下顎頭に発生した内軟骨腫の1例

中川 聡・高 楠旻・吉本光洋・小村 健

A case of enchondroma of the mandibular condyle

NAKAGAWA Satoshi · KO Namiaki · YOSHIMOTO Mitsuhiro · OMURA Ken

Abstract: We report a case of enchondroma of the mandibular condyle. A 31-year-old woman was referred to our department because of pain in the right temporomandibular joint. Panoramic radiography showed enlargement of the right mandibular condyle. Computed tomographic scans revealed a bony mass protruding anteromedially from the right condyle. ^{99m}Tc scintigraphy showed increased uptake in the right condyle. On the basis of these findings, the lesion was clinically diagnosed to be a benign tumor of the mandibular condyle. Condylectomy was performed at the sigmoid notch level through a preauricular approach. The histopathological diagnosis of the surgical specimen was enchondroma. She was kept in maxillomandibular elastic traction and underwent mouth-opening training postoperatively for 3 months, and occlusal adjustment was performed. As a result, the maximum mouth opening was 48 mm, and occlusion was acceptable. There has been no recurrence of the tumor during a follow-up period of 1 year 4 months.

Key words: enchondroma (内軟骨腫), mandibular condyle (下顎頭), temporomandibular joint (顎関節)

緒 言

軟骨腫は良性軟骨形成性腫瘍のなかでは骨軟骨腫に次いで多く、成熟した硝子軟骨組織からなる良性腫瘍で、内軟骨腫と骨膜性軟骨腫とに分類されている¹⁾。軟骨腫が顎口腔領域に発生することはまれであり²⁾、なかでも内軟骨腫は下顎頭発生例が少数報告されているにすぎない^{2-5,9)}。

今回われわれは、右側下顎頭に生じた内軟骨腫の1例を経験したので、その概要を報告する。

症 例

患 者: 31歳, 女性。

初 診: 2009年2月中旬。

主 訴: 右側顎関節部の疼痛。

既往歴: 10歳時, 滲出性中耳炎。

家族歴: 特記事項なし。

現病歴: 2008年12月, 欠伸時や硬固物咀嚼時に右側顎関節部に疼痛を自覚した。その後も疼痛が持続するため, 2009年2月初旬, 近歯科を受診し右側顎関節症と診断され, 精査・加療を勧められ当科を紹介され受診した。

現 症:

全身所見: 体格は中等度, 栄養状態は良好であった。

顔貌所見: 顔貌は非対称で, 下顎の左方偏位を認めた(写真1A)。また, 右側耳前部に軽度の圧痛を認めたが, 同部に腫脹や膨隆は認めなかった。

口腔内所見: 下顎正中は左方へ2mm偏位し, 咬合時には右側側切歯から右側第二大臼歯部に離開を認めた(写真1B)。オーバーバイトは2mm, オーバージェットは1mmであった。開口制限はなく, 最大開口域は51mmであり, また下顎の側方運動や前方運動の制限も認めなかった。なお, 右側顎関節部に軽度の運動痛を認めたが, 関節雑音や開閉口時の切歯路に偏位は認めなかった。

画像所見: パノラマX線写真にて, 右側下顎頭部に約20mm大のX線不透過性で下顎頭肥大を疑わせる病変を認めた。この病変により右側下顎枝は左側に比べ画像上約20mm伸長していた(写真2A)。CTでは, 下顎頭から連続して前内側に増大する骨軟骨様の腫瘍性病変を認めた(写真2B)。MRIでは, 下顎頭の骨髓腔内にT1強調MR画像, T2強調MR画像で低信号を示す腫瘍性病変を認めた。なお, 開口時に下顎頭の滑走は認められ, 関節円板の転位や変形は認められなかった(写真2C)。また, ^{99m}Tc 骨シンチグラフィでは右側下顎頭部に高い異常集積を認めた(写真2D)。

