

〔臨床〕

上顎に発生したFollicular keratocystの2例

—本邦における文献的考察—

草野 薫, 服部 裕歩, 西村 学子*, 大内 知之, 中出 修,
安彦 善裕, 永易 裕樹**, 村井 茂***, 有末 眞**, 賀来 亨

北海道医療大学歯学部口腔病理学講座
*北海道医療大学歯学部附属病院中央検査部
**北海道医療大学歯学部口腔外科学第二講座
***みはら歯科矯正クリニック

(主任：賀来 亨教授)
*(主任：家子 正裕教授)
**(主任：有末 眞教授)
*** (院長：村井 茂博士)

Two cases of follicular keratocysts in the maxillary, and a review of the Japanese literature

Kaoru KUSANO, Yuho HATTORI, Michiko NISHIMURA*, Tomoyuki OHUCHI,
Osamu NAKADE, Yoshihiro ABIKO, Hiroki NAGAYASU**, Shigeru MURAI***,
Makoto ARISUE** and Tohru KAKU

Department of Oral Pathology, School of Dentistry,
Health Sciences University of Hokkaido
*Clinical Laboratory of University Hospital, School of Dentistry,
Health Sciences University of Hokkaido
**Second Department of Oral Maxillofacial Surgery, School of Dentistry,
Health Sciences University of Hokkaido
***Mihara Orthodontic Clinic

(Chief : Prof. Tohru KAKU)
*(Chief : Prof. Masahiro IEKO)
**(Chief : Prof. Makoto ARISUE)
*** (Chief : Dr. Shigeru MURAI)

Abstract

In 1992 the World Health Organization advocated that follicular keratocysts, which may envelop an adjacent unerupted tooth, be classified as an entity different from dentigerous cysts

受付：平成12年10月10日

in the classification of odontogenic cysts. However after follicular keratocysts were distinguished from dentigerous cysts, follicular keratocysts have still been erroneously reported as dentigerous cysts with a keratinizing lining.

This reviews Japanese cases of follicular keratocysts, including two cases occurring at the maxilla that have been diagnosed at this hospital.

Key words : Follicular keratocyst, Odontogenic keratocyst, Primordial cyst, Dentigerous cyst.

緒 言

歯原性嚢胞の分類において歯原性角化嚢胞は1956年にPhilipsen¹⁾が, 病理組織学的所見に基づき, 名付けられたものである. 1992年にWHOは歯原性角化嚢胞が未萌出歯を包含するものを新たにFollicular keratocystと分類すると提唱した²⁾. また分類後においてもFollicular keratocystの報告例は少なく, 未だに角化嚢胞とのみ扱われる症例も少なくない.

今回われわれは, 上顎に発生したFollicular keratocystの2例を経験したので, 本邦における報告例の統計的検索, および文献的考察を加えて報告する.

症 例 1

患 者 : 9歳 男児.

初診日 : 2000年6月22日.

主 訴 : 右側眼窩下部の腫脹.

家族歴および既往歴 : 妹 唇顎口蓋裂.

現病歴 : 1997年転倒し右側上顎前歯部を強打した. 数日前より右側眼窩下部から鼻翼下縁にかけて腫脹出現. 2000年6月22日に某歯科を受診しパノラマX線および頭部X線撮影したところ右側上顎犬歯部を中心としたX線透過像および埋伏歯を認めた.

口腔外所見 : 顔貌左右非対称で右側眼窩下部から鼻翼下縁にかけて腫脹および軽度発赤を認めるが圧痛は認められなかった.

口腔内所見 : 右側上顎犬歯相当歯肉頬移行部

が軽度腫脹を認める以外, 異常所見は認められなかった.

X線写真所見 : パノラマX線写真(図1)および頭部X線写真撮影(側方位撮影法)(図2)では, 右側上顎犬歯部に直径約4cmの境界明瞭な単胞性のX線透過像を認め, 透過像内に右側上顎犬歯埋伏歯冠が含まれていた.

