下顎頭の前方滑走障害の原因となった 側頭骨関節隆起部骨形成線維腫の1例

蘭田直志¹⁾・松下文彦¹⁾・大高千明¹⁾
竹内啓人²⁾・内山佳之³⁾・渡邊賀子³⁾

A case of ossifying fibroma of the articular eminence of the temporal bone causing restriction of condylar movement anteriorly

SONODA Naoshi¹⁾・MATSUSHITA Fumihiko¹⁾・OHTAKA Chiaki¹⁾
TAKEUCHI Hirohito²⁾・UCHIYAMA Yoshiyuki³⁾・WATANABE Yoshiko³⁾

Abstract: Restriction of condylar movement anteriorly due to lesions of the articular eminence of the temporal bone is rare. In addition, to our knowledge, ossifying fibroma of this region has not been reported previously. We report a very rare case of ossifying fibroma of the articular eminence of the temporal bone. A 27-year-old man came to our hospital because of disturbance of mouth opening and pain of the left temporomandibular joint. Clinical examination showed that the maximum range of mouth opening was 25 mm. Disturbance of mouth opening had been present for about 7 months. Computed tomography revealed a 21 × 9 × 7 mm hard tissue lesion arising in the articular eminence of the temporal bone. The tumor was surgically excised with the patient under general anesthesia. The pathological diagnosis was ossifying fibroma. Three months after surgery, a residual or recurrent tumor developed. However, since the growth of tumor has been either slow or standstill, functional disorder of the temporomandibular joint has not developed as of 2 and a half years after operation.

Key words: ossifying fibroma (骨形成線維腫), fibro-osseous lesion (線維性骨病変), articular eminence of the temporal bone (側頭骨関節隆起部), disturbance of mouth opening (開口障害), temporomandibular joint (顎関節)

緒 言

開口障害の原因として顎関節症、顎関節強直症、下顎骨骨折、関節リウマチや顎関節部の腫瘍による下顎頭の高度な変形、筋突起過長症、咀嚼筋の拘縮などが挙げられるが、

関節隆起部の形態異常による開口障害はまれである^{1~4)}。

今回われわれは、左側側頭骨関節隆起部の線維性骨病変による下顎頭前方滑走障害を生じた症例に対し顎関節開放手術を施行し病変を摘出した。病理組織学的診断は骨形成線維腫であったが、関節隆起部の線維性骨病変の報告はきわめてまれであり、その治療経過を若干の文献的考察を含めて報告する。

症 例

患 者: 27 歳, 男性.

初 診: 2011 年 5 月.

主 訴: 口が開けにくくなった.

既往歴: うつ病.

家族歴: 特記事項なし.

現病歴: 2010 年 10 月頃より開口障害を自覚. その後も徐々に開口障害の増悪を認め, 左側顎関節部の疼痛も伴う

¹⁾ 榛原総合病院歯科口腔外科
(主任: 松下文彦副院長)

²⁾ 聖隷浜松病院歯科口腔外科
(主任: 橋本賢二顧問)

³⁾ 浜松医科大学医学部歯科口腔外科学講座
(主任: 加藤文度教授)

¹⁾ Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Haibara General Hospital (Chief: Dr. MATSUSHITA Fumihiko)

²⁾ Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Seirei Hamamatsu General Hospital (Chief: Dr. HASHIMOTO Kenji)

³⁾ Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Hamamatsu University School of Medicine (Chief: Prof. KATOU Fuminori)

受付日: 2014 年 5 月 29 日

採択日: 2015 年 2 月 24 日

写真1 パノラマ4分割X線写真 (A:閉口位 B:開口位)
関節隆起部前方斜面に硬組織病変を認める (矢印)。

写真2 術前CT写真 (A:矢状断 B:冠状断)
側頭骨関節隆起部と連続しつても明瞭に区別でき、骨よりやや低信号を呈する不均一な腫瘤状硬組織病変を認める (矢印)。

