顎骨に発生した多発性セメント質腫の2例

西嶋克己・石田利広・長嶋駿一郎・岡本健一郎

綱島正和・洲脇貞吉・鶴田昭雄

Multiple cementoma of the jaw bone: Report of two cases

Katsumi NISHIJIMA・Toshihiro ISHIDA・Shunichiro NAGAHATA・Kenichiro OKAMOTO

Masakazu TSUNASHIMA・Sadayoshi SUWAKI・Akio TSURUTA

緒 言

セメント質腫は中胚葉性歯原性腫瘍の1つで、歯の発育期に関係なく歯小囊あるいは十分成熟した歯根膜より発生し、組織学的にはセメント質様硬組織の増殖を特徴とする腫瘍である^{1,2)}。

本腫瘍は一般に下顎に、しかも単発性で無症状なものが多く、エックス線撮影、2次的感染により偶然発見される場合が多い³⁾。

今回、われわれは多発性セメント質腫の2例を経験し、症例2においては部位により異なるエックス線像、病理組織像のみられた稀有な症例を経験したので報告する。

症 例

症例1

患者：[] 57歳 女性。

初診：昭和45年7月[]。

主訴：65] 部の鈍痛および排膿。

既往歴、家族歴：特記事項なし。

現病歴：患者は16歳ごろより右側下顎骨体部の膨隆を認めていたが、無痛性のため放置していた。昭和28年4月中旬、農作業中に器械の鉄片にて右側頬部を打撲し、以後右側頬部の疼痛と腫脹が持続したため、同年5月[]当歯科受診。多発性骨腫および骨髓炎の診断のもとに、右側下顎臼歯部より下顎枝にわたり腫瘍の一部を摘出、自家肋骨移植を施行、その後経過良好であった。昭和45年1月ごろより右側頬部に痛性腫脹をきたし、某歯科にて洗浄などをうけていたが、症状の軽快はみられず、約4か月前某病院外科を受診し、右側上顎臼歯部の腐骨摘出術をうけた。以後腫脹はやや縮小したが、同部

からの軽度の排膿と鈍痛が持続するため当口腔外科へ来院した。

現 症

全身所見：体格・栄養状態ともに中等度で、骨格そのほかに異常所見は認められなかった。

口腔外所見：右側下顎角部から右側顎下部にわたり昭和28年にうけた手術による瘢痕形成がみられ、下顎はやや右側に偏位し顔面非対称を呈していた。所属リンパ節は左側顎下リンパ節大豆大1個を触知したが、可動性で圧痛は認められなかった。

口腔内所見：65] 歯肉頬移行部はやや陥凹し、瘢痕および瘻孔を形成し、排膿が認められた。43/34部頬側および左側下顎大臼歯部頬・舌側に軽度の骨様膨隆が認められた(写真1)。

エックス線所見：上顎骨は2+2を除いた全域に数回の濃淡不整、塊状の境界明瞭なエックス線不透過像がみられ、両側とも智歯が埋伏していた。下顎骨は4] 部より左側下顎枝中央部まで広範囲に上顎骨と同様の境界明瞭なエックス線不透過像がみられ、右側下顎骨体部より右側下顎枝にかけて昭和28年に施行された移植骨および結紮線がみられた(写真2, 3)。

臨床検査所見：一般血液検査、血清化学検査は表1、表2のごとくで、白血球数の減少がみられた以外、心電図、胸部エックス線、全身のエックス線写真などには異常はみられなかった(表1, 2)。

臨床診断：多発性骨腫および65] 部腐骨形成の疑い。

処置および経過：昭和45年8月[]局所麻酔のもとに、腫瘍の一部ならびに腐骨摘出術を施行した。すなわち7-3] 部の頬側歯肉を剝離すると、やや帯黄色で粗な腐骨様のものが露出し、容易に周囲より分離摘出できた。また腫瘍の一部を除去したのち、同部の歯槽骨整形を施行した。同様に134部腫瘍を部分切除した。さらに2+2は辺縁性歯周炎にて抜歯した。その後、経過観察していたが、昭和46年1月ごろより再度65] 部より軽度の排膿と鈍痛をきたし持続したため、昭和46年11月[]入院の上、腐骨除去ならびに腫瘍の一部摘出を行った。すなわち7-3] 部歯肉を剝離すると、前回同様帯黄

岡山大学医学部口腔外科学教室(主任：西嶋克己教授)

