

## 著しい歯根吸収を伴った上顎単純性骨嚢胞の1例

榎本 浩子<sup>1</sup>, 安田 浩一<sup>1</sup>, 富田 郁雄<sup>1</sup>, 落合 隆永<sup>2</sup>, 長谷川博雅<sup>2</sup>, 古澤 清文<sup>1</sup>

<sup>1</sup>松本歯科大学 口腔顎顔面外科学講座

<sup>2</sup>松本歯科大学 口腔病理学講座

A case of simple bone cyst in the maxilla with marked root resorption

HIROKO NARAMOTO<sup>1</sup>, KOUICHI YASUDA<sup>1</sup>, IKUO TOMITA<sup>1</sup>, TAKANAGA OCHIAI<sup>2</sup>,  
HIROMASA HASEGAWA<sup>2</sup> and KIYOFUMI FURUSAWA<sup>1</sup>

<sup>1</sup>Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Matsumoto Dental University School of Dentistry

<sup>2</sup>Department of Oral Pathology, Matsumoto Dental University, School of Dentistry

### Summary

We reported a rare case of simple bone cyst with resorption of the tooth root in the maxilla. A 12-year-old boy complained of pain in the right first molar region. Radiographic examinations demonstrated a relatively well-demarcated radiolucent lesion in the right maxilla with marked root resorption of the upper first molar, and the involved bone showed irregular radiolucency. These findings suggested the clinical diagnosis of maxillary cyst. Under general anesthesia, we enucleated the capsula of the bone cavity, and extracted the upper first molar after frozen diagnosis. The final diagnosis was simple bone cyst. We hypothesize that the cause of root absorption was related to the expansion of the cyst in the furcation area.

### 緒 言

単純性骨嚢胞は裏装上皮を欠く骨空洞で、2005年のWHOによる分類<sup>1)</sup>では、骨関連病変 (bone-related lesions) に類別されている。顎骨に発症した本嚢胞のX線所見の特徴は、嚢胞透過像が歯槽中隔に入り込むため波形の輪郭を示し、まれに歯槽硬線の消失を認めることがあるが、一般に歯根の吸収は見られない<sup>2)</sup>。今回著者らは、右側上顎第一大臼歯の著しい歯根吸収を伴った単純性骨嚢胞の1症例を経験したので、その概要につ

いて文献的考察を加えて報告する。

### 症 例

患者：12歳，男児

初診：2005年2月7日

主訴：右側上顎第一大臼歯の疼痛

既往歴：特記事項なし。

家族歴：特記事項なし。

現病歴：2005年1月中旬より、右側上顎第一大臼歯の疼痛を自覚し、疼痛が徐々に強くなったため、同年2月4日に近歯科医院を受診した。X線

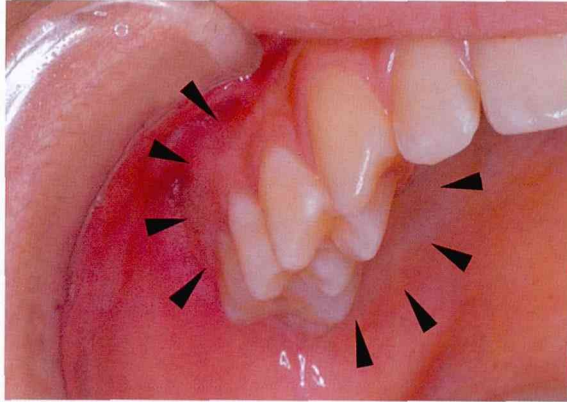


図1：初診時の口腔内写真

矢印は右側上顎第一大臼歯相当部の頬側および口蓋側歯肉の腫脹（矢頭）を示す。

診査で右側上顎第一大臼歯部に嚢胞様透過像が認められたため、当科を紹介された。

現症：

全身所見：体格は中等度で栄養状態は良好。

局所所見：右側上顎第一大臼歯相当部の頬側および口蓋側歯肉に軽度の腫脹および圧痛を認めた（図1）。また、右側上顎第一大臼歯に打診痛と中等度の動揺がみられた。電気歯髄検査では、閾値の上昇は認めたものの生活反応は陽性であった。

