下顎歯肉に生じた粘液腫の1例

武田 進・吉沢邦一・望月公子・峯村俊一

田村 稔・田中 寿・都田芳弘

山崎 正・倉科憲治・小谷 朗

A case of myxoma of the lower gingiva

Susumu TAKEDA・Kunikazu YOSHIZAWA・Kimiko MOCHIZUKI・Shunichi MINEMURA

Minoru TAMURA・Hisashi TANAKA・Yoshihiro TODA

Tadashi YAMAZAKI・Kenji KURASHINA・Akira KOTANI

緒 言

顎口腔領域に発生する粘液腫は粘液線維腫、線維粘液腫などとも称される比較的稀な疾患で、その本態および成因については種々論議があり¹⁻⁵⁾、いまだ一致した見解はみえていない。しかし最近、本質的には線維腫の一型で、それが分化あるいは粘液変性によって形成されたものとする報告が多くなってきた⁶⁻¹⁷⁾。

本腫瘍の多くは顎骨中心性に発生するが、時には口腔粘膜および歯肉などの口腔軟組織から生じることもあり、顎骨中心性のものと区別して一般に軟組織粘液腫 myxoma of the soft tissues と呼ばれている。顎口腔領域の軟組織に生じた本腫瘍の報告は少なく、われわれが渉猟する限りでは自験例も含めて19例を数えるのみであり¹⁸⁻³²⁾、きわめて稀な疾患といえる。

今回、われわれは右下顎歯肉に生じ、線維性エプーリスと考えられた巨大な軟組織粘液腫の1例を経験したので、その概要に文献的考察を加え報告する。

症 例

患 者：54歳 男性。

初診日：昭和54年7月■日。

主 訴：顔貌の非対称ならびに咀嚼障害。

家族歴ならびに既往歴：昭和38年作業中の事故により右上腕骨を切断した以外特記すべき事項はない。

現病歴：昭和53年10月頃、右下顎臼歯部の歯肉腫脹に

写真1 初診時顔貌所見

気づいたが、疼痛などがなかったため放置していた。昭和54年6月下旬、腫脹が急速に増大し、右下顎臼歯部歯槽頂を完全に覆うようになり咀嚼不能となったため某開業医を受診し、同医の紹介により来科した。

現 症：全身所見；体格、栄養状態ともに中等度で右前腕に義手を装着している以外、異常所見はない。

局所所見：口腔外所見；顔貌は左右非対称で右頬部にほぼ鶯卵大、球型、弾性硬の腫脹があり、表面皮膚との癒着はない。同部には顔面神経麻痺、三叉神経知覚麻痺などの異常もなく、所属リンパ節の腫脹も認められない(写真1)。

口腔内所見：開口障害はない。右下顎臼歯部に楕円型、小児拳大、弾性硬の腫瘍が歯槽頂を覆い、上面には上顎歯牙による圧痕がみられ、外側では頬粘膜を、内側では舌を圧排している。腫瘍の表面は歯牙圧痕部を除

信州大学医学部歯科口腔外科学教室(主任：小谷朗教授)

Department of Dentistry and Oral Surgery, Shinshu University School of Medicine (Chief: Prof. Akira Kotani)

受付日：昭和56年8月31日

写真 2 初診時口腔内所見

写真 3 上顎歯牙圧痕がみられる腫瘍本体

写真 4 オルソパントモグラフィ像

いてはほぼ平滑であり、鮮紅色を呈している。上下歯牙の咬合は腫瘍のため不可能で咀嚼障害が認められる。43は圧排され近心に傾斜し、8765は腫瘍の中に包含され観察できない。211はいわゆる歯槽膿漏のため著しい動揺 m_2 を示す(写真2, 3)。

