腐骨化した巨大な骨形成性エプーリスの1例

増田 智 丈¹⁾・田 中 徳 昭²⁾・飯 田 征 二¹⁾
 沢井奈津子¹⁾・小 倉 孝 文³⁾・古 郷 幹 彦¹⁾

A case of giant epulis osteoplastica with a sequestrum

MASUDA Tomotake¹⁾・TANAKA Noriaki²⁾・IIDA Seiji¹⁾
 SAWAI Natsuko¹⁾・OGURA Takafumi³⁾・KOGO Mikihiro¹⁾

Abstract: Epulis osteoplastica is a rare disease. We report a case of giant epulis osteoplastica containing a large sequestrum. A 63-year-old man was referred to our clinic because of a painless swelling on the left mandibular alveolus. Intraoral examination revealed an elastic hard tumor with a normal surface in the left lower molar region. Radiographic examination showed a large radiopaque mass separate from mandibular bone. Gingival tumor excision was performed with the patient under general anesthesia. The excised specimen measured 50 × 38 × 28 mm and contained the bony mass. Histopathologically, the lesion was diagnosed as epulis osteoplastica with a sequestrum. The patient was followed up for 4 years after the operation, without any recurrence.

Key words: sequestrum (腐骨), epulis osteoplastica (骨形成性エプーリス), giant epulis (巨大エプーリス), infection (感染)

緒 言

エプーリスは歯肉にみられる良性限局性腫瘍の総括的臨床名で、病理組織学的に肉芽腫性、線維性、線維腫性および骨形成性などに分類される^{1, 2)}。歯肉の腫瘍として高頻度に見られる疾患であるが腫瘍中に骨様組織の形成を伴う骨形成性エプーリスの発生頻度は比較的まれである^{1, 3, 4)}。

腐骨は、骨組織の栄養系が断たれて生じる壊死性の変化であり、骨組織であればいずれの部位においても生じうる病態である。歯性疾患による感染の機会の多い顎骨においては、骨髄炎等により腐骨を形成する頻度は、他部位の骨に比べて多く、口腔領域においてよくみられる骨組織の変

化である^{5~7)}。しかしながら、顎骨周辺性に発生する骨形成性疾患に関連した腐骨形成の報告はわれわれが検索した範囲では渉猟し得ず、発生頻度は極めて低いものと考えられる。

今回われわれは、感染により腐骨化をきたしたと考えられる巨大な下顎歯肉部の腫瘍様病変を経験し、その病態から感染により腐骨化した骨形成性エプーリスと考えられた1例を経験したので報告する。

症 例

患 者：63歳、男性。

主 訴：左側下顎臼歯部腫瘍。

初診日：2004年5月。

既往歴：初診より3年前に腎機能低下を検診にて指摘されたが、とくに加療の必要はなく内科にて経過観察中である。他に椎間板ヘルニアがある。

現病歴：10数年前より左側下顎臼歯欠損部歯肉の腫脹を自覚していたが放置していた。その後腫脹は緩徐に増大し、当院初診の1か月前に咀嚼時の障害を自覚したため、某歯科医院を受診した。その後精査を勧められ紹介により市立堺病院歯科口腔外科を受診した。

全身所見：体格は中等度、栄養状態は良好であった。

口腔外所見：顔貌は左右対称で、特記すべき異常所見は認めなかった。

¹⁾ 大阪大学大学院歯学研究科顎口腔病態制御学講座
 (口腔外科学第一教室)

(主任：古郷幹彦教授)

²⁾ 兵庫医科大学歯科口腔外科

(主任：浦出雅裕教授)

³⁾ 市立堺病院歯科口腔外科

(主任：小倉孝文部長)

¹⁾ The First Department of Oral and Maxillofacial Surgery,
 Osaka University Graduate School of Dentistry (Chief:
 Prof. KOGO Mikihiro)

²⁾ Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Hyogo
 College of Medicine (Chief: Prof. URADE Masahiro)

³⁾ Department of Dentistry and Oral Surgery, Sakai Municipal
 Hospital (Chief: OGURA Takafumi)

受付日：2008年8月20日

採択日：2009年6月23日

写真1 初診時口腔内写真

- A：下顎正中から左側臼歯部にかけて境界明瞭な歯肉様組織増殖を認める。
 B：「3」の舌側に著しい歯石沈着を認め、腫瘍中央部には瘻孔（矢印）が存在し、同部より排膿を認めた。腐骨の一部露出を丸印で示す（鏡面像）。

