上顎に生じた巨大な周辺性化骨性線維腫について

照屋正信・山城正宏・友寄青樹・金城 孝
宮里 修・本村和弥・仲宗根康雄・小守 昭*

Peripheral ossifying fibroma of the maxilla

Masanobu TERUYA・Masahiro YAMASHIRO・Yoshitatsu TOMOYOSHI・Takashi KINJO
Osamu MIYAZATO・Kazuya MOTOMURA・Yasuo NAKASONE・Akira KOMORI*

緒 言

われわれは上顎に生じ、口腔の大部分を占めた巨大な周辺性化骨性線維腫の1例を経験したので、その概要を報告する。

症 例

患 者：27歳 女性。

初 診：昭和55年3月■日。

主 訴：右側上顎部の腫瘍。

家族歴：特記事項なし。

既往歴：10年前に甲状腺機能亢進症で手術を受けたが、現在異常はない。5年前に子宮筋腫および十二指腸潰瘍と診断されたが特に加療していない。

現病歴：患者は初診の1年前、右側上顎臼歯部残根上の腫瘍に気付き、某歯科を受診したところ、切除をすすめられたが放置していた。しかし腫瘍が次第に増大し、発音障害および咀嚼障害をきたしたので、当科を紹介され来院した。

現 症：全身所見：身長は153 cm、体重は38 kgで栄養不良であった。眼瞼結膜に貧血が認められた。顔貌は左右非対称で、右側頬部にびまん性腫脹がみられた(写真1)。

口腔内所見：右上顎に右側頬部から口蓋にかけて、

琉球大学医学部附属病院歯科口腔外科

(主任：山城正宏教授)

* 徳島大学歯学部口腔病理学講座

(主任：小守 昭教授)

Department of Oral Surgery, School of Medicine,
University of the Ryukyus (Chief: Prof. Masahiro
Yamasiro)

* Department of Oral Pathology, School of Dentistry,
Tokushima University (Chief: Prof. Akira
Komori)

受付日：昭和57年12月27日

写真1 初診時顔貌所見

写真2 初診時口腔内所見

4.1×4.0×3.5 cm 大の腫瘍が突出し、表面は帯赤色で凹凸不整を呈していた。右下顎歯槽堤に対応して、鞍状の圧痕が認められた。腫瘍は弾性硬および可動性を示し、圧痛は認められなかった(写真2)。初診より3か

表 1

報告者	大木ら (1954)	伊藤ら (1978)	本田ら (1979)	山崎ら (1982)		著者ら
性・年齢	♀・19	♀・56	♀・52	♀・48	♀・59	♀・27
主訴	腫脹 軽度自発痛	腫瘍	腫瘍	腫脹	腫脹	腫瘍
自覚時期より 初診までの期間	5か月	4年	3年	2年	6か月	1年
自覚症状	腫脹 軽度自発痛	腫瘍	腫瘍	腫脹 咀嚼障害	腫脹 咀嚼障害	腫瘍 咀嚼障害
発現部位	12唇部より 1-6口蓋歯肉	61無歯 歯槽部	右側翼突 下顎皺壁部	左上顎臼歯 部歯肉	1-3部 歯肉	右側上顎 臼歯部残根上
基部の有無	有	有	無	有	有	有
X線所見	窩骨様の像	顆粒状の 不透過像	数個の 不透過像	異常なし	異常なし	不規則顆粒状 の不透過物
臨床検査所見	正 常	正 常	正 常	正 常	正 常	貧血 HB 抗原(+)
臨床診断	不 明	不 明	骨形成性 線維腫	エプーリス	エプーリス	上顎腫瘍
処置	摘出・搔爬	摘出・搔爬	摘出	摘出	摘出	摘出・搔爬
摘出物の大きさ	5×3cm 21g	21g	4×3×3.5cm 30g	0.5×2×2cm	1.5×1×1cm	7×5×4.5cm 60g
摘出物被膜の有無	無	無	有	無	無	無
予後	不 明	1年良好	1年2か月良好	3年良好	2年6か月良好	2年良好
発生起源	骨膜	61残根 歯周靱帯	上顎結節部 骨膜	不 明	不 明	761残根 歯根膜

写真 3 初診より3か月後の口腔内所見

写真 4 初診時X線所見

明らかではなかった(写真4, 5).

