良性骨芽細胞腫の1例

南雲正男・倉地洋一・大野邦博
原利通・曾田忠雄・伊藤秀夫

A case of benign osteoblastoma.

Masao NAGUMO・Youichi KURACHI・Kunihiro OHNO
Toshimichi HARA・Tadao SODA・Hideo ITO

緒言

顎骨の良性骨芽細胞腫はきわめて稀といわれており、本邦における症例報告は赤坂ら¹⁾ および伊藤ら²⁾ のそれぞれ1例のみである。われわれの教室では赤坂らの報告後にさらに3例を経験したが、今回はそのうち、臨床像からは悪性の骨腫瘍が疑われたために顎切除を行ない、摘出腫瘍の組織学的検査で良性骨芽細胞腫と診断された症例について、その概要を報告する。

症例

患者：■■■■ 37歳 男性

初診：昭和48年3月■■日

主訴：左側下顎臼歯部の腫脹

家族歴および既往歴：特記すべき事項なし。

現病歴：約4カ月前の昭和47年11月ころに7の動揺に気づき、12月末に某歯科医で歯槽膿漏と診断され、同歯を抜去された。抜歯窩から肉芽様の組織がもり上がり、徐々に増大してきたので、翌年1月に切開されたが排膿はなく、その後も腫脹部が増大してきたので、3月■■日に当科を紹介されて来院した。

現症：体格、栄養共に良好で、全身的には健康であり、血液、血清および尿についての臨床検査でも特に異常はみられない。

顔貌は僅かに非対称性で、左側大臼歯に相当する下顎体部が僅かに腫脹している。顎下および頸部のリンパ節は触知されない。

口腔所見は写真1のようで、78はなく、5から翼突下顎皺襞にかけての歯肉部が瀰漫性に腫脹していた。腫脹

の中心は78部で、その部分では、いわゆる顎堤が幅広くもりあがっており、上顎大臼歯咬合面の圧痕が印されていた。腫脹部は弾性硬で、軽微な圧痛がある。被覆粘膜には特に異常はなく、一部が発赤しているのみであった。

X線所見：腫脹部に一致して、すなわち、16部から下顎枝の前縁部にかけて、下顎骨の上部が全体的にスリガラス様の像を示しており、健康な部分との境界は不鮮明である。その中央の78部に直径約1.5cmの半円形のもり上がった骨吸収像を示す部分があり、吸収像の上部には calcific shell 様の細い不透過線がおぼろげながらも認められ、またその内部には、不規則な形の小石灰化物が斑紋状にみられた。16の歯槽骨の中央から上部は消失しており、また根尖部まで歯根膜腔が拡大しているが、歯根吸収の像は著明でない(写真2, 3 および 4-b)。

組織学的検査：3月■■日および4月■■日の2回、腫脹の中央部から組織片を採取して、組織学的検査を依頼した。本学口腔病理学教室からの報告は、“骨芽細胞と思われる細胞の増殖からなる腫瘍で、腫瘍内には類骨の形成とそれへの石灰化がみられ、かなり多量の未熟な骨質が形成されている(写真5および写真6)。この所見が全

写真1 口腔所見

東京医科歯科大学歯学部第二口腔外科学教室

(主任：伊藤秀夫教授)

2nd Department of Oral Surgery, School of Dentistry,
Tokyo Medical and Dental University,

(Chief: Prof. Hideo Ito)

受付：昭和51年7月6日

写真 2 X 線 所 見

写真 4-a 摘 出 物

写真 4-b 同 X 線 所 見

写真 3 X 線 所 見

写真 4-c 同 割 面

体像であれば良性骨芽細胞腫であろう、とのことであった。

治療：病理組織学的所見は上記のようであったが、臨床的経過で腫瘍の増大が早いこと、X線像で境界が明瞭でないことなどから、骨原性の悪性腫瘍の疑いも否定できなかったので顎切除の方針が決定された。5月18日に、全身麻酔下で、4の遠心と、下顎枝の後縁から約2cmの所で下顎骨を切断して腫瘍を除去し、生じた骨欠損部に対しては、腸骨稜より骨片を採取して骨移植を行なった。術後経過は良好で、再発の徴候は全くみられない。