血液・生化学検査所見: 特記すべき異常所見は認めなかった。

臨床診断: 右側下顎頭の良性腫瘍。

東京医科歯科大学大学院医歯学総合研究科顎口腔外科学分野
(主任: 小村 健教授)

Oral and Maxillofacial Surgery, Graduate School of Medical and Dental Sciences, Tokyo Medical and Dental University
(Chief: Prof. OMURA Ken)

受付日: 2011年2月8日

採択日: 2011年11月29日

写真1 初診時の病態写真

A: 顔貌写真; 顔貌は非対称で, 下顎の左方偏位を認めた.
B: 口腔内写真; 咬合時, 下顎は左方へ2 mm 偏位し, 右側側切歯から右側第二大臼歯部に離開を認めた.

写真3 術中写真

耳前側頭切開により下顎頭を切除し, 関節円板は温存した.

写真4 術後6か月の咬合状態

両側臼歯部で咬合接触が得られている.

写真2 初診時の画像

A: パノラマX線写真; 右側下顎頭部にX線不透過性で下顎頭肥大を疑わせる病変を認め(矢印), 右側下顎枝は左側に比べ画像上約20mm 伸長していた.
B: CT像(①矢状断②前額断); 下顎頭から連続して前内側に増大する骨軟骨様の腫瘍性病変を認めた(矢印).
C: MR画像(①T1強調 閉口時②T1強調 開口時); 開口時に下顎頭の滑走を認め, 関節円板の転位や変形は認めなかった(矢印).
D: ^{99m}Tc 骨シンチグラフィ; 右側下顎頭部に高い異常集積を認めた(矢印).

処置および経過: 2009年8月中旬, 全身麻酔下に右側下顎頭切除術を施行した(写真3). 手術では, 右側耳前側頭切開により顎関節に到達し, 下顎関節腔を開放し, 幼若骨様の組織で腫大した下顎頭を下顎頭頸部で水平骨切りを行い摘出した. 術中, 肉眼的に切除断端に腫瘍の存在が疑われたため, さらに4 mm 下方まで追加切除を行った. なお, 関節円板は穿孔や癒着を認めなかったため温存した.

術当日よりインプラント・アンカーを用いた顎間ゴム牽

写真5 術後1年のパノラマX線写真
切除断端部は平滑となり(矢印), 腫瘍の再発を疑う所見は認めない.

引を行い, また夜間にはオクルーザルスプリントを使用し, 下顎の偏位を防止した. 術直後の最大開口域は30mm まで低下し, 術後5日目より開口訓練を行った.

術後3か月経過時には下顎の偏位は消失し咬頭嵌合位へ誘導が可能となったため, 顎間ゴム牽引を終了した. なお, 最大開口域は45mm であった. 咬合中心は

右側第一大臼歯部にあり, 早期接触を認めた右側上下顎第一および第二大臼歯の咬合調整を行った.

術後6か月, 両側臼歯部で咬合接触が得られ(写真4), 最大開口域は48mm に改善した. なお, 術後1年のパノラマX線写真にて, 下顎頭切除断端部は平滑となり, 腫瘍の再発を疑う所見は認めていない(写真5).

デンタルプレスケール所見: デンタルプレスケール50HタイプR[®](富士写真フィルム社)により術前, 術後の咬合

図1 デンタルプレスケールの変化

- A: 術前; 右側臼歯部には咬合接触を認めず, 咬合中心は左側犬歯, 第一小臼歯部に偏位していた。
 B: 術後3か月; 右側にも咬合接触を認め, 咬合中心は右側第一大臼歯部に偏位していた。
 C: 術後6か月; 咬合接触面の増加を認めるが, 咬合中心は右側第一大臼歯部に偏位したままであった。

表1 デンタルプレスケールにおける咬合状態の推移

	術前	術後3か月	術後6か月
接触面積 (mm ²)	5.6	10.5	14.7
平均圧 (MPa)	38.8	38.2	62.8
最大圧 (MPa)	111.8	89.8	120.0
総咬合力 (N)	215.9	402.0	922.5