Department of Oral Surgery, Okayama University Medical School (Chief: Prof. Katsumi Nishijima)

受付日：昭和52年9月28日

写真 1 症例 1, 初診時口腔内: 765 部

写真 2 初診時エックス線像

写真 3 初診時エックス線像

色の粗な腐骨様硬組織がみられた。65 部では周囲骨皮質と容易に分離摘出できたが、21 部では帯黄色、滑沢

表 1

一般血液検査	
1. 血色素量	11.5 g/dl
2. 赤血球数	$392 \times 10^4 / \text{mm}^3$
3. 色素指数	0.91
4. 白血球数	$3,000 / \text{mm}^3$
5. 出血時間	1.5分
6. ヘマトクリット	28.0%

表 2

血清検査	
ワッセルマン反応 (—)	
化学検査	
1. Fe	98 $\mu\text{g/dl}$
2. Cu	100 $\mu\text{g/dl}$
3. Na	138.5 mEq/L
4. K	3.8 mEq/L
5. Ca	9.8 mg/dl
6. Al—P—ase	2.0 B.L.u
7. 1) GOT	15 u
2) GPT	6 u

な硬固様であったため、破骨鉗子にて削除した。術後5年9か月を経た現在、経過良好で排膿および腫瘍の増大傾向はみられない(写真4)。

摘出物所見: 摘出した743[34]部腫瘍はいずれも緻密な骨様硬を呈しており、表面滑沢であった。そのほかのもの、帯黄色、粗な腐骨様組織であった。

病理組織学的所見: 大小不規則な融合性で遊離した、淡紅色に平等に染まるセメント質よりなり、辺縁部のところどころに石灰沈着がみられた。この平等に染まる硬組織は、部位によって多少細線維の集合よりなり、また全く無構造で平等にみられるところもあった。ところどころ中に細胞を入れていない細胞窩がみられ、間質には好中球を含む炎症性反応がみられた(写真5)。

病理組織診断: 巨大型セメント質腫。

症例 2

患者: [] 40歳 女性。

初診: 昭和50年8月 []

主訴: 17 部異和感。

既往歴: 6年前、狭心症にて、某病院に約5か月間入院加療した。

家族歴: 特記事項なし。

現病歴: 約3か月半前、齲蝕治療のため某歯科を受診したところ、両側下顎臼歯根端部のエックス線不透過像を指摘され、某病院歯科にて17 抜歯後、当科へ紹介され来院した。

写真 4 術後エックス線像

写真 5 病理組織像 H. E. 染色 (×10)

現 症
全身所見：体格中等度，栄養状態良好。
口腔外所見：顔貌に異常なく，所属リンパ節の腫脹，
圧痛も認められなかった。
口腔内所見：17部頰側歯肉に軽度の圧痛を認めたが，
ほかに異常を認めず，歯髄電気診断においては $\frac{763}{8}-\frac{36}{5}$
生活歯， $\frac{54}{16}$ 失活歯であった（写真6）。
エックス線所見： $\frac{6}{7}-\frac{25}{7}$ 根端部に小豆大から拇指頭
大の比較的境界明瞭なエックス線不透過像を認め，その
周囲には一部エックス線透過像で囲まれた像がみられ
た。 $\frac{4}{1}-\frac{24}{24}$ 根端部には，やや境界不明瞭な米粒大のエッ
クス線透過像を認めた（写真7，8）。
臨床検査所見：血液検査および血清化学検査は表3，
表4のごとくで，白血球数の減少がみられた以外，特に
異常所見はみられず，また尿検査，血清蛋白あるいは内

写真 6 症例2，当科初診時口腔内

写真 7 某病院歯科初診時エックス線像

表 3

血液検査	
1. 血色素量	13.9 g/dl
2. 赤血球数	$486 \times 10^4 / \text{mm}^3$
3. 色素指数	0.83
4. 白血球数	$3,800 / \text{mm}^3$
5. 白血球像	
杆状核球	0%
分葉核球	59%
好酸球	0%
好塩基球	2%
単球	5%
リンパ球	34%
6. 栓球数	$31.1 \times 10^4 / \text{mm}^3$
7. 出血時間	2分
8. 凝固時間	2分
9. ヘマトクリット	41.2%

