上顎類腭型エナメル上皮腫に対して遊離腸骨ブロック移植後に カスタムメイド・チタンメッシュトレイと自家腸骨海綿骨細片で 上顎骨二次再建を施行した 1 例

大竹 義雄¹⁾・野上晋之介¹⁾・佐藤 工¹⁾
山内 健介¹⁾・熊本裕行²⁾・高橋 哲¹⁾

Desmoplastic ameloblastoma of the maxilla: secondary reconstruction with a custom-made titanium mesh tray and particulate cancellous bone and marrow after an autogenous iliac bone graft-a case report

OTAKE Yoshio¹⁾・NOGAMI Shinnosuke¹⁾・SATO Takumi¹⁾
YAMAUCHI Kensuke¹⁾・KUMAMOTO Hiroyuki²⁾・TAKAHASHI Tetsu¹⁾

Abstract: We report a case of desmoplastic ameloblastoma (DA) arising in the maxilla, which was reconstructed using a custom-made titanium mesh tray with particulate cancellous bone and marrow (PCBM) after an autogenous iliac bone graft. The patient was a 35-year-old man who was referred to our outpatient clinic to undergo assessment of a maxillary tumor. A swelling was found between the left lateral incisor and premolars. Radiographic findings showed a “frosted glass-like” lesion. We diagnosed DA on an incisional biopsy. Maxillectomy and reconstruction with an autogenous iliac bone graft were performed in June 2013. In addition, reconstructive surgery using a custom-made titanium mesh tray with PCBM was performed subsequently. After the operation, we placed dental implants and provided the final prosthesis. There has been no recurrence of tumor as of 5 years after the maxillectomy and reconstructive surgery. Furthermore, a good esthetic outcome with recovery of the occlusion function was obtained.

Key words: desmoplastic ameloblastoma (類腭型エナメル上皮腫), custom-made titanium mesh tray (カスタムメイド・チタンメッシュトレイ), particulate cancellous bone and marrow (腸骨海綿骨細片)

緒 言

類腭型エナメル上皮腫 (Desmoplastic ameloblastoma: DA) は, 2017 年の WHO 分類で亜型として再分類され, 全エナメル上皮腫の 4~13%と比較的まれな疾患である^{1,2)}.

¹⁾ 東北大学大学院歯学研究科口腔病態外科学講座顎顔面・口腔外科学分野

(主任: 高橋 哲教授)

²⁾ 東北大学大学院歯学研究科口腔病態外科学講座口腔病理学分野

(主任: 熊本裕行教授)

¹⁾ Division of Oral and Maxillofacial Surgery, Department of Oral Medicine and Surgery, Tohoku University Graduate School of Dentistry (Chief: Prof. TAKAHASHI Tetsu)

²⁾ Division of Oral Pathology, Department of Oral Medicine and Surgery, Tohoku University Graduate School of Dentistry (Chief: Prof. KUMAMOTO Hiroyuki)

受付日: 2017 年 4 月 14 日

採択日: 2018 年 10 月 23 日

DA の一般的な治療法としては, 健常組織を含めた顎骨切除術を選択することが多い^{3~8)}.

一方, 近年, CAD/CAM 技術を用い三次元的形態を付与したカスタムメイド・チタンメッシュトレイと自家腸骨海綿骨細片 (particulate cancellous bone and marrow: PCBM) を用いた顎骨再建が行われている^{9~11)}. 今回われわれは, 上顎類腭型エナメル上皮腫に対して, 遊離腸骨ブロック移植後にカスタムメイド・チタンメッシュトレイと PCBM を用いて上顎骨再建を施行した 1 例を経験したので報告する.

症 例

患 者: 35 歳, 男性.

初 診: 2013 年 3 月.

主 訴: 左側上顎歯肉の腫脹と違和感.

既往歴・家族歴: 特記事項なし.

