下顎骨に発生した Aneurysmal bone cyst の1症例

田代直也・後藤孝博・関川和男・阿部洋子

田中広一・丸茂一郎・藤田 靖・林 進武

大久保 勉*・山本 肇**

A case of aneurysmal bone cyst of the mandible

Naoya TASHIRO・Takahiro GOTO・Kazuo SEKIKAWA・Yoko ABE

Koichi TANAKA・Ichiro MARUMO・Yasushi FUJITA・Susumu HAYASHI

Tsutomu OHKUBO*・Hajime YAMAMOTO**

Abstract: The aneurysmal bone cyst is a solitary cystic lesion of bone was first described as a distinct clinicopathologic entity by Jaffe and Lichtenstein in 1942. The lesion is usually found in the long bones and vertebral column. The lesion is rare in the jaws. We present a case of aneurysmal bone cyst of the mandible.

A 9-year-old girl was referred with swelling of the left side of the mandible. She had noticed the swelling approximately 1 year previously. She first visited on other oral surgeon who operated with the diagnosis of ameloblastoma, but operation was discontinued because of profuse hemorrhage. Subsequently the swelling had increased and she was referred to our clinic.

On examination, the patient was found to be generally in good health. There was an expansion of the left body of the mandible. Intraoral examination revealed a relative firm swelling, extending from the lower left central incisor to the retromolar region in the left side, buccally and lingually. The mucosa over the area was normal. Palpation disclosed a bony hard expansion of the mandibular cortex, and eggshell crepitus was present in the region of the lower left canine and the first premolar. Radiographs revealed a multilocular radiolucent area, extending from the lower right second incisor to the retromolar region in the left side. Angiography of the left common carotid artery showed normal findings. Full blood examination and serum analysis were within normal limits. Exploratory aspiration was performed and bloody contents were obtained continuously.

Under general anesthesia, the left inferior alveolar artery was ligated, and then all cystic tissue was removed from the cavity by careful curettage intraorally. Histologically, the lesion consists of a fibrous connective tissue stroma containing numerous capillaries and blood filled spaces. In some regions, new bone formation and diffuse hemorrhage were seen. A few giant cells were present. The lesion was diagnosed as an aneurysmal bone cyst. There were no signs of recurrence 2 years after operation and radiograph revealed regeneration of bone in the area of the lesion.

Key words: aneurysmal bone cyst, mandibular cyst, curettage

東北大学歯学部第1口腔外科学教室

(主任：林 進武教授)

* 東北大学歯学部口腔病理学教室

** 東京医科歯科大学歯学部口腔病理学教室

(主任：山本 肇教授)

First Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Faculty of Dentistry, Tohoku University (Chief: Prof. Susumu Hayashi)

* Department of Oral Pathology, Faculty of Den-

tistry, Tohoku University

** Department of Oral Pathology, School of Dentistry, Tokyo Medical and Dental University (Chief: Prof. Hajime Yamamoto)

受付日：昭和58年9月26日

緒 言

Aneurysmal bone cyst は、長管骨や脊柱に好発し、顎骨に発生することはまれとされている。今回われわれは、9歳女児の下顎骨に発生した Aneurysmal bone cyst の症例を経験したので報告する。

症 例

患 者：9歳 女子

初 診：昭和56年1月■日。

主 訴：左側下顎部の腫脹。

家族歴および既往歴：特記すべき事項なし。

現病歴：昭和53年11月頃転倒してオトガイ部を打撲し、某外科を受診したところ、X線写真により左側下顎部の陰影を指摘されたが、症状がないため放置していた。55年1月頃左側下顎部に腫脹が生じてきたため、某病院歯科口腔外科を受診した。同科入院のうえ、エナメル上皮腫の臨床診断のもとに手術を施行したところ、出血が著明なため、止血処置後開窓のまま経過観察していたが、同年10月頃より再び腫脹の増大傾向を認めたため、当科を紹介され来院した。

現 症

全身所見：体格中等度で栄養状態は良好であった。

局所所見：顔貌は非対称で、左側頬部にびまん性の腫脹を認めるが、皮膚の色調は正常であった。口腔内は11~8相当部の歯肉頰移行部に、骨様硬の膨隆を認めた。表面粘膜色は正常で、波動は触れず、134部に一部羊皮紙様感を認めたが、圧痛はなかった。また、21~5相当舌側歯肉部にも同様の腫脹が認められた。11~6の歯はすでに抜去されており、21の歯髄診ではいずれも生活歯であった。

