下顎前歯部舌側歯肉に生じた周辺性歯原性粘液腫の1例

中井裕美¹⁾・小林淳一²⁾・北村哲也³⁾
土橋 恵¹⁾・岡本準也¹⁾・宮崎晃亘¹⁾

A case of peripheral odontogenic myxoma of the anterior part mandibular lingual gingiva: A rare clinical case report

NAKAI Hiromi¹⁾・KOBAYASHI Jun-ich²⁾・KITAMURA Tetsuya³⁾
TSUCHIHASHI Kei¹⁾・OKAMOTO Jun-ya¹⁾・MIYAZAKI Akihiro¹⁾

Abstract: Peripheral odontogenic myxoma of the oral cavity is extremely rare. We present a case of peripheral myxoma arising from the mandibular anterior lingual gingiva in a 55-year-old man. Intraoral examination revealed a solitary, elastic-hard mass on the lingual gingiva of the mandibular in the range of right first incisor to canine, measuring 13mm in diameter. The mucosa of the mass was partially white in color, and the shape of the mass was slightly irregular. Abnormal uptake FDG on PET/CT (SUVmax 9.9) was observed in the anterior mandible. The mass was excised with a margin of healthy gingiva. The histopathologic diagnosis was peripheral odontogenic myxoma. Follow-up for 2 years after excision has shown no evidence of recurrence.

Key words: odontogenic myxoma (歯原性粘液腫), gingiva (歯肉),
peripheral odontogenic myxoma (周辺性歯原性粘液腫)

緒 言

歯原性粘液腫 (Odontogenic myxoma: OM) は、通常顎骨中心性に生じ、病理組織学的に豊富な粘液組織から成る細胞外器質中に星状細胞や紡錘形細胞が散在している。

OM のうち顎骨外の軟組織に生じる周辺性歯原性粘液腫 (peripheral odontogenic myxoma: POM) はきわめてまれであり、OM よりも発育は緩慢で、増殖能は低く、再発率も低く¹⁻⁴⁾、顎骨の吸収も認めない場合が多いとされている⁴⁾。POM は病理組織学的に他の粘液成分を含む線維腫・周辺性歯原性線維腫あるいは口腔内の粘液沈着症などとの鑑別が難しく、診断に難渋する場合が多い^{3,5,7,8)}。

今回、下顎前歯部舌側歯肉に生じた周辺性歯原性粘液腫の1例を経験したので、文献的考察を加えて報告する。

症 例

患 者: 55 歳, 男性。

初 診: 2018 年 4 月。

主 訴: 下顎前歯部舌側歯肉の腫脹。

既往歴: 特記事項なし。

現病歴: 2017 年 10 月頃、近在歯科で下顎義歯作製中、下顎前歯部舌側歯肉に潰瘍があるのを指摘され、経過観察していた。その後、潰瘍部に腫瘤形成を認めるようになり、精査・加療目的に 2018 年 4 月、当科を紹介され受診した。

現 症:

全身所見: 体格中等度で栄養状態は良好であった。

口腔外所見: 顔貌は左右対称で顔色良好であり、頸部リンパ節の腫脹は認めなかった。

口腔内所見: 下顎前歯部舌側歯肉 (3-1) に 12×9 mm 大、表面粘膜は一部白色を呈する凹凸不整、弾性硬の広基性腫瘤を認めた (写真 1)。圧痛や接触痛は認めなかった。

初診時デンタル X 線所見: 3-1 歯槽骨に明らかな骨破壊像は認めなかった。

CT 所見: 腫瘤相当部に明らかな骨吸収像は認めなかつ

¹⁾ 札幌医科大学医学部口腔外科学講座
(主任: 宮崎晃亘教授)

²⁾ 医療法人溪仁会手稲溪仁会病院歯科口腔外科
(主任: 針谷靖史部長)

³⁾ 北海道口腔病理診断所
(主任: 北村哲也先生)

¹⁾ Department of Oral Surgery School of Medicine, Sapporo Medical University (Chief: Prof. MIYAZAKI Akihiro)

²⁾ Department of Dentistry and Oral Surgery, Teine Keijinkai Hospital (Chief: Dr. HARIYA Yasushi)

³⁾ Hokkaido Oral Pathology Diagnostic Clinic (Chief: Dr. KITAMURA Tetsuya)

