下顎に発生した傍骨性骨肉腫の1例

山本国雄・大橋 靖・阿部正樹・斎藤 憲
本間正美・福島祥紘*・石木哲夫*

Parosteal osteosarcoma of mandible: A case report

Kunio YAMAMOTO・Yasushi OHASHI・Masaki ABE・Ken SAITO
Masami HONMA・Masahiro FUKUSHIMA*・Tetsuo ISHIKI*

結 言

1951年, Geschickter ら¹⁾は, 骨腫瘍のうち化骨性筋炎あるいは良性腫瘍と診断された症例のなかで, 予後不良のものを抽出し, 臨床病理学的に再検討を行った。その結果, 骨膜より生じた線維性骨組織が骨を取り囲むように増殖しており, 悪性の性格を有するが, 普通の骨肉腫よりは予後がよいという共通の特徴を見出し, parosteal osteoma と命名し, その16例を報告した。その後, 容易に再発を繰り返す, そのたびに悪性度を増すことより, parosteal (juxtacortical) osteogenic sarcoma²⁾, ossifying parosteal sarcoma³⁾, parosteal osteosarcoma⁴⁾, などと呼ばれるようになり, 本邦では傍骨性骨肉腫⁵⁾とされている。主として大腿骨等の長管骨に好発し, 顎骨に発生した例は非常にまれである。

今回, われわれは下顎に発生した本腫瘍の1例を経験したので, その概要と若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

患 者: 17歳, 女性。
初 診: 昭和56年3月 〇〇日。
主 訴: 左下顎部の腫脹。
既往歴: 特記事項なし。
家族歴: 母親が胃癌で死亡。

新潟大学歯学部口腔外科学第2講座

(主任: 大橋 靖教授)

*新潟大学歯学部口腔病理学講座

(主任: 石木哲夫教授)

Second Department of Oral Surgery, School of Dentistry, Niigata University (Chief: Prof. Yasushi Ohashi)

*Department of Oral Pathology, School of Dentistry, Niigata University (Chief: Prof. Tetsuo Ishiki)

受付日: 昭和58年5月30日

現病歴: 昭和54年12月, 某歯科にて16の抜歯を受け, その後より左下口唇に知覚異常を自覚するようになったが, 他に症状がないために放置していた。昭和55年5月頃より, 左下顎部に腫脹が出現し, 以後増大するために昭和56年3月, 某病院歯科を受診し, 当科を紹介され来院した。

現 症: 身長 151 cm, 体重 47 kg と体格, 栄養状態良好で, 全身的に特記事項はない。

口腔外所見: 左下顎部にび慢性の腫脹を認める。皮膚表面に発赤熱感などは認めない。

触診にて, 頬側は13部から顎角部まで, 顎下部は正中部から顎角部に及ぶ小児拳大(45×35×10 mm)の境界明瞭な無痛性の骨膨隆を認め, 皮膚との癒着はない。左下口唇に知覚鈍麻を認める(写真1)。

リンパ節所見: 左顎下部に小指頭大を1個触れ, 可動性である。オトガイ下, 頸部リンパ節は触知しなかった。

口腔内所見: 14部より臼後三角部にかけて歯槽部に

写真1 初診時顔貌所見

写真 2 初診時口腔内所見

写真 3 初診時X線写真

写真 4 初診時X線所見(咬合法)

腫脹がみられ、歯肉頬移行部、口腔底とも浅くなっている。17は半埋伏状態である。

16抜歯窩はクレバス状を呈するが、潰瘍等は認めない。歯髓電気診では、13以降すべて反応を示さなかつ

写真 5 初診時X線所見(歯科用)

写真 6 生検時所見: 石灰化の低い類骨組織が大部分を占めている (H-E 染色, x200)

た(写真2)。

X線所見: パノラマX線写真では、左下顎部を中心に不均一な不透過像を認め、周辺部ほど不透過性が高く、sun burst 様像が外方に向かっている(写真3)。咬合法X線写真では、臼歯部の頰側皮質骨に一部吸収像が認められる(写真4)。また、17の歯根は高度に吸収されている(写真5)。