臨床検査所見: ヘモグロビンが 8.48/dl, ヘマトクリットが32.3%で貧血を示し, HB 抗原は陽性であった. その他, 特に大きな異常所見はみられなかった.

臨床診断: 上顎腫瘍.

処置および経過: 同年6月■日, GOF 全麻下に腫瘍摘出手術を行った. 腫瘍の基底部と思われる周囲に切開

月後, 腫瘍はさらに急速な増大傾向を示した(写真3).
X線所見: 右側上顎臼歯部より下顎臼歯部歯槽頂部に近接する腫瘍部に一致して多数の不規則顆粒状の不透過物が混在していた. しかし, 同上顎臼歯部の骨吸収像は

写真 5 初診時X線所見

写真 8 摘出物所見

写真 6 手術後2年の口腔内所見

写真 9 摘出物所見

写真 7 手術後2年のX線所見

写真 10 摘出物の断面所見

を加え、骨膜とともに剝離し、一塊として摘出した。腫瘍の基部は76残根部で、歯槽骨面は凹凸粗造を呈し、同部を十分削除した。創面を抗生剤軟膏塗布ガーゼで覆い、ついでセルロイド床を装着して手術を終了した。術後経過は良好で約2年を経過した現在、再発等の異常は

認められていない(写真6, 7)。

摘出物所見：大きさは7.0×5.0×4.5cm、重量は60gであった(写真8, 9)。摘出物の断面は充実性で灰白色を呈し、多数の石灰化物が認められた(写真10)。X線所見では、腫瘍内部に多数のX線不透過物が散在してい

写真 11 摘出物のX線所見

写真 13 腫瘍の一部弱拡大像
線維性組織の増殖と散在する骨組織 (H-E, ×40) 写真 12 摘出物中央部の組織全体像
右端に残根があり、増殖している線維性組織内には硬組織が散在している (H-E, ×2.4) 写真 14 腫瘍の周辺部の弱拡大像
増殖している線維性組織と表面の肉芽組織 (左端)との境界は比較的明瞭である (H-E, ×40)

た (写真11)。

病理組織学的所見：腫瘍の基底部には残根があり、その周囲に歯槽骨の一部と思われる骨組織がみられた。腫瘍は線維性組織の増殖で、そのなかに不規則な形をした硬組織が散在していた (写真12)。増殖している線維性組織は紡錘形の核を有する膠原線維の束状増殖で、小血管周囲ではその配列が比較的疎であった。線維性組織内の硬組織は円形、橢円形、あるいは不規則な形をした小塊状、または梁状の骨組織で、細胞成分を含む骨小腔を有していた (写真13)。また、この骨組織には層板構造や類骨組織をみるものもあった。増殖している線維性組織ならびに骨組織に、異型性など悪性を思わせる像はみられなかった。腫瘍の表面は重層扁平上皮で被覆されているが、大部分は上皮が剥離し、線維素性化膿性炎の像を呈していた。上皮直下は軽度ないし中等度の慢性炎症性細胞浸潤を伴った肉芽組織で、この肉芽組織と増殖している線維性組織との境界は比較的明瞭であった (写真14)。

診 断：以上の臨床所見、X線所見、ならびに病理組

織所見より、周辺性の化骨性線維腫と診断した。

考 察

化骨性線維腫は骨組織の形成を伴う線維性組織の増殖物で、骨線維腫、線維骨腫とも呼ばれ¹⁾、その名称は Montgomery²⁾ に始まるといわれる。線維腫には線維性組織のほか、骨質などの石灰化成分を含むものがあり、線維成分と石灰化成分の割合や程度はいろいろである³⁾ が、Thoma⁴⁾ はこれを化骨性線維腫、線維類骨腫、線維骨腫に分類している。