写真6 手術標本

- A: 手術標本写真; 22×22×20mm 大の暗紫色で骨様硬の病変で, 下顎頭の形態を保ったまま腫大していた。また切除断端より4mm下方で追加切除を行った(矢印は追加切除標本)。
 B: 手術標本の軟X線写真; 骨髓内腔の上方および内側に斑状の透過像を認めた(矢印は追加切除標本)。

接触面積, 最大咬合圧, 平均咬合圧, 咬合力, 咬合中心を測定した(図1, 表1)。術前の咬合接触面積は5.6mm²であり, 最大咬合圧は111.8MPaと高いが, 平均咬合圧は38.8MPaで, 総咬合力は215.9Nと低値であった。術後3か月では, 咬合接触面積は10.5mm²と術前より増加していたが, 最大咬合圧は89.8MPa, 平均咬合圧も38.2MPaと術前より低下し, 総咬合力は402Nと軽度増大に留まった。術後6か月では, 咬合接触面積は14.6mm²とさらに増加し, 最大咬合圧120MPa, 平均咬合圧62.8MPaと術前より改善し, 総咬合力も922.5Nと大幅に増大した。

手術標本所見:

肉眼所見; 摘出した下顎頭は22×22×20mm大で, 下顎頭関節面はやや青味を帯び, また病変はやや暗紫色を呈し, 下顎頭の形態を保ったまま下顎頭を腫大させていた(写真6A)。軟X線写真では, 骨髓内腔の上方および内側に

写真7 手術標本の病理組織像(H-E染色)

- A, B: 下顎頭骨内に分葉状に増生する成熟した硝子軟骨組織を認めるが, 破壊性の進展は認めなかった(A:×1, B:×40)。
 C: 関節面は腫瘍性軟骨で置換されており, 既存の硝子軟骨との境界は明瞭であった(C:×40)。
 D: 軟骨細胞は小型均一で濃染性の核をもつものが大半を占めるが, 腫瘍の一部では細胞密度が高く, 腫大した核をもつ部分(矢印)も認めるなど軽度の異型性を示していた(D:×200)。

斑状の透過像を認めた(写真6B)。

病理組織学的所見; 下顎頭骨内に分葉状に増生する成熟した硝子軟骨組織を認めた(写真7A)。この腫瘍性軟骨は既存の骨質と移行的であり, 破壊性の進展は認めなかった(写真7B)。関節面の既存の硝子軟骨は辺縁にわずかに残るのみで, 大部分が腫瘍性軟骨に置換されており, 腫瘍性軟骨との境界は明瞭であった(写真7C)。軟骨細胞は小型均一で濃染性の核をもつものが大半を占め, 異常な核分裂像は認められなかった。なお, 腫瘍の一部では細胞密度が高くなり, 腫大した核を有する細胞も認められるなど軽度の異型性を示していた(写真7D)。しかし, 増殖する腫瘍性軟骨組織は周囲の骨梁に囲まれ, 破壊性増殖を認めず悪性病変は否定された。追加切除標本の健常側断端に腫瘍は認めなかった。

病理組織学的診断: 下顎頭の内軟骨腫。

表2 過去40年間に於ける下顎頭軟骨腫の報告例

症例	発表者	年齢	性	関節痛	腫脹	開口障害	咬合偏位	治療	病理組織学的診断
1	上野ら ⁹⁾	41	男	+	+	+	—	腫瘍摘出	内軟骨腫
2	Lurieら ³⁾	28	女	+	+	+	+	下顎頭切除	内軟骨腫
3	Jokinenら ⁸⁾	33	女	—	+	不詳	+	腫瘍摘出	骨膜性軟骨腫
4	Sakodaら ¹⁰⁾	36	男	+	+	+	+	下顎頭切除	骨膜性軟骨腫
5	Deboiseら ⁶⁾	25	男	+	+	+	不詳	下顎頭切除	骨膜性軟骨腫
6	Van Hemeltyckら ⁷⁾	36	女	+	+	+	+	下顎頭切除	骨膜性軟骨腫
7	Chanduら ⁴⁾	66	男	—	—	+	—	腫瘍摘出	内軟骨腫
8	Lazowら ⁵⁾	17	女	+	+	+	+	下顎頭切除	内軟骨腫
9	Vasconcelosら ²⁾	25	女	+	—	+	+	腫瘍摘出	内軟骨腫
10	自験例	31	女	+	—	—	+	下顎頭切除	内軟骨腫