術前臨床検査: 異常を認めない(表1)。

臨床診断: 下顎骨肉腫。

処置および経過: ただちに入院せしめ生検を行ったが、石灰化の低い類骨組織が大部分を占め、反応性骨新生と診断された(写真6)。

そこで顔貌の対称性の回復、および再度の生検を目的とし、昭和56年3月、全身麻酔下に口腔内より骨膨隆部の削除と17の抜歯を行った。

腫瘍は白っぽく、軟骨様を呈し、下顎骨を包むように増殖しており、削除は容易であった。しかし、同部の骨皮質には浸潤破壊像を認めなかった。

削除物の病理組織学的所見は、線維性骨組織の増殖および類骨の形成が著しく、基本的には生検時と同じであ

表 1 臨床検査成績

血液一般検査		T. Bil	0.7 mg/dl
Hb	10.1 g/dl	D. Bil	0.1 mg/dl
RBC	474 × 10 ⁴ /mm ³	I. Bil.	0.6 mg/dl
Ht	34%	CHE	5,700 U/l
Platelets	18 × 10 ⁴ /mm ³	T.T.T.	1.5 U
WBC	7.100/mm ³	Z.T.T.	8.2 U
St.	7%	T.C.	150 mg/dl
Seg.	64%	P.L.	213 mg/dl
Bas	1%	T.G.	49 mg/dl
Eos	0%	β-lip.	303 mg/dl
Lym	25%	Amy.	306 mg/l
Mon	2%	CPK	75 U/l
BSR	30' 3 mm	Alb.	58.4%
	60' 13 mm	α ₁	3.1%
	120' 30 mm	α ₂	9.0%
血清梅毒検査		β	10.0%
陰 性		γ	19.5%
血液生化学検査		Na	136 mEq/l
T.P.	7.7 g/dl	K	4.4 mEq/l
A/G	1.10	Cl	105 mEq/l
U.N.	14 mg/dl	Ca	4.7 mEq/l
Cre.	0.9 mg/dl	I.P.	3.6 mg/dl
U.A.	5.9 mg/dl	尿一般検査	
GOT	23 U/l	Protein	(-)
GPT	16 U/l	Sugar	(-)
LDH	414 U/l	Urobilinogen	++
Al-P	159 U/l	胸部X線写真	
γ-GTP	8 U/l	異常なし	
LAP	58 U/l		

	昭和58年 3月	4月	5月	
処置	初診・入院	CTスキャン	下顎骨半側切除術	退院
	骨膨隆部の削除			
投薬			アドリアシン 10 mg × 5回	アドリアシン 10 mg × 5回
病理診断	傍骨性骨肉腫		傍骨性骨肉腫	
	反応性骨新生			

図 1 処置および経過

写真 7 術後顔貌所見 (約 1 年 6 か月)

ったが、一部歯牙に接して細胞異型が認められ、傍骨性骨肉腫が疑われた。

また臨床的にも、術後2週間目頃より178抜歯窩および下顎骨体部に腫瘍の増殖を認め、急速に増大してきた。そこでアドリアシンを10mg × 5回、2クール投与し、その間にCTスキャン、骨シンチグラムを行い、他部位への腫瘍の転移進展のないことを確認した後、昭和56年4月、気管切開全身麻酔下に、下顎骨半側切除術を施行した(図1)。同時に顎下腺、顎下リンパ節、咀嚼筋群も摘出し、口腔粘膜と頬粘膜により一次閉鎖を行った。

