

両側性に発生したいわゆる球状上顎嚢胞の臨床的検討

浜田智弘 金 秀樹 川原一郎 高田 訓
大野 敬 遊佐淳子¹ 伊東博司¹

Clinical Study of Bilateral So-called Globulomaxillary Cysts

Tomohiro HAMADA, Hideki KON, Ichiro KAWAHARA, Satoshi TAKADA
Takashi OHNO, Junko YUSA¹ and Hiroshi ITO¹

Globulomaxillary cysts are located in the site of fusion of globular process and maxillary process, and they are not of odontogenic origin. However, their etiology is obscure. Therefore, they are often identified with other cysts or tumors. However, some globulomaxillary cysts can not be classified into any other disease and it may suggest that they are separate disease. We report a case of bilateral globulomaxillary cysts.

A 13-year-old boy was referred to us because of pain in the left anterior part in the maxilla. X-ray and CT revealed anomalous distances between the roots of a lateral incisor and a canine and this characteristic finding led to a diagnosis of bilateral globulomaxillary cysts. The bilateral lateral incisor and the canine were vital teeth. Both cysts were removed under general anesthesia. The inner surface of the cyst wall was lined by non-keratinizing squamous epithelium, which showed anastomosis of elongated rete pegs. The patient's postoperative course has been good with no evidence of recurrence.

Key words : bilateral, globulomaxillary cyst, 13-year-old boy

緒 言

球状上顎嚢胞は顔裂性嚢胞とされていたが、顔面発生時に上皮は取り込まれにくいという理由から現行のWHOの分類から除外されている¹⁻⁴⁾。しかし、本疾患の独立性を示す報告も多く、「いわゆる球状上顎嚢胞」の病名を用いた報告は現在も散見される⁵⁻⁸⁾。本疾患は通常、片側性に発生し、両側性に発生することはきわめて稀とされている。今回われわれは13歳男児に発生した両側性のいわゆる球状上顎嚢胞の1例を経験したのでその概要を報告する。

症 例

患者：13歳，男児。

初診：平成19年9月15日。

主訴：左側上顎側切歯部歯肉の疼痛。

既往歴：特記事項なし。

現病歴：平成19年9月14日より左側上顎側切歯部歯肉に疼痛を自覚し、同年9月15日に某歯科医院を受診した。X線写真にて同部に境界明瞭な洋梨状の透過像を認めたため、精査加療目的の紹介により同日、当科初診となった。

現 症：

受付：平成23年3月31日，受理：平成23年5月9日
奥羽大学歯学部口腔外科学講座
奥羽大学歯学部口腔病態解析制御学講座口腔病理学分野¹

Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Ohu University School of Dentistry
Division of Oral Pathology, Department of Oral Medical Sciences, Ohu University School of Dentistry¹

全身所見；体格は中等度で，栄養状態は良好であった。

口腔外所見；顔貌は左右対称で異常所見を認めなかった（写真1）。

口腔内所見；左側上顎側切歯根先部歯肉に軽度の腫脹があり，同部の圧痛を認めた。歯の動揺はなく，電気歯髓診にて両側上顎側切歯および犬歯は生活反応があった（写真2）。

X線所見；両側の上顎側切歯と犬歯の歯根離開を認め，同部に境界明瞭な洋梨状の透過像を認めた（写真3）。

臨床診断：両側上顎骨嚢胞（いわゆる球状上顎嚢胞）。

処置および経過：外来にて抗菌薬投与を行い，疼痛消失の後，平成19年10月19日，入院全身麻酔下にて両側上顎骨嚢胞摘出術を施行した。

粘膜骨膜弁を形成すると皮質骨の菲薄化を認めた。同部の骨を削除し一塊として摘出した。嚢胞壁は厚く，周囲との剥離は容易で，内容液は黄色漿液性であった（写真4）。また，両側側切歯歯根は嚢胞腔内に含まれていた。術後は再発等の異常はなく良好に経過し，術後1年にて終診とした（写真5）。

病理組織所見：深部は炎症性肉芽組織，表層は線維性結合組織からなり，部分的に非角化重層扁平上皮で裏装されていた。裏装上皮は一部で釘脚の延長がみられ，炎症性肉芽組織には，好中球，形質細胞，リンパ球などの炎症細胞浸潤を認めた（写真6）。

