側頭骨の関節結節部に生じた周辺性骨腫の1例

田村 美樹¹⁾・小林 淳二¹⁾・林 央子¹⁾
山本 泰¹⁾・齋藤 隆明²⁾

A case of peripheral osteoma arising at the articular tubercle of the temporal bone

TAMURA Miki¹⁾・KOBAYASHI Junji¹⁾・HAYASHI Chikako¹⁾
YAMAMOTO Hiroshi¹⁾・SAITO Takaaki²⁾

Abstract: Osteoma is a benign osteogenic lesion characterized by the proliferation of compact or cancellous bone. It can be central or peripheral. This lesion commonly arises in the oral and maxillofacial region, but rarely occurs in the zygomatic arch, where only 1 case has been reported. We present a case of peripheral osteoma arising in the articular tubercle of the temporal bone in a 41-year-old woman. Clinical examination revealed a bony, pedunculated, exophytic mass approximately 20×20 mm in size. The clinical diagnosis was osteoma. Under general anesthesia, surgical resection through a preauricular incision was performed. The histopathological diagnosis was peripheral osteoma. The patient remains free of recurrence after 1 year.

Key words: peripheral osteoma (周辺性骨腫), articular tubercle of the temporal bone (側頭骨の関節結節部), compact osteoma (緻密骨腫)

緒 言

骨腫は成熟骨組織から成る良性腫瘍であり、骨内部に生じる中心性骨腫と外骨膜性の周辺性骨腫がある。下顎骨に発生した骨腫は多く認めるが、頬骨弓基部に生じた報告は極めて少ない^{1,2)}。今回我々は側頭骨の関節結節部に発生した周辺性骨腫の1例を経験したので報告する。

症 例

患 者：41歳，女性。

初 診：2010年2月。

主 訴：左側耳前部の腫脹と圧痛。

既往歴：小児喘息；最終発作中学生，現在加療なし。30歳多嚢胞性卵巣症候群，特に治療せず経過観察中。40歳胃潰瘍，現在投薬加療中。

家族歴：父；2009年8月胃癌にて胃全摘出術施行。大腸ポリープ；内視鏡的ポリープ切除術施行したが詳細不明である。

現病歴：2008年頃より左側耳前部の腫脹を自覚，2009年12月より同部に違和感を覚えるようになったため近歯科医院を受診し，精査加療を目的に当科紹介受診となった。

現 症：

全身所見：体格中等度，栄養状態良好。

口腔外所見：左側耳前部に20mm×20mm大の球形，骨様硬，非可動性の腫瘤を認めた(写真1-A, B)。開口障害，関節雑音などの顎関節機能障害は認めなかった。

口腔内所見：特記事項なし。

X線所見：パノラマX線写真では左側側頭骨の関節結節部に境界明瞭な不透過像を認めた(写真2-A)。顎関節経頭蓋撮影法(Schüller撮影法)では顎関節に異常所見は認めず，開閉口時に腫瘤の移動は認めなかった(写真2-B, C)。

CT所見：左側側頭骨の関節結節部に骨と連続した外向性，有茎性の球形腫瘤を認めた。内部は均一で，骨組織と同程度のCT値を呈していた(写真3-A, B, C)。

シンチグラフィ所見：^{99m}Tc骨シンチグラム所見では同部に軽度の集積を認め，⁶⁷Ga腫瘍シンチグラムでは明らかな異常集積像は認めなかった。

¹⁾ 千葉西総合病院口腔外科(主任：小林淳二部長)

²⁾ 千葉西総合病院病理科(主任：齋藤隆明医長)

¹⁾ Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Chibanishi General Hospital, Chiba, Japan (Chief: Dr. KOBAYASHI Junji)

²⁾ Department of Pathology, Chibanishi General Hospital, Chiba, Japan (Chief: Dr. SAITO Takaaki)

受付日：2011年5月20日

採択日：2011年12月27日

写真1 初診時顔貌写真

A: 正貌 B: 拡大図

左側耳前部に境界明瞭な 20mm × 20mm 大の腫瘤を認めた。

写真2 初診時単純X線写真

A: 初診時パノラマX線写真 (矢印: 骨様の不透過像)

B: Schüller 撮影法開口時

C: Schüller 撮影法閉口時

左側側頭骨の関節結節部に境界明瞭な不透過像を認めた。Schüller 撮影法では開口時に腫瘤の移動は認めなかった。

写真3 初診時CT像

A: 単純CT画像; 内部は均一な骨組織と同程度のCT値を呈していた。

B: 3D 構築画像 (正面観)

C: 3D 構築画像 (側面観)