X線所見・オルソパントモグラフィによると右下顎歯槽部辺縁は不規則に吸収されており、61近心骨体内には

表 1 臨検諸検査所見

1) 血液一般検査		5) 血清化学検査	
WBC	4,700/mm ³	Ca	4.46 mg/dl
RBC	4.27 × 10/mm ³	P	3.2 mg/dl
HGB	12.9 gm/dl	BUN	14 mg/dl
HCT	38%	Uric A	5.7 mg/dl
Platelet	31.5 × 10/mm ³	chol	116 mg/dl
2) 一般尿検査		T-P	7.1 g/dl
外 見	黄褐色	Alb	3.3 g/dl
反 応	酸性	T-Bili	1.0 mg/dl
比 重	1.026	ALP	2.9 k-AU
蛋白質 (±)		LDH	124 mlu
糖 (一)		GOT	29 Karman
ウロビリノーゲン (N ₊)		GPT	21 Karman
PSP 2時間値78%		Na	139 mEq/l
3) 梅毒血清反応検査		K	4.1 mEq/l
ガラス板法(一)		Cl	106 mEq/l
TPHA (一)		Fe	134 ug/dl
4) 心電図		6) 血圧	
正常		脈拍	75/分
		体温	36.4°C

写真 5 術後1か月目の口腔内所見

10×10 mm 大の辺縁明瞭、ほぼ円型の透過像が認められる。4-11の歯牙は正中側へ、15は頰側へ、7は欠如し、8は上後方へ腫瘍により圧排されている。骨体内は軽度の骨梁の乱れを認めるものの、多房性陰影、樹枝状陰影などはみられなく腫瘍本体もX線透過性を示し、特別な所見はない(写真4)。

臨床検査所見：表1のごとく特に異常所見はない。

臨床診断：右下顎線維性エプーリスの疑い。

処置および経過：昭和54年8月■日入院。9月■日GOF全麻下に腫瘍摘出術を行った。腫瘍は右下顎臼歯部歯肉を基底とした有茎性の腫瘍で周囲歯肉、骨膜を剝離後、一塊としての摘出が困難なため、近遠心的に歯槽

写真 6 摘出物所見

写真 9 病理組織所見 (H-E, ×200)

写真 7 摘出物断面所見

写真 10 病理組織所見 (アザンマロリー染色, ×100)

写真 8 病理組織所見 (H-E, ×100)

写真 11 病理組織所見 (アルシアンブルー染色, ×100)

頂部で切断し、頬舌側に2分割して摘出した。65は腫瘍に附着していたので同時に抜歯したが、8は腫瘍摘出後に抜歯した。腫瘍摘出後の歯槽骨面は不規則に吸収されており、またX線所見でも6近心部に球型の陰影欠損がみられたため下顎骨の部分切除を行った。543骨面には3本の栄養動脈が認められ、出血したので結紮および止血用骨ノミにて止血させたのち、骨バーにて骨面

を整形し、骨膜粘膜縫合を行った。43211は動揺著しいため抜歯した。術後の経過も良く9月■日退院、現在術後約2年、再発などの兆しもなく経過良好であるが観察中である(写真5)。

摘出物所見：弾性硬の有茎性の腫瘍で表面は一層の薄い上皮性被膜に覆われ、滑沢、鮮紅色を呈し、上面に上顎歯牙圧痕がみられる。全重量は96.5gで内部に65の

歯牙を包含している。剖面は充実性で乳白色の粘稠性の光沢を帯び出血巣などはみられない(写真6, 7)。

病理組織学的所見: エオジンに淡染する成熟した膠原線維束の内方に小型の核を有する星状ないしは紡錘状の細胞が細い突起を出し網状に連絡しあっている。細胞間質は豊富で大部分は粘液水腫様に変化しているが、中に繊細な結合線維も散見され、一部には骨梁も認められる。毛細血管や炎症性細胞浸潤は乏しく、歯原性上皮組織もみられない。アザンマロリー、アルシャンブルーの特殊染色では細胞間を埋める疎な結合線維はアザンマロリーで青染する膠原線維であり、線維間物質はアルシャンブルーで淡染する粘液物質であることが判明した(写真8~11)。