切除物の所見：下顎骨の上部を占める腫瘍の大きさは $2.5 \times 3.5 \times 4.0$ cmで、頬側面への膨隆は軽度であるが、舌側面には半球状に大きく膨隆しており、その下端は下顎下縁から約0.6cmのところまで達していた(写真4-a)。頬舌の断面をみると、腫瘍は充実性で、一部は暗赤色、大部分は灰白色を呈しており、内部に石灰化組織がみられた。下顎骨の深部に増殖している腫瘍の境界はあまり鮮明でなかった。しかし、舌側面に膨隆した腫瘍と下顎骨の舌側表面との境界は明瞭であった(写真4-c)。

切除腫瘍の病理組織学的所見：腫瘍は顎骨においては下方に増殖して、その先端は下顎管の近くまで達している。増殖はどちらかといえば膨張性ではあるが、明らかな被膜はみられない。一方、下顎骨上部から舌側の骨皮質に沿って増殖している部分では、腫瘍と周囲組織との境界はかなり明瞭である。腫瘍内にはいくつかの拡張した腔があり、血液を入れているが、その壁に、通常の血管壁の構造は認められない。腫瘍組織の所見は試験切除標本のそれと同様で、細胞成分に富み、不規則な梁状ないしは塊状の硬組織を形成する腫瘍巣が線維性組織の間に存在していた。硬組織は全体的に石灰化が弱く、幼若は類骨梁の所見を呈していた(写真5および6)、なお、下顎骨の舌側面外方に増殖した部分は線維性組織と線維骨梁からなっていた(写真7)。

以上の組織学的所見から、本腫瘍は良性骨芽細胞腫と診断された。

考 案

良性骨芽細胞腫 (benign osteoblastoma) は Jaffe³⁾ (1956) および Lichtenstein⁴⁾ (1956) が命名し、独立した骨腫瘍として分類したもので、それ以前は osteoblastic osteoid tissue forming tumor⁵⁾, osteogenic fibroma⁶⁾, あるいは giant osteoid osteoma¹⁸⁾ などの名称で報告されていたようである。本腫瘍の組織学的特徴は骨芽細胞様細胞の増殖と梁状の類骨組織の形成であるが、命名の理由について、Jaffe³⁾ および Lichtenstein⁴⁾ はそれぞれ組織学的には骨原性肉腫とまぎらわしい点もあるが、本来は良性腫瘍であり、悪性の経過をとるものとは区別する必要があるからと述べている。

本腫瘍は骨腫瘍の中でもかなり稀なもののようで、本邦では、登録されている骨腫瘍13,299例のうちの34例(0.3%)にすぎない⁹⁾。発生部位は主として長管骨と脊椎骨であり、顎骨には少なく、天児⁸⁾の調査では34例中の5例、Byersの調査⁹⁾では112例中の2例、また Dahlinらの調査⁷⁾では28例中の2例が上顎骨または下顎に発生したものとして記録されている。したがって、症例報告形式の文献は少なく、われわれが渉猟できたのは上顎2

写真6 腫瘍の組織像(×120)

写真5 腫瘍上部の組織像(×50)

写真7 顎骨舌側面の外側に増殖した部分の組織像(×120)

例, 下顎8例の計10例^{1)2)10)~18)}で, 本例を加えて11例である(表1)。

患者の年齢は比較的若い人が多いようで, Lichtenstein ら¹⁷⁾によると, 16例中12例が7歳から20歳の間, 4例がそれ以後の成人で, 最年長は78歳となっている。顎領域の本腫瘍にも同様の傾向がみられ, 表にあげた11例中2例は10歳以下, 7例が10歳代, 1例が21歳で, 本例のみが37歳であった。なお, 男女別は9例が男性, 2例が女性で, Lichtenstein ら¹⁷⁾および Dahlin ら¹⁸⁾と同じ傾向であった。

本腫瘍は骨の内部に発生して緩慢に発育し, 発見時の大きさは長径2~3cmのものが多いといわれているが, なかには Jaffe⁹⁾の記載のように6×6.5×10cmに達するものもある。本例は2.5×3.5×4.0cmで, 顎骨に発生したものとしては大きいほうであるが, 特異な点はむしろその発育状態であった。すなわち, 本腫瘍の発育は一般に骨内であって, 骨を破って外部にまで増大する症例はあまり多くないようである。しかし, 本例は下顎骨の比較的上部に発生したためか, 前記のように, 顎堤部から舌側面の外側に大きな腫瘍塊を形成しており, 骨の深部に向かっての発育はあまり顕著ではなかった。