受付日: 2019 年 11 月 25 日

採択日: 2020 年 11 月 14 日

た(写真2)。

超音波検査所見：12×8 mm 大の境界明瞭，内部不均一で血流シグナル豊富な腫瘍を認め，骨への浸潤は明らかではないが，悪性を否定できない所見であった(写真3)。

FDG-PET/CT 所見：下顎前歯部舌側の腫瘍相当部に SUVmax 9.9 の FDG 集積が認められ，悪性の腫瘍性病変が疑われる所見であった(写真4)。

臨床診断：下顎歯肉腫瘍。

処置および経過：上記診断のもと，初診から2週間後に生検術を施行した。病理組織学的には間質の浮腫と線維増生を認め，明らかな悪性所見は認めずエプーリス様の所見であったが，確定診断には至らなかった。生検から2週間後，全身麻酔下に腫瘍切除術を施行した。切除時，腫瘍周囲に約5 mm 程度のマージンを設け，骨膜も併せて切除し，同部の骨は一層削除した。病理組織学的診断は歯原性粘液腫であった。術後2年経過した現在，再発の所見なく，経過良好である。

切除標本所見：切除標本は13×13mm 大で剖面は黄白色，充実性であった。

病理組織学的所見：異型に乏しい扁平上皮で被覆された間質に，粘液腫様の変化・浮腫・線維増生を認めた(写真5A～C)。腫瘍周囲に明らかな被膜は認められなかった。また，アルシアンブルーによる免疫組織化学的染色で上皮下組織全体が陽性で粘液成分であることが示された(写真5D)。悪性所見は認められなかったが，Ki-67 による免疫組織化学的染色で5～7 %の標識率であった(写真5E)。明らかな歯原性成分は認めず，S-100 タンパクの発現も認め

なかった(写真5)。

病理組織学的診断：歯原性粘液腫(peripheral type)。

考 察

OM は歯原性腫瘍の2.2～15.7%を占める比較的まれな腫瘍である^{3,4,6)}。顎口腔領域に生じる OM はそのほとんどが顎骨内に生じる顎骨中心性であり，顎骨に病変が及ばない POM はきわめてまれであるとされている。2000 年以降の POM の報告例は自験例を含めて15例のみで，その主な臨床病理学的所見を表1に示す(表1)^{4,7～15,17,18)}。

性別では男性8例，女性7例で，年齢は8歳から55歳(中央値38歳)と比較的若年者にも発生していた。発生部位別では，下顎前歯部歯肉6例(うち舌側2例)，下顎臼歯

写真2 CT画像(水平断)
腫瘍による明らかな骨吸収像は認めない。

表1 POMの報告例(2000年以降)

報告者(文献番号)	性	年齢	部位	主訴	大きさ	処置	術前診断	歯原性 上皮 の有無	X線 上の 骨変化	再発 の有無
Shimoyama et al ⁷⁾	M	51	下顎前歯部	腫脹	30×28	切除+抜歯+骨削除	POF	○	○	なし
Chang et al ⁸⁾	M	37	下顎臼歯部	—	15×12	切除	—	×	×	なし
Perrotti et al ⁹⁾	M	42	上顎前歯部	腫瘍	10×10	切除	Fibroma	×	○	なし
Ayatac et al ¹⁰⁾	F	38	上顎臼歯部	腫脹	30×20	切除+抜歯+骨削除	PGG	○	×	なし
Raubenheimer et al ¹¹⁾	F	53	上顎小臼歯部	腫瘍	120×50	切除	Low Grade sarcoma	×	○	なし
		38	下顎前歯部舌側	腫瘍	80×60	切除	—	×	○	なし
Jain et al ¹²⁾	M	41	上顎前歯部	腫瘍	20×10	切除	Fibroma	○	×	なし
Kapoor et al ¹⁷⁾	M	11	側頭下窩	腫脹	20×20	切除+骨削除	—	○	×	なし
Tasnime et al ¹³⁾	F	14	上顎前歯部	腫脹	20×20	切除+骨削除	PGG 他	×	○	なし
Bhoyar et al ¹⁸⁾	F	8	全顎的	歯肉増殖	—	経過観察	—	×	×	—
Kanitkar et al ¹⁴⁾	F	12	下顎前歯部	腫瘍	15×10	切除+骨削除	PG	×	×	なし
Bajpai et al ¹⁵⁾	F	27	上顎小臼歯部	腫瘍	20×10	切除	PG	×	○	なし
Marco et al ⁴⁾	M	47	下顎前歯部	腫瘍	25×20	切除	Fibroma	×	○	なし
		23	下顎前歯部	腫瘍	10×5	切除	Fibroma	×	○	なし
自験例	M	55	下顎前歯部舌側	腫瘍	12×9	切除+骨削除	Low Grade sarcoma	×	×	なし