病理組織学的診断: 粘液腫。

考 案

顎口腔領域の粘液腫は粘液線維腫、粘液性腫瘍、線維粘液腫、歯原性粘液腫など幾多の名称で呼ばれている間葉系の良性腫瘍である。本腫瘍の発生頻度は比較的稀で、本邦においては世良ら(1932)⁸³⁾の報告に始まり、現在までに50数例報告されているにすぎない。当教室においても昭和40年より現在までの16年間に表2に示すごとく6例を数えるのみである。

本腫瘍の本態および成因に関しては古くから種々論議され、いまだ統一された見解は示されていない。それも粘液芽細胞なる細胞が存在するのかが大きな点である。Stout(1948)¹¹⁾は自験例および文献蒐集例143例の粘液腫について病理組織学的に検索した結果、多少の線維化を伴うことがあっても大部分は胎生期結合組織に類似した構造より成り、真の腫瘍であるとした。Proutら(1968)²⁾、Harrison(1973)³⁾も組織化学的分析や電顕を用いて観察した結果、活性ムコ多糖類を分泌する細胞によって本腫瘍は構成されるとし、代謝面からでは線維芽細胞と明確に区別される粘液芽細胞によって構成される病変であり、粘液芽細胞の存在を強く支持した。本邦では泉ら(1977)⁴⁾、河合ら(1978)⁵⁾が賛同している。一方、本腫瘍を構成する細胞は線維芽細胞そのものであり、線維芽細胞の変性の過程の種々なる表現型⁶⁾、あるいは代謝異常の結果⁷⁾であるといった見解がみられるほか、大高ら(1971)⁹⁾は創傷治癒の際の肉芽組織は早期では胎生期結合組織の性格を示すが、後期になると好銀線維や膠原線維を形成する成熟型線維芽細胞が主体を占めることを認め、粘液腫、線維腫のどちらも線維芽細胞より成り、両者は単に成熟度、分化度の違いを表しているにすぎないとしている。石川(1960)⁹⁾も粘液腫は線維腫と同一のものであり、粘液腫は線維形成能がきわめて弱い線維腫の中でも幼若型であるとし、鈴木(1959)¹⁰⁾も顎骨の粘液腫13例を病理組織学的に観察し、中心性線維腫の多

くは硬組織を形成するがこの硬組織形成能を持たないもののみが粘液腫の形態をとり、一見、歯胚や臍帯結合織(Wharton's Jelly)などの胎生期結合組織に類似しているが真の粘液組織とはいえず、粘液結合組織と考えた方がよいとしている。Willis(1967)¹¹⁾も線維腫の細胞間基質に多量の粘液を有したものを粘液腫と考え、Westwoodら(1974)¹²⁾も本質的には線維腫の1型であり、線維芽細胞の増殖とそれによって合成された酸性粘液多糖類により粘液腫が形成されると述べている。奥井ら(1976)⁹⁾、瀬山ら(1979)⁷⁾は顎骨に生じた粘液腫について光顕的に観察した結果、線維腫と粘液様組織との間に明確な移行像がみられたとし、かかる所見は線維性病変が粘液変性したものであるとしている。一般に間葉系腫瘍が粘液変性におちいることはよく知られており³⁴⁾、この現象をHarrison(1973)³⁾は原因は不明であるとしながら、コラーゲンを産生できえない線維芽細胞がヒアルロン酸を過剰生産したためとし、奥井ら⁹⁾は細胞の変性が亢進し、細胞内容物の放出が粘液変性の原因であると言っている。このように多くの人々は粘液腫を線維腫の1型あるいはその粘液変性と考えている¹²⁻¹⁶⁾。しかし小田島ら(1980)¹⁷⁾は電顕的観察にもとづいた結果、本腫瘍にfibroblast様細胞、myofibroblast様細胞、histiocyte様細胞、それらの移行型細胞が観察されたとして、粘液腫はfibroblastの単一な増生から成る腫瘍ではなく、血管周囲の未分化多分化能間葉細胞に由来し、fibroblastへの分化が最も進んだ腫瘍であるとしており、まだまだその本態については論議を呼びそうである。