本腫瘍のX線所見については Pochaczewsky ら¹⁹⁾の詳細な記載がある。それによると, 腫瘍のX線像の主体は骨溶解性の変化で, その内部に骨ないし類骨の形成像がいろいろな程度に存在するとのことであり, Jaffe⁹⁾および Lichtenstein⁴⁾も本質的なX線像は骨溶解性であると述べている。一般に, 形成初期の腫瘍は骨梁ないしは類骨組織が少なく, X線的に透過性の病像を示すが, 腫瘍が成熟するにつれて類骨梁が増加し, 石灰化が進むので, 次第に不透過像が現われてくると理解されている⁸⁾²⁰⁾。しかし, 石灰化組織の多少は腫瘍の新旧とは関係なく, むしろ腫瘍細胞の活性によるとの見解もある¹¹⁾。顎骨発生のものは, 赤坂ら¹⁾および Kent ら¹²⁾が指摘しているように, 不透過像を示すものが多いようである。

腫瘍と骨健康部との境界は一般に明瞭であり, 骨皮質を突破して軟組織に増大した部分でも, その表面は“calcific shell”で被われていると言われている⁸⁾⁴⁾¹⁹⁾。本例では, 78(欠損)部に, 約1.5cmの半円形のもり上がった透過巣がみられ, その内部には小石灰化物の像, 円周には“calcific shell”を思わせる細い線状の不透過像がみられたが, 基底部と顎骨との境界は不明瞭であり, またそれを中心として顎骨の上部が全体的にスリガラス様の像を呈しており, 顎骨の健康部との境界は不鮮明であった(図4-b)。このスリガラス様の像は切除標本についての検討で, 舌側面に増殖した腫瘍塊によることが判明したが, 手術前のX線写真では, 以上のことから骨原性の悪性腫瘍が疑われる像と解釈された。

本腫瘍と類症鑑別を要する疾患として, 顎骨の場合には, 類骨腫, セメント質腫, 巨細胞腫および骨原性肉腫などが挙げられている。このうち, 類骨腫は通常1cm以下であり, 疼痛を伴う, 皮質の硬化が強く“nidus”と呼ばれる像がみられる等の特徴があり²¹⁾, またセメント質腫には歯根と密着しているのが特徴であるので, それらとの鑑別診断はさほど困難ではない。最も重要なのは骨原性肉腫であって, Lichtenstein⁴⁾が指摘しているように, 試験切除によって得られた小組織片の場合には正確な診断が困難なことがあるので, 本症例のように臨床像から悪性腫瘍が疑われる場合には特に注意すべきであろう。

本腫瘍の治療については, Lichtenstein ら¹⁷⁾および Dahlin ら¹⁸⁾は局所的な搔爬のみで治癒が得られると述べており, 顎骨においても, 1塊として摘出²⁾¹⁰⁾¹²⁾¹³⁾, 数塊に分割して摘出¹²⁾¹⁶⁾, および搔爬により摘出¹¹⁾¹⁴⁾¹⁵⁾などの処置がとられている。しかし, これらの除去方法とは関係なく, 4例²⁾¹⁰⁾¹⁴⁾¹⁶⁾が再発しており, とくに Remagen ら¹⁶⁾の症例は, 最初小塊に分けて摘出されたが再発し, 再発腫瘍に対しては顎切除が行なわれている。本症例の場合には, 上述のように試験切除標本では良

表1 顎骨の良性骨芽細胞腫の報告症例

報告者	発表年	年齢と性	部位	主訴	X線所見	大きさ	手術法	再発
Borello ら ¹⁰⁾	1967	21, ♂	上顎	無痛性腫脹	透過像	2×2×3cm	摘出	+
Kramer ¹¹⁾	1967	6, ♀	下顎	有痛性腫脹	〃	?	搔爬	-
Kent ら ¹²⁾	1969	13, ♀	上顎	無痛性腫脹	不透過像	3×4cm	摘出	-
Kopp ¹³⁾	1969	19, ♂	下顎	?	透過像	2×2×2cm	〃	-
赤坂・ ¹⁾	1971	18, ♂	〃	疼痛	不透過像	1.5×2cm	分割 摘出	-
伊藤ら ²⁾	1971	18, ♂	〃	有痛性腫脹	〃	2.8×3cm	摘出	+
Smith ¹⁴⁾	1972	7, ♂	〃	〃	〃	?	搔爬	+
Brady ¹⁵⁾	1972	19, ♂	〃	〃	透過像	?	〃	-
〃	1972	14, ♂	〃	無痛性腫脹	?	?	摘出	-
Remagen ら ¹⁶⁾	1975	15, ♂	〃	〃	不透過像	2×2×2cm	分割 摘出	+(顎切除)

