下顎角部に発生した類腱線維腫の1例

金子 允子・松田 博之

宮田 祐介・足立 雅利

A case of desmoplastic fibroma of the angle of the mandible

KANEKO Noriko · MATSUDA Hiroyuki · MIYATA Yusuke

ADACHI Masatoshi

Abstract: Desmoplastic fibroma rarely occurs in the jaw bone. However, we describe our recent experience with this type of desmoplastic fibroma developing in the left angle of the mandible of an 11-year-old girl. The patient had already recognized a lump in the left angle of the mandible about 1 and a half years previously and visited a pediatric clinic, but no definitive diagnosis was made at that time. Because the lump tended to enlarge thereafter, she visited a dental clinic and was then referred to our clinic for a detailed examination. As for the oral findings at admission, a bone-like hard lump was felt in the left angle of the mandible, associated with mild tenderness. Radiographic examination showed a unilocular transparent image with a slightly obscure borderline in the left angle of the mandible. Surgical resection was performed under general anesthesia. The histopathological findings suggested that the lump was composed of fibroblastic cells and collagen fibers. As of 11 months after operation, no local relapse has been noted.

Key words: desmoplastic fibroma (類腱線維腫), mandible (下顎骨)

緒 言

類腱線維腫は、骨中心性に発生する良性腫瘍で、組織学的には多量の膠原線維と線維芽細胞とで構成されており、腹壁などの軟組織に好発する類腱腫に類似する^{1~4)}。今回われわれは11歳女児の下顎角部に発生した本腫瘍の1例を経験したのでその概要を報告する。

症 例

患 者：11歳 女児。

初 診：2008年7月。

主 訴：左側下顎角部の腫脹。

現病歴：約1年半前より、左側下顎角部の腫脹を自覚したため某病院小児科を受診したが確定診断はつかず、経過観察を勧められた。その後も徐々に腫脹の増大傾向を認めたため2008年6月某歯科医院を受診。パノラマX線写真にて左側下顎角部の骨吸収像を認めたため精査を勧められ、当科を紹介来院した。

既往歴：生後10か月より3歳時に熱性痙攣、4歳時から小児喘息のため減感作療法を行っていた。9歳時に膀胱尿管逆流症。

家族歴：特記事項なし。

現 症：

全身所見：身長154cm、体重51kg、栄養状態は良好であった。

口腔外所見：顔貌はほぼ左右対称であるも触診にて左側下顎角部に骨様硬の腫瘤を認め、軽度の圧痛を訴えた。開口障害およびオトガイ神経領域の知覚異常は認めなかった。

口腔内所見：特記事項なし。

画像所見：パノラマX線所見では左側下顎角部に単房性、境界やや不明瞭なX線透過像を認めた。皮質骨は消失していた(写真1)。CT所見では左側下顎角部に25×15×18mm大の透過性病変を認め、病変により骨の頬舌的および下方への膨隆を認めた。皮質骨は菲薄化し、一部連続性が失われていた。舌側には骨膜反応様膨隆像を認めた(写真2A, B)。MRI所見では顎骨から下方へ膨隆する比較的境界明瞭な病変を認め、T1強調像では低信号、T2強調像では比較的境界明瞭で、中等度よりやや高信号を示していた(写真3A, B)。骨シンチグラム所見では病変へ

日本歯科大学附属病院口腔外科

(主任：足立雅利科長)

Oral and Maxillofacial Surgery, The Nippon Dental University Hospital (Chief: ADACHI Masatoshi)

受付日：2009年7月21日

採択日：2010年4月27日

写真1 パノラマX線画像

左側下顎角部に単房性、境界やや不明瞭なX線透過像を認めた。皮質骨は消失していた。

写真3 MRI画像

A：T1強調画像 B：T2強調画像

T1強調画像では低信号。

T2強調画像では比較的境界明瞭な中等度よりやや高信号を示した。

写真2 CT画像

A：骨条件画像 B：軟部条件画像

左側下顎角部に25×15×18mm大の透過性病変を認め、病変により骨の頬舌的および下方への膨隆を認めた。皮質骨は菲薄化し、一部連続性が失われていた。舌側には骨膜反応様膨隆像を認めた。

の集積は認めなかった。

臨床検査所見：血液検査の結果、ALP 695IU/L、好酸球12.1%と高値を認めた。

臨床診断：下顎骨腫瘍。

処置および経過：末梢血中の好酸球の増加を認めたことから、好酸球肉芽腫を疑い生検を兼ねた腫瘍切除術を計画した。本人および両親に十分な説明を行ったところ、同意が得られたため、2008年8月、全身麻酔下にて手術を施行した。手術は顎下部の皮切より下顎角部に達し、咬筋および内側翼突筋の一部を含め病変に一致した下顎骨を切除した。摘出標本は30×17×17mm、断面は灰白色の充実性であった（写真4A, B）。現在術後15か月経過しているが、再発は認めない。

病理組織学的所見：腫瘍組織では紡錘形細胞の増殖と、

写真4 摘出標本

A：摘出標本 B：剖面

A：大きさは30×17×17mm，咬筋および内側翼突筋の一部を含め下顎骨を切除した。

B：剖面は灰白色の充実性であった。

密な膠原線維を認めた。それら腫瘍細胞では核腫大，核分裂像等の異型を示す所見はみられなかった（写真5A, B, C）。また，腫瘍組織内には歯源性上皮は認めなかった。

