粘液腫様の部分を伴った下顎骨良性骨芽細胞腫の1例

石川 信廣・久保 四郎・砂川 元・平塚 博義
友寄 英基・村橋 護・山本 悦秀・小浜 源郁
成松 英明*

Benign osteoblastoma of the mandible: Report of a case

Nobuhiro ISHIKAWA・Shiro KUBO・Hajime SUNAKAWA
Hiroyoshi HIRATSUKA・Eiki TOMOYORI・Mamoru MURAHASHI
Etsuhide YAMAMOTO・Gen-iku KOHAMA・Eimei NARIMATSU*

Abstract: The subject was an eighteen-year-old man with benign osteoblastoma of the mandible, and it was extremely rare tumor originating in the jaws. He had no painful swelling of the left side mandible.

Findings on physical examination limited to the mandible. Examination revealed that the lesion was a walnut size, firm rigid, and raised one. X-ray examination revealed a radiolucent lesion with a radiopaque area of the anterior part, and the lesion extended from the second premolar to the second molar. Under general anesthesia, tumor extirpation was carried out. Histological features indicated a growth of woven and/or osteoid bone tissues, abundant osteoblasts with extensive myxoid degeneration, and histological diagnosis of benign osteoblastoma.

In this case, X-ray and histological findings were atypical compared with previously reported cases because of presence of comprehensive myxoid degeneration.

Key words: Benign osteoblastoma, mandible, myxoid degeneration

緒 言

良性骨芽細胞腫 (benign osteoblastoma) は、1956 年に Jaffe, H.L.¹⁾ および Lichtenstein, L.²⁾ により同時に命名されたもので、組織学的には、骨芽細胞の増殖が盛んで、血管の豊富な間質をもった類骨や骨の形成を示す良性の骨腫瘍とされている。本腫瘍は比較的まれな疾患で、その好発部位は四肢骨あるいは脊椎骨であり、顎骨

領域に発生するものは報告例が少なく、きわめてまれとされている³⁾。今回、左下顎骨に無痛性の腫脹を主訴として来院し、臨床および病理組織所見より粘液腫様の部分を伴った良性骨芽細胞腫と診断された症例を経験したので、その概要を報告し、あわせて文献的考察を行った。

症 例

患 者：■■■■ 18歳 男性。

初 診：昭和58年8月■■■。

主 訴：左下顎部腫脹。

家族歴：特記すべき事項なし。

既往歴：特記すべき事項なし。

現症歴：昭和55年2月左下顎臼歯部に無痛性の腫脹を認めたため、某歯科医院受診。残根状態の「6」の抜歯を受けたが、同部の腫脹は消退しなかった。昭和56年3月頃より腫脹は徐々に増大し、また同部の圧痛が出現したため、昭和58年8月某歯科医院を受診した。X線診査により左下顎骨に透過像を指摘され、精査のため当科を紹

札幌医科大学口腔外科学講座
(主任：小浜源郁教授)

* 札幌医科大学附属病院検査診断部
(主任：黒川一郎教授)

Department of Oral Surgery, Sapporo Medical College (Chief: Prof. Gen-iku Kohama)

* Department of Laboratory Diagnosis, Sapporo Medical College Hospital (Chief: Prof. Ichiro Kurokawa)

受付日：昭和60年3月22日

写真 1 初診時口腔内所見

写真 2 初診時X線所見（パントモ）

写真 3 術中所見（腫瘍摘出後）

介され来院した。

現 症：栄養状態良好，体格中等度，顔貌はやや左右非対称で左下顎部に胡桃大，骨様硬，び慢性の腫脹を認めるも，自発痛，圧痛および同部の発赤は認められなかった。また，開口障害，下口唇麻痺および顎下，頤下リンパ節の腫脹も認められなかった。

口腔内所見：15より17にわたる歯肉頬移行部に胡桃大，骨様硬の膨隆を認め，同部歯肉粘膜は軽度の発赤および圧痛が認められた（写真1）。歯牙所見では，17に軽度の動揺が認められたが，電気歯髓診断では157とも生活反応を示し，打診痛は認められなかった。

X線所見：パントモグラフィーによるX線所見では，病巣は15の近心部から17の遠心部にわたり，胡桃大，境界明瞭な卵円形の陰影を呈していた。その前方部は，石灰化を思わせる小指頭大のX線不透過像がみられ，後方部では，鶏卵大，泡沫状の骨吸収像が認められた。同病変周囲の骨硬化像は認められなかったが，骨皮質は軽度に膨隆していた。歯牙所見では，17が近心傾斜していたが，157とも歯根の吸収は見られなかった（写真2）。