現病歴：左側上顎歯肉の腫脹と違和感を自覚し、およそ6か月間放置していた。2013年2月に定期検診のために近医歯科医院を受診した際に撮影されたパノラマX線写真において、左側上顎前歯部にスリガラス様の不透過像を認めたため精査・加療を勧められ、同年3月に当科紹介受診となった。

現 症：

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；顔貌は左右非対称、左側上唇部から鼻翼基部にかけて腫脹を認めた。

口腔内所見；2-4 部の唇側歯肉に骨様硬の腫脹を認めた。1-5 は、電気歯髄診ですべて生活反応を認め動揺は認めなかった。

画像所見；パノラマ X 線写真において、23 間に境界不明瞭なスリガラス様の不透過像を認め、同歯根は離開していた(写真1)。CT 画像では、2-4 部に30×30×25mm 大の骨膨隆を認めた。辺縁は凹凸不整で内部に骨吸収像が散在し雲紋状を呈していた(写真2)。

臨床診断名：左側上顎骨良性腫瘍。

生検処置：2013年4月、腫瘍性病変を疑い局所麻酔下で生検術を施行した。2-4 部の唇側皮質骨は膨隆し表面は粗造であった。病理組織学的検査で、膠原線維形成に富む間質を有するエナメル上皮実質の充実性増殖を認めた(写真3)。

病理組織学的診断名：類腱型エナメル上皮腫。

処置および経過：同年6月、全身麻酔下の上顎部分切除術および遊離腸骨移植術を施行した。1-6 の範囲で切除し、鼻口蓋神経血管束は結紮・切断した。上顎洞底は開放し、前鼻棘は保存した。なお、腫瘍切除時に鼻腔の一部に perforation が生じたためテルダーミスで被覆した。次に右側腸骨隆外側縁および内側縁から約40×30mm 大の遊離腸骨と海綿骨を採取した。遊離腸骨は上顎洞を可及的に封鎖するように2つに分けてトリミングした。はじめに1つ目の遊離腸骨を上顎洞の内側に4-0 吸収性糸で縫合・固定し、その上に2つ目の遊離腸骨を4穴ミニプレート2枚で固定した(写真4)。固定した2つの遊離腸骨間に海綿骨を充填し、被護粘膜骨膜弁に減張切開を加えて閉鎖した。

同年10月に排膿を伴う局所感染を認めたため、感染物の除去を行い、さらにプレート除去術を施行した。プレートの破折やスクリューの緩みは認めなかったが、2 相当部の遊離腸骨の一部に骨吸収を認めた。また、上顎洞は遊離腸骨によって封鎖され、交通は認めなかった(写真5)。

その後、3D プリンターにて顎骨模型を作製した。この顎骨模型に再建後の理想的な顎堤を想定しワックスアップを行い、再建後の顎堤模型を成形した。成形した顎堤模型上で、0.6mm 厚の医療用チタンメッシュシート(ウルトラ

写真1 初診時パノラマX線写真

23 歯槽部に境界不明瞭なスリガラス様のX線不透過像と歯根離開を認める。

写真2 初診時 CT 写真(水平断)

2-4 部に30×30×25mm 大の骨膨隆を認める。

フレックスメッシュカスタム®, オカダ医材, 東京)を欠損部に合わせ形態を付与した(写真6)。チタンメッシュシートの整形には良好な適合が得られるように顎堤模型上で緊密に整形した。

2014年2月、カスタムメイド・チタンメッシュトレーとPCBMを用いた上顎骨再建術を施行した。左側上顎歯肉に切開を加え移植床を明示した。カスタムメイド・チタンメッシュトレーの適合を確認した後、採取したPCBM 8.5gをカスタムメイド・チタンメッシュトレー内側に緊密に填入した(写真7)。

術後6か月目のCT所見で良好な骨形成を確認した後、同年10月にカスタムメイド・チタンメッシュトレー除去術および4本のインプラント(Implants osseospeed^{TX} 1: 3.5×11mm, 356: 4.0×11mm [直径/長さ], DENTSPLY Implants 社, Sweden)の埋入手術を施行した。インプラント埋入後にインプラント安定指数を表す Implant Stability Quotient 値を測定し、良好な初期固定が得られた(写真8)。

CT画像を用いて35 相当部の骨幅と高さを遊離腸骨ブロック骨移植術時、プレート除去時、チタンメッシュトレーとPCBM再建術時、インプラント埋入時の各時点で計測を行った(表1)。骨吸収が著明にみられた3 相当部において、プレート除去時の骨の高さは11.65mmであったが、チタンメッシュトレーとPCBM再建術を施行した後のインプラント埋入時には20.32mmと増大していた。