病理組織学的診断：類腱線維腫。

考 察

類腱線維腫は，1958年にJaffe¹⁾によって報告された骨

写真5 病理組織像

A：H-E染色，弱拡大

B：H-E染色，中等度拡大

C：アザン染色，弱拡大

A, B：腫瘍組織では紡錘形細胞が密に増殖し，それら腫瘍細胞では核腫大，核分裂像等の異型を示す所見はみられなかった。

C：密な膠原線維の増生を認めた。

中心性の線維性腫瘍であり、組織学的には軟組織における類腱腫と類似する。1965年にGriffith²⁾らによって初めて本腫瘍の下顎骨発生例が報告された。Dahlin³⁾によると顎骨中心性線維腫についてはその多くは歯源性線維腫であり、類腱線維腫の発生はきわめてまれである。Nasser⁴⁾らは、過去40年間で顎骨に生じた類腱線維腫の74例について報告した。それによると性別は女性54%、男性45%、年齢は1歳から60歳まで分布し、そのうち84%が30歳未満であった。発生部位は下顎骨が84%で、大臼歯から下顎枝部に多く、上顎骨は16%であった。自験例は歯槽部でなく下顎角部に発生したため、口腔外に腫脹を認めたものである。

本腫瘍の発育は緩慢で、大多数の例では無症状のうちに増大し、歯科治療時のX線検査などによって発見されることが多い^{5, 6)}。Nasser⁴⁾らは、65%が顎骨の無痛性の腫脹であり、疼痛を有するものは15%であった。自験例も膨隆部に軽度の圧痛を訴えるのみで、自発痛は認めなかった。

X線所見は、一般的に境界明瞭な単房性または多房性のX線透過像を呈するとされているが、Nasser⁴⁾らの報告では、周囲の境界は明瞭、不明瞭とも18%と同程度であるが、単房性6%に対し、多房性36%と多房性が多かったとしている。また皮質骨の消失を30%に認めたと報告している。自験例は、境界やや不明瞭な単房性のX線透過像で、下顎下縁部の皮質骨の消失を認めた。

本腫瘍は組織学的には、多量の膠原線維とその線維束間に異型性がほとんど見られない紡錘形の線維芽細胞が散在するのが特徴とされている。また、小さな石灰化物が少数認められることもある。鑑別すべき疾患には線維肉腫、骨形成性線維腫などがあげられている^{7~10)}。自験例では膠原線維、紡錘形の線維芽細胞の増殖を認め、異型性は認めず、一部に石灰化を認めた。また、歯源性上皮、間葉性組織および骨形成は認めなかった。これらの所見より類腱線維腫と診断した。

治療法については、搔爬、摘出、切除などが行われているが、不完全な摘出では再発傾向が高いとされている。Nasser⁴⁾らは、搔爬では31%、切除では10.5%、WHO(2002年)の報告では搔爬で72%、切除では17%の再発

率であった。そのため本腫瘍の治療法としては、腫瘍の切除が適切であると考えられる。自験例は腫瘍の範囲を考慮し下顎下縁部の保存は不可能と考え周囲の軟組織を一部含めた下顎骨切除術を施行した。

結 語

われわれは、11歳女児の左側下顎角部に発生した類腱線維腫の1例を経験したので、文献的考察を加え報告した。

謝辞

稿を終えるにあたり、本症例の診断に際して御教授いただきました亀田典章先生(東邦大学医療センター佐倉病院 病院病理部)、柳下寿郎先生(日本歯科大学附属病院口腔病理診断室)に深く感謝致します。

引 用 文 献

- 1) Jaffe, H.L.: Tumors and Tumorous condition of the bones and joints. Lea & Febiger, Philadelphia, 1958, p298-313.
- 2) Griffith, J.G. and Irby, W.B.: Desmoplastic fibroma; report of a rare tumor of the oral structure. Oral Surg 20: 269-275 1965.
- 3) Dahlin, D.C.: Bone tumors; general aspects and data on cases. ed 3, Charles C. Thomas, Springfield, Illinois, 1978, p315-328.
- 4) Said-Al-Naief, N., Fernandes, R., et al.: Desmoplastic fibroma of jaw: a case report and review of literature. Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radio Endod 101: 82-94 2006.
- 5) Freedom, P.D., Cardo, V.A., et al.: Desmoplastic fibroma (fibromatosis) of the jaw bone; report of a and review of the literature. Oral Surg 20: 269-275 1965.
- 6) 松森 茂, 渡部英一, 他: 骨に原発した Desmpastic fibroma について. 整形外科 23: 275-281 1972.
- 7) 石川 梧朗 監修: 口腔病理学Ⅱ. 永末書店, 京都, 1982, 538-539 頁.
- 8) 高山泰雄, 松永信子, 他: 下顎骨に生じた類腱線維腫の1例. 日口外誌 37: 1485-1489 1991.
- 9) 田中 晋, 美馬孝至, 他: 疼痛を伴い下顎骨に発生した類腱線維腫の1例. 日口外誌 40: 461-463 1993.
- 10) 黒田 卓, 連 利隆, 他: 下顎骨に生じた類腱線維腫の1例. 日口外誌 44: 765-767 1998.