再発のため根治手術を必要とした小児上顎の巨細胞肉芽腫の1例

塩 島 一 夫・佐 藤 建 夫・柳 沢 繁 孝
清 水 正 嗣・塩 田 重 利・戸 塚 盛 雄*

Giant cell granuloma of the infant maxilla treated with radical maxillectomy following recurrence: Report of a case

Kazuo SHIOJIMA・Tateo SATOH・Sigetaka YANAGISAWA
Masatsugu SHIMIZU・Shigetoshi SHIODA・Morio TOTSUKA*

1. 緒 言

Jaffe ら¹⁾は、1953年に従来巨細胞腫と考えられていたものを、真の巨細胞腫と巨細胞修復性肉芽腫とに分類した。真の巨細胞腫は口腔領域では少ないが、巨細胞修復性肉芽腫も比較的少なく、本邦では中心性のものとして朱雀²⁾、中久喜³⁾、Matsumura⁴⁾、西嶋⁵⁾、林⁶⁾、沢田⁷⁾らの報告がある。真の巨細胞腫は腫瘍性疾患であるのに対し、巨細胞修復性肉芽腫は現在一般に非腫瘍性疾患と考えられているが^{1,8)}、経過において腫瘍的性格をもつものもいくつか報告されており^{7,9)}、最近においては修復性の語は除外される傾向にあり本報告もそれに従った。

今回われわれは、7歳男児の左上顎に発生した巨細胞肉芽腫を、はじめ口内法により腫瘍摘出を行ったが再発し、口外皮切を加え口内外法により上顎骨体部分切除腫瘍全摘出を行って治癒せしめた症例を経験したのでここに報告する。

2. 症 例 (病歴 No. 73-3424)

患 者：■■■■ (7歳2か月) 男児。
初 診：1973年 (昭和48年) 9月■■日。
主 訴：左顔面、頬部の腫脹。
家族歴：特記事項なし。

東京医科歯科大学歯学部第1口腔外科学教室 (主任：塩田重利教授)

* 富山医科薬科大学医学部歯科口腔外科学教室 (主任：戸塚盛雄教授)

The First Department of Oral Surgery, Faculty of Dentistry, Tokyo Medical and Dental University (Chief: Prof. Shigetoshi Shioda)

* Oral Surgery, Faculty of Medicine, Toyama Medical and Pharmaceutical University (Chief: Prof. Morio Totsuka)

受付日：昭和55年9月5日

既往歴：2歳6か月頃階段から転落し、顔面を強打し上顎前歯が動揺した。約5か月前よりときどき鼻出血があった。

現病歴：約5か月前より左顔面、頬部の腫脹を認めるが無痛性であるため放置していた。2か月前某歯科医を受診し、腫脹は歯牙のカリエスが原因であると診断されIDEを抜歯したが、腫脹は消褪しなかった。約1か月半前左側鼻孔より出血し、その後3回同部より出血があったため耳鼻科を受診したが、特に異常はないといわれた。約1か月前某歯科医を受診し、X線検査の結果、上顎正中過剰埋伏歯があるので大学病院を受診するようにいわれ、当科に来院した。

現 症：全身所見は体格、栄養中程度。顔貌は左右非対称で、左頬部から眼窩下部にかけてびまん性の腫脹を認めた (図1)。圧痛、局所熱感、発赤などの異常を同部被覆皮膚に認めず、皮膚と癒着なく皮下に骨様硬の腫瘍を触れた。口腔内所見は、IM部歯肉頬移行部に境界不明のびまん性の腫脹を認め、硬さは骨様硬で、被覆粘膜

図 1 初診時顔貌所見

左側眼窩下方より外頬部にびまん性の腫脹を認める。

図 2 初診時口腔内所見
1—6歯肉頬移行部から口蓋正中付近まで骨様硬の腫脹を認める。

図 3 初診時X線像(頭蓋PA方向)
左上顎洞内側壁と左固有鼻腔外側壁との間に不透過性の増強を認める。

は健常色であった(図2)。所属リンパ節は、左顎下リンパ節に小指頭大、右顎下リンパ節には大豆大を触れ、いずれも可動性で圧痛はなかった。X線所見では、初診時各方向撮影X線写真で上顎正中過剰歯2本を認めたが、はかに著明な変化は認められなかった(図3~5)。血液検査ほか内科的全身の検索においても異常は認められなかった。

