篩骨洞原発と考えられる Ossifying Fibroma の一症例

—Fibrous Dysplasia との関連—

津田 守・伊藤 弘・片岡 隆嗣*・田中 昭男**

A Case of Ossifying Fibroma of the Ethmoid Region

Mamoru Tsuda, Hiroshi Ito, Ryuji Kataoka

(Osaka Rosai Hospital)

Akio Tanaka

(Osaka Dental University)

The classification of benign fibro-osseous lesions is not unequivocal. It is especially difficult to distinguish ossifying fibroma from fibrous dysplasia. We report two cases of these benign fibro-osseous lesions here.

The first case was a 37-year-old female complaining of right-sided exophthalmus and nasal obstruction. Radiographically, the border of the lesion was well defined. This lesion was totally removed while preserving the orbital contents and histo-pathologically was diagnosed as ossifying fibroma.

The second case was a 15-year-old male complaining of painless swelling of the right cheek. Radiographically the border of the lesion was not well defined. He underwent curetting and histopathologically this lesion was diagnosed as fibrous dysplasia.

These two lesions were analyzed with respect to clinical, surgical, radiographical and histopathological features. As a result of the analysis, we conclude that ossifying fibroma was not identical with fibrous dysplasia.

I は じ め に

顎骨に生ずる硬組織を伴う良性線維性腫瘍は、顎骨内部に歯牙を有するため骨原性腫瘍と歯原性腫瘍に分類される。しかし骨と歯牙（象牙質・セメント質）は同じ中胚葉起源であり、硬組織が骨由来のものか、歯牙由来のものか、その鑑別がきわめて困難な症例も多い。また疾患の名称も諸家によりまちまちであり、いまだ決まった分類がなされていない¹⁾。

さらに骨原性腫瘍に分類される Ossifying Fibroma と Fibrous Dysplasia の異同に関しても種々の論議がなされている。現在まで Schlumberger ら²⁾に代表される両者を同一のものとする考え

*大阪労災病院耳鼻咽喉科

**大阪歯科大学

と, Thomaら³⁾ に代表される両者を異なったものとする考えに大別される. しかし, 最近では, 今井⁴⁾ のように全症例を区別分類することは不可能であり, すべてを包括した大きな集合として **Benign Fibro-osseous Lesions** としてまとめるような考え方も出てきている.

歯牙との関係がきわめて強い病変だけに, 口腔外科領域に多く耳鼻咽喉科を受診する例は少ないが, 今回我々は篩骨洞原発と思われる巨大な **Ossifying Fibroma** の稀有なる症例を経験したので報告するとともに, **Fibrous Dysplasia** の 1 例もあわせて供覧し, 両者の比較検討および若干の文献的考察を試みた.

II 症 例

〔症例 1〕 37才女性 主婦

主訴: 右眼球突出, 鼻閉 (右>左)

既往歴, 家族歴: 特記すべきことなし

現病歴: 昭和40年頃より右鼻閉出現, 昭和45年頃よりいびき, 昭和49年某医を受診し精査をすすめられるも放置. 昭和50年より右眼球突出, 昭和52年より時々右鼻出血, 昭和53年より右視力低下をきたした. 昭和55年2月1日当科初診.

初診時所見: 全身的には著変を認めなかった. 局所的には著しい右眼球突出および外鼻の変形が認められた (図 1). 前鼻鏡所見で腫瘍

は右鼻腔に充満し鼻中隔は左へ大きく圧排変位していた (図 2). 後鼻鏡所見でも, 後鼻腔に

図 1 症例 1 術前

図 2 前鼻鏡所見 (右鼻腔)

図 3 後鼻鏡所見

図4 鼻部X線断層 (3 cm)

図5 頭部CT

灰白色の腫瘍が認められた (図3)・

検査所見:

。血液・尿検査; 異常を認めなかった。

。副鼻腔レ線; 上顎骨の中央に卵円形の境界明瞭な腫瘍陰影および腫瘍周囲の骨硬化像が認められた。上顎洞は外方に圧排され、右眼窩下・内壁は破壊されていた (図4)。

。頭部 CT Scan; 篩骨洞より鼻腔にかけての巨大な腫瘍陰影および右眼窩内壁の破壊による右眼球突出が認められ、腫瘍内には内腔の存

図6 摘出腫瘍 (一部)