臨床診断 : 右側上顎嚢胞の疑い.

処置および経過 : 上記臨床診断の下, 2000年7月4日局所麻酔下にて右側上顎嚢胞摘出術および開窓術を施行した. 嚢胞摘出時, 剝離は比較的容易であり, 骨との癒着はなかった. 年齢的な理由から埋伏していた右側上顎犬歯は保存した. 現在も経過観察中であるが, 埋伏していた右側上顎犬歯には萌出傾向がみられる.

摘出物所見 : 嚢胞は表面平滑で暗赤色を呈し, 内容物としては漿液性の血液成分様内容液と乳白色を呈する膿汁様の内容液が認められた.

病理組織学的所見 : 嚢胞壁は錯角化を伴った5~6層の重層扁平上皮で裏装され, 上皮下に

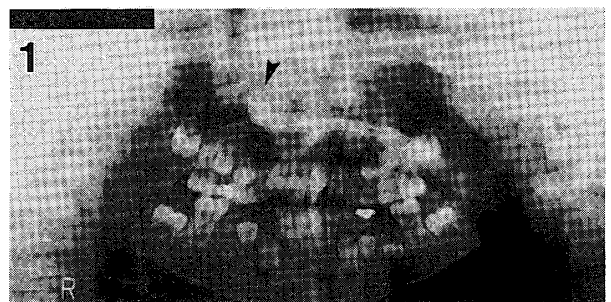


図1 パノラマX線写真像



図2 頭部X線写真像(側方位撮影法)
右側上顎犬歯部に境界明瞭な単胞性透過像内に埋伏歯冠を認める(矢印)。

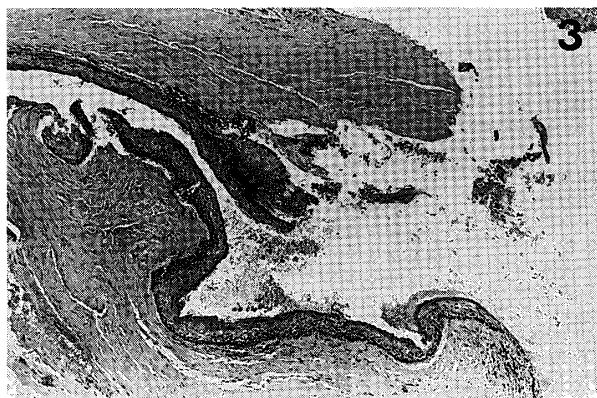


図3 病理組織像
錯角化を示す重層扁平上皮によって裏装された嚢胞で、嚢胞腔内に角質物質と血液成分を認める。
(H・E染色弱拡大)

は既存の骨組織を含む密な膠原線維由来の線維性結合組織を認めた。内容物として嚢胞腔内には若干の角質物質と血液成分がみられた(図3)。

確定診断: Follicular keratocyst.

症例 2

患者: 19歳 男性。

初診日: 2000年6月20日。

主訴: 右側上顎智歯部疼痛。

家族歴および既往歴: 中耳炎以外特記事項なし。

現病歴: 1週間前より右側上顎智歯部に放散性の疼痛が出現したため、精査加療目的に2000年6月23日、本院口腔外科を受診した。パノラマX線写真および頭部X線写真撮影により、右側上顎智歯部から右側上顎洞にかけてX線透過像および埋伏歯が確認された。

口腔外所見: 顔貌左右対称で顔面部に腫脹、圧痛はなかったが右側に鼻閉感を認めた。

口腔内所見: 右側上顎智歯部頬側に一部骨欠損を認める以外異常所見は認められなかった。

X線写真所見: パノラマX線写真(図4)では、右側上顎智歯部から上顎洞にかけて直径約5cmの境界明瞭な単胞性のX線透過像を認め、透過像内に逆性埋伏智歯歯冠が含まれていた。また、CT写真では右側上顎洞洞底後部に埋伏歯を含んだ上顎洞全域にdensityを示す嚢胞様病変を認める(図5)。