化骨性線維腫は顎骨中心性、あるいは顎骨周辺性に生ずる比較的まれな腫瘍であり、本邦での口腔外科領域における報告例は、安藤ら⁵⁾ によると74例である。そのうち周辺性化骨性線維腫はわれわれが渉猟したかぎり、大木ら⁶⁾、伊藤ら⁷⁾、本田ら⁸⁾、山崎ら⁹⁾ (2例) の5例のみが報告されており、その発生頻度はきわめてまれといえ

る。

以下、われわれの症例を含めた周辺性化骨性線維腫の6例について述べる。性別では、全症例が女性で、好発年齢は50歳代が3例、40歳代、20歳代、10歳代がおのの1例であった。自覚症状として、腫瘍または腫脹を訴え来院しているが、腫瘍が増大するに従い、発音障害や咀嚼障害をきたしていた。自覚時期より初診までの期間は、報告者により異なり、6か月より5年の間であった。発現部位では、上顎臼歯歯肉部3例、下顎前歯歯肉部1例、上顎前歯歯肉部より臼歯歯肉部1例および右側翼突下顎軟部1例であった。臨床所見として、1例を除いて基部が認められ、直接歯牙を含むか、あるいは歯牙に隣接していたと思われ、発生源が歯牙ときわめて関連が深いと考えられる。X線所見では、4例において腫瘤相当部に不規則な不透過物の散在するのを認めたが、他2例には特に異常所見が認められなかった。化骨性線維腫は増大、成熟するにつれて骨形成量が多くなるとともに、不透過像が多くなると報告されている^{1,4,10,11}。臨床検査所見では、特に異常が認められなかった。

顎骨は他部位の骨と異なり、その特性として、発生学的に顎骨内に歯胚組織を有している。したがって、歯乳頭、歯小囊あるいは歯根膜に由来する歯原性腫瘍と骨原性腫瘍との鑑別が問題となるが、WHOの分類¹²では、化骨性線維腫はNeoplasms and other tumours related to boneのOsteogenic neoplasmsのなかに分類されている。一方、迫田¹³は歯根膜に由来するとするなど、なお諸説があるようである。歯根膜はセメント質を歯槽骨に固着させる線維性組織であるが、また歯槽骨膜にも相当し、セメント芽細胞とともに骨芽細胞をも分化させる。つまり線維性組織のなかにセメント質様の硬組織の形成がみられるセメント質形成線維腫は歯根膜のセメント質形成能を有する細胞に由来し、同様に化骨性線維腫は歯根膜の骨形成能を有する細胞に由来すると考えられるとしている¹³。周辺性化骨性線維腫の6例において、その発生源は歯根膜あるいは骨膜とされているが、骨膜由来とするものも発現部位が歯牙に近接しており、歯原性由来も否定できないであろう。

化骨性線維腫とfibrous dysplasiaとの鑑別について、両疾患の関係はいまだ一致した見解がなく、JaffeやLichtenstein¹⁴、Schlumbergerら¹⁵は化骨性線維腫をfibrous dysplasiaの一型として扱い、Phemister¹⁶、Ackerman¹⁷、Kempsonら¹⁸は独立した別の疾患とみている。化骨性線維腫とfibrous dysplasiaでは、境界の明瞭度、骨梁の性状、間質の性状に相違がみられるが、特に鑑別上重要な点として、fibrous dysplasiaには線維骨から層板骨への移行の障害、すなわち骨梁の成熟過程の異常がみられることをあげている^{19,20}。しかし骨病変の二次的変化により、定型的な組織像を逸脱することもあり^{19,20}。Thoma⁴、Waldron²¹らは腫瘍性病変と

異形成病変を区別している。化骨性線維腫は良性の腫瘍であるが、一方fibrous dysplasiaは未分化な骨形成間葉組織の発育異常^{14,22}であり、被膜はなく境界は不明瞭で、一定の大きさに達するとついには増大が停止する特徴を有するといわれている^{4,11}。いずれにせよ、臨床所見、X線所見、病理組織学所見等の総合的な見地より診断されているようである^{1,21,23,24}。