画像所見：パノラマおよびデンタルX線写真では、右側上顎第一小臼歯から第三大臼歯相当部に、辺縁にやや不整で類円形のX線透過像を認め、右側上顎第一大臼歯の分岐部を中心とした歯根の著しい吸収像がみられた（図2-A, B）。またCT画像においては比較的境界明瞭な透過性病変がみられた。上顎骨歯槽突起から口蓋側皮質骨にはやや辺縁不整の吸収像を認め、上顎洞底の骨

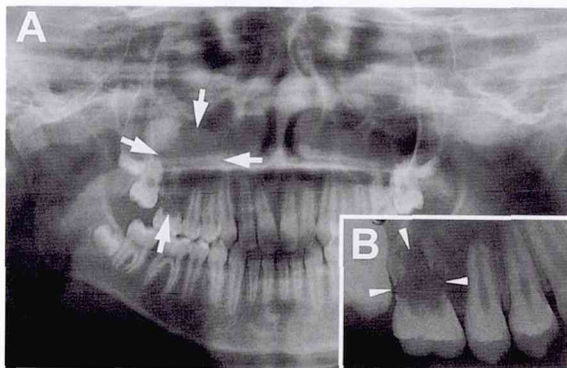


図2：初診時のX線写真

A：上顎第一小臼歯から第三大臼歯相当部に類円形のX線透過像（矢印）を認める。

B：右側上顎第一大臼歯の根分岐部を中心とした歯根吸収像（矢頭）を認める。

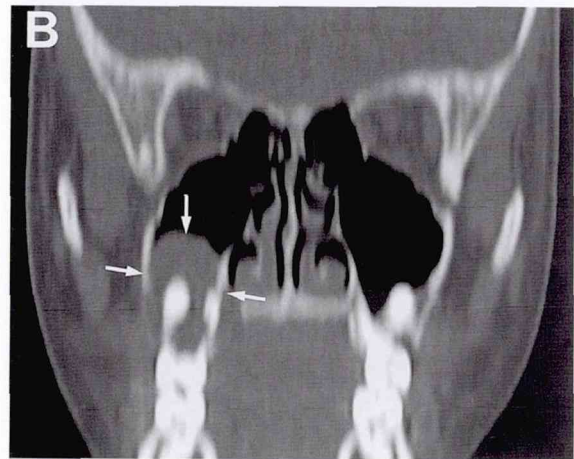
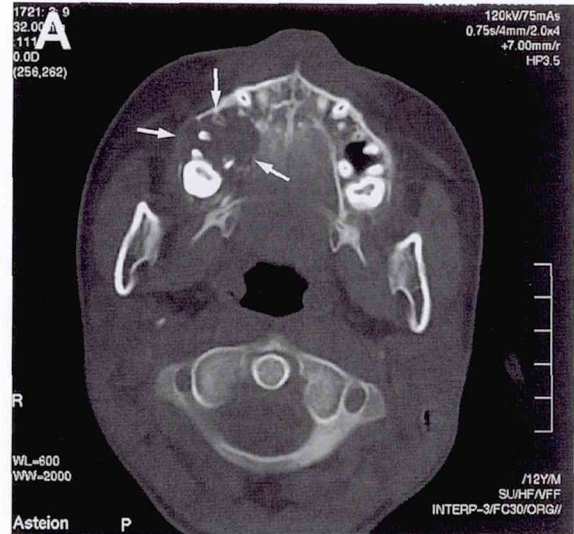