臨床診断: 右側上顎智歯部含歯性嚢胞の疑い。

処置および経過: 上記臨床診断の下、2000年

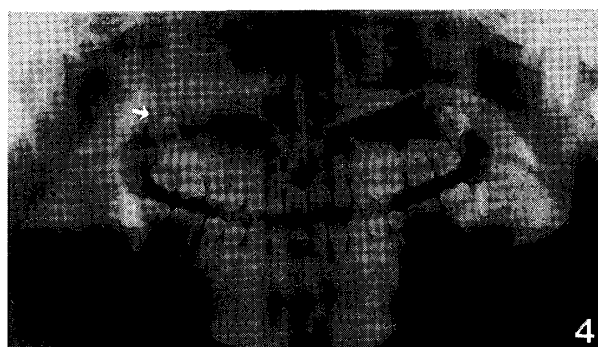


図4 パノラマX線写真像
右側上顎智歯部から上顎洞にかけて境界明瞭な単胞性透過像内に埋伏歯冠を認める(矢印)。

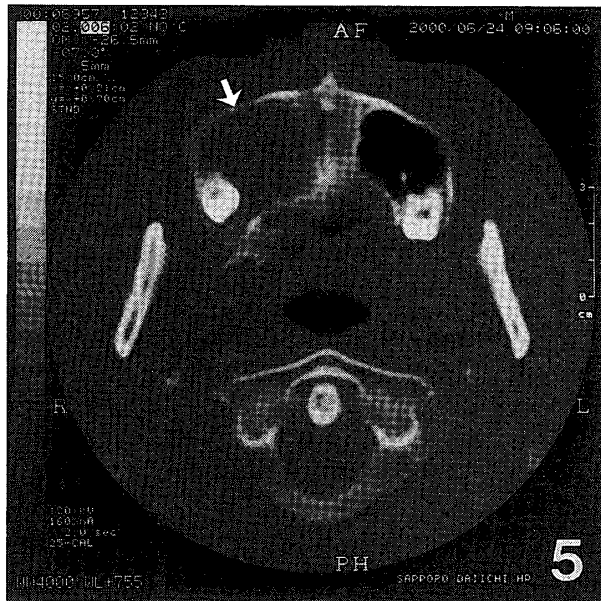


図5 CT像

埋伏智歯を含んだ上顎洞全域にdensityを示す嚢胞様病変を認める(矢印)。

7月4日局所麻酔下にて右側上顎嚢胞摘出術、開窓術および智歯抜歯術施行。嚢胞摘出時剝離は比較的容易であり骨との癒着はなかった。また嚢腔内には突出した智歯歯冠が存在した。術後上顎洞炎を認め、現在経過観察中である。

摘出物所見：嚢胞は比較的薄く、表面平滑で暗赤色を呈し、黄色を呈する豆腐のオカラ状内容物を認めた。

病理組織学的所見：嚢胞壁は正角化および錯角化を伴った重層扁平上皮で裏装され、上皮下には一部炎症性細胞浸潤および既存の骨組織を含む密な膠原線維由来の線維性結合組織がみら



図6 病理組織像

正角化および錯角化を示す重層扁平上皮によって裏装された嚢胞を認める。(H・E染色弱拡大)

れた。嚢胞内には若干の角質物質と血液成分を含む内容物が存在した(図6)。

確定診断：Follicular keratocyst.

本邦における報告例の統計的検索

対象症例：1988～2000年9月までの間、本邦において報告されたFollicular keratocystとそれ以外にも、歯原性角化嚢胞と診断されたもののなかで埋伏歯を伴ったもの全84症例³⁻¹⁰⁾を用いた。尚1患者に多発した症例は除外した。

症例分析：

1. 年齢、性別

年齢は最年少が6歳、最年長が78歳であり、年齢分布は10歳代が20例で最も多く、次いで20歳代の15例であった。また性別では男性38例、女性19例であった(表1, 2)。