他方、エプーリスとの鑑別であるが、エプーリスとは歯肉部に生じた良性の限局性腫瘍を総括した臨床名¹として広く用いられているが、病理学的な定義と分類ではいまなお見解が一致していない。そのおもな問題点は歯肉に発現する線維腫や骨形成性線維腫などの真性腫瘍を含むか否かである²⁵。石川、秋吉ら¹は腫瘍性の増殖と非腫瘍性のものとの区別が必ずしも容易でないため、線維腫や骨線維腫をエプーリスに含めている。これに対し、炎症性、反応性の増殖物に限って用い、真性腫瘍を含ませない報告もある²⁶⁻²⁸。一方、Gorlin & Goldman²⁹、Pindborg³⁰らは病理診断名としてエプーリスの名称をさけ、cellular inflammatory hyperplasiaやfibrous inflammatory hyperplasiaやpyogenic granuloma等の名称を用いており、石田ら²⁵は真性腫瘍はエプーリスと病理組織学的に鑑別されうるとしてエプーリスから除外している。

われわれの症例は化骨性線維腫と診断したが、石川、秋吉ら¹の分類する骨形成性エプーリス²¹⁻²⁵（特に線維骨腫性エプーリス）と称される可能性については、なお検討されねばならない。なお、周辺性化骨性線維腫と同様に臨床的にエプーリスの形態で発現する周辺性セメント質形成線維腫は本邦においては3例が報告されている^{36,37}。

周辺性化骨性線維腫における摘出物の大きさは、本症例の60gが最大であり、ついで30g、21g、21gなどとなっていた。腫瘍の増大は必ずしも発育期間と一致していない。発育は一般に緩慢であるといわれている^{1,4,11}が、われわれの症例は短期間に急速な増大傾向を示し、悪性腫瘍をも疑わしめた。周辺性化骨性線維腫の処置は、摘出および摘出・搔爬が行われている。摘出・搔爬したものは骨膜を含めて摘出し、統いて歯槽骨面の十分な搔爬を行っている。本腫瘍の予後は良好であるが、平川³⁸は肉腫化を起こし、2歳3か月で死の転帰をとった線維性骨腫の症例を報告しており、注意深い経過観察が必要であると思われる^{39,40}。われわれの症例は術後2年を経過しているが、再発の徴候は全く認められず、現在経過は良好である。