考 察

1. いわゆる球状上顎嚢胞について

いわゆる球状上顎嚢胞は，角化嚢胞性歯原性腫瘍，根側性歯根嚢胞，残留嚢胞，側方性歯周嚢胞のいずれかであるとされるが¹⁻⁴⁾，本疾患の独立性を示唆する報告も多い⁵⁻⁸⁾。亀山ら⁷⁾は，上顎側切歯・犬歯間に嚢胞様病変がみられた59例中7例がX線学的にいわゆる球状上顎嚢胞の所見を示し，臨床的・病理組織学的に検討を行ったところ，そのうち3例が歯根嚢胞，1例が角化嚢胞性歯原性腫瘍，1例が石灰化嚢胞性歯原性腫瘍，1例が残留嚢胞と考えられたとしたが，1例は他の疾患

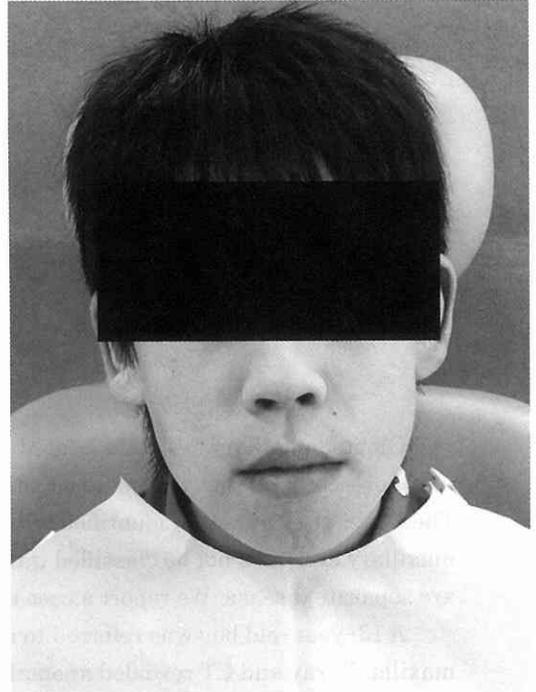


写真1 初診時顔貌写真

に分類し得なかったと報告している。また，Kramer ら⁹⁾も上顎側切歯と犬歯間に特有の嚢胞様X線透過像を呈する疾患があり，他の嚢胞や腫瘍とは異なった病変も存在すると述べている。本症例も臨床的，病理組織学的に他の疾患に診断できず，そのような独立した病変の可能性が考えられる。

2. 両側性のいわゆる球状上顎嚢胞について

いわゆる球状上顎嚢胞が両側性に発生することは稀であり，本邦における報告例は，われわれが渉猟し得た限り本症例を含め5例のみである⁸⁻¹¹⁾（表1）。発症年齢は13～27歳であり若年者に多い傾向がある。本症例は男性であったが，過去の報告例4例はすべて女性であり，女性に多い傾向がうかがえる。内容液は1例不明，1例膿性であり，その他は本症例と同様に黄色であった。病理組織所見も類似しており，感染所見が強く，裏装上皮が観察されなかった2例を除き，重層扁平上皮の裏装がみられた。予後については，いずれも良好であった。

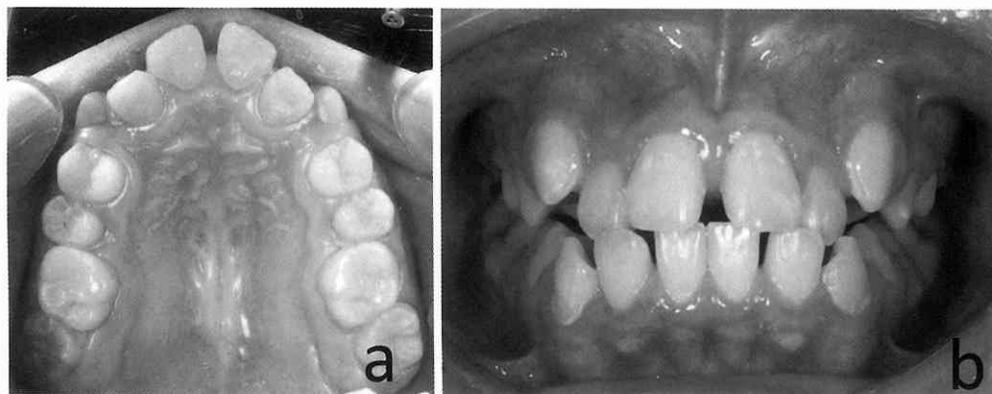


写真2 初診時口腔内写真(a:咬合面観 b:正面観)

