

〔臨床〕 松本歯学 9 : 74~78, 1983

key words : 孤立性骨嚢胞 — scalloped appearance — 開窓療法

## 孤立性骨嚢胞の1症例

米山清志, 有賀 功, 矢ヶ崎 崇, 鹿毛俊孝  
松本歯科大学 口腔外科学第1講座 (主任 千野武広 教授)

河住 信, 長谷川博雅  
松本歯科大学 口腔病理学教室 (主任 枝 重夫 教授)

### A Case of Solitary Bone Cyst

KIYOSHI YONEYAMA, ISAO ARIGA, TAKASHI YAGASAKI and TOSHITAKA KAGE

*Department of Oral Surgery I, Matsumoto Dental College  
(Chief : Prof. T. Chino)*

MAKOTO KAWASUMI and HIROMASA HASEGAWA  
*Department of Oral Pathology, Matsumoto Dental College  
(Chief : Prof. S. Eda)*

### Summary

A case of solitary bone cyst of the left mandible in a 16-year-old girl was presented. The treatment performed was the technique of marsupialisation. By clinical and roentgenographic examination of 12-months following this procedure showed satisfactory healing.

### 結 言

孤立性骨嚢胞は長管骨, 特に上腕骨および大腿骨の近位骨幹端に好発する嚢胞様疾患であり, 顎骨に発生することは稀とされている。1929年にLucasが初めて顎骨に発生した症例を報告して以来, 進行性骨嚢へ, 外傷性骨嚢胞, 出血性骨嚢胞, 溢血性骨嚢胞など成因を示唆する種々の名称のも

とに報告されている。

今回我々は「56」頬側歯槽部の一過性鈍痛を主訴として来院した患者で, 術前にエナメル上皮腫を疑い, 手術所見から孤立性骨嚢胞の診断を得た症例を経験したので, その概要を報告し先人の症例に追加する。

### 症 例

患者 : 大○左○ 16歳 女子

初診 : 昭和56年2月2日

主訴 : 「56」頬側歯槽部の一過性鈍痛

本論文の要旨は第15回松本歯科大学学会(総会)(昭和57年11月27日)において発表された。(1983年5月12日受理)

家族歴：特記すべき事項はない。

既往歴：幼児期、鉄棒より落下した経験があるが打撲した部位は不明である。その他に特記すべき事項はない。

現病歴：昭和56年1月26日、 $\overline{56}$ 頬側歯槽部の一過性鈍痛を主訴に某歯科医院を受診した。レントゲン撮影にて $\overline{4\sim8}$ 相当下顎骨体部のX線透過像を指摘され2月2日当科を紹介され来院した。

現症：

全身所見：体格中等度、栄養状態良好であり、他に特記すべき事項はない。

局所所見：口腔外所見は顔貌は左右対称性、顔

色良好であり、他に特記すべき所見は認められなかった(図1)。顎下リンパ節は左右共に小豆大1個をそれぞれ触知したが、周囲組織との癒着はなく圧痛も認められなかった。また口唇麻痺、開口障害なども認められなかった。

口腔内所見は下顎左側歯列には転位など認めず、 $\overline{4}$ は健全歯であり $\overline{5\sim7}$ はいずれも充填処置を受けているが歯髓診断で生活歯であった。また骨植良好にして打診痛および濁音なども認められなかった。当該歯牙周囲の歯肉、頬粘膜に発赤、腫脹などの異常は認められなかった(図2)。