ため当科受診となった。

現 症：

全身所見；特記事項なし。

腔外所見；左側顎関節に開口時、強い疼痛を認めた。左側下顎頭の前方滑走運動は認められず、関節音(クリック)も認めなかった。

口腔内所見；開口量は25mmであった。

検査所見；血液一般検査にて異常所見を認めなかった。

画像所見：

顎関節 X 線写真；パノラマ4分割顎関節撮影にて左側関

節隆起上に添加する硬組織の存在を認めた (写真 1A, B)。

CT 写真；左側関節隆起と連続しているが明瞭に識別可能で、骨よりやや低信号を呈する不均一な腫瘤状硬組織病変を認めた (写真 2A, B)。

MRI；左側関節隆起とは低信号域にて明瞭に区別できる、内部高信号を示す硬組織病変が関節隆起から前下方に突出して存在する像を認めた。関節円板はわずかに前方転位し、また下顎頭に骨棘を認めた。開口時の画像でも、下顎頭の位置にほとんど変化なく、関節円板の問題よりもむしろ前方の硬組織病変が下顎頭の前方滑走運動の障害となってい

写真3 術前MRI (T2強調像) (A:閉口時 B:開口時)

[a:関節円板前部 b:関節円板中間狭窄部 c:下顎頭の骨棘]

左側関節隆起とは低信号域にて明瞭に区別できる内部高信号を示す硬組織病変が関節隆起から前下方に突出して存在する像を認める(大矢印)。関節円板はわずかに前方転位し(小矢印a, b)、また下顎頭に骨棘(小矢印c)を認める。

写真4 術中写真

関節隆起部に有茎性硬組織病変(矢印)を認める。

写真5 術後パノラマX線写真

左側関節隆起部に明らかな硬組織病変は認めない(矢印)。

ることを疑わせた(写真3A, B)。

臨床診断：関節隆起部の骨形成性腫瘍あるいは滑膜由来の骨や軟骨形成性腫瘍。

処置および経過：2011年6月下旬に、全身麻酔下で摘出術を施行した。側頭有髪部延長耳珠縁切開を行い、関節包を切開し、側頭骨関節隆起部を明示した。関節隆起には肥大や形態異常を認めず、関節隆起前方斜面部から後方斜面部にかけて下方に張り出した有茎性硬組織病変を認めた。関節円板はわずかに前方転位し、円板前部はより肥厚して硬組織病変の後方に位置しており、円板中間狭窄部相当部に約5mmの下顎頭の骨棘によると思われる断裂が認められた。徒手にて強制開口を行ったところ、関節円板の

断裂部から下顎頭の骨棘および下顎頭の一部が露出し、それが硬組織病変の後方に接触し、前方滑走障害が生じていた。硬組織病変と骨の連続性を認めたが、骨よりもやや粗造で、比較的容易に剥離できたため、腫瘍を一塊として剥離摘出した(写真4)。関節隆起の骨面はやや粗造であったが、関節隆起自体に膨隆や形態異常は認めなかったため、粗造な骨面を骨ヤスリで整形するにとどめた。関節円板中間狭窄部相当部の下顎頭の骨棘によると思われる断裂に対しては、骨棘を削除し、円板断裂部を縫合した。術中の開口量は40mmとなり、徒手による開閉口で下顎頭の前方滑走がスムーズに行えることを確認した。術後翌日にパノラマX線写真を撮影したが、明らかな硬組織病変を認めなかった(写真5)。術後は2日目から徒手にて開口訓練を行い経過観察した。術後3か月で最大開口量は42mmとなったが、CT写真では、同部位に小さな硬組織病変を認め、病変の残存か再発が考えられた(写真6A)。その後、術後8か月では最大開口量45mmで、CT写真では同様の硬組

写真6 術後CT写真

(A: 術後3か月後; 冠状断 B: 術後2年1か月後; 冠状断)