科的にも異常所見はみられなかった。
臨床診断： $\frac{64}{7}-\frac{24}{7}$ セメント質腫。
処置および経過：昭和50年8月 局所麻酔のもとに $\frac{7}{5}-\frac{5}{16}$ 抜歯および $\frac{5}{17}$ 部腫瘍の部分切除施行，病理

写真 8 当科初診時エックス線像
a : 123 部, b : 67 部,
c : 543 部

表 4

血清検査	
ワッセルマン反応 (－)	
化学検査	
1. Fe	60 µg/dl
2. Cu	118 µg/dl
3. Na	141.6 mEq/L
4. K	4.0 mEq/L
5. Ca	9.1 mg/dl
6. Cl	110 mEq/L
7. Cholesterol	141 mg/dl
8. Al-P-ase	1.7 B.L.u
9. 1) GOT	27 u
2) GPT	15 u

組織学的にセメント質腫と診断されたため、11月 全身麻酔のもとに 7—25—7 部腫瘍摘出、43 歯根端切除術を行い、さらに11月 局所麻酔下に 64 抜歯および腫瘍摘出、1124 歯根端切除および腫瘍摘出術を施行した。エックス線不透過像部に相当する腫瘍は帯黄白色、骨様硬、境界不明瞭であり、一塊として摘出は困難であったため、分割摘出を行った。エックス線透過像部では帯赤灰白色で、一部に肉芽様の脆弱な部分もみられた。術後1年9か月を経た現在、経過良好で再発など異常所見は認められない(写真9)。

病理組織学的所見：

17部；腫瘍は線維腫性組織とセメント質よりなり、線維腫性組織の中にセメント質形成がすすみ、互いに融合し増大していく硬組織が主体を占めていた。以上の所見より、根端性セメント質異形成症と診断された(写真

写真 9 術後エックス線像

写真 10 7部病理組織像 H. E. 染色 (×40)

10).

12部;線維腫性組織が主体を占め,その中にH.E.染色に好染する硬組織の形成がみられ,拡大像において,紡錘形の細胞の中に同心円状の細胞封入を欠くセメント粒の形成がみられた.以上の所見より,根端性セメント質異形成症と診断された(写真11-a, b).

5部;腫瘍組織はエオジンに好染するセメント質の増殖よりなり,ところどころに類円形ないし不整形の比較的狭い間質が散在性にみられ,その周囲を層状のヘマトキシリンに染まる石灰化線が取り巻き,またはほぼ平等に染まる基質には,わずかに線維状の錯走した構造がうかがわれ,その中に封入細胞を欠く空虚な小窩が散見された.以上の所見より,巨大型セメント質腫とした(写真12).

また,エックス線的に根端部に同様の像がみられた6部は7部と,4部は12部と病理組織学的に同様の所見がみられた.

考 察

セメント質腫の発生機序に関し, Thoma & Goldman¹⁾ (1960) は, 大部分の歯原性腫瘍は歯の発育段階で

写真 11 12部病理組織像

H. E. 染色 a : (×40), b : (×100)

写真 12 5部病理組織像 H. E. 染色 (×40)

形成されるのに対し,セメント質腫は正常に発育した歯小囊の根端部あるいは成熟した歯の歯根膜より発生すると述べている.発生の由来について,Kline ら⁴⁾ (1961) は歯小囊あるいは歯根膜のどちらより生ずるかは明確でないとして述べ,Stafne⁵⁾ (1975) は,大部分は歯根膜に由来すると述べている.

発生原因については種々の説がある.すなわち,Scannell⁶⁾ (1949) は炎症性反応,外傷,軽度の感染症,内分泌異常,ビタミン欠乏,全身の疾患をあげている.Zegarelli ら⁷⁾ (1964) は,230人の本疾患の統計で明確

な系統的疾患は発見できなかったが、女性が215人と大多数を占めていたことから、なにか内分泌との関係が考えられると述べている。本症例においても臨床諸検査、四肢長管骨、胸部、骨盤などのエックス線撮影などを施行したが、いずれも特に異常を認めず、明確な原因と考えられる疾患は認められなかったが、性別については2症例とも女性であった。

次に発育過程についてみると、本腫瘍は一般的に組織学的には歯根膜の結合組織の増殖よりなり、根端に接した種々の大きさの線維性結合組織塊を形成する。Stafne⁵⁾は、この段階ではセメント粒類似の円形ないし卵形の少量の石灰化物がこの線維性結合組織の中にみられ、さらに発育すると、(1)一定期間Periapical fibromaあるいはCementoblastomaとしてとどまる。(2)セメント質類似の石灰化組織に変わる。(3)まれな例として正常骨に置換される。以上の3経過をとる可能性があるとして述べている。