左側側頭骨の関節結節部に骨と連続した外向性の有茎性の球形腫瘤を認めた。

写真4 術中写真

左側耳前部に約50mmの皮膚切開後、腫瘍を露出し分割切除した。

写真5 摘出標本

20mm × 20mm 大の腫瘍で断端は緻密骨を呈していた。

臨床検査所見：血液検査で明らかな異常を認めなかった。

臨床診断：良性骨腫瘍。

処置および経過：2010年3月、全身麻酔下に腫瘍切除術を施行した。左側耳前部に約50mmの皮膚切開後、外耳道軟骨前方および側頭筋膜浅層に沿って剥離をすすめ、腫瘍を露出した。腫瘍の大きさは20mm × 20mm 大の球形であり、周囲組織との癒着は認めず容易に剥離可能であった(写真4)。頬骨弓および関節結節を損傷しないように、腫瘍をフィッシャーバーにて分割して切除した(写真5)。茎部断端は緻密骨を呈していた。切除後正常形態になるようにつぼみ状バーにてトリミングした。術後の顔面神経麻痺は認めなかった。また術後2週間の開口量は25mmであったが、1か月後には43mmに回復した。家族歴に父親の大腸ポリープがあり、鑑別診断として Gardner 症候群を疑い、

写真6 術後1年のCT像

A：3D 構築画像（正面観）

B：3D 構築画像（側面観）

C：3D 構築画像（下面観）

術後1年経過時、画像上再発の兆候は認めない。

術後下部消化管内視鏡検査を施行したが大腸ポリポスは認められず、同疾患は否定的であった。術後1年経過し時折開口時違和感があるものの再発は認めず経過良好である(写真6-A, B, C)。

病理組織学的所見：不規則な改造線を有する成熟した骨組織が梁状、一部層板状に増生していた。少量みられる封入窩内には骨細胞を有していた。増生する骨辺縁に骨芽細胞の配列も観察されたが、限局性でごく少量であった。骨梁間には拡張した血管や膠原線維の増加を伴う脂肪髄が認められた(写真7)。

病理組織学的診断：周辺性骨腫。

考 察

骨腫は成熟した骨組織から成る良性腫瘍である³⁾。顎口腔領域においては骨膜側より発生し骨面から突出した腫瘤を形成する周辺性骨腫と、骨の内部に発生し徐々に骨を膨隆させる中心性骨腫に分類されている⁴⁾。また骨腫の組織構造は成熟した層板骨質が形成されていることが多い。骨質に富み、全体が緻密なものを緻密骨腫、骨質が比較的少なく海綿質様の構造を示すものを海綿骨腫と呼ぶ。本症例は周辺性骨腫であり、内部は緻密骨組織から成っていた。

写真7 摘出標本病理組織像 (H-E 染色, ×4)
腫瘍全体が緻密骨からなり、層板骨と規則的な骨細胞の配列が認められた。

好発年齢、性別については、Larrea-Oyarbid ら¹⁾は89例のうち平均年齢50歳、男女比51:38、Woldenberg ら⁵⁾は14例のうち平均年齢40.5歳、男女比6:8、Sayan ら⁶⁾は35例のうち平均年齢29.4歳、男女比23:12であり報告者により異なる。これは発育が緩慢で無症状に経過するため³⁾発見されるまで長期間経過していることが多く、発現時期、好発年齢を特定することは困難であると考えられる。Bulut ら⁷⁾は性差を認めないと報告している。

過去25年間の顎顔面領域に発生した周辺性骨腫の報告の138例のうち、好発部位は下顎骨68例(49%)、副鼻腔32例(23%)、上顎骨10例(7%)である^{1,5-7)}。顎顔面領域に発生する骨腫はまれな病変ではないが²⁾側頭骨に生じた報告はWoldenberg ら⁵⁾の3例のみであった。3例のうち1例は側頭骨骨体部に認めたが、他の2例に関しては詳細な部位は記載されておらず不明である。また頬骨弓に生じた周辺性骨腫の報告はFurlaneto ら²⁾の1例のみであり、本邦での報告は認めず、本症例は極めてまれな症例といえる(表1)。

成因は先天性、遺伝性、内分泌障害、外傷性、感染症、慢性炎症などさまざまな因子が挙げられている^{4,5,8-11)}が、本症例はその成因を断定するには至らなかった。

鑑別診断は外骨症、軟骨骨腫、線維性骨異形性症、骨線維腫、化骨性線維腫、骨芽細胞腫、類骨骨腫などが挙げられる。骨腫は外骨症、骨軟骨症の骨化したものと組織学的には同一の像を示すため鑑別困難である¹²⁾。骨芽細胞腫、類骨骨腫はしばしば痛みを伴い、骨腫より急速に成長する⁷⁾。