処置および経過：左上顎腫瘍の臨床診断のもとに左上小臼歯部歯肉頬移行部より試験切除を行い、その病理組

図 4 初診時X線像
左上顎洞の狭小化傾向と左固有鼻腔の不透過性の増強像を示す。

図 5 初回手術前X線像
1|1|1部に過剰埋伏歯を認める。

織学的所見から本学口腔病理学教室石川梧朗教授により巨細胞肉芽腫と診断された。小児のため約3年経過観察し、1976年8月■日全麻下で口内法により腫瘍摘出術を施行した。術後経過は一応良好で、退院し外来通院下の経過観察に移したが、術後6か月頃より眼窩下部の膨隆に増大傾向が認められたため、8か月後口腔内、外法により上顎骨体部分切除と腫瘍全摘出を施行した。現在術後3年経過し観察中であるが、再発もなく経過は良好である(図6, 7)。

摘出物の肉眼的所見：肉眼的にはやや赤みを帯びた弾性軟の肉芽様腫瘍で、一部には上顎骨骨皮質が完全に破壊されている部分も認められた(図8, 9)。

病理組織学的所見：病巣の主体は巨細胞と線維芽細胞とからなる組織の増殖で、巨細胞の分布と形は均一ではなく、拡張した毛細血管および小出血を伴っているところもみられた。周辺部は線維性で、一部には骨梁の新生

図 6 術後2年の顔貌所見

図 9 同摘出物のX線像
顎骨の部分的吸収，消失像と不透過性増強像が混在する。

図 7 術後2年の口腔内所見
歯牙欠損部 I234 には義歯を装置し咬合良好。

図 10 摘出物病理組織学的所見
巨細胞と線維芽細胞が混在し組織増殖を示す。

図 8 第2回目摘出物肉眼の所見

図 11 摘出物病理組織学的所見
線維性部分に接して骨の新生像がみられる。

所見も観察された(図 10, 11)。

3. 考 察

口腔領域の巨細胞病変の報告は比較的少なく、Bernick¹⁰⁾によると顎骨の巨細胞腫の頻度は全骨の巨細胞腫の11.3%であったとし、Jones ら¹¹⁾は小児の口腔領域良性腫瘍中巨細胞疾患は7.5%であったと報告している。巨細胞肉芽腫については、Austin⁸⁾が顎口腔領域の良性腫瘍968例中64例(6.6%)であったと報告している。

発症年齢は、巨細胞腫が20~40歳に多いのに比べ、巨細胞肉芽腫は10~25歳の比較的若年者に好発する¹⁾といわれている。Waldron¹²⁾の38例の分析によると、年齢幅は7歳から67歳にわたっていたが、うち23例が20歳以下であった。また Philipsen¹³⁾の32例の分析では25例が5歳から30歳の間に分布していた。

性別では巨細胞腫は男女差がないが、巨細胞肉芽腫は女性に多いとされ、Waldron¹²⁾は女性と男性の比は2.2:1で女性に多いと報告している。一般に女性で若年者の報告例が多い^{14,15)}。

発症部位として、巨細胞肉芽腫は口腔領域以外には側頭骨¹⁶⁾などで報告されている。口腔領域では、Bhaskar¹⁷⁾は上顎12例、下顎22例、Austin⁸⁾は上顎15例、下顎19例、また Waldron¹²⁾は上顎13例、下顎19例であったと報告し、一般に上顎より下顎の発症が多いようである^{13,18-20)}。同一顎骨内においては、上下顎とも前方部の発症が多い¹²⁻¹⁴⁾。