術後3か月で硬組織病変を認める。その後やや増大傾向にあったが、術後2年1か月後では腫瘍の大きさ、形状に変化を認めない。

織病変を認めるものの、病変の大きさに明らかな変化を認めなかった。1年3か月後のCT写真では腫瘍はやや増大していたが、術後2年1か月後のCT写真では大きさ、形状とも変化は認められなかった(写真6B)。また、他の画像所見として、術後約6か月後に ^{99m}Tc 骨シンチグラムを撮影し、左側顎関節部、左側下顎智歯相当部に限局した異常集積を認めたが、智歯部は撮影時に智歯周囲炎を認めたためであり、患部の集積については術後の治癒過程の反映なのか、病変の活動性を示唆するものなのか明確な判断はできなかった(写真7)。術後2年6か月時では、最大開口量は45mmで、右側に比べ下顎頭の前方滑走量がやや少ないものの、疼痛は認められなかった。

摘出標本所見: 21×9×7mm大で骨様硬を呈していた(写真8)。摘出標本断端はやや粗造であった。

病理組織学的診断: 未熟な骨梁が種々の形で出現しており、間質は線維組織で置換されていた。比較的粗な間質は線維性異形成症に最も近いが、骨芽細胞による縁取りが多数みられ、臨床像として周囲骨との境界が比較的明瞭であった点から、局所病理組織像がほぼ同一の所見を示す骨形成線維腫と診断した(写真9)。

考 察

線維性骨病変(fibro-osseous lesion)は骨様組織を伴った線維性結合組織が増生する良性の病変群であり、その分

写真7 術後 ^{99m}Tc 骨シンチグラム

左側顎関節部、左側下顎智歯相当部に限局した異常集積を認めるが、智歯部は撮影時に智歯周囲炎を認めたためであり、患部の集積については術後の治癒過程の反映なのか、病変の活動性を示唆するものなのか明確な判断はできない。

類は線維性異形成症(fibrous dysplasia 以下FD)、骨形成線維腫(ossifying fibroma 以下OF)、骨異形成症(osseous dysplasia)に分類される。これらは病理組織像や画像診断

写真8 摘出標本

21×9×7 mm 大で骨様硬を呈している。切除面は粗造である。

写真9 病理組織画像

A: H-E 染色, ×40, スケールバー = 500 μm

B: H-E 染色, ×100, スケールバー = 200 μm

未熟な骨梁が種々な形態で出現しており、骨芽細胞の縁取りがみられる。間質は線維組織に置換されている。

において混同されることが多い^{5~7)}。とくに FD と OF は組織学的に非常に類似しており、両者とも線維性組織のなかに不規則な梁状の骨質が形成され、既存の骨組織へ移行する像が観察される⁸⁾。両者の最も有用な鑑別点は、X線写真において FD は病変の境界が不明瞭なのに対して OF は境界が明瞭であることである^{8~13)}。病理組織学的にも、その部分像のみでは判別困難であるが、X線写真と同じく OF は周囲骨組織との境界が明瞭であるのに対して FD は周囲骨との境界が不明瞭であることで鑑別できるとされる^{8, 10, 13)}。

本症例は病理組織像で周囲の正常骨組織を認めず、切除断端に腫瘍の残存の疑いをもたれた。ただ、画像および手術所見では、関節隆起自体に肥大や形態異常は認めず、関節隆起の骨表面に添加される形で腫瘍が存在し、FD を思わせる所見はみられなかった。腫瘍に被膜の存在はなかったが、関節隆起部の正常骨からの剥離は比較的容易であり、臨床像や画像所見からも正常関節隆起と明瞭に区別できた点を考慮し OF と診断した。

2005 年の WHO の歯源性腫瘍の組織分類で、骨形成線維腫 (OF) とその亜系として若年性梁状骨形成線維腫 (juvenile trabecular ossifying fibroma 以下 JTOF)、若年性砂粒腫様骨形成線維腫 (juvenile psammomatoid ossifying fibroma 以下 JPOF) が分類された¹⁴⁾。OF は発育が緩慢で摘出後の再発はほとんどないが^{9, 15)}、JPOF や JTOF は発育速度が早く、侵襲性に顎骨を破壊し、切除手術後の再発率も比較的高いとされている^{6, 9, 16)}。