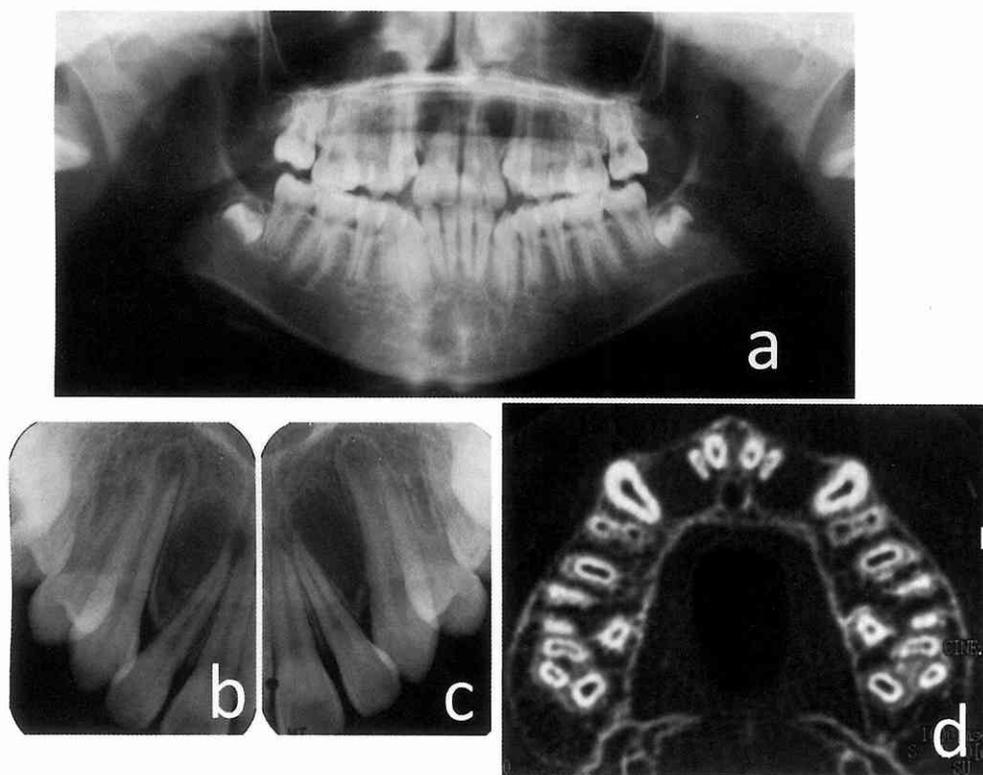


写真3 初診時X線写真およびCT写真

- a パノラマX線写真。両側の上顎側切歯と犬歯の歯根離開を認めた。
- b 右側デンタルX線写真。
- c 左側デンタルX線写真。
- d CT写真。両側上顎側切歯と犬歯の間に透過像を認めた。

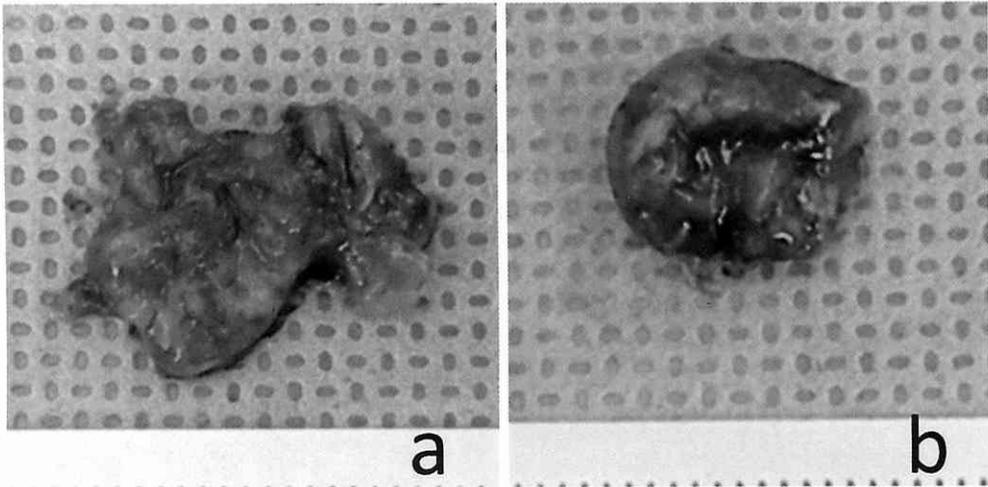


写真4 摘出物写真(a:右側 b:左側)