インプラント埋入4か月後に二次手術を行い、ヒーリン

写真3 生検病理組織像 (H-E 染色)

実質は辺縁部で平坦な細胞がみられ、中央部には扁平ないし紡錘形細胞も含まれている (×200)。

写真4 プレート固定後の術中写真

遊離腸骨ブロック移植による即時顎骨再建術を施行したところ。

写真5 プレート除去術中写真

上顎洞との境界は遊離腸骨と瘢痕組織によって封鎖されている。

写真6 顎骨模型と完成したカスタムメイド・チタンメッシュトレイ

写真7 カスタムメイド・チタンメッシュトレイとPCBMを用いた上顎骨再建の術中写真

PCBM 8.5gをカスタムメイド・チタンメッシュトレイ内側に填入したところ。

写真8 カスタムメイド・チタンメッシュトレイ除去およびインプラント埋入の術中写真

カスタムメイド・チタンメッシュトレイ除去後、良好な骨形成を確認し4本のインプラントを埋入したところ。

写真9 最終補綴物装着時の口腔内写真およびCT写真の水平断画像

A: 十分な審美性と咬合機能の回復が得られている。

B: 水平断画像

グアバットメントを装着した。その後、インプラント体レベルの印象採得を行い、2015年10月に最終補綴物を装着した(写真9)。現在、初回手術後5年および最終補綴物装

着後2年8か月経過しているが、腫瘍の再発所見およびインプラント体周囲に異常な骨吸収は認めず、十分な審美性と咬合機能の回復が得られている。

表 1 各手術時の骨の幅径と高さ

	遊離腸骨ブロック骨再建時	プレート除去時	TIME + PCBM 時	インプラント埋入時
左上犬歯相当部の骨の幅径 (mm)	11.07	8.11	10.81	9.49
左上犬歯相当部の骨の高さ (mm)	26.78	11.65	22.66	20.32
左上第二小臼歯相当部の骨の幅径 (mm)	9.77	9.47	13.69	11.22
左上第二小臼歯相当部の骨の高さ (mm)	22.40	18.16	20.50	19.95

表 2 本邦における DA の報告例

報告者	年齢	性別	発生部位	手術	再発	観察期間
森田ら ¹³⁾	27	男	下顎前歯から大臼歯部	摘出搔爬	なし	18 年 7 か月
森田ら ¹³⁾	32	女	下顎前歯部	辺縁切除	なし	12 年 6 か月
森田ら ¹³⁾	35	女	下顎前歯から小臼歯部	辺縁切除	なし	16 年 3 か月
森田ら ¹³⁾	41	男	上顎前歯部	辺縁切除	なし	3 年 2 か月
竹島ら ²³⁾	54	男	上顎前歯部	切除	なし	3 年 6 か月
Fukushima ら ¹⁶⁾	70	男	上顎臼歯部	部分切除	なし	1 年 6 か月
西村ら ¹⁷⁾	44	女	下顎前歯部	摘出	なし	1 年 4 か月
金子ら ¹⁸⁾	69	男	下顎臼歯部	区域切除 腸骨移植	なし	1 年 2 か月
美馬ら ¹⁹⁾	64	女	上顎前歯部	摘出切除	なし	3 年 2 か月
横井ら ¹⁵⁾	49	男	上顎前歯部	部分切除	なし	3 年 6 か月
横井ら ¹⁵⁾	29	男	上顎前歯部	摘出	なし	12 年 4 か月
小林ら ²⁰⁾	70	男	下顎前歯から大臼歯部	下顎骨連続離断 腸骨移植	なし	1 年 1 か月
後藤ら ²¹⁾	77	女	下顎前歯部	部分切除	なし	6 か月
渡邊ら ²²⁾	52	女	下顎臼歯部から下顎枝	区域切除 即時再建	なし	2 年
高山ら ¹⁴⁾	60	男	下顎前歯部	摘出	なし	3 年
金本ら ⁶⁾	47	男	下顎前歯部	辺縁切除 腸骨移植	なし	1 年 2 か月
文ら ⁴⁾	66	男	上顎前歯部から臼歯部	摘出	あり	2 か月
川村ら ⁹⁾	58	男	下顎前歯から大臼歯部	区域切除 チタンメッシュと PCBM 再建	なし	4 年
住岡ら ⁵⁾	49	男	下顎臼歯部	区域切除 腸骨移植	なし	7 年
Patrisia ら ⁷⁾	30~39	男	上顎前歯部	切除	なし	15 年
Patrisia ら ⁷⁾	60~69	男	上顎前歯部	切除	なし	4 年
自験例	37	男	上顎前歯部から小臼歯部	部分切除 腸骨移植	なし	3 年 10 か月