図3：初診時のCT写真

A：上顎骨の膨隆および辺縁不正の骨吸収像（矢印）を認める。

B：嚢胞は上顎洞底を押し上げている。

はドーム状に押し上げられていた（図2-A, 3）。内部CT値は25から32と比較的均一な値を示した。

臨床診断：上顎骨嚢胞の疑い。

処置および経過：画像所見で類円形の透過像が認められたことと、内部CT値から臨床診断は上顎骨嚢胞の疑いとした。しかし、歯根の吸収が著しいことや、上顎骨の吸収像が不整なため、腫瘍性疾患も否定できなかったことから術中迅速診断を行うこととした。平成17年2月17日、全身麻酔下で摘出術を試みた。手術は、右側上顎小臼歯部から第一大臼歯部頬側に切開を加え、粘膜骨膜弁を剥離して上顎骨頬側骨面を露出させた。菲薄化した骨を除去すると、ほぼ透明な漿液性の内溶液を含んだ嚢胞様構造物を認めた。それは上顎洞底を押し





図4: 抜去歯  
根分岐部を中心に吸収した右側上顎第一大臼歯.

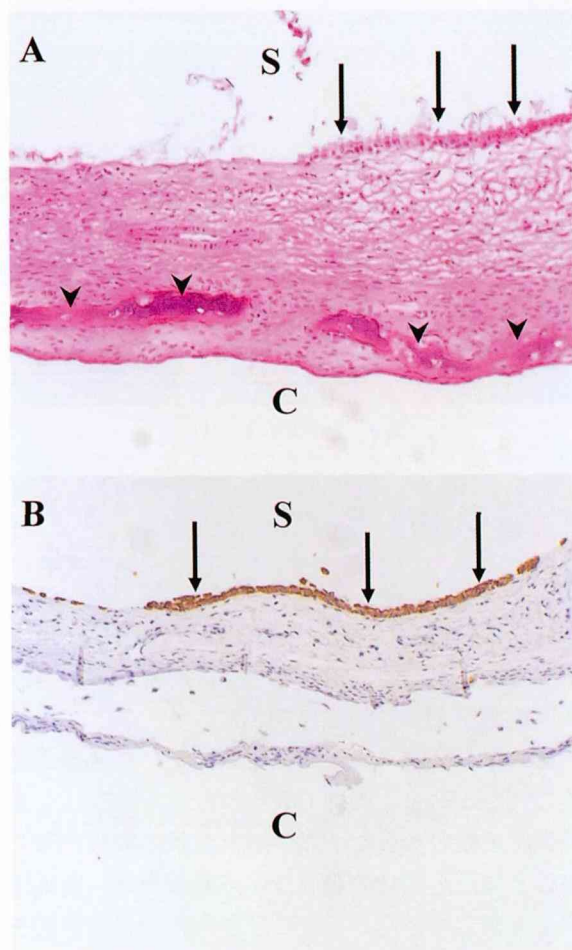


図5: 術中迅速凍結標本の病理組織像

- A: 検体は骨(矢頭)を含む線維性組織からなる嚢胞壁様組織で, 上顎洞(S)を裏装する絨毛上皮(矢印)を認める。嚢胞腔(C)側にはわずかな線維性組織があり, 一部では骨組織が腔に露出しているようにみえる(H-E染色, 原倍率 $\times 100$ )。
- B: 上顎洞(S)にはサイトケラチン(AE1/AE3)陽性の絨毛上皮(矢印)を認めるが, 嚢胞腔(C)側に陽性細胞はない(AE1/AE3染色, 原倍率 $\times 100$ )。

上げるように拡大し, 歯根の一部を吸収していた。上顎洞底部の組織を摘出した際に上顎洞との交通を認め, その組織の一部を迅速病理検査に供したところ, 嚢胞性病変(cystic lesion)の診断を得たため, 病変の摘出と右側上顎第一大臼歯の抜歯を行った。歯は根分岐部を中心に吸収がみられ, 根と歯冠に分断されていた(図4)。右側上顎第一大臼歯の抜歯による口腔上顎洞瘻は, 減張切開を加えた頬側粘膜骨膜弁によって閉鎖した。現在, 術後約1年経過しているが, 再発などは認めていない。