図7 病理組織像H E染色 (×33)

在が予想された (図 5)。

手術所見：経上顎洞法にて腫瘍を剝離すると、血性内容液の充満した内腔が認められ、腫瘍を数回にわけて摘出すると、上部は一部脳硬膜が露出、眼窩下・内壁は破壊され、右上顎洞は外方へ圧排されながらも存在し、鼻中隔は左へ大きく変位、後方は後鼻腔に腫瘍が露出していた (図 6)。

組織学的所見 (図 7)：紡錘形の線維芽細胞と結合織性の線維増殖よりなる線維腫性組織の中に類円形および細く長い硬組織が散在していた。硬組織内には封入細胞が認められ、一部層板状構造もあり、かなり成熟した骨組織と思われた。硬組織周囲には骨芽細胞の並列したところもあり、間質は血管成分に富んでおり、硬組織は線維骨ではないと考えた。

以上総合して、本例を篩骨洞原発の **Ossifying Fibroma** と診断した。図 8 は、術後 2 ヶ月の顔面写真であるが、眼球突出、外鼻の変形はかなり改善された。

〔症例 2〕 15才 男性、高校生

主 訴：右頬部腫脹

既往歴：家族歴：特記すべきことなし

現病歴：幼少時より右頬部腫脹軽度あり。

昭和45年頃より腫脹が徐々に増大してきたため、昭和49年8月当科初診。外来にて経過観察したところ、腫脹が著明となったため手術目的にて、昭和55年8月当科入院。

入院時所見：全身的には著変を認めなかった。局所的には、右頬部腫脹が認められたが (図 9)、鼻腔内、後鼻腔とも異常なく、歯牙の変位も認められなかった。

検査所見：

○血液・尿検査；異常を認めなかった。

○副鼻腔レ線：右上顎洞を中心として強度のびまん性陰影が認められたが、疾患の境界は不明瞭であった (図10)。

手術所見：犬歯窩より上顎前壁に達し、膨隆した硬組織を搔爬した。

組織学的所見 (図11, 図12)：結合組織間に

図 8 症例 1 術後

図 9 症例 2 術前

図10 鼻部X線

散在する新生骨梁が認められる。新生骨梁には層板状構造は認められない。鍍銀染色をすると、新生骨梁周囲に直交する細線状構造が明瞭と

Ⅲ 考

顎骨に生ずる硬組織を伴った良性線維性腫瘍を骨原性もしくは歯原性に分類することがきわめて困難な症例が多いことはすでに述べた。これは骨・歯牙（象牙質・セメント質）ともに中胚葉起源であるため、特に形成硬組織が幼熟な段階では両者はきわめて高い類似性をもつからである。さらには、両者の混在した形も認められときには急速に発育増大し、広範な手術を余儀なくされた例も報告されている⁵⁾⁶⁾。Hamner⁷⁾は偏光顕微鏡によって硬組織が骨由来か歯牙由来かを鑑別する方法を述べているが、今井⁴⁾はこれとても成熟した硬組織においては分類可能であるが、未熟なものでは分類困難であり、一括して Cemento-ossifying Fibroma と

図11 病理組織像H E染色 (×33)

図12 病理組織像鍍銀染色×66

なり、線維性化骨の特徴があらわれていた。

以上より、本例を Fibrous Dysplasia と診断した。

察

して分類している。幸いにも、症例1では、その形成する硬組織の中に封入細胞が存在し、一部層板状構造も認められ、かなり成熟した骨組織であり、切片中にセメント質由来の硬組織が認められなかったので Ossifying Fibroma と診断することができた。

ところで Ossifying Fibroma の名称は Montogomery⁸⁾に始まるといわれ、別名 Fibrous Osteoma, Osteofibroma と呼ばれている。

Ossifying Fibroma は症例2で供覧した Fibrous Dysplasia とその疾患の異同に関して以前より諸家の論議的となっている。ここで、Fibrous Dysplasia はかつて線維性骨炎の1型と考えられたものであって polyostotic type