—：記載なし ○：あり ×：なし POF：Peripheral ossifying fibroma PGG：Pyogenic giant cell glauroma PG：Pyogenic glauroma

部1例, 上顎前歯部3例, 上顎小臼歯部から大臼歯部3例, 全顎的に出現したもの1例, 側頭下窩1例で, 顎骨中心性の歯源性粘液腫の好発部位が下顎臼歯部や上顎前歯部であるのと異なり, 下顎前歯部が好発部位であることがわかる. 受診時の主訴は, 腫脹が4例, 腫瘤形成9例, 歯肉増殖1例であり, 腫瘍の大きさは 10×5 mm ~ 80×60 mm 大で全顎的に歯肉増殖を伴っている症例も認められた. 画像上, 骨の吸収を認めた症例は8例であった. 自験例は, 初診時

の大きさは 12×9 mm 大の腫瘤で, 骨の変化は認めなかったが, 形態が不整であったこと, 現病歴によれば当初潰瘍性病変から腫瘤を形成したことなどから, 線維肉腫などの低悪性度の肉腫や悪性リンパ腫等の悪性腫瘍の可能性も疑った. このため FDG-PET/CT 検査を施行し, SUVmax 9.9 の FDG 集積を認め, 悪性腫瘍がより疑われたため生検を

写真1 初診時口腔内写真（ミラー像）

3-1 舌側歯肉に 12×9 mm, 凹凸不整な広基性, 弾性硬の腫瘍を認める.

写真3 超音波検査

下顎前歯部舌側歯肉に 12 mm 大, 厚さ 8 mm の低エコー腫瘤を認める. 腫瘍は境界明瞭で内部不均一, 血流シグナル豊富である.

写真4 FDG-PET/CT

下顎前歯部に SUVmax 9.9, mean 8.4 の FDG 集積亢進を認める.

写真5 病理組織像

A, B: 異型に乏しい扁平上皮下に間質の粘液腫様変化, 浮腫, 線維増生, 軽度のリンパ球浸潤, 形質細胞浸潤を認める. 歯源性上皮の存在は明らかではない (A: HE 染色 $\times 40$, B: HE 染色 $\times 200$).

C: 粘液腫部分に細網線維の増生を認める (HE 染色 $\times 400$).

D: アルシアンブルーによる免疫組織化学的染色で上皮下組織全体が陽性を示す.

E: Ki-67 標識率は 7 % である.

行った。文献的にも初診時の臨床診断が低悪性度の肉腫と診断した報告もあり¹¹⁾、他に線維腫が4例、Pyogenic granulomaが2例、Pyogenic giant cell granulomaと診断されたのが2例あった。治療法は主に外科的切除が行われている。自験例では腫瘍切除とともに骨の削除を行ったが、腫瘍は切除時に骨から容易に剥離可能であった。他の報告例でも腫瘍の切除と骨削除も併せて行ったものは15例中6例で、うち2例では腫瘍に近接する歯の抜歯も行われていた。腫瘍切除のみは8例で施行されており、全顎的な歯肉増殖を伴った1例では経過観察が行われていた。POMは顎骨中心性のOMに比べて増殖が緩慢で表1に示すように再発したという報告はなかった。

POMの鑑別すべき病変として、Oral focal mucinosisや神経鞘粘液腫などがあげられる。病理組織学的にOral focal mucinosisは、粘膜下に限局した粘液様物質の沈着を特徴とし、OMとは異なり、細網線維に乏しいとされている¹⁹⁾。自験例では、鍍銀染色を施行した結果、細網線維の増生を認めた(未掲載データ)。また、これら細網線維を含む粘液腫細胞が増殖しており、同部のKi-67は7%と比較的高値であることから、Oral focal mucinosisとは異なり明らかな腫瘍性病変であり、Oral focal mucinosisは否定的と考えられた。また神経鞘粘液腫は、神経線維に沿った粘液様物質の沈着を特徴とし、抗S-100蛋白抗体を用いた免疫組織化学的染色で陽性を示す神経線維の増生を認める。切除標本の病理組織学的所見で、自験例では扁平上皮下の間質に粘液腫状の変化を認め、線維増生、軽度のリンパ球・形質細胞浸潤を認めた。免疫組織化学的染色でS-100蛋白陰性であることから、神経鞘粘液腫も否定された。