病理組織学的所見: 術中迅速診断時に提出された検体は,  $5 \times 5 \times 0.5 \text{ mm}$  と  $10 \times 10 \times 0.5 \text{ mm}$  大の薄い線維性組織で, 組織学的には線毛上皮を持つ粘膜と非連続性の菲薄な骨組織を含む嚢胞壁様の組織だった。病変側には薄い線維性組織をわずかに認めるだけで, 一部では腔と骨組織が近接していた(図5A)。以上のような所見から「嚢胞性病変」が疑われた。上皮の有無を確認するために, 抗ヒトサイトケラチン・マウスモノクローナル抗体(クローン: AE1/AE3)を用いて免疫染色を行ったが, 洞粘膜上皮が陽性を示すのみで, 嚢胞腔側に上皮は存在しなかった(図5B)。摘出材料も基本的には迅速診断時に提出された検体と同様で, 洞粘膜壁と少量の線維性組織の間に幼若骨が介在する菲薄な組織であった。骨周囲には破骨細胞が出現していたが, 明らかな炎症性変化はなかった。嚢胞壁は少量の疎な線維性

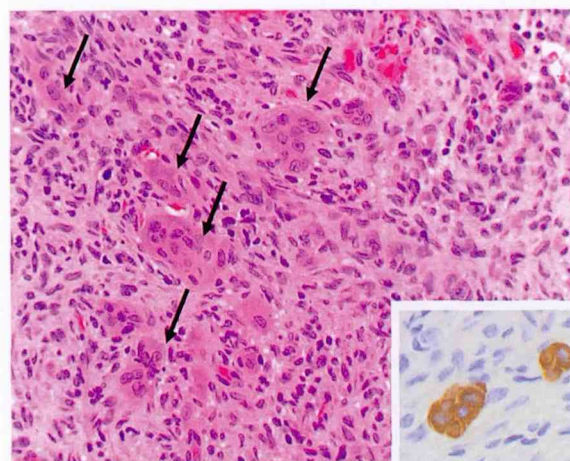


図6: 摘出物の病理組織像

吸収歯根近傍の組織は, 多くの多核巨細胞(矢印)を含んだ幼若な肉芽組織である(H-E染色, 原倍率 $\times 20$ )。挿入図: 同部の肉芽組織内には, サイトケラチン(AE1/AE3)陽性のマラーセの残遺上皮塊がみられ, 歯根膜組織である(AE1/AE3染色, 原倍率 $\times 40$ )。

結合組織で、直接顎骨と接する部分もみられた。なお、吸収の著しい歯根近傍から採取された組織片は、幼若な肉芽組織からなり、多数の破骨細胞ないし破歯細胞型の多核巨細胞が出現していた。この肉芽組織内にはマラッセの上皮残遺も確認され、歯根膜と連続した肉芽組織であることが確認された(図6)。摘出材料で免疫染色による嚢胞腔を裏装する上皮の有無を確認したが、上皮は存在しなかった。