と monostotic type に分類され, polyostotic type の中には, 骨病変・性的早熟・皮膚の色素沈着 (Cafe-au-lait spot) を trias とする Albright Syndrome も含まれる. 顎骨では主に monostotic type が多い. Schlumberger²⁾ は Ossifying Fibroma と Fibrous Dysplasia を同一の病変であるとし, Thoma, 石川ら⁹⁾ は前者を腫瘍性病変, 後者を異形成的病変として考えている. 両者を異なった病変とする考え方は主に疾患の境界の有無によってであり, Eversole¹⁰⁾ にも線維的にこれらを区別している. 組織学的には Ossifying Fibroma が硬組織は類円形小塊状のものが多く, 層板状構造が認められるのに対して, Fibrous Dysplasia では不規則で細長い梁状のものが多く, 線維骨の性状が明瞭で, ときに梁縁に骨芽細胞が認められる.

以上の点に留意しながら紹介した 2 症例を各

々分析する. 症例 1 では①発症年齢が成人以後, ②病変の境界はレ線所見・手術所見とも明瞭, ③組織学的には類円形を中心とした硬組織および線維腫組織よりなり, ところにより骨梁周囲に骨芽細胞が並列し, 線維性化骨は認められない, ④治療法としては摘出術を施行した. これに対して症例 2 では①発症年齢が 10 才前後, ②病変の境界がレ線所見・手術所見とも不明瞭, ③組織学的には線維骨の形成が著明で, 骨梁に並列した骨芽細胞や層板状構造はあまり認められない, ④治療法としては搔爬術を施行した.

症例 1 と症例 2 との間には上述したような相違点が認められ, 比較的鑑別は容易であった. 他の硬組織形成を伴う良性線維性疾患も含めて鑑別困難な症例が多々あるとしても, 我々は Ossifying Fibroma と Fibrous Dysplasia を異なった疾患とする立場をとりたいと考えた.

IV ま と め

- 1) 篩骨洞原発と思われる Ossifying Fibroma の 1 例を供覧した.
- 2) 上顎骨に発生した Fibrous Dysplasia の 1 例を供覧した.
- 3) 両疾患を, (i) 発症年齢, (ii) 臨床所見, (iii) レ線所見, (iv) 手術所見, (v) 組織所見にわけて比較検討した.

本論文の要旨は第 42 回耳鼻咽喉科臨床会総会にて発表した.

参 考 文 献

- 1) 藤岡幸雄: 中心性顎骨線維腫の種々相について. 日口科誌 9 : 323~333, 1960.
- 2) Schlumberger, H.G. : Fibrous dysplasia (ossifying fibroma) of the maxilla and mandible. Amer. J. Ortho. oral Surg. (Oral Surg. Sec.) 32 : 579~587, 1946.
- 3) Thoma, K.H. : Differential Diagnosis of fibrous dysplasia and fibro-osseous neoplastic lesions of the jaw and their treatment Jour. of Oral Surg. 185~194, (July) 1956.
- 4) 今井一彦: 硬組織形成を伴う顎の良性線維性疾患についての臨床的, エックス線のならびに病理組織学的研究. 岐歯学誌 5 : 68~97, 1977.
- 5) Krausen, A.S. : Cementomas (II Aggressive cemento-ossifying fibroma of the ethmoid region). Arch Otolaryngol. 103 : 371~373, June 1977.
- 6) Hamner, J.E., Lightbody, P.M., Ketcham, A.S. : Cemento-ossifying fibroma of the maxilla. O. S., O.M., & O. P. 26 : 579~587, 1968.
- 7) Hamner, J.E., Scofield, H.H. and Cornyn, J. : Benign fibro-osseous jaw lesions of periodontal membrane origin : An analysis of 249 cases, Cancer 22 : 861~878, Oct. 1968.
- 8) Montgomery, A.H. : Ossifying fibromas of the jaws. Arch. Surg. 15 : 30~44, 1927.

- 9) 石川梧郎, 他: 口腔病理学. I 969~974.
- 10) Eversole, L.R., Sabes, W. R. and Rovin. S. :
Fibrous dysplasia : A nosologic problem in the
diagnosis of fibro-osseous lesions of the ja-
ws. J.Oral Path. I : 189~220, 1972.

(原稿到着: 昭和55年11月17日
別刷請求先: 津田守
〒591堺市長曽根町1179-3
大阪労災病院耳鼻咽喉科)