: a report of four cases. Oral Science International 14 (2) : 43–49, 2017.
  - 28) 水書智子 他：腺性歯原性嚢胞の2例, WHO新診断基準の有用性. 日口外誌 66 (7) : 317–323, 2020.
  - 29) 齋藤安奈 他：病理組織学的検査により腺性歯原性嚢胞と診断された1例. 松本歯学 43 (1) : 1–9, 2017.
  - 30) 田中四郎 他：上顎小臼歯部に生じた腺性歯原性嚢胞の1例. 日口外誌 64 (10) : 577–581, 2018.
  - 31) 古川浩平 他：下顎前歯部に発生した腺性歯原性嚢胞の1例. 日口診誌 33 (1) : 61–65, 2020.
  - 32) 山下健太郎 他：角化嚢胞性歯原性腫瘍の臨床的検討. 日口診誌 28 (3) : 172–177, 2015.