術後経過は良好で、術後11日目で気管チューブを抜去し、34日目で退院した。

術後2年経過する現在、特に異常所見なく、なお定期的に経過観察中である(写真7)。

病理組織学的所見：摘出物の肉眼的所見は、腫瘍は周囲筋組織との境界は比較的明瞭で、表面は凹凸分葉状、

軟骨様硬を示し、下顎骨を取り囲んでいた(写真8)。組織学的には、腫瘍は外骨膜性に顎骨を包むように増大し、筋層、脂肪層を一部巻き込んでいた。また頰側皮質骨を破壊して骨髓内にび浸性に浸潤しており、さらに舌側の皮質骨も一部破壊されていた(写真9)。類骨形成能が高く、骨化の少ない腫瘍が大部分であるが、一部に異型性細胞も出現していた(写真10)。以上の所見から傍骨性骨肉腫と診断した。

写真 8 摘出物所見

写真 9 病理組織所見：腫瘍は外骨膜性に顎骨を包むように増大し、一部皮質骨を破壊して骨髓に浸潤している
(H-E 染色, $\times 2.5$)

考 察

傍骨性骨肉腫は緒言に述べたごとく, Geschickter¹⁾によって新たに分類された悪性の性格を有する骨腫瘍である。

本症は主として大腿骨遠位骨端幹に好発するが¹⁻¹²⁾, 顎骨領域では, 1961年, Som & Peimer¹³⁾が初めて下顎に発生した本症の1例を報告して以来今日まで海外で7例¹³⁻¹⁸⁾, 本邦で4例¹⁹⁻²²⁾の報告例をみるにすぎず, きわめてまれなものである(表2)。

発生頻度: Unni¹⁰⁾によると, 傍骨性骨肉腫の発生

写真 10 病理組織所見：写真9の強拡大。一部に異形性細胞が出現している
(H-E 染色, $\times 200$)

頻度は骨腫瘍の1%から1.7%としている。一方 Dahlin²⁾によれば, 骨肉腫600例中25例(4.2%)が本症であったと報告している。

好発年齢：長管骨では20歳代から40歳代¹⁾, 10歳代から30歳代²⁾, 20歳以下³⁾と報告者により異なる。

一方, 顎骨領域では, 自験例の17歳を含め, 表2のごとく17歳¹⁴⁾から68歳²⁰⁾に及び, 長管骨に比してやや高い傾向を示している。

性 差：長管骨では比較的女性に多いとされている^{2,9,17)}。顎骨では表2のごとく男性5例, 女性7例で性差を認めていない。

臨床症状：好発部位は, 長管骨では大腿骨の遠位端, 脛骨および上腕骨の近位端に好発するという¹⁻¹²⁾。

一方, 顎骨では, 表2のごとく上顎3例, 下顎9例と下顎の方が多く, 自験例では左側下顎骨体部に発症していた。

上顎では歯槽骨および上顎洞部に, 下顎では主として骨体部に発症している。

主訴は, 自験例では顎骨の無痛性の腫脹であった。一般に顎骨の腫脹が主で, 疼痛はほとんど伴わないという^{17,18)}。

発症より初診までの期間は, 自験例では1年4か月と長期であったが, この点について他の報告例でも3か月から2年と比較的長い¹³⁻¹⁶⁾。

また, 長管骨でも比較的長く, Scaglietti³⁾は1年以上経過したものが16例中11例に及ぶと報告している。このように本腫瘍は一般に発育は緩徐であるといえる。全身的には, 悪性腫瘍にみられる体重減少や貧血の所見はないとされている^{7,11,12,18)}。

局所所見：自験例では, 左側下顎骨体部に境界明瞭な45×35×10 mm 位の無痛性の骨膨隆を触知した。

一般に限局した境界明瞭な無痛性の腫脹が認められ, 有茎性を示すこともあるという^{13,16)}。腫脹の大きさは45×35mm¹⁸⁾から60×25×30 mm 位¹⁵⁾のものまで, 比較