X線所見： $\overline{4}$ 遠心から $\overline{8}$ 近心におよぶ下顎骨体部に鳩卵大、多房性、境界不明瞭な長階円形の

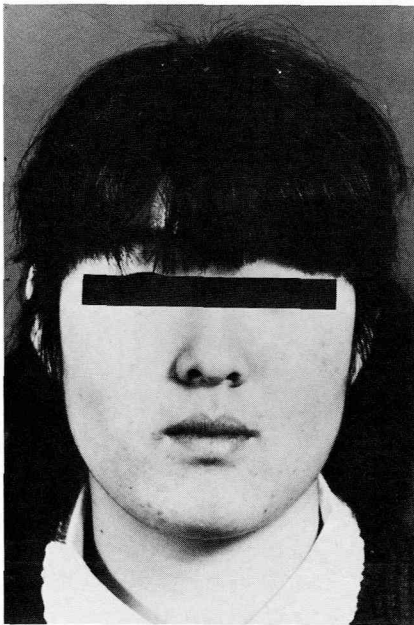


図1：初診時顔貌写真



図2：初診時口腔内写真

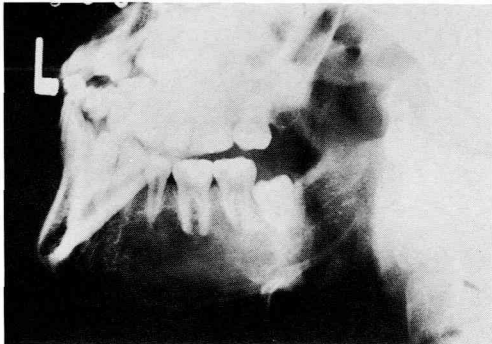


図3：初診時X線写真

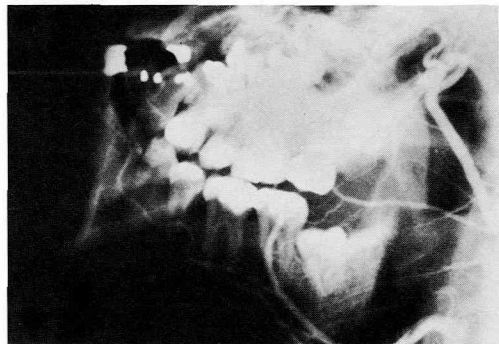


図4：血管造影写真

骨透過像を認めた。各歯牙の歯槽硬線は明瞭でありわずかに「5 6 歯根周辺に貝殻状の輪郭いわゆる scalloped appearance 様の像を認めた(図3)。

臨床検査所見：ASLO 640 unit, HB-sAg(+), Anti HB-cAg (+)の他は末梢血, 尿, 梅毒血清反応, 血液化学検査などの諸検査では異常は認められなかった。

以上の所見より臨床診断はエナメル上皮腫が考えられたがX線所見の一部に泡沫状の周辺との境界不明瞭な骨透過像がみられ, 中心性血管腫も否定できず, 3月22日, 左側総頸動脈より Seldinger 法によって Angiography を施行した。図4にみられる如く左側外頸動脈およびその末梢枝の走行に異常は認められず, また病巣部に造影剤の集積はみられず, 中心性血管腫は否定された。

臨床診断：「4~8 部下顎骨エナメル上皮腫

上記診断のもと3月30日, 局所麻酔下にて生検をかねて開窓術を施行した。まず「6 7 頰側歯肉に幅約2 cmの弓状切開を骨膜に達するまで加え続いて粘膜骨膜弁の剝離を行なった。歯槽骨は一部

に菲薄化を思わせる暗紫赤色部が認められる他はほぼ健全な骨よりなっていた。そこでパーおよびマイセルにて骨開削を施行したところ, 病巣部はその底部に血液様内容をわずか認める空洞よりなり, 内面は凹凸のある粗面を呈する薄い線維性結合織が認められた。下歯槽神経, 血管束は底部に確認する事ができた。空洞の大きさは「4 遠心から「8 近心に達する約4.5 cm程の長さで, 頬舌径は約1.5 cm, 深さは約2 cm程であった。

以上の所見より術中診断を孤立性骨嚢胞とし辺縁の整形, 洞内洗浄, 内壁を搔爬し, ミクリツ・タンポンを填塞し終刀した。

病理組織所見：嚢壁は比較的菲薄で毛細血管を数多く含む線維性組織よりなり, 上皮の裏装は観察する事はできなかった(図5)。内容物は主として赤血球よりなり一部は溶血していた。また嚢壁の一部に多核巨細胞を認めた(図6)。