嚢胞壁は厚く、内容液は黄色漿液性。径は右側、左側ともに15mm程度であった。

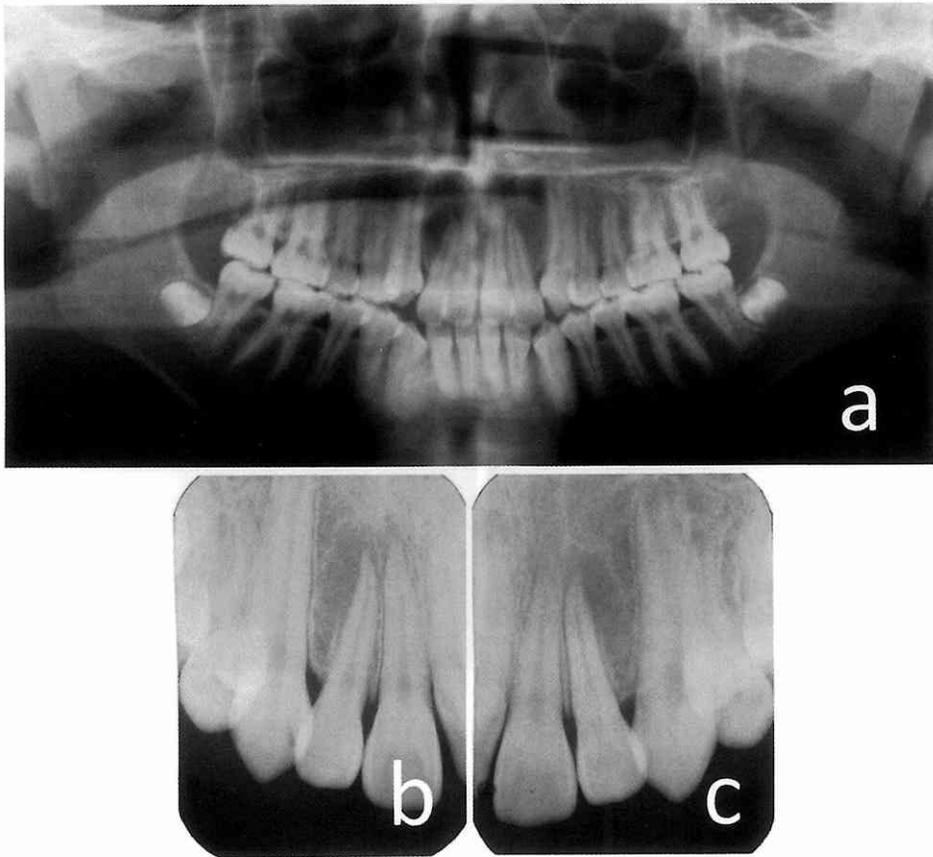


写真5 術後1年時X線写真(a:パノラマ b:右側デンタル c:左側デンタル)

再発所見はなく、患部に骨添加が認められた。

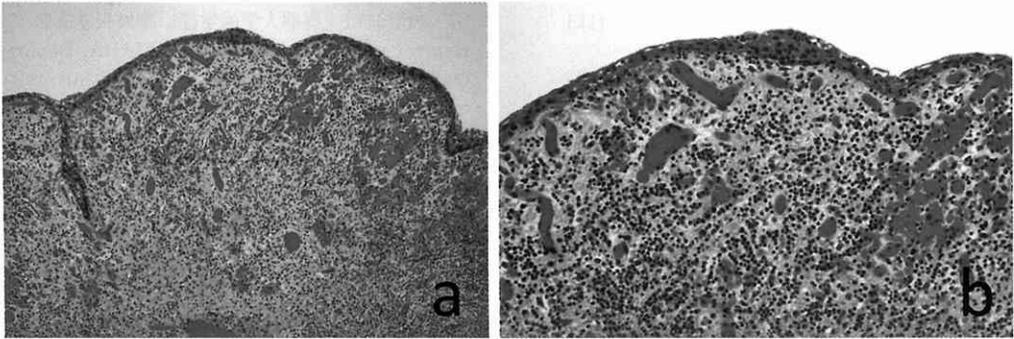


写真6 病理組織像(H-E染色 a：弱拡大 b：強拡大)