表 2 顎骨に発生した傍骨性骨肉腫の報告例

症例	年度	報告者	年齢	性	部 位	最初の診断	初回処置	再発の有無	再発後の処置	予 後	備考
1	1961	Som & Peimer ¹³⁾	45	男	左側下顎骨	傍骨性骨肉腫	部分切除	有	下顎骨半側切除	8 年 良好	照射
2	1970	Roca ら ¹⁴⁾	17	女	上顎骨正中部	傍骨性骨肉腫	部分切除	有	上顎骨部分切除	9 年 良好	
3	1970	Roca ら ¹⁴⁾	63	女	右側下顎骨	傍骨性骨肉腫	部分切除	有	下顎骨半側切除	6 年 他病死	
4	1975	Solomon ら ¹⁵⁾	38	男	右側下顎骨	良性? 悪性?	部分切除	有	下顎骨半側切除	6 か月 良好	
5	1976	Newland ら ¹⁶⁾	25	男	上顎歯槽部	外 骨 症	部分切除	無		6 か月 良好	
6	1976	佐藤 ¹⁹⁾	64	女	右側下顎骨	反応性骨新生	下顎骨半側切除	有	摘 出*	4 年 死亡*	照射
7	1978	久野ら ²⁰⁾	68	男	右側下顎骨	軟骨粘液性線維腫	摘 出	有	摘 出	不 明	照射
8	1980	Bras ら ¹⁷⁾	40	男	左側下顎骨	骨 肉 腫	下顎骨半側切除	無		11年 良好	
9	1980	莊司ら ²¹⁾	66	女	左側上顎洞部	骨 線 維 腫	摘 出	有	上顎骨全摘出	不 明	
10	1981	Banerjee ら ¹⁸⁾	47	女	左側下顎骨	傍骨性骨肉腫	下顎骨部分切除	無		8 年 良好	
11	1983	黒川ら ²²⁾	44	女	左側下顎骨	骨 腫	部分切除	有	下顎骨連続離断	4 年 良好	
12		本報告例	17	女	左側下顎骨	反応性骨新生	部分切除	有	下顎骨半側切除	2 年 良好	

* 御門ら²³⁾の文献による

の大きな腫瘍を形成すると報告されている。
硬度は骨様硬^{14,16,18)}から、軟骨様硬¹⁴⁾まで種々であるが、圧痛は認めない¹⁸⁾。
被覆歯肉粘膜は一般に異常所見を認めないが¹⁶⁾、ときに潰瘍を認めることもある¹⁵⁾。
自験例では、まず下口唇に知覚鈍麻を自覚し、それに引き続き下顎骨の緩徐な腫脹がみられた。このように口唇のほか、口蓋、舌等に知覚異常を認めたという報告もみられる^{13,18,19)}。
X線所見：自験例では、左側下顎骨体部を中心に不均一な不透過像がみられ、周辺では外方に向かう sun burst 様像も認められた。また咬合法X線写真では、臼歯部の頰側皮質骨に一部吸収像が認められた。
一般に分葉状で不均一な不透過像が認められ、末端ほど不透過性は高く、sun burst 様像が外方に向かってみられる^{14,17,18)}。骨肉腫にみられる Codman 三角は認められない¹⁷⁾。
長管骨では、本腫瘍の特徴として、皮質骨と腫瘍の間に lucent zone が存在するが^{10,12)}、顎骨の場合には Solomon ら¹⁵⁾がパノラマX線写真でこの所見を認めたと報告しているほか、顎骨でこの所見を認めた報告はない。
また、自験例では「7」の歯根吸収が高度に認められた。この点について記載した報告はないが、緩徐な発育経過と関連するものと思われる。
肉眼的所見：自験例では、茶褐色の薄い線維性組織の