性骨芽細胞腫が考慮されたが、発育経過およびX線像から、臨床的には骨原性の悪性腫瘍の可能性も否定できなかった。顎切除術を適用したが、術後経過は良好であり、3年6か月後の現在、再発の徴候は全くみられない。なお本例の顎骨内に増殖している腫瘍には明らかな被膜がなく、骨髓組織との境界が明瞭でない部分がみられたので、腫瘍を摘出ないしは搔爬除去する場合でも、周囲の骨組織の一層を削除しておくことが望ましいように思われる。

結 論

われわれは下顎骨の内部から外部にかけて発育した良性骨芽細胞腫の症例を経験したので、その臨床像、組織学的所見および治療の概要を報告し、併せて文献に記載された10例についても考察した。

文 献

- 1) 赤坂庸子, 他: 下顎骨に発生した良性骨芽細胞腫. 口外誌 20: 140 1971.
- 2) 伊藤輝夫, 他: 珍しい Benign osteoblastoma の再発例について. 口科誌 20: 847 1971.
- 3) Jaffe, H. L.: Tumors and Tumorous Conditions of the Bones and Joints. Lea and Febiger, Philadelphia, 1958 p. 107
- 4) Lichtenstein, L.: Benign Osteoblastoma. A category of Osteoid and Bone Forming Tumors other than Classical Osteoid Osteoma, which may be mistaken for Giant-Cell Tumor or Osteogenic Sarcoma. Cancer 9: 1044 1956.
- 5) Jaffe, H. L., and Mayer, L.: An osteoblastic osteoid tissue-forming tumor of a metacarpal bone. Arch Surg 24: 550 1932.
- 6) Golding, J. S. R., and Sissions, H. A: Osteogenic fibroma of bone: a report of two cases. J Bone & Joint Surg 36-B: 428 1954.
- 7) Dahlin, D. C.: Bone tumors, ed 2, Charles C. Thomas, Springfield, 1967, p. 70.
- 8) 天児民和: 骨・関節X線診断図譜Ⅲ. 骨腫瘍, 金原出版, 東京, 1968 114 頁.
- 9) Byers, P. D.: Solitary benign osteoblastic lesions of bone. osteoid osteoma and benign osteoblastoma. Cancer 22: 43 1968.
- 10) Borrello, E. D., and Sedano, H. O.: Giant osteoid osteoma of the maxilla. Oral Surg 23: 563 1967.
- 11) Kramer, H. S.: Benign osteoblastoma of the mandible. Oral Surg 24: 842 1967.
- 12) Kent, J. N., Castro, H. F., and Girotti, W. R.: Benign osteoblastoma of the maxilla. Oral Surg 27: 209 1969.
- 13) Kopp, W. K.: Benign osteoblastoma of the coronoid process of the mandible. J Oral Surg 27: 653 1969.
- 14) Smith, N. H. H.: Benign osteoblastoma of the mandible. J Oral Surg 30: 288 1972.
- 15) Brady, C. L., and Browne, R. M.: Benign osteoblastoma of the mandible. Cancer 30: 329 1972.
- 16) Remagen, W. and Prein, J.: Benign osteoblastoma. Oral Surg 39: 279 1975.
- 17) Lichtenstein, L. and Sawyer, W. R.: Benign osteoblastoma. J Bone and Joint Surg: 46-A: 755 1964.
- 18) Dahlin, D. C. and Johnson, E. W.: Giant osteoid osteoma. J Bone and Joint Surg. 36-A: 559 1954.
- 19) Pochaczewsky, R., Yen, Y. M. and Sherman, R. S.: The roentgen appearance of benign osteoblastoma. Radiology 75: 429 1967
- 20) 石川梧朗, 秋吉正豊: 口腔病理学Ⅱ. 永末書店, 京都, 1969, 979 頁.
- 21) Greene, G. W., Natiella, J. R. and Spring, P. N.: Osteoid osteoma of the jaws. Oral Surg 26: 342 1968.