考 察

軟骨腫は成熟した硝子軟骨を形成する良性腫瘍で、骨髓腔内に発生する内軟骨腫と骨表面に発生する骨膜起源の骨膜性軟骨腫とに分類されている。本腫瘍は良性軟骨性腫瘍のなかでは軟骨軟骨腫について多い腫瘍であり¹¹⁾、好発部位は四肢末梢骨や四肢長管骨の骨幹端部で、下顎頭での発生は極めてまれである。われわれが渉猟しえた限りでは、1970年から2010年までの過去40年間に自験例を含め下顎頭軟骨腫の報告は10例を数えるのみで、内軟骨腫6例、骨膜性軟骨腫4例が報告されている^{2~10)}(表2)。

軟骨腫の好発年齢は10~20歳代で、性差はないとされているが、報告されている下顎頭軟骨腫では17歳から66歳、平均33.8歳で、男性4例、女性6例であった。

本腫瘍の臨床症状に関しては、疼痛を生じることはまれで無痛性の腫瘍や単純X線で偶然発見されることが多いとされている¹¹⁾。しかし、下顎頭発生例では顎関節部の疼痛を8例、顎関節部の腫脹を7例、開口制限を8例、咬合偏位を7例に認めていた。

本腫瘍のX線学的特徴としては、長管骨発生例においては骨髓腔内に境界明瞭な溶骨性変化を認めることで、内部に点状の石灰化を伴うことが多く、指趾の短管骨発生例では皮質骨の菲薄化や膨隆を伴うことが多いとされている¹¹⁾。下顎頭発生例では下顎頭皮質骨の吸収を認めるものも報告されている^{2,7,9)}。自験例では下顎頭の膨隆および皮質骨の菲薄化、消失は認めたものの、骨髓腔内の点状石灰化像は明らかではなかった。

本腫瘍の病理組織学的特徴は、硝子軟骨組織が海綿骨や皮質骨を置換しつつ増殖し、その周辺に薄い線維性組織や層板骨の帯状構造を認めることである。軟骨細胞は軟骨小腔に濃縮した小型円形核を入れ、しばしば核の腫大や二核細胞を認める。時に、細胞密度が若干高く細胞異型を示すこともあり、grade 1の軟骨肉腫との鑑別を要する。今村ら¹⁾は、腫瘍組織の異型以外に悪性と診断しうる所見として、腫瘍組織の既存骨への侵食、皮質骨への侵入を挙げている。自験例では、軟骨組織が正常骨組織内に進展してお

り、軟骨細胞は小型核のものが大部分で、一部では腫大した核を有す細胞が集簇している部分も認められたが、腫瘍性軟骨は既存の骨組織と移行的に増殖し、破壊性の進展がないことから、内軟骨腫と診断された。

本腫瘍に対する治療法としては、偶然発見された無症状のものは治療の必要性は低いと、四肢末梢骨発生例で骨皮質が菲薄化し病的骨折が危惧される症例に対しては、腫瘍の搔爬と人工骨を含めた骨移植が行われている¹¹⁾。一方、下顎頭発生例では、下顎頭切除が6例に、腫瘍摘出が4例に施行されていた。