経過：術後は1週間を経て, 開窓部に栓塞子を装着し予後観察を行なった。この時点では「6 7 に生活反応は認められなかった。2ヶ月後, 創の縮

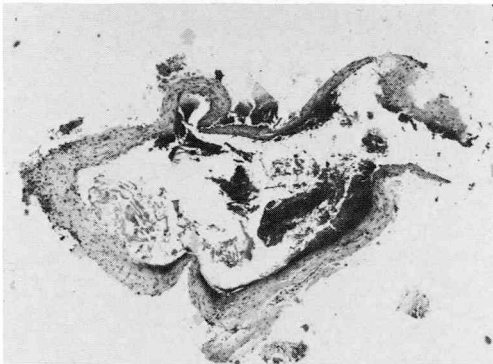


図5：生検材料の弱拡大写真(HE染色×24)



図6：図5の強拡大写真(HE染色×113)

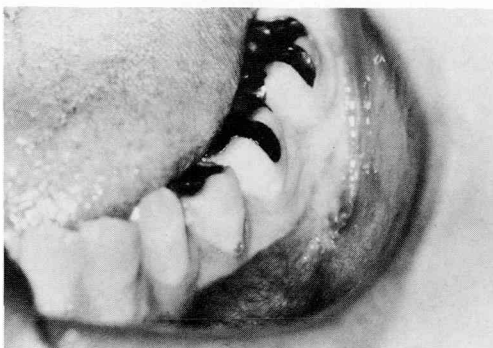


図7：術後(4か月)口腔内写真



図8：術後(2か月)X線写真

少化を認め、レントゲン写真で新生骨の増生を確認し栓塞子を撤去した。

術後4ヶ月にて創は瘢痕化閉鎖した(図7)。術後約1年を経過した現在、再発など異常は認めず比較的明瞭な骨梁がX線写真上に認められた(図8)。また「67」にも生活反応を認める様になり経過は良好と思われる。

## 考 察

顎骨に発生した孤立性骨嚢胞はLucas<sup>1)</sup>の報告を嚆矢として進行性骨窩、外傷性骨嚢胞、溢血性嚢胞、出血性嚢胞などその成因を示す名称と共に幾多の報告がみられるが、今だ成因は不明であり、いきおい名称も統一されていないのが現状である。Pindborg & Kramer<sup>2)</sup>は本疾患を上皮の裏装を有する真性嚢胞とは区別し非腫瘍性骨病巣の分類のもとに単純性骨嚢胞の名称を採用し、上皮を欠いた結合織よりなる菲薄な被膜をもつ骨内嚢胞と定義している。

本疾患は上腕骨近位端、大腿骨近位端など長管骨に好発し短骨、扁平骨に発生することはまれとされている<sup>3)</sup>。顎骨における発生頻度はBhasker<sup>4)</sup>によれば、特発性骨空洞、動脈瘤性骨嚢胞と共に偽嚢胞に分類した上で非歯原性嚢胞および偽嚢胞の約13%を占めるむね記載しているが、その付表によると顎骨に発生する真性嚢胞と偽嚢胞の0.9%を占めている。Shear<sup>5)</sup>によれば顎嚢胞750例中8例(1.1%)であり、いずれも顎嚢胞の1%前後を占めており稀有である事が伺われる。

好発年齢は一般に若年者とされておりHowe<sup>6)</sup>、Killy<sup>7)</sup>、Hansenら<sup>8)</sup>いずれの報告によっても10歳代が過半数を占めている。性差に関しては比較的多数の文献的統計を行なった報告によると男性に60%~70%と男性に多くみられる。Killyら<sup>7)</sup>の23例の治験例では男性10名、女性13名にみられ、Hansenら<sup>8)</sup>の66例の収集例では性差はみられなかったと報告している。