Thoma & Goldman¹⁾はセメント質腫を発育の過程により、組織学的、エックス線所見より3段階に分けている。すなわち、最初の段階をOsteolytic stageとよび、未成熟な時期でまだ石灰化組織を含まず細胞成分に富む線維芽細胞、膠原線維、少数の血管よりなり、幼若な歯根膜に似た構造をもつとし、エックス線的には透過像を示す。第2の段階として、この組織の中にセメント粒が形成され、大きさと数を増し、互いに癒合し石灰化組織を形成する。この段階をCementoblastic stageとよび、エックス線的には一部不透過像を示し、未石灰化組織はエックス線透過像を示す。発育の最終段階をMature inactive stageとよび、病巣は大部分石灰化組織塊で占められ、周囲を細いエックス線透過像により取り囲まれた像を示すと述べている。

症例1では、上顎骨および下顎骨とも腫瘍と考えられる部分は境界明瞭なエックス線不透過像を示し、組織学的には線維性結合組織はもはやみられず、大小不規則な融合性の硬組織のみがみられたことより、Mature inactive stageと考えられた。

症例2：1-2根端部においては、いずれも生活歯であったが、境界不明瞭な米粒大のエックス線透過像がみられ、組織学的にはセメント粒の形成、大小不整の硬組織がみられたことより、Cementoblastic stageと考えられた(写真8-a, 11)。1-7部においては、病巣の中心は小指頭大のエックス線透過像により取り囲まれていた。組織学的にはセメント質形成がすすみ、互いに融合し硬組織が主体を占めていたことより、病理学的には第2の段階と推察されたが、全体的にみるとむしろ最後の段階に近いと考えられた(写真8-b, 10)。5部においては、腫瘍全体が高度に石灰化したセメント質の増殖よりなり、エックス線では不透過性であり、最終段階であると考えられた(写真8-c, 12)。

セメント質腫は現在、病理組織学的には、(1)良性セメント芽細胞腫、(2)根端性セメント質異形成症、(3)セメント質形成線維腫、(4)巨大型セメント質腫に分類されている^{2,8)}。

根端性セメント質異形成症はセメント質形成線維腫と鑑別を要するが、セメント質形成線維腫について、黒柳ら⁹⁾(1973)は細胞成分に富む線維腫内に円形ないし類円形のセメント質粒ないしセメント質の小塊が散在し、腫瘍が大きくなってもセメント質塊の大きさは変化しないと述べている。

症例1においては、顎骨にはほぼ同様のエックス線不透過像がみられ、経過も長く、腫瘍の発育はほぼ終了していると考えられたが、症例2においては、同一顎骨内に組織学的に異なるセメント質腫がみられた。Thoma & Goldman¹⁾の分類より推察すると、発育途中の段階と考えられるものもあったが、これらが最終的にどのような臨床症状、エックス線像および組織像を示すかは推定の域をでない。

石川・秋吉²⁾は、セメント質腫は病理像の多様性から、必ずしも各型を明確に区別できない場合もありうると述べ、本腫瘍の大きさについて、一部にはかなりの大きさまで増大し、顎骨を膨隆させると述べている。症例1では、腫瘍は上顎骨および下顎骨のほぼ全域にわたり、一部には顎骨の膨隆がみられた。

巨大な本腫瘍の報告をみると、清水ら¹⁰⁾(1969)は20数年にわたる経過を観察し、右側上顎洞を満たすほどに発育した症例を報告、伊藤ら¹¹⁾(1974)は下顎骨骨体部に広範な嚢胞を伴って増大した巨大な症例を報告している。

長尾ら¹²⁾(1968)は6部|部に発生した拇指頭大の大きさで、その下部は下顎管に接し下歯槽神経を圧迫、鈍痛を生ぜしめていた症例を報告している。

本腫瘍の上下顎における発生頻度についてみると、Scannell⁶⁾は1:5、Klineら⁴⁾は1:15、Zegarelli⁷⁾は1:14.3で、いずれも下顎に多く、性別では女性に多くみられたと報告している。本邦における多発性セメント質腫についての報告例は比較的少ない¹³⁻¹⁵⁾が、Thoma & Goldman¹⁾、Lucas³⁾はまれでないと述べている。