臨床検査所見：初診時アルカリフォスファターゼ189単位と高値を示した以外は，とくに異常所見は認められなかった。

臨床診断：左下顎骨良性腫瘍。

処置および経過：昭和58年8月■，上記臨床診断のもとに試験切除を施行し，粘液腫様変性を伴う良性腫瘍性病変の診断を得たため，腫瘍摘出を目的として9月■入院した。手術に先立ち，摘出術施行後の下顎骨の安静，補強の目的で，上下顎歯牙を三内式線副子で固定したのち，同年9月■，GOF全麻下に，口内法により腫瘍全摘出術を施行した。すなわち，14根尖部より17遠心部におよぶ頬側粘膜に孤状切開を加え，歯肉骨膜弁を剝離翻転し，同腫瘍部を露出させたところ，膨隆部の骨は表面粗造であったが，腫瘍後上方部は一部に生検施行時の骨皮質の除去による骨欠損があり，同部には赤褐色，ゼリー状の組織が認められた。そこで，隣接歯牙の保存につとめ，骨ノミにて腫瘍周囲より切除，摘出を行ったところ，腫瘍前方部は一塊として容易に摘出され，また後方部は，骨欠損部周囲の骨を除去したのちにゼリー状の組織を鋭匙にて小塊に分けて搔爬し摘出した（写真3）。

なお，舌側および下顎下縁の骨皮質はほぼ健常であり，また下歯槽血管神経束は腫瘍下方に圧迫されており，同部の損傷に留意しながら，骨整形を行ったのち，摘出腔の骨面を凍結乾燥脳硬膜（Lyodura[®]）にて被覆し，アクロマイシン軟膏ガーゼを挿入，手術を終了した。また，術後より1週間，下顎骨の安静をはかるため左右1本ずつエラスティック・ゴムにて開口制限を行った。術後経過は良好で，9月■退院した。その後，外来通院にて経過観察を行ったところ，鶏卵大の摘出腔は，漸次縮小し，術後7か月目には完全に消失し，良好な上皮化が観察された。また，17の動揺も改善され，顎の変

写真 4 術後X線所見 (下顎骨正面)

写真 5 摘出後7か月の口腔内所見

写真 6 摘出物所見 (腫瘍前方部)

写真 7 摘出物所見 (腫瘍後方部)

写真 8 摘出物X線所見

写真 9 病理組織像 (腫瘍前方部 H-E, ×45)

位、咀嚼等の機能障害を残すことなく、臨床所見およびレントゲン所見でも再発の徴候は認められない(写真4, 5)。

摘出物所見：一塊として摘出した前方部腫瘍は、小指頭大、赤褐色、弾性硬、表面粗造であった。小塊に分けて摘出した後方部腫瘍は、赤褐色、柔軟なゼリー状を呈しており、また、前方部摘出物の一部にも同様な組織の

付着が認められた(写真6, 7)。

摘出物のX線所見では、X線透過像とX線不透過像が不規則に認められ、その中心部ではやや不透過性の強い所見を呈していた。また後方部ゼリー状の組織は、X線透過性で、石灰化物を思わせる所見は認められなかった(写真8)。

写真 10 病理組織像 (腫瘍前方形 H-E, ×112)

写真 11 病理組織像 (腫瘍後方形 H-E, ×112)

病理組織学的所見：腫瘍前方形では、不規則な類骨様組織や梁状骨の形成が多量に認められ、その周囲には、やや大型、類円型の骨芽細胞の増殖が認められた。間質は疎性結合組織より成り、血管が豊富で、骨に隣接して破骨細胞も多数存在していた(写真9, 10)。

また、腫瘍後方形のゼリー状の組織は、紡錘型細胞より成る線維組織で占められ、分葉状に広がり、その分布は疎で細胞の異型性は認められなかった(写真11)。

考 察

本腫瘍の全身における発生頻度は、全骨腫瘍の1%以下⁴⁾あるいは約1%³⁾とされ、そのうち顎骨に発生するものはきわめてまれで、全骨芽細胞腫のうち約10%とされている。本腫瘍の顎骨領域での発症例は、調査し得た限りでは、われわれの症例を含めて、43例であった。このうち、男女比は、男性28例(65.1%)、女性15例(34.9%)と1.9:1の割合で男性に多く発症し、平均発症年齢は男性19歳、女性16歳、全体の平均は18.6歳で、10歳代までに受診したものが69.7%(30例)、30歳以下では86.0%(37例)であった。全身に発生した本腫瘍の発症年齢および性差に関して、Huvosの報告⁵⁾によれば、

図 1 顎骨に発生した良性骨芽細胞腫 43例の発症部位別例数。

364例中平均受診年齢は17歳、性別では2:1と男性に多いとし、Jacksonら³⁾は、30歳以下が91%、男女比では1.91:1で男性に多くみられるとしており、顎骨領域の本腫瘍と比べると、後者では好発年齢はやや高く、性別ではほぼ同程度で男性に多く発現する傾向がみられた。また顎骨内の発症部位別頻度では、上顎13例(30.2%)、下顎30例(69.8%)と下顎に多く、とくに左側臼歯部では30例中13例(43.3%)を占めていた(図1)。