好発部位はKillyら<sup>7)</sup>によれば下顎骨体部でオトガイ部は稀であり上顎ではさらに少ないと報告しており、Pindborg & KramerによるWHO<sup>2)</sup>の記載でも好発部位は骨体部とある。またHowe<sup>6)</sup>、Heubnerら<sup>9)</sup>は下顎骨体部を好発部位とし、下顎正中部に約1/4がみられ、上顎は4%と文献的にはやはり上顎には少なかったと報告している。しか

し、Hansenら<sup>8)</sup>の報告では上顎正中部に約27%、下顎正中部に約27%で、上下顎の正中部に54%がみられ残りはほとんどが下顎後方部であったと報告している。すなわち上記3ヶ所に集中しそれぞれに差を見出していない。臨床的には一般に無症状に経過しレントゲン撮影により発見されるものが多く、Howe<sup>6)</sup>の報告では無症状60%、腫脹26.6%、疼痛10%、知覚麻痺3.33%であったという。発見された嚢胞に関連した歯牙は一般に生活歯であり動揺、転位はないという<sup>7)</sup>。

本疾患は開洞すると空洞であり、時に透明な麦わら色の漿液性流動体が少量排出されたり血餅を含むことがある。洞壁は滑沢でなく凹凸があり下顎においては神経血管束は洞底に露出していることもあるという<sup>7)</sup>。

X線所見は歯原性嚢胞と比較し境界は不鮮明で単房性に時に一見多房性を示す。嚢胞が歯間空隙まで増大しても歯槽硬線は残存し、植立する歯根周辺に貝殻状の輪郭を浮び上がらせるいわゆるscalloped appearanceを示すことが特徴とされる。X線のには顎には歯牙という特異な器官がみられ、長管骨にはない情報を提供すると思われるが、一般に本疾患は歯牙に直接接した時いわゆるscalloped appearanceを呈し、歯牙の動揺、失活、歯根吸収、歯槽硬線の消失を来たす事はなく、X線上腫瘍または嚢胞のいずれの範疇からも説明しきれない独特の病態を成すものと想像される。

鑑別を要する疾患には歯系あるいは顔裂性嚢胞などの嚢胞性疾患、エナメル上皮腫、線維腫、巨細胞腫などの腫瘍、さらには代謝障害に起因する線維性骨異形成症、多発性線維性骨炎などが掲げられる<sup>10)11)</sup>。今回我々はその多房性の透過像より臨床診断エナメル上皮腫のもとアプローチしたがX線的に更に一部中心性血管腫も疑われたためAngiographyを施行し、鑑別の一助とした。術中に初めてsolitary bone cystという臨床診断を得たがHansenら<sup>8)</sup>も指摘するようにX線所見はあくまで診断の一助とすべきであると思われる。

病理組織学的には上皮組織を欠き、赤血球やHemosiderin等の凝血性物質、拡張した毛細血管、多核巨細胞を含んだ疎性結合織の薄層の存在が認められるという。本症例では上皮の裏装は認められず、毛細血管を数多く含む線維性組織よりなり一部に多核巨細胞を認めた。

本疾患に対する処置は開洞後内容物を除去し窩洞を十分に血餅で満すことにより速やかに治癒が得られることが知られており屋形<sup>12)</sup>、中山ら<sup>13)</sup>の報告でも開窓療法により骨の新生が比較的急速であったという。我々も今回同法を施行したところX線像にて骨新生は術後4ヶ月にて明瞭に認められほぼ1年で新生骨に置換され完治と判断された。