本症例は摘出後 3 か月後の CT 写真において腫瘍の再発か残存を認め、aggressive lesion である JTOF や JPOF の再発である可能性も考えたが、病理組織像においては両者とも間質の線維芽細胞は密で、細胞分裂像も目立つのに対して^{10, 16)}、本症例の間質の線維芽細胞の増生はさほどではなく、細胞分裂像も目立たず、また JPOF のような特徴的な砂粒体状の硬組織も認めず¹⁰⁾、病理組織学的には juvenile type を積極的に示唆する所見を認めなかった。そのため本症例は臨床的にも腫瘍の性質からも腫瘍の一部が残存し、その後やや増大したと考えられた。腫瘍は比較的容易に剥離できたが、一部の骨面に粗造な硬組織病変が残存しており、骨ヤスリにて平坦化させた。摘出した腫瘍には硬い構造と非常に粗な構造が混在し、とくに腫瘍の剥離側は粗な組織であったため、剥離の際に一部が崩れ、分離残存した可能性が考えられた。腫瘍と関節隆起は連続しており、臨床的に境界域を決定することは実際には困難であった点を考えれば、本腫瘍の切除の際には、仮に周囲骨からの剥離が容易であっても、正常と思われる骨組織を含めて一層の削除が必要と思われた。

一般的に OF の治療法は摘出術が推奨されているが、発

育速度が遅く、局所浸潤がない場合は経過観察を含めた保存的治療が選択されることもある^{6,17)}。本症例も、術後3か月で術直後にはみられなかった同部位の硬組織病変を認め、再発を疑わせたため、その後も経過観察をしていたが、軽微な増大はあったものの、顎関節機能の障害を認めず、今後も開口障害の有無や定期的な画像診断を含め、注意深く経過観察を行う予定である。

顎顔面領域のOFの報告は多数あるが、その発症原因や誘因は未だに不明で、本症例でも不明であった。一方、最近の知見として、波多野¹⁸⁾はヒアルロン酸受容体の1つであり細胞増殖に重要な役割を担うと考えられる Receptor for Hyaluronan Mediated Motility (RHAMM) がOFで過剰に発現し、それにより、骨における正常な細胞増殖と分化機構の破綻が生じている可能性を報告している。しかし、OFがRHAMMを過剰発現する機構は解明できていない¹⁸⁾。

本症例での開口障害の原因としては、術前の画像評価や術中の所見から関節隆起部後方斜面まで張り出したOFが下顎頭の前方滑走運動の障害になっていたことが確認できた。さらに術直後から開口域が増加したことや、術後に腫瘍の再発あるいは残存を疑わせる所見を認めたが、関節隆起前方斜面に局限し、開口量は減少しなかったことから、関節隆起部後方斜面まで増大したOFによる下顎頭の滑走運動障害であったと考えられた。本症例以外にも側頭骨関節隆起部の病変による開口障害の報告もあるが、関節隆起部の病変自体が非常にまれで、そのなかでも開口障害を伴う症例報告は、われわれが渉猟し得た限りでは関節隆起の過形成や骨軟骨腫、類骨骨腫の4例の報告のみであった^{1~4)}。また、関節隆起部の線維性骨病変に関しては、近傍の頬骨弓下縁に発生したOFの報告や¹⁹⁾、関節隆起部に発生したFDの報告のみで²⁰⁾、本症例のような関節隆起部に発生したOFの症例は認められなかった。

結 語

関節隆起部の病変は非常にまれであるが、下顎頭の前方滑走の障害となり、開口障害の原因となることもある。本症例では関節隆起部の骨形成線維腫を摘出し、下顎頭の可動性を回復させることによって顎関節機能障害を改善したので若干の文献的考察を加え報告した。