考 察

DA は、2017 年 WHO の歯原性腫瘍の組織分類の改変で、エナメル上皮腫の亜型として再分類されている¹⁾。本邦における DA の発症率について、柴原ら¹²⁾ は全エナメル上皮腫全体の 4.1% と報告している。また 1994 年以降、われわれが渉猟し得た限り、自験例を含めた 23 例の報告があった(表 2)^{4~23)}。男性に多くみられ、平均年齢は 43.4 歳であった。また、上顎よりも下顎の方がやや多く、部位別では前歯部から臼歯部に及ぶものは 5 例 (21.7%) であった。

DA の X 線学的特徴は、腫瘍間質の線維性組織の増生により腫瘍との境界は不明瞭で線維骨関連病変のような X 線不透過像を呈する²⁾。また、病理組織学的な特徴としては、被膜がなく境界が不明瞭で、間質の膠原線維形成を伴うエナメル器様腫瘍細胞の増殖を認めるとされている²⁾。自験例では、X 線画像所見でも線維骨関連病変に類似した透過像と不透過像の混在したスリガラス様の像を認め、病理組織学的所見からも間質に膠原線維の増殖とエナメル器様腫瘍細胞の増殖を認めていた。また、腫瘍内に含まれる歯根

に関して、外部吸収を起こさず歯根離開をきたしたとの報告があり⁴⁻⁶⁾、住岡ら⁵⁾はDAの発育は緩慢で、歯根吸収を認めることは少ないと述べている。自験例でも歯根離開を呈し歯根吸収は認められなかった。

DAの再発率は23.5%で、典型的なエナメル上皮腫の再発率(10.1~20.6%)よりも高い²¹⁾。われわれが渉猟し得た本邦でのDAの再発率は21例中1例(4.8%)と少なかった。DAの一般的治療法としては、摘出・搔爬術と周囲健康骨を含めた切除術が挙げられる³⁾。Sunら²⁴⁾は、DA治療後の再発率について摘出・搔爬術後の再発率が21.1%、周囲健康骨を含めた切除術後の再発率が3.1%と切除術の有効性を報告している。そのため自験例でも切除術を選択し、腫瘍切除後5年経過したが再発所見は認めていない。

広範囲に顎骨欠損が生じた場合、QOLの低下を防止するために顎骨再建は必須である。一般的に顎骨再建で用いられる材料は、遊離腸骨移植といった血流が豊富でない材料と、血管柄付き骨皮弁などの血流が豊富な材料が用いられる²⁵⁾。遊離腸骨移植は採取と成型が容易で術後の機能障害が少なく力学的強度にも優れているが、骨採取量の制限、移植後の感染、骨吸収や生着不全を引き起こしやすい²⁶⁾。一方で、血管柄付き骨皮弁は血流が豊富で骨融合を得やすく、顎骨再建後の形態的・機能的回復においても優れている。しかしながら、高度な技術や術式を要し長時間の手術となりやすく、全身疾患を有する患者に対しては適用し難いとされている²⁶⁾。その点で、カスタムメイド・チタンメッシュトレーとPCBMを用いた顎骨再建は、高度な技術や術式を必要とせず、手術時間が短縮されるだけでなく採骨部の実質欠損が少ないためメリットが多いとされている²⁷⁾。自験例では、遊離腸骨移植後に感染を認めたためプレート除去術を施行し、感染が落ち着いてからチタンメッシュトレーとPCBMによる顎骨再建を行った。