口腔内所見：下顎は「2」、 「3」のみ残存しており、正中から左側下顎臼歯部にかけて境界明瞭な歯肉様組織増殖を認めた（写真1-A）。表面粘膜の性状は歯肉色であり弾性硬であった。「3」の舌側に著しい歯石沈着を認め、腫瘍中央部舌側の一部の粘膜には瘻孔が存在し同部より排膿を認めた（写真1-B）。また、腫瘍の舌側には腐骨の一部露出を認めたが、「3」の舌側近心部の沈着していた歯石との連続性は認めなかった。自発痛や圧痛は認めなかった。

X線所見：パノラマX線写真より、下顎正中から「8」相当部にかけて歯槽骨上に遊離して存在する辺縁不整なX線不透過像を認めた（写真2-A）。CT所見より、腫瘍内部に辺縁が不規則で内部が不均一な、皮質骨と同程度のdensityを有するX線不透過像を認めた（写真2-B, C）。同不透過像と下顎骨との連続性は認められず、明らかな骨吸収像も

認められなかった（写真2-D）。

臨床診断：腐骨を伴った左側下顎歯肉良性腫瘍。

処置および経過：病巣部より排膿が認められたため、初診より経口抗菌薬内服による消炎処置および口腔清掃を行い、2004年7月に全身麻酔下で下顎歯肉腫瘍切除術を施行した。腫瘍茎部を含めて歯槽頂、骨膜を含めて切開を加え、硬組織部とともに切除し同時に「3」の抜歯を行った。腫瘍内の硬組織と歯槽骨との間には軟組織が介在しており、切除後の顎骨骨面には骨吸収像は認めなかった。腫瘍切除後骨面を一層削除し、減張切開を加え閉創した。切除組織は50×38×28mm大で、表面歯肉は正常、弾性硬であり、腫瘍の大部分に淡黄白色の骨様硬組織を認めた。

本症例は現在術後4年が経過しているが、再発はなく経過は良好である（写真3-A, B）。

病理組織学的所見：上皮下組織は広範な線維化を示しており、内部に肉芽組織で周囲を囲まれた骨組織を認めた（写真4-A）。硬組織は緻密骨様であるが、一部を除き骨芽細胞はほとんど認められず、また骨小腔内には壊死組織を認め（写真4-B）、腐骨化した骨組織と診断された。腐骨周囲には著明な炎症細胞浸潤が認められ、骨・セメント質形成性の病変が感染を受けたものと考えられた。

病理組織学的診断：骨形成性エプーリス。

考 察

腐骨は、骨組織の栄養系が断たれ生じる壊死性の変化であり、骨組織であれば、いずれの部位においても生じうる病態である。口腔領域で生じる腐骨の原因は骨髓炎、放射線性骨壊死、外傷による骨組織の外界への長期露出、またビスフォスフォネートに関連した顎骨壊死⁸⁾などさまざま見受けられる⁹⁾。

本症例の病変は下顎骨との連続性がなく、骨様組織下部の歯槽骨に骨髓炎がみられるような骨吸収もなかったことから、骨髓炎や骨中心性に発生した疾患の可能性は低く、その成り立ちから骨形成性エプーリスである可能性が最も強く考えられた。病理組織学的にも腐骨化した骨様組織の周囲に肉芽組織が囲んでおり、骨・セメント質形成性の病変が感染したと考えられる組織像を呈していた。エプーリスの発生原基として、歯肉、歯根膜、骨膜、そしてそれぞれの結合組織の関与が考えられている^{1, 3, 4)}。本症例の発生原基を特定することは困難であるが、術中所見として腫瘍と「3」歯根膜の連続性を認めたことから同歯が発生に関与している可能性が高いと考えられた。

エプーリスの大きさは直径10mm以下のものが多く、5～20mmまでのものが全体の90%を占めるとの報告があり^{10～12)}、口腔衛生意識が向上した今日ではエプーリスが巨大化するまで放置される機会は少ない。本邦における骨

写真2 初診時のX線画像

A：パノラマX線写真.

B, C, D：水平断CTエックス線画像.