謝辞

稿を終えるにあたり、ご教示頂いた榛原総合病院病理診断科兵頭隆史先生に深謝いたします。

本論文の要旨は、第57回(公社)日本口腔外科学会総会(2012年10月、横浜市)で発表した。

本論文に関して、開示すべき利益相反状態はない。

引用文献

- 1) 儀武啓幸, 林 央子: 関節隆起の過形成が原因と考えられる顎関節機能障害(下顎頭滑走制限)を認めた1例. 日顎誌 23: 77-82, 2011.
- 2) 栗田賢一: 顎関節における骨・軟骨形成性疾患について. 口腔腫瘍 12: 374-377, 2000.
- 3) Yang C and Qiu WL: Osteoid osteoma of the eminence of the temporomandibular joint. Br J Oral Maxillofac Surg 39: 404-406, 2001.
- 4) 福田廣志, 田所重映, 他: 側頭骨関節結節後壁の骨隆起様形態変化による開口障害. 日口外誌 32: 2284-2288, 1986.
- 5) 石川梧朗: 口腔病理カラーアトラス. 第2版, 医歯薬出版, 東京, 2001, 164頁.
- 6) 澤津橋基広: 臨床像と画像のみでfibrous dysplasiaと診断可能か? — Craniofacial fibro-osseous lesionsについて —. 耳鼻と臨床 57: 32-34, 2011.
- 7) 鈴木清護: 線維性骨異形成症, 化骨性線維腫. JOHNS 26: 483-485, 2010.
- 8) 石川梧朗: 口腔病理カラーアトラス. 第2版, 医歯薬出版, 東京, 2001, 111頁.
- 9) 豊澤 悟, 村上秀明, 他: 顎骨の線維—骨性病変—歯源性腫瘍との鑑別点を含めて—. 病理と臨床 31: 527-534, 2013.
- 10) Slootweg PJ and El-Mofty SK: Ossifying fibroma. In Barnes L, Eveson JW, eds; WHO Classification of Tumours, Pathology and Genetics of Head and Neck Tumours. IARC Press, Lyon, 2005, p319-320.
- 11) Brannon RB and Fowler CB: Benign Fibro-Osseous Lesions: A Review of Current Concepts. Adv Anat Pathol 8: 126-143, 2001.
- 12) Triantafyllidou K, Venetis G, et al: Ossifying fibroma of the jaws: a clinical study of 14 cases and review of the literature. Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol 114: 193-199, 2012.
- 13) Paul MS and Roman C: Maxillofacial fibro-osseous lesions. Curr Diagn Pathol 12: 1-10, 2006.
- 14) 武田泰典, 高田 隆: WHOによる歯源性腫瘍の新たな組織分類とそれに関する上皮性嚢胞について. 日口外誌 52: 54-61, 2006.
- 15) Zavattero E, Garzino-Demo P, et al: Ossifying Fibroma Affecting the Mandibular Condyle: Report of an uncommon case. J Craniofac Surg 24: e351-e353, 2013.
- 16) Slootweg PJ: Juvenile trabecular ossifying fibroma: an update. Virchows Arch 461: 699-703, 2012.
- 17) Mehta D, Clifton L, et al: Paediatric fibro-osseous lesions of the nose and paranasal sinuses. Int J Pediatr Otorhinolaryngol 70: 193-199, 2006.
- 18) 波多野寛子, 重石英生, 他: 骨形成線維腫の病態解明への基礎研究. 組織培養 30: 135-143, 2011.
- 19) 木村嘉宏, 小牧完二, 他: 頬骨弓下縁部に生じた骨形成線維腫の1例. 日口外誌 54: 173-176, 2008.
- 20) You YC, Jung SI, et al: Interesting case: Monostotic fibrous dysplasia of the articular eminence of zygomatic bone. Br J Oral Maxillofac Surg 44: 19, 2006.