飯野²⁷⁾は、PCBMは未分化間葉細胞に由来する骨形成幹細胞により、新生骨の形成を促進させるself-remodeling cellular systemに基づいた骨再生法であり、ほかの遊離骨移植や血管柄付き骨皮弁とは異なると述べている。さらにPCBMによる顎骨再建手術で良好な結果を得る条件は、(1) 良質な細胞を含むdonor siteの選択、(2) 十分なPCBMの量の確保、(3) PCBMを緊密に充填すること、(4) 感染がなく良好な血行を有する移植床の選択が重要であると報告している²⁷⁾。鍋島ら²⁵⁾は自家骨の平均吸収率が16.7%であるため、PCBM再建後の吸収量を考慮しPCBMを多く充填させる必要があると報告している。

小山²⁸⁾は上顎骨再建の要件として、鼻腔や上顎洞への迷入や呼吸の漏出を防ぐための物理的封鎖を挙げている。そのため自験例では、上顎骨部分切除と同時に上顎洞との封鎖を目的として遊離腸骨ブロック移植術を施行した。

[2]部の遊離腸骨に一部骨吸収を認めたが、上顎洞底部では移植した腸骨によってwatertightな物理的封鎖が得られた。この上顎洞の物理的封鎖によってPCBMの流出が防止でき、さらに移植床としての基盤となったことで、その後のチタンメッシュトレーとPCBMを用いた顎骨再建が容易になり、インプラント埋入を行うための十分な骨量を獲得することができたと考えられる。

われわれは自験例のCT画像を用いて[3.5]部のインプラント埋入部を基準に骨の幅径と骨の高さを計測した。骨の幅径は各部位の頬舌側の幅とし、骨の高さは歯槽頂から上顎洞底までの距離として計測した。自験例では、遊離腸骨の感染により遊離腸骨ブロック骨移植術後の骨吸収量が多く、一方でチタンメッシュトレーとPCBM再建術は術後感染なく骨吸収量が少ない結果となった。

また、今回使用したカスタムメイド・チタンメッシュトレーは、3Dプリンターで被験者の顎骨模型から作製した。術前にチタンメッシュシートに形態を付与しておくことで、術中の調整が容易となり、チタンメッシュトレーを屈曲する時間が省略され手術時間を短縮することができた。自験例では、遊離腸骨ブロック移植術を行うも、感染によって理想的な顎骨再建ができなかった。また、腫瘍切除に伴い角化歯肉の損失を伴ったため、審美性の回復が困難な症例でもあった。このことから、われわれは三次元的に理想的な顎骨形態の回復を目的として、チタンメッシュトレーとPCBM再建術を施行し、次に審美性の向上を図るため歯肉付きの最終補綴物を装着した。その結果、顎骨形態や咬合の回復のみならず十分な審美性の回復を得ることができた。

チタンメッシュトレーとPCBMによる顎骨再建術は、より複雑な形態を伴う下顎骨にも適用される^{10,11)}。しかしながら厚みが1mm以下と薄く、機械的強度の問題から欠損部が広範囲になれば破折する危険性が高くなるため、チタンメッシュトレーとプレートとの併用や、2重構造チタンメッシュトレーを使用することもある⁹⁾。

結 語

今回われわれは、上顎骨に発症したDAに対して遊離腸骨ブロック移植後にカスタムメイド・チタンメッシュトレーとPCBMで上顎骨再建を行い、十分な審美性と咬合機能の回復が得られた1例を経験したので報告した。