本症は7歳という幼若の男児であり、しかも上顎に発症した症例で、従来の報告による傾向と趣を異にしている。

臨床所見としては局所の腫脹が一番多く、中心性のものでは圧痛や神経麻痺のみられることもある^{8,13,19)}。また、しばしば同部の歯牙の動揺、転位、位置異常をきたす^{7,13,21)}。境界は明瞭で膨隆性に増大し、皮質の骨質は菲薄化するが巨細胞腫のようにその消失をおこすことはまれであるとされている^{7,19,21)}。その一方、骨の穿孔をおこした報告例もある^{7,8,22)}。被覆粘膜は健常色であることが多い。

本症例では頬部の腫脹を主訴として来院したが、圧痛および神経麻痺はなかった。また来院前2~3か月鼻出血を伴っていたが、初発症状として鼻出血をあげている報告例もある²³⁾。X線所見では、中心性の巨細胞肉芽腫は単胞性か多胞性の比較的明瞭な陰影欠損を示すものが多いが、特有な所見をもたないものもあるといわれている^{21,24)}。本症例では、初診時各種方向のX線撮影にもかかわらず著明な変化は認められなかったが、摘出物のX線撮影像ではじめて多胞性の陰影欠損が認められた。また、Austinは34例中9例に歯根尖部の吸収、6例に位置異常があったと報告している⁸⁾が、本症例ではそれらは

著明には認められなかった。

発生原因としては、歯の形成の関与と歯原性の間葉組織からの発生とする考え方もある²⁵⁾が、局所の外傷、出血または炎症などに対する修復過程として巨細胞が生ずるという考え方が一般にうけいれられている^{1,8,21,26)}。しかし、明らかな外傷や出血の既往をもつ報告例は少ない^{7,9,22)}。本症例では2歳6か月頃に階段から落ち、顔面を強打した経験があり、本疾患と外傷との関係が示唆される。

治療法として、巨細胞肉芽腫は摘出術あるいは病巣部の完全な搔爬で十分であるとされているが^{1,6,24)}、また再発例も多数報告されており^{4,24)}、Waldronは10~15%再発がみられた¹²⁾という。Philipsenは32例中4例が2~7か月の間に再発し、うち2例は2度再発したと報告している¹³⁾。また他の治療法として Cryosurgery による治療の報告もある⁷⁾が、再発には放射線治療が効果あるという報告もある²⁴⁾。本症例では若年者ということで初回の手術は口内法により施行したのであるが、口内法の限界のため皮切を行い完全摘出手術が必要となった。巨細胞肉芽腫の治療については、腫瘍的性格を有するものもあることを考えて思い切った十分な病巣の除去が必要と思われる。2回目には口腔内、外法での根治的腫瘍摘出術を施行し、術後3年を経過しているが再発もなく経過良好である。

巨細胞を有する疾患としては、粘液線維腫、Aneurysmal bone cyst、外傷性顎囊胞などがあるが、これらは組織学的にも臨床的にも巨細胞肉芽腫とは異なる^{8,16)}。Hyperparathyroidism を伴う褐色腫は組織学的には区別が困難であるが、生化学的に無機リンの下降、カルシウムの上昇を伴うこと、20歳以下の発症はまれなどの特徴をもっている。本症例では生化学的検査での異常はみられなかった。またケルビズムも組織学的には類似するが、男性ではほぼ100%の遺伝を示すこと、また下顎両側に発生しやすいなどの特徴^{27,28)}により本症例とは区別できる。今回われわれの経験した巨細胞肉芽腫の鑑別診断は比較的容易と思われる。

4. 結 論

今回われわれは7歳男児の左上顎に発生した巨細胞肉芽腫を経験したので、その概要を報告した。本症例は口内法により手術を施行したが、眼窩下部に膨隆のかなり急速な増大傾向が認められたため、8か月後口腔内外法により左上顎骨体部分切除とともに腫瘍全摘出術を施行した。これにより術後3年の現在、再発もなく経過良好である。