本疾患に対し経根管的に、または骨皮質を注射針により穿孔のうえ洞内に出血を促すという方法を提唱する人もみられ<sup>14)</sup>、古くはBlum<sup>1)</sup>により挙げられており、理論的には嚢胞内の血餅による充満ということで首肯されるが、いずれの方法も盲目的であり充分な出血を確認し得ず確実な方法とは言い難いと思う。またX線像等だけでは確定診断は不可能とされている現在、我々は外科的に開洞の上、診断を得た後に搔爬し充分な出血を促す事が必要であると思われる。

予後は一般に良好であり再発はほとんどないという。再発例としてはViyaraghavan<sup>15)</sup>による報告があるが、患者の成長の停止と共に再発がみられなくなったという経過は本疾患の臨床経過、治療法を考える上で示唆的である。

## 結 語

我々は16歳女子の左側下顎骨体部にみられた孤立性骨嚢胞の1症例を報告した。

開窓療法を適応し臨床的、X線の満足のいく結果が得られた。

稿を終るにあたり、御指導、御校閲を賜りました本学口腔外科学第1講座 千野武広 教授、ならびに口腔病理学教室 枝 重夫 教授に深甚なる謝意を表す。

## 参考文献

- 1) Lucas, C. D. (1929) Discussion, in Blum. Do all cysts in the jaws originate from the dental system?, J. Amer. dent. Ass. 16: 647-661.
- 2) Pindborg, J. J., & Kramer, I. R. H. (1971) Histological typing of odontogenic tumours, jaw cysts, and allied lesions. International Histological Classification of Tumours. No. 5, 39. WHO, Geneva.
- 3) 前田富士雄 (1963) 孤立性骨嚢腫に関する研究。日整会誌, 37: 529-547.
- 4) Bhaskar, S. N. (1977) Synopsis of Oral Pathology. 5th ed. 225-232 The C. V. Mosby Company, Saint Louis.
- 5) Shear, M. (1976) Cysts of the Oral Regions, Dental Practitioner Handbook No. 23, 6. John Wright. & Sons Ltd., Bristol.
- 6) Howe, G. L. (1965) Haemorrhagic cysts of the mandible. Br. J. Oral Surg. 3: 55-91.
- 7) Killey, H. C. & Kay, L. W. (1972) Benign Cystic Lesions of the Jaws, their Diagnosis and Treatment. 2nd ed, 95-105, Churchill Livingstone, Edinburgh and London.
- 8) Hans, L. S., Sapone, J. & Sproat, R. C. (1974) Traumatic bone cysts of jaws. Oral Surg. 37: 899-910.
- 9) Heubner, G. R., Turlington, E. G. (1971) So-called traumatic (hemorrhagic) bone cysts of the jaws. Oral Surg. 31: 354-365.
- 10) 床島昭男, 亀山忠光, 山本正夫, 久野 勇(1969)下顎骨における Solitary bone cyst と思われる1症例。日口外誌, 15: 43-46.
- 11) Jaffe, H. L. (1953) Giant-cell reparative granuloma, traumatic bone cyst, and fibrous (Fibro-osseous) dysplasia of the jaw bones. Oral Surg. 6: 159-175.
- 12) 屋形秀樹, 広瀬達男, 中島民雄, 常葉信雄(1978) 単純性骨嚢胞の5症例。日口外誌, 24: 579-587.
- 13) 中山桂二, 中村武夫, 金子賢司, 服部 稔, 吉田 亨, 泉 廣次, 山本浩嗣(1982) 口腔領域の嚢胞性疾患に関する臨床的検討。日大口科学, 8: 168-179.
- 14) Patrikiou, A., Sepheriadou-Marropoulou, Th., & Zambelis, G. (1981) Bilateral traumatic bone cyst of the mandible. Oral Surg. 51: 131-133
- 15) Vijayaraghavan, K., Whitlock, R. I. H. (1975) An unusual case of "Haemorrhagic" bone cyst. Br. J. oral Surg. 13: 64-72.
- 16) 阿部光俊, 坂口 亮, 原 徹也, 加藤文雄, 前広 進。(1962) 踵骨骨嚢腫について。整外, 13: 182-191.