骨腫はGardner 症候群の主要病変の1つである。Gardner 症候群は大腸ポリポシス、多発性骨腫、軟部腫瘍を伴う疾患で、埋伏歯、過剰歯、歯牙腫など歯の異常を伴うこともある^{3,13)}。本症例ではこれらは認めず、また下部消化管内視鏡検査では大腸ポリポシスは認められず Gardner 症候群は否定的であった。Larrea-Oyarbid ら¹⁾は Gardner 症候群の48人中22人に骨腫や歯牙腫などの顎骨病変を認めたと報告している。

表1 顎顔面領域に発生した周辺性骨腫の最近の報告例

	Larrea-Oyarbid, N., et al. ¹⁾	Woldenberg, Y., et al. ⁷⁾	Sayan, N.B., et al. ⁸⁾
症例数	89	14	35
下顎骨	51	9	8
上顎骨	4	1	5
側頭骨	0	3	0
頬骨	1	0	0
副鼻腔	27	1	4
その他	6	0	18
平均年齢(歳)	50	40.5	29.4
男女比	51:38	6:8	23:12

今回のように側頭骨の関節結節部に発生した場合の術式については、頬骨弓骨折手術と同様に、耳前切開によるアプローチと頬部切開（経耳下腺法）によるアプローチが考えられた。今回は顔面神経が腫瘍により走行変化をきたしている可能性があり、神経損傷を極力回避するために、耳前切開を選択した。Furlanetoら²⁾は本症例とほぼ同位置の直径約40mmの骨腫について報告しており、大きさから頬骨弓直上切開では病変を完全に切除することは困難であるため耳前切開を行ったと述べている。

周辺性骨腫の悪性転化の報告は認めない¹⁰⁾。また再発例の報告は非常に少ないが³⁾、長期経過後に再発例⁴⁾の報告があるため、今後も十分な経過観察が必要と考える。

結 語

41歳女性の側頭骨の関節結節部に生じた周辺性骨腫の1例を経験したので報告した。

本論文の要旨は第55回日本口腔外科学会総会・学術大会(2010年10月、千葉)において発表した。

引 用 文 献

- 1) Larrea-Oyarbide, N., Valmaseda-Castellón, E., et al.: Osteomas of the craniofacial region. Review of 106 cases. *J Oral Pathol Med* 37: 38-42 2008.
- 2) Furlaneto, E.C., Rocha, J.R., et al.: Osteoma of the zygomatic arch - report of case. *Int J Oral Maxillofac Surg* 33: 310-311 2004.
- 3) 沢井奈津子, 相川友直, 他: 関節突起部に生じた周辺性骨腫の1例. *日口外誌* 55: 514-518 2009.

- 4) 野村幸恵, 柿澤 卓, 他: 下顎角部に発生し長期間経過後に再発した周辺性骨腫の1例. *日口外誌* 46: 87-89 2000.
- 5) Woldenberg, Y., Nash, M., et al.: Peripheral osteoma of the maxillofacial region. Diagnosis and management: a study of 14 cases. *Med Oral Patol Oral Cir Bucal* 10 Suppl 2: e139-42 2005.
- 6) Sayan, N.B., Ucok, C., et al.: Peripheral osteoma of the oral and maxillofacial region: a study of 35 new cases. *J Oral Maxillofac Surg* 60: 1299-1301 2002.
- 7) Bulut, E., Acikgoz, A., et al.: Large peripheral osteoma of the mandible: a case report. *Int J Dent*. 2010; 2010: 834761.
- 8) Kaplan, I., Nicolaou, Z., et al.: Solitary central osteoma of the jaws: a diagnostic dilemma. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 106: e22-e29 2008.
- 9) Kondoh, T., Seto, K., et al.: Osteoma of the mandibular condyle: report of a case with a review of the literature. *J Oral Maxillofac Surg* 56: 972-979 1998.
- 10) Kaplan, I., Calderson, S., et al.: Peripheral osteoma of the mandible: a study of 10 new cases and analysis of the literature. *J Oral Maxillofac Surg* 52: 467-470 1994.
- 11) Ogbureke, K.U.E., Nashed, M.N., et al.: Huge peripheral osteoma of the mandible: a case report and review of the literature. *Pathology research and Practice* 203: 185-188 2007.
- 12) 平下光輝, 齊藤友克, 他: 上顎臼歯部に発生した周辺性骨腫の1例. *日口診誌* 18: 262-265 2005.
- 13) Madani, M. and Madani, F.: Gardner's syndrome presenting with dental complaints. *Arch Iranian Med*: 535-539 2007.