稿を終えるにあたり、本研究の組織学的検索においてご教示ご校閲をいただいた、本学口腔病理学教室石川梧

朗教授に感謝致します。

本論文の要旨は1979年(昭和54年)4月4日, 第33回
日本口腔科学会総会(東京)において口演発表した。

引用文献

- 1) Jaffe, H.L.: Giant-cell reparative granuloma, traumatic bone cyst, and fibrous (fibro-osseous) dysplasia of the jaw bone. *Oral Surg* 6: 159 1953.
- 2) 朱雀直道: 上下顎に発生した良性巨細胞腫瘍の1例. *口科誌* 11: 254 1962.
- 3) 中久喜 喬, 他: 興味ある組織形態を示した巨細胞腫の1例. *歯学報* 63: 674 1963.
- 4) Matsumura, T.: Recurrent giant-cell reparative granuloma (report of case and histochemical patterns). *J Oral Surg* 29: 212 1971.
- 5) 西嶋克巳, 他: 両側下顎臼歯部に発生した巨細胞修復性肉芽腫の一例. *日口外誌* 19: 208 1973.
- 6) 林 毅, 他: 両側下顎臼歯部に発生した巨細胞修復性肉芽腫の一例. *日口外誌* 24: 1175 1978.
- 7) 沢田 隆, 他: 幼児の上顎にみられた中心性巨細胞修復性肉芽腫に対する凍結療法の一治験例. *口科誌* 28: 276 1979.
- 8) Austin, L.H.: Giant-cell reparative granuloma and related conditions affecting the jawbones. *Oral Surg* 12: 1285 1979.
- 9) Leban, S.G.: The giant cell lesion of jaws (neoplastic or reparative?). *J Oral Surg* 29: 398 1971.
- 10) Bernick, S.: Central giant cell tumors of the jaws. *J Oral Surg* 6: 324 1948.
- 11) Jones, J.H.: Nonodontogenic oral tumors in children. *Brit Dent J* 16: 439 1963.
- 12) Waldron, C.A.: The central giant cell reparative granuloma of the jaws. An analysis of 38 cases. *Amer J Clin Path* 45: 437 1966.
- 13) Philipsen, H.P.: Oral giant cell granuloma. *Acta Path Microbiol Scand Section A* 81: 606 1973.
- 14) Duell, R.C.: Concurrent management of a central giant cell reparative granuloma. *JADA* 81: 148 1970.
- 15) Henry, J.C.: A giant cell reparative granuloma? *Brit J Oral Surg* 2: 94 1964.
- 16) Hirschl, S.: Giant cell reparative granuloma outside the jaw bone. *Human Pathology* 5: 171 1974.
- 17) Bhaskar, S.N.: Aneurysmal bone cyst and other giant cell lesion of the jaws (Report of 104 cases). *J Oral Surg* 17: 30 1959.
- 18) Kochan, E.J.: Reparative giant-cell granuloma (a report of two cases). *J Oral Surg* 21: 390 1963.
- 19) Springer, J.: Central giant-cell reparative granuloma of mandible. *Oral Surg* 28: 785 1969.
- 20) Wesley, R.K.: Central giant-cell granuloma of the mandible. *J Oral Surg* 36: 794 1978.
- 21) 石川梧朗, 他: 口腔病理学Ⅱ. 永末書店, 京都, 1973, 982頁.
- 22) Curtis, M.L.: A destructive giant cell lesion of the mandible. *J Oral Surg* 31: 705 1973.
- 23) Cook, H.P.: Giant-cell granuloma. *Brit J Oral Surg* 3: 97 1965.
- 24) Waldron, C.A.: Giant cell tumors of the jawbones. *Oral Surg* 6: 1055 1953.
- 25) Bernier, J.L.: The peripheral giant cell reparative granuloma. *J Amer Dent Ass* 49: 141 1954.
- 26) Shafer, W.G.: *Oral Pathology*. Saunders, Philadelphia, 1974, p 132.
- 27) 広戸幾一郎: cherubism の一症例. *日耳鼻* 70: 1238 1967.
- 28) 塩田重利, 他: 姉弟に発生した Cherubism の2例. *日口外誌* 20: 643 1974.