自験例のように下顎頭が腫大し、その結果として顔面非対称、咬合異常、顎関節症状などを生じる疾患としては下顎頭の肥大、過形成、骨腫、骨軟骨腫などが挙げられる。兼子ら¹²⁾は、これらをその発育形態から、下顎頭自体の腫大がなく有茎性の腫瘍が発育する腫瘍型と、下顎頭自体が肥大・延長する肥大型に分類している。肥大型は発症年齢が低く、下顎頭の肥大により下顎枝が延長し、患側臼歯部の開咬を認めることが多いとされている。また、肥大型では病変のみの摘出は困難で、肥大部を含む下顎頭切除が望ましいとされている。自験例は肥大型に相当し、治療としては下顎頭切除を選択した。

下顎頭切除後には、下顎枝が短縮し下顎が患側へ偏位し不正咬合を生じる¹³⁾。また、外側翼突筋による前方運動が不良となり、下顎頭の滑走制限などが生じる。これらの障害を回避するため、人工顎関節置換¹⁴⁾、自家骨移植¹⁵⁾、sliding vertical-ramus osteotomy¹⁶⁾、骨延長¹⁷⁾など多くの再建法が報告されている。Gringrassら¹⁸⁾は、切除後に審美性や顎機能に支障が生じる場合には、即時再建を考慮すべきであると述べている。一方、吉武ら¹⁹⁾は、再建を行わなくても、適切な術後治療により良好な咬合状態が得られると報告している。自験例では、下顎頭頸部での切除が可能であり、適切な術後治療により咬合の安定は得られると考え、下顎頭の再建は行わなかった。そして、術直後から顎間ゴムを用いて咬合誘導を行い、顎関節機能の改善のため術後早期から開口訓練を行った。また、就寝時にはオク

ルーザルスプリントを使用し、より強固に咬合の安定化をはかった。さらに、術後3か月目に早期接触を認めた右側上下顎第一および第二大臼歯の咬合調整を行った。

過去に、下顎頭切除後の咀嚼機能を経時的、定量的に評価した報告は少ない²⁰⁾。自験例では、デンタルプレスケールを用いて術前、術後の咀嚼機能の評価を行った。術前、右側臼歯部には咬合接触を認めず、咬合中心は左側犬歯、第一小臼歯部に偏位していた。また最大咬合圧は左側犬歯、小臼歯部で強い咬合力を認めるものの、平均咬合圧、総咬合力は低値であった。これは腫瘍により下顎枝が延長し、右側臼歯部に離開が生じ、また下顎全体が側方運動方向へ偏位し、最大咬合圧がかかる位置が左側犬歯、小臼歯部に集中していたためと考えられた。術後3か月では、右側にも咬合接触を認め、咬合中心は右側第一大臼歯部に偏位していた。咬合接触面積は術前より増加していたが、最大咬合圧、平均咬合圧は術前より低下し、総咬合力も増大はしていたものの正常咬合の総咬合力²¹⁾より低値であった。これは、下顎頭切除により下顎枝が短縮し右側も咬合接触するようにはなったものの、腫瘍の増大が緩慢であったために、右側の歯は挺出を生じており早期接触してしまい、その結果咬合中心が右側へ偏位したのと考えられた。また、術後3か月では顎関節機能がまだ回復しておらず、咀嚼筋が十分な機能を発揮できないため咬合圧が低値を示したと考えられた。術後6か月では、咬合接触面積、最大咬合圧、平均咬合圧ともに術前より上昇し、総咬合力は十分な咀嚼能力が得られる状態まで改善した。しかし、咬合中心は右側第一大臼歯部に偏位したままであった。この状態で咀嚼に支障はなく、その後は咬合調整、補綴、矯正治療は行っていないが、偏咀嚼の状態にあるため、今後も経過観察が必要と思われる。

結 語

今回われわれは、下顎頭に発生した内軟骨腫に対し下顎頭切除術を施行し、術後1年4か月の経過で再発を認めず良好な経過が得られた症例を経験したので、若干の文献的考察を加えて報告した。

謝辞

稿を終えるにあたり、本症例の病理学的診断に際してご教示を賜りました本学歯学部附属病院検査部の栢森 高先生、癌研有明病院病理部の神田浩明先生ならびに河北総合病院病理部の町並睦生先生に深謝いたします。

引 用 文 献

- 1) 今村哲夫, 石田 剛: 軟骨性腫瘍について ―良悪性の鑑別と組織型―. 病理と臨床 22: 234-238 2004.
- 2) do Egito Vasconcelos, B.S., Porto, G.G., et al.: Rare benign tumors of the mandibular condyle: report of 2

cases and literature review. J Oral Maxillofacial Surg 65: 1830-1835 2007.