表1 年齢分布

年齢	症例数 (%)
0～9	4 (7.0)
10～19	20 (35.1)
20～29	15 (26.3)
30～39	9 (15.7)
40～49	2 (3.5)
50～59	3 (5.3)
60～69	2 (3.5)
70～79	2 (3.5)
	57 (100.0)

表2 性差分布

	症例数 (%)
男性	38 (66.7)
女性	19 (33.3)
	57 (100.0)

2. 発生部位

発生部位を上下顎別の他に各嚢胞の中心部によって便宜的に、前歯部、小白歯部、大白歯部、智歯部(上顎智歯部は上顎洞部、下顎智歯部は下顎枝に及ぶものを含む)の8分類し、検討した。その結果、上下顎別では上顎29例、下顎55

例であった。8分類では下顎智歯部40例と最も多く、次いで上顎智歯部の17例であった(表3)。

表3 発生部位分布

発生部位	症例数 (%)
上顎前歯部	7 (8.3)
上顎小白歯部	1 (1.2)
上顎大白歯部	4 (4.8)
上顎智歯部*1	17 (20.2)
下顎前歯部	5 (6.0)
下顎小白歯部	2 (2.4)
下顎大白歯部	8 (9.5)
下顎智歯部*2	40 (47.6)
	84 (100.0)

*1 上顎洞に及ぶものを含む
*2 下顎枝に及ぶものを含む

3. 埋伏歯種

埋伏歯種では下顎智歯が40例と最も多く、次いで上顎智歯の17例であった。また上顎において過剰歯5例であったが下顎では無かった(表4)。

表4 埋伏歯種分布

発生歯種	歯数 (%)
上顎前歯	3 (3.6)
上顎小白歯	1 (1.2)
上顎大白歯	4 (4.7)
上顎智歯	17 (20.2)
上顎過剰歯	5 (6.0)
下顎前歯	5 (6.0)
下顎小白歯	4 (4.7)
下顎大白歯	5 (6.0)
下顎智歯	40 (47.6)
下顎過剰歯	0 (0.0)
	84 (100.0)

4. 嚢胞形態

X線写真所見に基づき嚢胞の形態を単胞性、多胞性に分けたところ、単胞性37例、多胞性18例と単胞性の方が多かった(表5)。

表5 嚢胞形態

	症例数 (%)
単胞性	37 (67.3)
多胞性	18 (32.7)
	55 (100.0)

5. 上皮角化の分類

上皮角化のタイプは岩瀬らの方法⁹⁾に従い、I型は嚢胞裏装上皮が全周正角化を示すもの、II型は嚢胞裏装上皮が正角化と錯角化を示すもの、III型は嚢胞裏装上皮が全周錯角化を示すものと3分類にし、検討した。その結果III型の錯角化のものが最も多くみられた(表6)。

表6 上皮角化分布

タイプ*	症例数 (%)
I	5 (7.5)
II	5 (7.5)
III	57 (85.0)
	67 (100.0)

* Iは嚢胞裏装上皮が全周正角化を示すもの
IIは嚢胞裏装上皮が正角化と錯角化の両者を示すもの
IIIは嚢胞裏装上皮が全周錯角化を示すもの

考 察

WHOは1992年に歯原性嚢胞の新分類の中で、嚢胞裏装上皮に角化を伴ったこれまでの歯原性角化嚢胞はすべて原始性嚢胞と同じものとみなしている²⁾。さらに歯原性角化嚢胞中に埋伏歯歯冠が萌出しているものを新たな亜型としてFollicular keratocystとすることを提唱した¹⁾。歯原性角化嚢胞の統計的検索は、本邦においてもこれまで行われてきたが、それらは現在の分類ではFollicular keratocystと考えられるものも単に歯原性角化嚢胞として扱ったものばかりであり^{3-7,9,10)}、Follicular keratocystを独立した診断名として検索を行った報告はみられない。本研究では、本邦におけるFollicular keratocystとそれ以外にも、歯原性角化嚢胞と診断されたもののなかで埋伏歯を伴ったもの全84症例について統計的検索を行った。