形成性エプーリスの発生頻度は、全エプーリス中で、石川ら¹⁾は7.8%，岡上ら³⁾は11%，好士⁴⁾は4.6%，と報告しており、比較的なまれな疾患と考えられる。患者の年齢は10歳代から60歳代までと各年齢にわたって広く認められているが^{3, 13, 14)}，そのピークは40歳代にあるとする報告が多く、エプーリス全体から考えるとやや高齢であると思われる。50mm以上に巨大化した例は、馬場ら¹⁵⁾による80×70×50mm大などの報告もあるがわれわれが渉猟し得た範囲では非常にまれであると考えられる(表1)。これらの比較的大きなエプーリスとして報告された症例では単なる炎症性、反応性増殖にとどまらず、腫瘍性の増殖物としての性格を有している可能性があると考えられる^{16～21)}。骨形成性エプーリスにみられる骨形成あるいは石灰化の成因に関してはいくつかの説が提唱されており、陳旧化したエプーリス内に化生や異栄養石灰化が起こるとする説²²⁾，歯根膜に存在する未分化間葉細胞が骨芽細胞，セメント芽

細胞に分化して硬組織形成が起こるとする説¹³⁾，表面の潰瘍の治癒過程で石灰化や骨化を伴うという説²³⁾，非造血系系の周皮細胞より直接形成されているという説²⁴⁾など統一した見解は得られていない。骨形成性エプーリスでみられる骨組織は成熟骨として認められる症例が一般的で、その形態はさまざまであり、組織学的には梁状骨、緻密骨、層板骨、セメント粒あるいは骨粒、および異栄養性石灰化に鈴木らは分類している²⁵⁾。巨大化した骨形成性エプーリス症例の骨組織像はわれわれが渉猟し得た範囲では梁状、セメント粒状に分類されるものが多く、本症例のように緻密骨を形成し、また腫瘍という特殊な環境下で感染により腐骨化した可能性のある症例は極めてまれであると考えられた。

前述の通り、比較的大きなエプーリスには腫瘍性の増殖物としての性格を有するものがあること²⁵⁾，また、エプーリスの発生原基として骨膜の関与が考えられていることか

ら、本症例では骨膜成分の腫瘍発生への関与を疑い、骨膜を含めた切除を行うとともに、骨面の一層の削除も行った。しかしながら本症例を含め、エプーリスの発生原因を特定することは難しく、今後再発の可能性は残っているため、十分な予後観察を続けていく必要がある。

写真3 術後5年経過時の所見

A：パノラマX線写真

B：口腔内写真

再発は認めず経過良好である。

写真4 病理組織像 (HE 染色)

A：上皮下組織は広範な線維化を示している。結合組織下には腐骨化した硬組織を認める (矢印) (×10)。

B：腐骨化した骨様組織の周囲には炎症性細胞の浸潤が認められ、骨小腔内には壊死組織を認める (矢印) (×100)。

表1 本邦における巨大骨形成性エプーリス報告例

No.	報告年	報告者	年齢	性別	部位	大きさ (mm)	石灰沈着様式
1	1999	馬場ら	54	女性	左側下顎臼歯部	80×70×50	層板状
2	1994	山城ら	76	女性	左側下顎前歯部	80×56×36	層板状
3	2003	野村ら	59	男性	左側下顎臼歯部	70×70×50	セメント粒様
4	2001	空閑ら	78	女性	右側下顎臼歯部	61×48×40	層板状
5	1995	武田ら	26	男性	左側下顎臼歯部	60×50×45	不明
6	1999	下山ら	65	女性	右側下顎臼歯部	53×50×30	梁状 散在
7	2000	金子ら	65	女性	右側下顎臼歯部	53×50×28	梁状 セメント粒様
8	2009	自験例	63	男性	左側下顎臼歯部	50×38×28	緻密骨状
9	2001	道念ら	49	男性	左側上顎前歯部	47×40×30	梁状 セメント粒様
10	1999	湯浅ら	37	男性	右側下顎臼歯部	45×40×30	梁状 セメント粒様
11	1998	刀禰ら	46	男性	左側下顎臼歯部	40×35×30	梁状 セメント粒様
12	1991	山本ら	52	女性	右側下顎臼歯部	35×30×15	不明