また自験例では、切除標本中に歯原性上皮は含まれていなかった。WHO分類によると、歯原性粘液腫は歯原性腫瘍に分類されるが、歯原性上皮が実際に認められるものは5%にすぎず、その診断にあたっては歯原性上皮の存在は必ずしも必要ではないとされており¹⁹⁾、病理組織学的に歯原性上皮を認めたのは表1に示すごとく15例中4例のみであった。

自験例は術後2年が経過し、再発の兆候なく経過良好であるが、細胞の分裂能が比較的高くPET/CT検査でSUVmax 9.9であったこともあり、今後も長期的な注意深い経過観察を行う予定である。

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) Jing W, Xuan M, et al : Odontogenic tumours: a retrospective study of 1642 cases in a Chinese population. *Int J Oral Maxillofac Surg* 36: 20-25, 2007.

- 2) Buchner A, Merrell PW, et al : Relative frequency of central odontogenic tumors: a study of 1,088 cases from Northern California and comparison to studies from other parts of the world. *J Oral Maxillofac Surg* 64: 1343-1352, 2006.
- 3) Olgac V, Koseoglu BG, et al : Odontogenic tumors in Istanbul: 527 cases. *Br J Oral Maxillofac Surg* 44: 386-388, 2006.
- 4) Marco M, Lucrezia T, et al : Peripheral Odontogenic Myxoma: Report of Two new Cases with a Critical Review of the Literature. *The Open Dentistry Journal* 12: 1079-1090, 2018.
- 5) Nakano Y, Yamamoto H, et al : Peripheral myxoma of the right maxilla: A case and review of the Japanese literature. *J Nihon Univ Sch Dent* 27: 119-125, 1985.
- 6) Barmes L : Tumors and tumor-like lesion of the soft tissues. *Surgical Pathology of the head and neck*, 2nd edn. BC Dekker, New York, pp: 948-952, 2001.
- 7) Shimoyama T, Horie N, et al : Soft tissue myxoma of the gingiva: report of a case and review of the literature of soft tissue myxoma in the oral region. *J Oral Sci* 42: 107-109, 2000.
- 8) Chang SH, Lee KF, et al : Myxoma of the gingiva: A report and literature review. *Chang Gung Med J* 24: 826-831, 2001.
- 9) Perrotti V, Rubini C, et al : A soft tissue myxoma report if an unusual case located on the gingiva. *J Clin Periodontol* 33: 76-78, 2006.
- 10) Aytac-Yazicioglu D, Eren H, et al : Peripheral odontogenic myxoma located on the maxillary gingiva: Report of a case and review of literature. *Oral Maxillofac Surg* 1: 167-171, 2008.
- 11) Raubenheimer EJ and Noffke CE : Peripheral odontogenic myxoma: A review of the literature and report of two cases. *J Maxillofac Oral Surg* 11: 101-104, 2012.
- 12) Jain VK, Chan JKC, et al : Peripheral odontogenic myxoma of maxillary gingiva: A rare clinical entity. *J Indian Soc Periodontol* 17: 653-656, 2013.
- 13) Tasnime S, Saxena C, et al : Peripheral odontogenic myxoma. *Indian J Dent Res* 27: 437-440, 2016.
- 14) Kanitkar S, Kamat M, et al : Peripheral odontogenic myxoma in a 12-years-old girl: A rare entity. *J Korean Assoc Oral Maxillofac Surg* 43: 178-181, 2017.
- 15) Bajpai M and Pardhe N : Extra-Osseous Odontogenic Myxoma of Maxillary gingiva. *J Coll Physicians Surg Pak* 27: S28-29, 2017.
- 16) Adel K, El-Naggar, et al : WHO classification of Head and Neck Tumours 4th Edition. IARC press, Lyon, 229-230, 2017.
- 17) Kapoor P, Gandhewar TM, et al : Peripheral myxoma of the infratemporal region: An unusual case report. *J Oral Biol Craniofac Res* 5: 232-235, 2015.
- 18) Bhoyar N, Gupta S, et al : Odontogenic myxofibroma of gingiva in pediatric patient with tuberous sclerosis: A case report. *Contemp Clin dent* 7: 558-561, 2016.
- 19) Sreelatha S, Biju T, et al : Oral Focal Mucinosis-Presenting as conventional epulis with unconventional histopathology- Revealed by Special stain: *Int J Dent Res* 2: 61-63, 2017.