今回のFollicular keratocystの統計データを従来の歯原性角化嚢胞の報告例と比較してみると、歯原性角化嚢胞の発生前年齢は20歳代、30歳代^{3,4,7,10)}、男女比では男性が多いと報告さ

れ^{3,5~7}), Follicular keratocystではそれよりもやや若年層である10歳代, 20歳代の男性に発生することが多くなっていた。このことは, 未萌出歯冠の存在が本病態には必須であり, 未萌出歯冠の存在する可能性の高い若年層での頻度を反映したものと考えられた。

歯原性角化嚢胞は一般に下顎大白歯部が好発部位と言われている^{3~5,7,10})。Follicular keratocystでは埋伏歯の存在が必須のため智歯に多く, 特に歯原性角化嚢胞全体の頻度と同様に下顎に多くなっていた。また, X線所見では, 単胞性を示すものが多くなっていたが, これは従来の歯原性角化嚢胞の所見と一致していた^{3~7,9})。さらに, 病理組織検索による角化の程度では, 従来の歯原性角化嚢胞と同様に^{3,5~7,9,10}), Follicular keratocystでは全周錯角化を示すものが多くなっていた。

以上のように, Follicular keratocystでは病態発症に必須である埋伏歯の存在に関与する臨床像の違いはあるものの, 他の統計的所見はおおむね従来の歯原性角化嚢胞に一致しているものと考えられた。

Follicular keratocystの鑑別診断として, 埋伏歯冠の存在から含歯性嚢胞が第一に考えられる。含歯性嚢胞と歯原性角化嚢胞の違いは, 単に組織像の違いのみならず, 臨床経過にも違いがみられる。すなわち, 前者は摘出後再発は少ないものの, 後者は前者に比べて再発が多く, しばしば腫瘍性性格をもちあわせ, エナメル上皮腫との境界病変となることもある^{3~7})。臨床的

にFollicular keratocystと含歯性嚢胞を鑑別していくことは, 極めて重要であると考えられた。

文 献

1. Philipsen HP: Om keratocyster (kolesteatomer) i kaerberne. *Tandlaegebladet*, **60**: 963-980, 1956.
2. Kramer IRH, Pindborg JJ, Shear M: Histological Typing of Odontogenic Tumours, WHO International Histological Classification of Tumours, 2nd edition. Springer Verlag, Heidelberg, 1992, pp34-36.
3. 畑 毅, 細田 超, 福田道男, 他: 歯原性角化嚢胞の臨床病理組織学的検討. *日口外誌*, **34**: 470-484, 1988.
4. 原田昌和, 山本 学, 和田 健, 他: 当科における過去18年間の歯原性角化嚢胞症例の検討. *日口外誌*, **34**: 657-663, 1988.
5. 飯野光喜, 松田耕策, 山口 泰, 他: 歯原性角化嚢胞24症例の臨床ならびに病理組織学的検討. *日口外誌*, **35**: 965-973, 1989.
6. 永峰浩一郎, 江場光芳, 沖津光久, 他: 当講座における過去11年間の歯原性角化嚢胞症例の検討. *日口外誌*, **37**: 1853-1861, 1991.
7. 中村直樹, 山口 晃, 上滝俊彦, 他: 歯原性角化嚢胞の臨床ならびに病理組織学的研究. *歯学*, **83**: 845-859, 1995.
8. 柴田敏之, 窪田正樹, 佐藤 仁, 他: 下顎に発生したFollicular keratocystの1例. *東日本歯誌*, **14**: 87-91, 1995.
9. 岩淵博史, 矢郷 香, 田中陽一, 他: 歯原性角化嚢胞の角化のタイプによる臨床病理学的相違. *日口外誌*, **42**: 171-175, 1996.
10. 福田幸泰, 亀谷明秀, 毛利兼三, 他: 原始性嚢胞と歯原性角化嚢胞の組織分類と臨床所見の関係. *岐歯学誌*, **24**: 39-45, 1997.