結 語

われわれは感染により腐骨化した巨大な骨形成性エプーリスと考えられた1例を経験したので、その概要について若干の文献的考察および検討を加えて報告した。

本論文の要旨は第52回日本口腔外科学会総会（2007年9月、名古屋市）にて発表した。

引 用 文 献

- 1) 石川梧郎, 秋吉正豊: 口腔病理学Ⅱ. 永末書店, 京都, 1982, 229-240頁.
- 2) 石田 武, 長谷川 清, 他: エプーリスの分類と自験例160例の集計観察. 口科誌 30: 14-23 1981.
- 3) 岡上真裕, 相崎邦雄, 他: エプーリスの発生起序に関する基礎的研究2. 硬組織形成性エプーリスの病理組織学的検討. 日大歯学 72: 824-831 1998.
- 4) 好士和夫: エプーリス (歯肉腫) の臨床的ならびに組織学的研究. 口病誌 26: 1662-1682 1959.
- 5) Anthony, J.P. and Mathes, S.J.: Update on chronic osteomyelitis. Clin Plast Surg 18: 515-523 1991.
- 6) Precious, D., Dalton, M., et al.: Infection of facial bones. J Otolaryngol 19: 214-221 1990.
- 7) d'Hauthuille, C., Testelin, S., et al.: Mandibular osteoradionecrosis: Part I: severity factors. Rev Stomatol Chir Maxillofac 108: 513-525 2007.
- 8) 浦出雅裕: ビスホスホネートと顎骨壊死. Clin Calcium 17: 241-248 2007.
- 9) Harris, L.F.: Chronic mandibular osteomyelitis. South Med J 79: 696-697 1986.
- 10) 森本英嗣, 領家利夫, 他: 当科におけるエプーリスの臨床的検討. 米子医誌 45: 212-222 1994.
- 11) 福田容子, 戸塚盛雄, 他: エプーリスの病理学的検討第3報: 硬組織形成性エプーリス. 日口外誌 34: 175-181 1988.
- 12) 高木信雄: 歯肉の限局性炎症性増殖病変への臨床病理学的研究. 愛知学院大歯会誌 38: 135-148 2000.
- 13) 川崎五郎, 空閑祥浩, 他: エプーリスの臨床統計的観察およびいわゆる骨形成性エプーリスについて. 口科誌 18: 80-85 1996.
- 14) 吉川文弘, 椿本有利子, 他: エプーリス 102 症例の臨床統計的検討. 口科誌 45: 198-201 1996.
- 15) 馬場信行, 松尾長光, 他: 顔貌変化をきたした巨大な骨形成性エプーリスの1例. 口科誌 48: 92-96 1999.
- 16) 道念正樹, 村上有二, 他: 顔貌変化をきたした巨大なセメント質骨形成性エプーリスの1例. 北海道歯誌 22: 50-54 2001.
- 17) 下山哲夫, 金子貴広, 他: 巨大な骨形成性エプーリスの1例. 日大歯学 74: 229-232 2000.
- 18) 湯浅秀道, 杉浦正幸, 他: 柱状の骨形成を伴う巨大な下顎エプーリスの1例. 日口外誌 45: 718-720 1999.
- 19) 坂本晴彦, 印南秀之, 他: 骨形成性エプーリスの1例. 栃木歯医会誌 51: 45-47 1999.
- 20) 横江秀隆, 横田 剛, 他: 骨腫性エプーリスの1例. 千葉医誌 75: 87-90 1999.
- 21) 野村章子: 不正咬合が巨大なエプーリスの誘因となった1症例に対する総合治療における補綴学の役割. 日補綴歯会誌 43: 757-758 1999.
- 22) 藤田浄秀, 林田定昭, 他: 骨線維性エプーリスの1症例. 日口外誌 18: 194-197 1972.
- 23) Southam, J.C. and Vekataraman, B.K.: Calcification and ossification in epulis in man (excluding giant cell epulis). Arch Oral Biol 18: 1248-1253 1973.
- 24) Dayoub, S., Devlin, H., et al.: Evidence for the formation of metaplastic bone from pericytes in calcifying fibroblastic granuloma. J Oral Pathol Med 32: 232-236 2003.
- 25) 鈴木仙一, 岡田裕之: 骨形成性エプーリスの病理組織像および細胞増殖能に関する研究. 日大口腔科学 28: 247-254 2002.