Zimmermanら(1958)³⁵⁾は2,276例の骨原性腫瘍のうち顔面骨以外に発生した粘液腫は皆無であったとし、Stout¹¹⁾も骨粘液腫10例中8例が顎骨に発生したとし、顎骨は粘液腫の好発部位とされている。鈴木¹⁰⁾も顎骨に多発、歯胚の中胚葉組織に類似、発生前が歯牙交換末期に一致、悪性度が一般に低いなどの理由により歯乳頭、歯根膜などより発生した歯原性の由来を想定している。しかし確実に歯原性由来と診断するには埋伏歯、欠損歯、歯原性上皮の存在を必要とするとも述べている。

顎骨に生ずる粘液腫の多くは顎骨中心性に生ずるが時に口蓋粘膜、頬粘膜、歯肉などの口腔軟組織にも生ずることがあり、それらは一般に軟組織粘液腫と呼ばれている²⁵⁾。この粘液腫の好発部位は心血管系といわれているが、顎口腔領域の軟組織にも生じ、われわれが渉猟したかぎりでは表3に示すごとく自験例も含めて19例を数え¹⁸⁻²²⁾、きわめて稀な疾患と思われる。その内訳は性別では男性9人、女性6人、不明4人と男性にやや多く、年齢別では平均年齢40.2歳で最高年齢はSpengosら(1965)²⁶⁾の72歳、最少年齢はBabbittら(1937)²⁰⁾の14歳である。部位別では口蓋粘膜7例、歯肉6例、頬粘膜3例、口唇粘膜2例、口腔底粘膜1例となり、口蓋粘膜、歯肉が好発部位といえる。

表 2 当科における粘液腫症例（昭和40年～昭和56年）

	症 例	年 齢	性	病理組織診断	発 生 部 位	大 き さ (mm)	療 法
1		21	女	顎骨粘液腫	右下顎骨	21×28×38	下顎連続離断術
2		23	女	顎骨粘液腫	右下顎骨	20×32×40	下顎部分切除術
3		5	男	顎骨粘液腫	右下顎骨	5×8×6	腫瘍摘出術
4		65	男	顎骨粘液腫	1-3 部歯槽骨	7×12×20	腫瘍摘出術
5		43	男	顎骨粘液腫	下顎骨正中部	5×15×17	腫瘍摘出術
6		54	男	軟組織粘液腫	右下顎歯肉	50×60×70	下顎部分切除術

表 3 顎口腔領域に生じた軟組織粘液腫の報告例

	報 告 者	報告年度	年齢	性	発 生 部 位	来院までの期間
1)	Daniels ¹⁸⁾	1908	27	女	下顎歯肉	9 か月
2)	Tholen ¹⁹⁾	1936	?	?	口蓋粘膜	?
3)	Babbitt ²⁰⁾	1937	14	女	口蓋粘膜	6 か月
4)	Sealey ²¹⁾	1948	?	?	口蓋粘膜	?
5)	Salama ²²⁾	1951	45	男	口蓋粘膜	11年
6)	Bernier ²³⁾	1960	?	?	歯肉	?
7)	Dutz ²⁴⁾	1961	15	男	頬粘膜	?
8)	Lucas ²⁵⁾	1964	?	?	口蓋粘膜	?
9)	Spengos ²⁶⁾	1965	72	男	頬粘膜	10年
10)	Traiger ²⁷⁾	1969	54	男	口唇粘膜	3 年
11)	Takegai ²⁸⁾	1974	49	男	歯肉	?
12)	Tahsinoglu ²⁹⁾	1975	34	女	歯肉	?
13)	Sakai ³⁰⁾	1976	37	男	口蓋粘膜	?
14)	Swart ³¹⁾	1977	56	女	口腔底粘膜	3 週
15)	Richard ³²⁾	1978	35	女	口蓋粘膜	4 か月
16)	Richard ³²⁾	1978	35	男	頬粘膜	4 週
17)	Richard ³²⁾	1978	48	男	口唇粘膜	5 年
18)	Richard ³²⁾	1978	28	女	下顎歯肉	?
19)	Takeda (本症例)	1981	54	男	下顎歯肉	10か月