病理組織診断：単純性骨嚢胞

## 考 察

単純性骨嚢胞は一般に長管骨、特に上腕骨や大腿骨に好発するとされている<sup>3)</sup>。顎骨での発症は比較的少なく、そのほとんどが下顎骨で、本嚢胞の上顎骨における発症は極めて稀である<sup>4)</sup>。臨床症状は一般に無症状で、歯科でのX線写真撮影によって偶然発見されることが多い<sup>5)</sup>。時に、顎骨の膨隆や疼痛を伴うこともあるが、これは嚢胞内圧の上昇に伴う症状とされ<sup>6)</sup>、本症例においても、右側上顎第一大臼歯部の疼痛と骨の膨隆は、嚢胞の内圧上昇に起因すると思われる。成因については、外傷によって骨髓内に血腫ができ、その治癒が障害されて嚢胞様腔が生じる説<sup>2)</sup>、外傷に起因する緩慢な無菌性の炎症によって骨が局所的に吸収される説<sup>6)</sup>など外傷に起因する仮説が広く認知されている。外傷の既往に関しては、諸家の報告によると25%~80%<sup>7-10)</sup>と様々である。これらは、患者自身の記憶に残らない程軽度な外力で本症が発症するか、あるいは外傷が本症発生の絶対的要因ではない可能性を示唆している。この後者の考えをもとに、局所の静脈血行不良説<sup>11)</sup>なども支持されるようになった。ただし、この静脈血行不良説は、長管骨の症例や下歯槽動静脈との関係进行分析した上で唱えられた説であるため、上顎臼歯部に発症した本嚢胞の発症原因としては適切ではない。本症例の内容液は透明な漿液で、組織学的には嚢胞周囲には明らかな炎症性変化、あるいは出血を示唆する siderophages の存在やヘモジデリン沈着もほとんど認めず、外傷性変化は明らかではなかった。また採取された少量の嚢胞周囲の組織に異常血管はなく、むしろ活発な骨改造を認め、血行不良を支持する所見も得られなかった。セメント質・骨異形成や線維性異形成症では

表1：単純性骨嚢胞の報告例

症例	報告者	歯根吸収症例/報告症例
1	Ruprecht et al. <sup>18)</sup> (1975)	0/2
2	Hall et al. <sup>19)</sup> (1976)	0/2
3	領家ら <sup>3)</sup> (1984)	0/1
4	Forssell et al. <sup>15)</sup> (1988)	0/3
5	富田ら <sup>13)</sup> (1989)	2/18
6	神谷ら <sup>12)</sup> (1990)	0/1
7	塩谷ら <sup>2)</sup> (1999)	0/21
8	松崎ら <sup>16)</sup> (1999)	0/14
9	重松ら <sup>17)</sup> (1999)	0/7
10	松村ら <sup>14)</sup> (2003)	2/23
11	Mupparapu et al. <sup>20)</sup> (2005)	0/1

4/113

変性によって嚢胞様変化が随伴することは知られているが、嚢胞壁に相当する組織に以上の様な病変の先行を疑わせる所見もなく、病因を示す所見は得られなかった。

著者らの渉猟しえた範囲では、単純性骨嚢胞の隣在歯の歯根吸収を認めたとする報告は国内外で113例<sup>(3),(4),(12-18)</sup>中4例<sup>13,14)</sup>のみであった(表1)。この4例中2例についてはX線写真が供覧されていたが、根尖部にわずかな吸収像を認めていたにすぎない。一方、本症例では、右側上顎第一大臼歯は根分岐部を中心に著しい吸収がみられ、3根が歯冠とほぼ分断されていた。また、組織学的にも歯根吸収部分には多数の多核巨細胞が出現していたことから、破歯細胞による活発な吸収が生じていたことが伺える。このような著明な歯根吸収を伴った単純性骨嚢胞の報告は皆無である。本症例においては歯根尖の形成が完了していたことから、根間中隔部の骨吸収が先行し、しだいに病変は同部に拡大していったと考えられる。次いで根分岐部の嚢胞腔の内圧によって3歯根を外方に押しやるように吸収し、嚢胞の成長とともに、骨の膨隆や根吸収をきたした可能性が示唆された。さらに、この分岐部に限局した病変の拡大は、歯髄をも横断する根吸収を招いた。嚢胞壁が歯髄に接していたことから、内圧上昇は第一大臼歯部の疼痛を誘発したと考えることができる。

一般に歯根吸収はほとんどないとされる単純性骨嚢胞でも、その発症部位によっては著明な歯根吸収などの非典型的な臨床像を呈することがあり、今後多くの施設からの症例の蓄積によって、発生原因が解明されることが望まれる。