X線所見：21から左側臼後部にかけて、細い骨梁と、不規則な多房性の陰影が認められた。11の歯根はやや遠心に圧排されていた。

血管造影所見：左総頸動脈より65%アンギオグラフィンを注入し血管造影を行った。造影写真で病巣部に一致した血管の過形成像はみられず、血管腫は否定されたが、骨透過巣部への造影剤の集積像や、透過巣内での動静脈吻合などの所見は明らかではなかった。

臨床検査所見：一般検査では特記すべき異常は認められなかった。膨隆部よりの試験穿刺では、持続的に血液様内容物が吸引され、その血液ガス測定では、pHが7.4、炭酸ガス分圧が39.1mmHg、酸素分圧が69.4mmHgで、動脈血ガスに比べ、酸素分圧は低い値を示した。

臨床診断：Aneurysmal bone cyst の疑い。

処置および経過：当科入院のうえ、9月■日 GOF 全

写真 1 初診時顔貌所見

写真 2 初診時口腔内所見

写真 3 初診時パノラマX線写真

写真 4 初診時咬合法X線写真

写真 6 術後1年7か月パノラマX線写真

写真 5 術前血管造影X線写真

写真 7 術後1年7か月咬合法X線写真

写真 8 病理組織所見 (H-E 染色, ×20)

身麻酔下で、口腔内より嚢胞摘出術を行った。まず左側下顎枝前縁に沿う切開により、下顎孔直上で下歯槽動脈の結紮を行った。次いでⅠから左側臼後部にかけて歯槽堤上に切開を加え、粘膜骨膜を剝離して骨面を露出させた。骨面は全体に粗糙で、ところどころ菲薄であり、一部欠損も認められた。骨の色調は正常色を呈する部分は少なく、茶褐色のもろい骨面が多くみられた。菲薄な骨を削除し搔爬したところ、腔内には暗赤色の肉芽様小塊が多数認められた。骨腔内壁は平滑でなく、ところどころに小陥凹があり、一部粗糙な部分も認められた。術創は開放創とし、出血量は566 mlであった。術後はぼ

写真 9 病理組織所見 (H-E 染色, ×50)

写真 11 病理組織所見 (H-E 染色, ×100)

写真 10 病理組織所見 (H-E 染色, ×20)

2年を経過した現在、再発を認めず、X線的にも嚢胞部は新生骨で満たされている。

病理組織学的所見：嚢胞壁は毛細血管にとんだ幼若な線維性組織よりなり、血管周囲の出血巣および血液で満たされ拡張した腔も認められた（写真8, 9）。また一部には骨新生が認められ（写真10）、非常に数は少なかったが、巨細胞も認められた（写真11）。

病理組織学的診断：Aneurysmal bone cyst.

考 察

Aneurysmal bone cyst は、1942年に Jaffe and Lichtenstein¹⁾ によって他の孤在嚢胞性骨疾患より独立してあげられたもので、1950年 Jaffe²⁾, Lichtenstein³⁾ によって脈瘤性骨嚢胞 (Aneurysmal bone cyst) の名称が提唱され、その実体について明確な記載がなされた。本疾患は長管骨や脊柱に好発し、顎骨に発生することはまれであり、Sherman ら⁴⁾は43症例中下顎に1例、Wang⁵⁾は49症例中下顎に2例、Tillman ら⁶⁾は95症例中上顎1

例、下顎1例、Biesecker ら⁷⁾は66症例中下顎に2例と、顎骨における発生は全体の2%程度という報告が多い。顎顔面領域の報告では、Steidler ら⁸⁾によると、29症例中、上顎11例、下顎17例、頬骨1例⁹⁾と下顎骨に多く発生するようである。男女比は、顎骨外のものも含めたものでは、Wang⁵⁾によると4対5、顎顔面領域のものでは Steidler ら⁸⁾によると3対4と、やや女性に多いが明確な差はない¹⁰⁾。年齢的には若年者に多く³⁾、顎顔面領域でも、Steidler ら⁸⁾のまとめた29症例のうち、26症例が6～29歳の間であった。高齢者にみられることはまれで、報告例としては Bernier と Bhaskar¹¹⁾による59歳女性、井上¹²⁾による69歳女性などがある。