セメント質腫と他疾患との鑑別について、Stafne⁵⁾はセメント質腫の最初の段階においては、根端部にエックス線透過像として現われるため、歯の色および歯髄生活反応が正常であり、歯髄炎あるいは外傷の既往歴がない場合には、かなり確実に診断できると述べている。Thoma & Goldman¹⁾は発育の第2段階においてセメント質増殖症との鑑別について、セメント質腫は根端との間に歯根膜が介在するが、セメント質増殖症では介在しないと述べている。またCementoblastomaを取り囲む骨が一般に緻密なのは皮質板形成によるとし、嚢胞の周囲にみられるものと同様であるとしている。

骨疾患との鑑別について、Stafne⁵⁾は石灰化したセメント質腫は、エックス線透過像により周囲を取り囲まれており、正常骨組織より分けられていることより、osteosclerosis, condensing osteitis, あるいは endostosis などと鑑別できると述べている。一方、Fullmer¹⁶⁾(1967)は、歯根膜はセメント質、歯槽骨および線維性組織形成能力をもつ blastic cell を含むと述べ、Hamner¹⁷⁾(1968)は病的状態のもとでは、歯根膜はセメント質、層板骨、線維性組織あるいはこれらの3組織がいくつか混合した腫瘍、すなわち cementifying fibroma, ossifying fibroma, cemento-ossifying fibroma を生じうると述べている。われわれの第1症例においては顔貌の変形がみられたが、これらの所見はみられなかった。

結 語

57歳および40歳女性の上下顎に多発したセメント質腫の2例を経験した。

症例1では、腫瘍は上下顎ほぼ全域に存在し、一部には顎骨の膨隆がみられた。

症例2では、同一顎骨内において、部位によりX線像、病理組織像が異なった症例であった。

稿を終わるに臨み病理組織学的に御教示いただいた本学第2病理学教室元井 信講師に感謝の意を表します。

本論文の要旨は昭和50年6月、第4回日本口腔外科学会中国四国兵庫地方会および昭和51年5月、第30回日本口腔科学会総会において発表した。

文 献

- 1) Thoma, K.H. and Goldman, H.M.: Oral Pathology. ed 5, Mosby Co, St Louis, 1960, p 1203.
- 2) 石川梧朗, 秋吉正豊: 口腔病理学Ⅱ. 増補版, 永末書店, 京都, 1971, 948頁.
- 3) Lucas, R.B.: Pathology of Tumors of the Oral Tissues. ed 2, J. & A. Churchill, London, 1972, p 96.
- 4) Kline, S.N., et al.: Large cementoma of the mandible. OS OM OP 14: 1421 1961.
- 5) Stafne, E.C.: Oral Roentgenographic Diagnosis. ed 4, W.B. Saunders, Philadelphia 1975, p 183.
- 6) Scannell, J.M.: Cementoma. OS OM OP 2: 1169 1949.
- 7) Zegarelli, E.V., et al.: The cementoma; a study of 230 patients with 435 cementomas. OS OM OP 17: 219 1964.
- 8) Gorlin, R.J. and Goldman, H.M.: Thoma's Oral Pathology I. ed 6, Mosby Co, St Louis, 1970, p 503.
- 9) 黒柳錦也, 他: Cementifying fibroma の3症例. 口科誌 22: 633 1973.
- 10) 清水和幸, 他: 長期の経過をとった上顎洞内セメントームの1治験例. 口科誌 18: 764 1969.
- 11) 伊藤輝夫, 他: 嚢胞を伴った巨大な Cementoma と, その顎骨切除後の即時再建について. 日口外誌 20: 469 1974.
- 12) 長尾喜景, 他: 下顎骨に発生した Cementoma の1例. 歯科学報 68: 1245 1968.
- 13) 藤岡幸雄, 他: 上下顎に発生した Multiple cementoma の1例(抄). 日口外誌 14: 198 1968.
- 14) 佐藤伊吉, 他: 顎骨に多発したセメント質腫の2例(抄). 日口外誌 16: 244 1970.
- 15) 岸本 源, 他: 全顎に発生した Gigantiform Cementoma の1症例. 日口外誌 22: 875 1976.
- 16) Fullmer, H.M.: 17 より引用.
- 17) Hamner, J.E., et al.: Cemento-ossifying fibroma of the maxilla. OS OM OP 26: 587 1968.