被膜で包まれた腫瘍が、顎骨を包み込むように増殖しており、剝離は容易であった。
一般に腫瘍は骨膜より広い基部をもって生じ、表面平滑、分葉状で被膜を有し、顎骨を包み込んでおり、剝離は可能である¹³⁻¹⁸⁾。
自験例では、腫瘍は舌側の骨皮質を一部破壊して、骨髓内にび慢性に浸潤していた。
一般に本腫瘍の初期像では、腫瘍は外骨膜性に増殖し、骨髓内に浸潤を認めないのを特徴としている⁹⁾。しかし、再発例や経過の長いものは、骨髓内浸潤が認められるという^{9,15,18)}。この点、自験例で症状発生より初診までの期間が1年4か月と長い点と一致した。
また、腫瘍近辺の骨皮質の硬化、肥厚、反応性骨新生の所見もみられ、周囲の筋層、脂肪層、唾液腺組織に浸潤し、それらを巻き込むこともあるという^{7,13)}。
病理組織学的所見：自験例では、初回生検時、類骨組織が大部分を占め、反応性骨新生の像を呈し、悪性の所見は認められなかった。しかし、第1回目の手術後、短時間で腫瘍の増大をみ、その際の組織学的所見では一部に異型性細胞も出現して、普通の骨肉腫に似た像を呈するようになった。
本腫瘍の初回生検時の組織学的所見には、一見悪性像が認められないため¹⁸⁾、確定診断に至らない場合が多く、注意を要する^{8,12,16)}。
本腫瘍の一般的な病理組織学的所見は、基本的には線維性骨組織であり、一見良性にみえる豊富な骨梁と、比

収密的な紡錘形細胞を特徴とする^{1,14,16}。骨梁の周囲は骨芽細胞で囲まれ、頰骨を形成している¹⁶。核異型や核分裂像も散在し^{1,18,19}、ときに軟骨組織が認められ^{7,18,19,20}筋組織や脂肪組織が混在することもある⁷。

初期には異型性に乏しく、再発するにしたがって核異型、細胞異型の程度が増し、骨肉腫に似た像を呈するようになるといわれている¹⁹。

鑑別診断：化骨性筋炎、外骨症、骨腫、骨軟骨腫、骨肉腫などがあげられている⁷。また、本症の診断に血管造影が有用との報告もある¹⁹。

治療および予後：わたくしたちは初回生検時に確定診断に至らず、最初の処置として、患者が若い女性であったこともあり、膨隆部の削除による顎形態を修整するだけの処置を行ったが、同部に短期間に腫瘍の増大を認め、また、初回手術の摘出物の病理所見から傍骨性骨肉腫の所見が得られたため、下顎骨半側切除術を行った。

本腫瘍は組織学的に悪性度が低いため、生検時に確定診断に至らない場合が多い¹⁶。顎骨の報告12例中、初回生検時に良性腫瘍あるいは反応性骨新生と診断されたものは自験例を含め6例^{16,19-22}、良性から悪性に診断が別れたもの1例¹⁵となっている。これらの最初の処置として、部分切除や摘出が行われ、そのうち自験例を含む5例^{15,19,20,22}に再発を認めている。

一方、生検時に傍骨性骨肉腫^{18,14,16}、あるいは骨肉腫¹⁷と診断された症例では、初回より周囲健康組織を含めた広範囲な一塊切除が行われており、これらの症例では再発例は少ない^{17,18}。

以上のように、局所切除のみ行った症例では、ほとんど再発を認める^{18-15,19-22}ことから、本症の処置法としては広範囲な一塊切除が推奨されている^{15,18}。

長管骨においても、一般に初回治療より広範囲な切除が行われており³、組織学的に悪性度の高い場合や、再発例では積極的に切断術が行われている¹²。

本腫瘍の予後は比較的良好で、長管骨における5年生存率は約80～90%とされている^{1,2,9,17}。しかし転移もかなりの頻度で認められ、Geschickter ら¹が最初に報告した16例でみると4例(25%)が転移にて死亡している。また Scaglietti ら³も16例中3例(19%)、Dwinnell ら⁶は15例中3例(20%)の転移による死亡例を報告している。

顎骨領域12例では、術後5年以上経過するもの5例(42%)^{13,14,17,18}を認め、根治手術例の予後は良好といえる。一方、転移は2例^{19,21}に認められ、そのうち1例は術後4年にて死の転帰をとったという²³。

自験例は術後2年を経過するが、現在、再発転移の傾向は認められず、経過は良好である。しかし、上記の諸家の報告に照らし、今後とも慎重に予後観察を行う予定である。

結 語

17歳女性の左下顎部に発生した傍骨性骨肉腫の1例を経験した。初回生検では、病理組織学的に反応性骨新生の所見を示し、再度の生検と顔貌の対称性の回復のために腫瘍切除を行った。