- 3) Lurie, R.: Solitary enchondroma of the mandibular condyle. J Dent Assoc S Afr 30: 589-593 1975.
- 4) Chandu, A., Spencer, J.A., et al.: Chondroma of the mandibular condyle: an example of a rare tumor. Dentomaxillofac Radiol 26: 242-245 1997.
- 5) Lazow, S.K., Pihlstrom, R.T., et al.: Condylar chondroma: report of a case. J Oral Maxillofac Surg 56: 373-378 1998.
- 6) Debois, A., Compere J.F., et al.: Tumeurs primitives du condyle mandibulaire. Rev Stomatol Chir Maxillofac 82: 93-97 1981.
- 7) Van Hemeltyck, T., Richard, L., et al.: Chondrome Paros teal ou juxta cortical du condyle mandibulaire. Rev Stomatol Chir Maxillofac 94: 267-270 1993.
- 8) Jokinen, K., Stenback, F., et al.: Benign cartilaginous tumor of the temporomandibular joint. J Laryngol Tool 90: 299-303 1976.
- 9) 上野 正, 山城正宏, 他: 顎関節突起部に発生した軟骨腫の1例. 口科誌 20: 109-116 1971.
- 10) Sakoda, S., Fukuda, J., et al.: Chondroma of the mandibular articular process report of a case. J Kyushu Dental Society 31: 637-643 1978.
- 11) 木村浩明, 土屋弘行, 他: 骨軟骨腫, 内軟骨腫, 孤立性骨嚢腫. 医学と薬学 59: 137-142 2008.
- 12) 兼子光生, 藤林孝司, 他: 顎関節陳旧性脱臼をきたした下顎頭部骨軟骨腫の1例と文献的考察. 日口外誌 36: 400-411 1990.
- 13) 瀬田修一, 高野正行, 他: 腫瘍切除後の咬合不全を下顎枝矢状分割術により二期的に改善した下顎頭骨軟骨腫の1例. 日口外誌 54: 286-290 2008.
- 14) Karris, S.C. and Wolford, L.M.: Concurrent osteochondroma of the mandibular condyle and ipsilateral cranial base resulting in temporomandibular joint ankylosis: report of a case and review of the literature. J Oral Maxillofac Surg 54: 640-646 1996.
- 15) Ord, R.A., Warburton, G., et al.: Osteochondroma of the condyle: review of 8 cases. Int J Oral Maxillofac Surg 39: 523-528 2010.
- 16) Martinez-Lage, J.L., Gonzalez, J., et al.: Condylar reconstruction by oblique sliding vertical-ramus osteotomy. J Craniomaxillofac Surg 32: 155-160 2004.
- 17) 村田 翼, 佐藤千晴, 他: 假骨延長法による再建を行った下顎頭骨軟骨腫の1例(抄). 日口外誌 51: 417 2005.
- 18) Gingrass, D.J. and Sadeghi, E.M.: Osteochondroma of the mandibular condyle mimicking TMJ syndrome: clinical and therapeutic appraisal of a case. J Orofac Pain 7: 214-219 1993.
- 19) 吉武博美, 近藤壽郎, 他: 経耳下腺進入法により切除した関節突起骨軟骨腫の1例. 日口外誌 54: 567-571 2008.
- 20) 西川邦夫: 口腔進行癌拡大切除・再建後の咀嚼機能に関する定量評価. 顎頭部腫瘍 25: 130-147 1999.
- 21) 佐藤智昭: 正常者の歯列における咬合力分布に関する研究. 補綴誌 41: 634-644 1997.