本症の初発症状は無痛性の腫脹として現れることが多く、発育は急速に進むことが多い。

X線的には、比較的境界明瞭な単房性または多房性の透過像を示し、しばしば蜂巣状を呈している。血管造影が診断に有用であったという報告もあり、後藤¹³⁾、黒柳¹⁴⁾は下顎骨の Aneurysmal bone cyst で、下顎管および下顎孔の拡大をみとめている。本症例における血管造影ではとくに異常所見は認められなかった。

本嚢胞の発生原因として、外傷の既往との関係がいわれており、Johan¹⁵⁾は、根尖3分の1部の屈曲した埋伏犬歯に近接した Aneurysmal bone cyst の1例を報告しており、本症の発生に外傷が関連していると述べている。一方 Eveson ら⁹⁾によると、顎骨の Aneurysmal bone cyst の患者のうち、顎の殴打、抜歯といった外傷の既往を有するものは50%以下であったと述べ、また Donaldson¹⁶⁾は、空洞中の血液が外傷によるものならば、それは肉芽組織や仮骨の形成へと導くべきであると、外傷原因説に反対している。

Lichtenstein³⁾は、静脈血栓または動静脈瘤といった局所的な循環障害が、静脈圧の上昇をひきおこし、骨の吸収をおこすと述べている。

Biesecker ら⁷⁾は、Aneurysmal bone cyst 66症例中、32

%に一次的な骨病巣が認められ、一次病巣が血液動態力により骨の二次的反応性変化を伴った動静脈瘤を形成し、Aneurysmal bone cystはこの二次病巣を構成するものと考えた。Oliver¹⁷⁾も Biesecker ら⁷⁾の説に賛同し、Fibrous dysplasiaに発生した Aneurysmal bone cyst の1症例を報告している。

Bernier と Bhaskar¹¹⁾は、嚢胞壁に内皮細胞、弾性線維や筋組織を認めないことから血管起源を疑った。彼らは、血腫の一部が固有の結合繊維複合体によって置換された、血管の偽動脈瘤を示すものかもしれないと述べている。さらに Aneurysmal bone cyst と Giant-cell reparative granuloma は類似した疾患で、唯一の違いは前者に血液を含むスペースが存在することだとし、両者共、骨髓内血腫の器質化を示すもので、血腫が損傷された血管と循環系の交通が残っている場合は Aneurysmal bone cyst となり、交通が閉ざされた場合は Giant cell reparative granuloma を構成すると述べている。

Hillerup ら¹⁸⁾は、Aneurysmal bone cyst の手術後、Simple bone cyst として再発した症例を報告し、種々の文献的観察から、顎骨の Aneurysmal bone cyst, Simple bone cyst, Central giant cell granuloma は同一疾患の、あるいは骨病巣における不全治癒過程の、種々の表現形態であろうと述べている。すなわち、骨髓内出血によって生じた血腫が、主たる血管と交通している時は Aneurysmal bone cyst を形成し、小血管のみが交通している時は Giant cell granuloma を、そして血液供給がブロックされている時は Simple bone cyst を形成すると考えた。

以上のように、本症の発生原因には諸説があり、明らかな成因はまだ不明である。

本症例において、外傷が発見のきっかけとなったが、それ以前における外傷の既往は認められなかった。

病理組織学的には、血液を満たす多くの腔を有し、腔壁は毛細血管に富む幼若な線維組織に占められており、血管壁の構造は明らかではない。間質中には巨細胞、出血巣、血色素沈着がしばしば認められ、骨新生の認められるものもある。

本症例では、巨細胞は少数しか認められなかったが、巨細胞は骨吸収の活発な部で多くみられる反応性要素であるという説^{17), 19)}からみると、本症例では拡張がほぼ終了した安定期にあると考えられる。

本症と鑑別を要する疾患としては、Ameloblastoma, Giant cell tumor, Giant cell reparative granuloma, Simple bone cyst, Central hemangioma 等がある。単純X線所見のみでこれらの疾患と鑑別することは困難であり、内容液所見や血管造影所見等を参考に、十分な術前検査のうえで手術方針を決定する必要がある。

治療法としては、切除術、搔爬術、凍結療法^{7), 20)}等が行われている。Jaffe²¹⁾は嚢胞部の不完全な搔爬でさ

えも治癒に結びつくようだと述べており、Steidler ら⁸⁾も、切除術は非常に広範な病巣以外は避けるべきだとし、保存的な療法を勧めている。われわれも搔爬後開放創としたが、創の治癒過程は正常であり、2年後の現在再発はみられない。