しかし、術後腫瘍の急速な増大をみ、また病理組織学的所見から傍骨性骨肉腫と確定診断し、下顎骨半側切除術を施行した。術後2年経過するが、再発転移の傾向は認めない。

本論文の要旨は、昭和57年5月14日、第36回日本口腔外科学会総会において発表した。

引 用 文 献

- 1) Geschickter, G.F. & Copeland, M.M.: Parosteal osteoma of bone: A new entity, *Ann Surg* 133: 790 1951.
- 2) Jaffe H.L. et al.: Tumors of bones and joints. *Bull NY Acad Med* 27: 165 1951.
- 3) Scaglietti, O., et al.: Ossifying parosteal sarcoma, *J Bone Joint Surg* 44: 635 1962.
- 4) Dahlin, D.C.: Bone tumors. General aspects and data on 6,221 cases. ed 3, Charles C Thomas Publisher, Springfield, 1978, p 261.
- 5) 国立ガンセンター骨・軟骨腫瘍グループ編：骨・軟部腫瘍図譜。中山書店、東京、1972、72頁。
- 6) Dwinnell, L.A., et al.: Parosteal (juxtacortical) osteogenic sarcoma. *J Bone Joint Surg* 36: 732 1954.
- 7) 前山 巖, 他: Parosteal osteoma の一例。整形外科 11: 389 1960.
- 8) 前山 巖, 他: Ossifying parosteal sarcoma について。整形外科 15: 698 1964.
- 9) Dahlin, D.C., et al.: Osteogenic sarcoma. A study of six hundred cases. *J Bone Joint Surg* 49: 101 1967.
- 10) Unni, K.K., et al.: Parosteal osteogenic sarcoma. *Cancer* 37: 2466 1976.
- 11) 落合直之, 他: 巨大な傍骨性骨肉腫2症例の治療経験。整形外科 28: 1201 1977.
- 12) 中村哲雄, 他: 肺転移をきたした傍骨性骨肉腫の2症例。臨整外 15: 800 1980.
- 13) Som, M. & Peimer, R.: Juxtacortical osteosarcoma of mandible. *Arch Otolaryngol* 74: 532 1961.
- 14) Roca, A.N., et al.: Osteosarcoma and parosteal osteogenic sarcoma of the maxilla and mandible: Study of 20 cases. *Am J Clin Pathol* 4: 625 1975.
- 15) Solomon, M.P., et al.: Parosteal osteogenic

- sarcoma of the mandible. Arch Otolaryngol 101: 754 1975.
- 16) Newland, F.R., et al.: Parosteal osteosarcoma of the maxilla. Oral Surg 43: 727 1977.
- 17) Bras, J.M., et al.: Juxtacortical osteogenic sarcoma of the jaw. Oral Surg 50: 535 1980.
- 18) Banerjee, S.C., et al.: Juxtacortical osteosarcoma of mandible: Review of literature and report case. J Oral Surgery 39: 535 1981.
- 19) 佐藤 匠: 64歳女性の下顎骨に発生した傍骨性骨肉腫の一例 (抄). 日口外誌 22: 905 1976.
- 20) 久野高剛, 他: 右側下顎に発生した parosteal osteosarcoma の1症例 (抄). 口科誌 27: 229 1978.
- 21) 莊司邦夫, 他: 上顎に原発した傍骨骨肉腫の1例 (抄). 日耳鼻会報 83: 223 1980.
- 22) 黒川英雄, 他: 下顎に発現した傍骨性骨肉腫の1例 (抄). 第37回日本口腔科学会総会抄録集: 110 1983.
- 23) 御門真二, 他: 頭蓋内浸潤, 全身転移で死亡した下顎原発 傍骨性骨肉腫の1剖検例 (抄). 日口外誌 26: 1612 1980.
-