非角化重層扁平上皮で裏装されており、一部で釘脚の延長がみられた。炎症性肉芽組織には、炎症細胞浸潤を認めた。

表1 両側性のいわゆる球状上顎嚢胞の報告 (本邦)

報告年	報告者	年齢	性別	内容液	病理組織所見	予後
	自験例	13歳	男性	黄色漿液性	裏装上皮：非角化重層扁平上皮 炎症細胞浸潤あり	良好
2006	高坂ら	15歳	女性	半透明 やや黄色	裏装上皮：観察されず 感染所見あり	良好
1994	長坂ら	15歳	女性	膿性	裏装上皮：観察されず 感染所見あり	良好
1994	尾澤ら	27歳	女性	黄色漿液性	裏装上皮：重層扁平上皮	良好
1992	鈴木ら	19歳	女性	不明	裏装上皮：重層扁平上皮	良好

結 語

13歳男児に発生した両側性のいわゆる球状上顎嚢胞の1例を経験したので、若干の文献的知見を加え報告した。いわゆる球状上顎嚢胞は、その発生等について未だ不明な点が多く、今後もさらなる症例検討の蓄積が必要と考えられる。

本論文の要旨は、第53回日本口腔外科学会総会（平成20年10月 徳島）において発表した。

文 献

- 1) 下野正基, 野間弘康, 山根源之, 田中陽一, 井上 孝：いわゆる顔裂性嚢胞—②球状上顎嚢胞. 口腔外科・病理診断アトラス（下野正基編）第1版；112-113 医歯薬出版 東京 2001.
- 2) Shear, M. : Cyst of jaws : Recent advances. J Oral Pathol. 14 ; 43-59 1985.
- 3) Christ, T. F. : The globulomaxillary cyst : An

embryologic misconception. Oral Surg Oral Med Oral Pathol. 30 ; 515-526 1970.

- 4) Little, J. W. and Jakobsen, J. : Origin of globulomaxillary cyst. J Oral Surg. 31 ; 188-195 1973.
- 5) Kramer, I. R. H., Pinborg, J. J. and Shear, M. : 上皮性嚢胞. WHO 歯原性腫瘍の組織学的分類（日本口腔病理学会誌）第2版；31-38 医歯薬出版 東京 1996.
- 6) 高田 訓, 浜田智弘, 小坂橋 勉, 金 秀樹, 中江次郎, 大野 敬：小児の上顎嚢胞から発生したと考えられた扁平上皮癌の1例. 日口外誌 52 ; 724-727 2006.
- 7) 亀山達弘, 杉原良枝, 黒瀬邦彦, 田中秀昌, 中津継夫, 早瀬康博, 秋田和俊, 岸 幹二：上顎側切歯・犬歯間にみられる嚢胞性疾患のX線学的検討. 歯科放射線 29 ; 349-356 1990.
- 8) 高坂久美子, 小野芳男：両側性に発生した球状上顎嚢胞の1例. 小児口腔外科 16 ; 165-168 2006.
- 9) 長坂多賀子, 丸茂一郎：両側性球状上顎嚢胞と思われた1例. 仙台赤十字病院医学誌 3 ; 105-108 1994.

- 10) 尾澤陽子, 山田祐敬, 嘉悦淳男, 小林正人: 両側性にみられた球状上顎嚢胞の1例(抄). 日口科誌 **43**; 311 1994.
- 11) 鈴木 徹, 鈴木浩之, 北川善政, 江口克己, 藤巻 元, 橋本賢二: 両側性球状上顎嚢胞の1例(抄). 日口外誌 **38**; 1963-1964 1992.

著者への連絡先; 浜田智弘, (〒963-8611) 郡山市富田町字三角堂31-1 奥羽大学歯学部口腔外科学講座
Reprint requests : Tomohiro HAMADA, Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Ohu University school of Dentistry
31-1 Misumido, Tomita, Koriyama, 963-8611, Japan