本症の予後は一般に良好であるが、Hirst ら²²⁾は、肺転移を伴った Aneurysmal bone cyst の悪性変化を報告している。

結 語

われわれは、9歳女児の下顎骨に発生した Aneurysmal bone cyst の1例を経験したので、若干の文献的考察を加えて報告した。

本論文の要旨は、第8回日本口腔外科学会北日本地方会(昭和57年6月、新潟)において発表した。

引 用 文 献

- 1) Jaffe, H.L. and Lichtenstein, L.: Solitary unicameral bone cyst, with emphasis on the roentgen picture, the pathologic appearance and pathogenesis. Archives of Surgery 44: 1004-1025 1942.
- 2) Jaffe, H.L.: Aneurysmal bone cyst. Bull Hosp Joint Dis 11: 3-13 1950.
- 3) Lichtenstein, L.: Aneurysmal bone cyst. A pathological entity commonly mistaken for giant-cell tumor and occasionally for hemangioma and osteogenic sarcoma. Cancer 3: 279-289 1950.
- 4) Sherman, R.S. and Soong, K.Y.: Aneurysmal bone cyst-its roentgen diagnosis. Radiology 68: 54-64 1957.
- 5) Wang, S.Y.: An aneurysmal bone cyst in the maxilla. Plast Reconstr surg 25: 62-72 1960.
- 6) Tillman, B.P., Dahlin, D.C., et al.: Aneurysmal bone cyst: an analysis of ninetyfive cases. Mayo Clin Proc 43: 478-495 1968.
- 7) Biesecker, J.L., Marcove, R.C., et al.: Aneurysmal bone cysts. clinicopathologic study of 66 cases. Cancer 26: 615-625 1970.
- 8) Steidler, N.E., Cook, R.M., et al.: Aneurysmal bone cysts of the jaws: a case report and review of the literature. Brit J Oral Surg 16: 254-261 1978.
- 9) Eveson, J.W., Moos, K.F., et al.: Aneurysmal bone cyst of the zygomatic arch. Brit J Oral Surg 15: 259-264 1977.
- 10) Killey, H.C. and Koy, L.W., 千野武広訳: 顎嚢胞の診断と治療. 書林, 東京, 1975, 141-

144頁.

- 11) Bernier, J.L. and Bhaskar, S.N.: Aneurysmal bone cysts of the mandible. *Oral Surg* 11: 1018-1028 1958.
- 12) 井上靖彦, 片岡良雄, 他: 右上顎に発症した脈瘤性骨嚢胞の 1 症例. *日口外誌* 25: 1519-1522 1979.
- 13) 後藤 潤, 福武公雄, 他: 顎骨内に発生した Aneurysmal bone cyst の 1 症例. *日口外誌* 17: 260-266 1971.
- 14) 黒柳錦也, 佐藤 仁, 他: 下顎骨に発生した Aneurysmal bone cyst の 1 例と文献的考察(抄). *歯科学報* 78: 147 1978.
- 15) Johan, P.R.: Aneurysmal bone cyst of the maxilla. *Oral Surg* 45: 441-447 1978.
- 16) Donaldson, W.: Aneurysmal bone cyst. *J Bone Joint Surg* 44A: 25-40 1962.
- 17) Oliver, L.P.: Aneurysmal bone cyst. Report of a case. *Oral Surg* 35: 67-76 1973.
- 18) Hillerup, S. and Hjørting-Hansen, E.: Aneurysmal bone cyst-simple bone cyst, two aspects of the same pathologic entity? *Int J Oral Surg* 7: 16-22 1978.
- 19) Boyd, R.C.: Aneurysmal bone cysts of the jaws. *Brit J Oral Surg* 16: 248-253 1978.
- 20) Marcove, R.C. and Miller, T.R.: Treatment of primary and metastatic bone tumors by cryosurgery. *JAMA* 207: 1890-1894 1969.
- 21) Jaffe, H.L.: Tumors and tumorous conditions of the bones and joints. Lea and Febiger, Philadelphia, 1964, p56-61.
- 22) Hirst, E., McKellar, C.C., et al.: Malignant aneurysmal bone cyst. *J Bone Joint Surg* 52B: 791 1970.