結 語

われわれは27歳の女性で、右側上顎臼歯部より口蓋にかけて発生した巨大な周辺性化骨性線維腫を経験した。

あわせて、われわれが渉猟し得た周辺性化骨性線維腫の5例を含め、考察を加えて報告した。

本論文の要旨は昭和56年10月30日、第26回日本口腔外科学会総会において発表した。

引用文献

- 1) 石川梧朗, 秋吉正豊: 口腔病理学Ⅱ. 永末書店, 京都, 1969, 969頁.
- 2) Montgomery, A.H.: Ossifying fibroma of the jaws. Arch Surg 15: 30 1927.
- 3) 中村平蔵, 他: 最新口腔外科学. 第2版, 医歯薬出版, 東京, 1974, 679頁.
- 4) Thoma, K.H., Goldman, H.M.: Oral pathology. ed 4, Mosby Co, St Louis, 1954, p 1274.
- 5) 安藤良晴, 他: 下顎骨関節突起部に発生した化骨性線維腫の1例. 日口外誌 27: 1485 1981.
- 6) 大木茂雄, 他: 骨新生を伴える線維腫の1例. 歯界展望 11: 49 1954.
- 7) 伊藤輝夫, 他: Peripheral ossifying fibroma と Pleomorphic adenoma を併発した1症例. 口科誌 27: 314 1978.
- 8) 本田富彦, 他: 翼突下顎皺壁部に発生した化骨性線維腫の1例. 日口外誌 25: 668 1979.
- 9) 山崎 正, 他: 顎骨の硬組織形成線維腫に関する病理組織学的考察. 日口外誌 28: 1097 1982.
- 10) Shafer, W.G., et al.: Textbook of Oral Pathology. ed 3, Saunders Co, Philadelphia, 1974, p 130.
- 11) 藤岡幸雄: 中心性顎骨線維腫の種々相について. 口科誌 9: 323 1960.
- 12) Pindborg, J.J., Krammer, I.R.: Histological Typing of Odontogenic Tumours, Jaw Cysts, and Allied Lesions. WHO Geneva, 1971, p 36.
- 13) 迫田由起子: 顎骨の Fibro-osseous Lesion. 第1編 単発病変について. 口病誌 44: 217 1977.
- 14) Lichtenstein, L. and Jaffe, H.L.: Fibrous dysplasia of bone. Arch path 33: 777 1942.
- 15) Schlumberger, H.G.: Fibrous dysplasia of single bones (Monostotic fibrous dysplasia). Milit Surg 99: 504 1946.
- 16) Phemister, D.B. and Grimson, K.S.: Fibrous osteoma of jaws. Ann Surg 105: 564 1937.
- 17) Ackerman, L.V. and Rosai, J.: Surgical Pathology. Mosby Co, St Louis, 1974.
- 18) Kempson, R.L.: Ossifying fibroma of the long bone. A light and electron microscopic study. Arch Path 82: 218 1966.
- 19) 檜沢一夫: Fibrous dysplasia の病理. 臨整外 11: 422 1976.
- 20) 前山 巖, 遠城寺宗知 (文責): 総合討論 Fibrous dysplasia の臨床と病理. 臨整外 11: 448 1976.
- 21) Waldron, C.A.: Fibrous-osseous lesion of the jaws. J Oral Surg 28: 58 1970.
- 22) 古星光太郎: Fibrous dysplasia とその類似疾患. 日整会誌 43: 151 1969.
- 23) 茂呂 允: 顎骨に生ずる中心性線維性腫瘍ならびに線維性異形成症に関する臨床病理的研究. 日大歯学 41: 389 1967.
- 24) 前川 巖: 線維性良性腫瘍について, Fibrous dysplasia とその類似疾患. 臨床放射線 5: 32 1960.
- 25) 石田 武, 他: エプーリスの分類と自験例160例の集計観察. 口科誌 30: 14 1981.
- 26) Farmer, E.D. and Lawton, F.E.: Stones' Oral and Dental Diseases. Churchill Livingstone, Edinburgh and London, 1966, p 977.
- 27) Spouge, J.D.: Oral Pathology. Mosby Co, St Louis, 1973, p 225.
- 28) Bhasker, S.N.: Synopsis of oral pathology. Mosby Co, St Louis, 1970, p 468.
- 29) Gorlin, R.J. and Goldman, H.M.: Thoma's Oral Pathology Mosby Co, St Louis, 1970, p 861.
- 30) Pindborg, J.J.: Atlas of Diseases of the Oral Mucosa. Munksgaard, North and South America, 1973, p 166.
- 31) 滝川富雄, 他: 骨形成性エプーリスの6例について. 歯科時報 25: 10 1971.
- 32) 関山三郎, 他: 骨形成を伴った巨大な線維性エプーリスの1例(会). 口科誌 20: 895 1971.
- 33) 平岡 研, 他: 巨大化した骨形成性エプーリスの1例(会). 日口外誌 23: 730 1977.
- 34) 岩崎弘治, 他: エプーリス63例の臨床的観察. 日口外誌 22: 332 1976.
- 35) 高木澄雄, 他: 線維骨腫性エプーリスの1症例について. 日口外誌 27: 1507 1981.
- 36) 梶山 稔, 他: Cementifying fibroma の1例. 日口外誌 26: 166 1980.
- 37) 本村和弥, 他: 顎骨周辺性セメント質形成線維腫について. 日口外誌 28: 858 1982.
- 38) 平川正輝, 他: 肉腫化を起こし死の転帰をとった下顎対照性 Osteofibrom に就いて. 九州歯会誌 6: 11 1952.
- 39) 岩佐俊明, 他: 化骨性線維腫24例の臨床的観察. 口病誌 47: 334 1980.
- 40) 安住知彦, 他: 化骨性線維腫の6症例. 日口外誌 23: 158 1977.