(咀嚼筋内, 耳下腺内, 顔面皮膚に発生したものは除外した)

歯肉に生じた軟組織粘液腫は線維性エプーリスと同様の外観を呈し³⁶⁾, 多くは線維性病変の1部が粘液変性したものと考えられている。その場合の組織像について Tomich (1974)³⁷⁾は粘液水腫様に変化した間質内に肥満細胞や単球などの炎症性細胞浸潤がみられるとしている。本症例では成熟した膠原線維の内方に星状ないしは紡錘状の細胞が細い突起を出しあい, 網状に連絡しているほか, 粘液水腫様に変化した間質内に繊細な膠原線維が散在し, 肥満細胞, 単球などの細胞浸潤も軽度に見られた。以上よりわれわれは右下顎歯肉に発生した粘液腫と診断したが, 間質が高度に粘液変性したため炎症性細胞浸潤が乏しくなった可能性も考えられ, 線維性エプー

リスが粘液変性した腫瘍であることも否定できないと考えている。その変性の発生機転は初診日の約1か月程前より腫瘍が急速に増大してきたことを考慮すると咀嚼による慢性刺激が考えられた。石川, 秋吉(1973)³⁸⁾は線維性エプーリスが粘液変性したかかる病変を, 厳密には粘液腫とは言い難いと述べている。しかし粘液腫の本態がいまだ明確になっていない現在, われわれは粘液芽細胞により構成され胎生期結合組織に類似したいわゆる真の粘液腫も線維性病変が, 粘液変性した粘液腫も広義な意味で同一の粘液腫と考えたい。

本腫瘍は緩慢な発育をする良性腫瘍であるが局所浸潤性を有することがあり, 姑息的処置後の再発が言われ,

Zimmerman ら³³⁾は25%, Barros ら (1969)³⁴⁾は26%の頻度で再発すると言っている。処置としては根治的摘出術を行うのが最良とされている。本症例では腫瘍を摘出し、歯槽骨、下顎骨を切除した下顎部分切除術を行い、現在術後約2年、再発などの兆しはみられていないが引き続き経過観察中である。

結 論

54歳男性の右下顎歯肉部に生じ、線維性エプーリスを疑った巨大な軟組織粘液腫の1例を経験し、若干の文献的考察を行った。

- 1) 組織学的に粘液腫と診断したが、線維性エプーリスが粘液変性したことも否定できない。
- 2) 口腔領域に生じた軟組織粘液腫の報告は少なく、われわれが渉猟したかぎりでは自験例も含めて19例を数えるのみであり、きわめて稀な疾患といえる。

本論文の要旨は昭和54年10月、第2回日本口腔外科学会中部地方会において発表した。

引 用 文 献

- 1) Stout, A.P.: Myxoma. The tumour of primitive mesenchyma. *Ann Surg* 127: 706 1948.
- 2) Prout, R.E., et al.: Analysis of the mucopolysaccharide of a myxoma of the mandible. *Nature* 218: 99 1968.
- 3) Harrison, J.D.: Odontogenic myxoma: Ultrastructural and histochemical studies. *J Clin Path* 26: 570 1973.
- 4) 泉 広次, 他: 本邦における顎骨粘液腫の臨床病理学的研究. *日大口腔科学* 3: 114 1977.
- 5) 河合 幹, 他: 下顎骨粘液腫の2例. *日口外誌* 24: 183 1978.
- 6) 奥井 寛, 他: Central fibroma のいわゆる myxomatous change に関する電顕的観察. *日口外誌* 22: 53 1976.
- 7) 瀬山 淳, 他: 上顎に発生した Fibromyxoma の1例. *日口外誌* 25: 143 1979.
- 8) 大高裕一, 他: 結合組織の病変. *細胞* 3: 12 1971.
- 9) 石川梧朗: 歯源性腫瘍について、とくに病理学的方面から(その2). *口病誌* 27: 307 1960.
- 10) 鈴木 進: 顎骨内部に発生する線維性腫瘍についての病理学的研究. *口病誌* 26: 298 1959.
- 11) Willis, R.A.: Pathology of tumors. ed 3, Butterworths, Washington, 1967, p 646.
- 12) Westwood, R.M., et al.: Giant odontogenic myxoma. *Oral Surg* 37: 83 1974.
- 13) Thoma, K.H., Goldman, H.M.: Central myxoma of the jaws. *Am J Orth Oral Surg* 33:

532 1947.

- 14) Bernier, J.L.: The management of oral diseases. Mosby Co, St Louis, 1955, p 548.
- 15) Weinman, J.J., et al.: Bone and bones. Mosby Co, St Louis, 1955, p 401.
- 16) 藤岡幸雄: 中心性顎骨線維腫の種々相について. *口病誌* 9: 322 1960.
- 17) 小田島哲也, 他: 顎骨粘液腫の電顕的研究—特に組織発生について—. *日口外誌* 26:106 1980.
- 18) Daniels, D.W.: A case of pure myxoma of the lower jaw. *Lancet* 2: 1747 1908.
- 19) Tholen, E.F.: Myxomata of the jaw and pharynx. *Trnas Amer Laryng Rhin Otol Soc*: 608 1936.
- 20) Babbitt, J.A., et al.: Myxoma of the palate and pharynx. *Arch Otolaryngol* 26: 453 1937.
- 21) Sealey, V.T.: An unusual tumour on the palate. *Aust J Dent* 52: 177 1948.
- 22) Salama, N., et al.: Cases from the clinic of the Cairo Dental School. *Oral Surg* 4: 966 1951.
- 23) Bernier, J.L.: Tumors of the odontogenic apparatus and jaws. *Atlas of Tumour Pathology*, incited 25.
- 24) Dutz, W., et al.: The myxoma in childhood. *cancer* 14: 629 1961.
- 25) Lucas, R.B.: Pathology of Tumours of the Oral Tissues. J. and A. Churchill, London, 1964, p 160.
- 26) Spengos, M.N., et al.: Myxomas of the soft tissues. Report of a case of myxoma in the cheek. *J Oral Surg* 23: 140 1965.
- 27) Traiger, J., et al.: Soft tissue myxoma of the oral cavity. Report of a case. *Oral Surg* 27: 247 1969.
- 28) 竹蓋 啓, 他: Fibromyxoma の1症例. *日口外誌* 20: 319 1974.
- 29) Tahsinoglu, M., et al.: Myxoma of the gingiva. A case report. *Brit J Oral Surg* 13: 95 1975.
- 30) 酒井康友, 他: 口腔に発生した粘液線維腫の8例. *歯科学報* 76: 19 1976.
- 31) Swart, J.G.N., et al.: Possible Myxoma of the Floor of the Mouth. Report of case. *J Oral Surg* 35: 501 1977.
- 32) Richard, P.E., et al.: Myxomas of paraoral soft tissues. *Oral Surg* 45: 246 1978.
- 33) 世良利治, 他: 「ミクソフィブローム」の1例. *歯科医学* 3: 54 1932.
- 34) Shafer, W.G., et al.: A Textbook of Oral Pathology. ed 3, W.B. Saunders Co. Philadelphia, 1974, p 148.
- 35) Zimmerman, D.C., et al.: Myxomatous tumor of the jaws. *OS OM OP* 11: 1069 1958.
- 36) Barros, R.E., et al.: Myxoma of the jaws.

Oral Surg 27: 225 1969.

- 37) Tomich, C.E.: Oral focal mucinosis. A clinicopathologic and histochemical study of eight

cases. Oral Surg 38: 714 1974.

- 38) 石川梧朗, 秋吉正豊: 口腔病理学Ⅱ, 第2版, 永末書店, 東京, 1973, 968頁.