## 引用文献

- 1) Barnes, L. and Eveson, J.W. (2005) Pathology and genetics of head and neck tumours. WHO Publications Center Albany, NY : 327.
- 2) 宮崎 正 (白砂兼光, 他編集, 2000) 口腔外科学, 第2版, 340-1, 医歯薬出版, 東京.
- 3) 領家利男, 岡本和己, 小谷仁美, 永見輝生, 小川隆嗣, 浜田 驍 (1984) 下顎骨に発生した大きな単純性骨嚢胞の1例. 日口外誌 **30** : 1505-8.
- 4) 塩谷洋史, 山本一彦, 中谷善幸, 遠藤武弘, 杉浦 勉, 杉村正仁 (1999) 単純性骨嚢胞の臨床的検討. 日口診誌 **12** : 411-6.
- 5) 小林良一, 長嶋駿一郎 (1991) 下顎骨に発生した単純性骨嚢胞の1例. 小児歯誌 **29** : 845-53.
- 6) Jacobs, M.H. (1955) The traumatic bone cyst. Oral Surg **8** : 940-9.
- 7) 中瀬 実, 野村城二, 森 厚 (1995) 外傷性骨嚢胞の臨床統計学的検討. 日口診誌 **8** : 319-23.
- 8) Hansen, L.S., Sapone, J. and Sapone, R.C. (1974) Traumatic bone cysts of jaws. Oral Surg **37** : 899-910.
- 9) Beasley, J.D. (1976) Traumatic cyst of the jaws : report of 30 cases. J Am Dent Assoc **92** : 145-52.
- 10) Howe, G.L. (1965) Haemorrhagic cysts of the mandible. Brit J Oral Surg **3** : 55-76.
- 11) Cohen, J. (1970) Etiology of simple bone cyst. J Bone Joint Surg **52A** : 1493-7.
- 12) 神谷祐司, 岩瀬晴彦, 白水敬昌, 小木信美, 向井 陽, 日下雅裕, 河合 幹, 内藤宗孝, 亀山洋一郎 (1990) 再発のみられた単純性骨嚢胞の1例. 日口外誌 **36** : 57-62.
- 13) 富田真一, 藤田 實, 田口 明, 末井良和, 安富慶昌, 青山正幸, 今川裕敏, 古木良彦, 定成隆, 谷本啓二, 上村修三郎, 和田卓郎 (1989) 単純性骨嚢胞-術後変化のX線学的検討-. 歯放 **29** : 329-40.
- 14) 松村晋輔, 塚本剛一, 吉岡徳枝, 岸本晃治, 佐々木 朗, 松村智弘 (2003) 単純性骨嚢胞の臨床的およびX線学的統計分析. 口科誌 **52** : 170-5.
- 15) Forssell, K., Forssell, H., Happonen, R-P. and Neva, M. (1988) Simple bone cyst. Review of the literature and analysis of 23 cases. Int J Oral Maxillofac Surg **17** : 21-4.
- 16) 松崎秀信, 相賀秀樹, 浅海淳一, 若狭 亨, 岸幹二 (1999) 単純性骨嚢胞の臨床X線学的検討. 岡山歯誌 **18** : 339-46.
- 17) 重松久夫, 鶴田朝樹, 馬越誠之, 斉藤一彦, 大須賀 敏, 鈴木正二 (1999) 単純性骨嚢胞に関する臨床的検討. 日口診誌 **12** : 343-6.
- 18) Ruprecht, A. and Reid, J. (1975) Simple bone cyst. Report of two cases. Oral Surg Oral Med Oral Pathol **39** : 826-32.
- 19) Hall, A.M. and Orth, D. (1976) The solitary bone cyst. Report of two cases. Oral Surg Oral Med Oral Pathol **43** : 164-8.
- 20) Mupparapu, M., Singer, SR., Milles, M. and Rinaggio, J. (2005) Simultaneous presentation of focal cemento-osseous dysplasia and simple bone cyst of the mandible masquerading as a multilocular radiolucency. Dentomaxillofac Rad **34** : 39-43.