謝辞

稿を終えるにあたり、自験例の治療にご協力を賜りました東北大学病院顎顔面口腔再建治療部の小山重人先生に深謝します。

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) John MW and Marilena V : Update from the 4th Edition of the World Health Organization Classification of Head and Neck Tumours: Odontogenic and Maxillofacial Bone Tumors. Head and Neck Pathol 11: 68-77, 2017.
- 2) 坂本 啓: エナメル上皮腫の病理. 口腔腫瘍 28: 264-269, 2016.
- 3) 森田章介: エナメル上皮腫の治療. 口腔腫瘍 28: 270-277, 2016.
- 4) 文真友美, 白水敬昌, 他: 上顎に発生した類腱型エナメル上皮腫の1例. 日口外誌 60: 12-16, 2014.
- 5) 住岡 聡, 美馬孝至, 他: 下顎臼歯部に発生した類腱型エナメル上皮腫の1例. 日口外誌 58: 489-674, 2012.
- 6) 金本正樹, 窪田泰孝, 他: 下顎に生じた類腱型エナメル上皮腫の1例. 日口外誌 57: 671-674, 2011.
- 7) Patrisia GA, Tanaka A, 他: エナメル上皮腫の臨床病理学的研究 日本人 85 症例について (Clinicopathological study of ameloblastoma: a review of 85 Japanese patients). 小児口外 18: 73-80, 2008.
- 8) 加藤芳明, 真野隆充, 他: 当科におけるエナメル上皮腫の臨床的検討. 山口医 61: 39-43, 2012.
- 9) 川村貴司, 千葉 卓, 他: チタンメッシュと PCBM による下顎骨再建を施行した類腱型エナメル上皮腫の1例. 岩手医大歯誌 36: 65-70, 2011.
- 10) 濱田良樹, 山田浩之, 他: カスタムメイドチタンメッシュと自家骨/顎骨海綿骨髄細片による下顎骨再建の臨床的応用. 口腔腫瘍 26: 78-88, 2014.
- 11) 山下佳雄, 辻 光弘, 他: 三次元光造形頭蓋樹脂模型を用いて調整したチタンメッシュと自家腸骨移植による下顎骨再建法. 日口外誌 53: 633-638, 2007.
- 12) 柴原孝彦, 森田章介, 他: 本邦におけるエナメル上皮腫の病態と治療法に関する疫学的研究. 口腔腫瘍 21: 171-181, 2009.
- 13) 森田章介, 有家 巧, 他: Desmoplastic ameloblastoma に関する臨床的, X線学的ならびに病理学的検討. 日口外誌 40: 988-996, 1994.
- 14) 高山 優, 根岸明秀, 他: 蜂巣状ならびに嚢胞状 X線像を呈した下顎骨 desmoplastic ameloblastoma の1例. 日口外誌 55: 66-70, 2009.
- 15) 横井基夫, 則武正基, 他: 上顎に発生した Desmoplastic Ameloblastoma の2例. 口科誌 48: 356-359, 1999.
- 16) Fukusima D, Kobayashi H, et al : A case of desmoplastic ameloblastoma of the maxilla. Bull Tokyo Dent Col 38: 223-227, 1997.
- 17) 西村賢二, 和久田哲生, 他: 下顎前歯部に発生した線維形成性エナメル上皮腫の1例. 日口外誌 44: 388-390, 1998.
- 18) 金子勝彦, 佐藤宏憲, 他: 特異な X線像を呈した Desmoplastic Ameloblastoma の1例. 日大歯学 72: 269-273, 1998.
- 19) 美馬孝至, 平沼 勉, 他: 上顎前歯部に発生した線維形成性エナメル上皮腫の1例. 日口外誌 44: 643-645, 1998.
- 20) 小林龍彰, 高木律男, 他: 高齢者の下顎に発生した desmoplastic ameloblastoma の1例. 口科誌 48: 356-359, 1999.
- 21) 後藤秀之, 河野憲司, 他: 下顎骨前歯部に生じた desmoplastic ameloblastoma の1例. 日口外誌 47: 528-531, 2001.
- 22) 渡邊 裕, 岡崎雄一郎, 他: 下顎に生じた cystic ameloblastoma の一部に desmoplastic ameloblastoma の像を呈した1例. 日口外誌 50: 479-482, 2004.
- 23) 竹島 浩, 永峰浩一郎, 他: 上顎前歯部に発生した Desmoplastic Ameloblastoma の1例. 日口外誌 41: 245-247, 1995.
- 24) Sun Z-j, Wu Y-R, et al : Desmoplastic ameloblastoma-A review. Oral Oncol 45: 752-759, 2009.
- 25) 鍋島弘充, 竹田 愛, 他: チタンメッシュを用いた顎骨自家海綿骨による顎提再建の1例: 5年後の骨移植部の骨形態変化について. 日口腔インプラント誌 23: 35-41, 2010.
- 26) 堀内克啓, 俵本眞光, 他: 骨移植による下顎骨再建に関する臨床統計的研究. 口科誌 44: 459-466, 1995.
- 27) 飯野光喜: チタンメッシュと自家腸骨海綿骨細片による顎骨・顎提再建. 日口外誌 55: 268-275, 2009.
- 28) 小山重人: 上顎癌切除後の顎顔面補綴治療. 形成外科 59: 415-426, 2016.