本腫瘍の臨床的特徴として、腫脹ならびに局所の疼痛があげられる。疼痛の程度は、類骨々腫よりも緩徐であるといわれている³⁾が、迫田ら²³⁾、古館ら²⁴⁾のように圧痛を有するものから、平塚ら³⁴⁾、Kopp¹⁰⁾らのように無痛性のものなど、多様である。本症例では自発痛はないが、腫脹部頰側粘膜に軽度の圧痛を有する程度であった。一般に本腫瘍の発育は、骨内に発生し緩徐に増大し、骨皮質を非薄化し、膨隆として認められるが、骨皮質を浸潤、破壊して外部に増大することは少ないとされている。本症例では、15から17に至る歯肉に膨隆が認められたが、術中所見では腫瘍の発育による骨皮質の破壊は認められなかった。

本腫瘍のX線所見について、初期においては骨梁や類骨組織が乏しいため、X線透過性の像を呈するが、腫瘍が成熟するに従って、類骨梁が増加し石灰化が進行するため、不透過性になるか、あるいは透過像と不透過像が混在する像になり⁴⁰⁾、一般に周囲骨の硬化像は欠如するが、軽微であるとされている²⁾。

また、本腫瘍の病理組織学的所見では、新しい病巣では、骨芽細胞が豊富に増殖し、梁状に類骨組織が形成され、骨梁に接して破骨巨細胞が認められる。また、間質は豊富な毛細血管に富む線維性組織よりなっている。古い病巣では、石灰化した骨質に富み、骨芽細胞は減少する⁴⁰⁾。つまり、腫瘍の新旧によりX線所見および病理組織学的所見の様態も多様である。しかしながら、類骨や

骨梁などの石灰化組織の多寡は、腫瘍の新旧とは関係なく、むしろ腫瘍細胞の活性によるとの見解もある⁷⁾。本症例のX線所見では、前方部に小指頭大のX線不透過像を認め、同部の病理組織所見では、類骨組織よりも梁状骨が多くみられ、骨芽細胞の増殖もそれ程著明ではなかった。また、腫瘍後方部のX線像は、鵝卵大、泡沫状のX線透過像を呈しており、同部摘出物の病理組織所見では、紡錘型細胞よりなる線維組織によって占められ、分葉状にのび、粘液腫様変化を示していた。一般に粘液組織は、胎生児のはじめに間葉の大部分を占めているが、次第に減少して、臍帯部に残り生後にはほとんど認められなくなる。粘液腫は、このような粘液組織と類似した構造をもつ腫瘍性病変と考えられているが、真の粘液腫はまれなもので、多くは他の間葉性細胞起源の病変の変性であるといわれている⁴²⁾。以上より、本症例の病態を検討したところ、石灰化像が強いこと、組織学的に骨梁が多くみられたことなどから、腫瘍細胞の活性が高かったか、あるいは、長期間存在していた良性骨芽細胞腫で、その一部が、何らかの影響を受け、粘液変性におちいったと推定された。本腫瘍の報告例では本症例のような強い粘液変性を伴ったものはなく、非常に特異な病態像を呈する良性骨芽細胞腫の1例と思われた。

本腫瘍と鑑別を要する疾患として、良性セメント芽細胞腫、類骨々腫および骨肉腫などがあげられる。良性セメント芽細胞腫は、歯根との癒着があること、形成された硬組織が放射状構造を示し、セメント質であることより鑑別され得る。顎骨領域に発生する類骨々腫はきわめて少ない⁴⁰⁾が、病理組織像は本腫瘍と非常に類似しており、その鑑別は、X線所見において病巣周囲に反応性骨硬化像が認められ、また大きさが1 cm 以下であることから比較的容易とされている。本腫瘍と最も鑑別を要する疾患は、骨肉腫である。骨肉腫は良性骨芽細胞腫と比較して、発育が急速であること、組織学的に細胞の多形性に富み、異型性が著しいことより容易に鑑別される。

本腫瘍の治療方法としては、一般に搔爬術および摘出術が施行されている。しかしながら、その予後に関しては、搔爬等の不適切な治療後に再発^{6,13,18)}あるいは悪性転化⁴³⁾するという報告もあり、注意深い摘出術が推奨されている。

結 語

18歳、男性の左下顎骨に生じた良性骨芽細胞腫の症例を経験したので報告し、あわせて文献的考察を行った。本症例は、臨床および組織学的所見で特異な病態像を呈していたが、摘出術施行後7か月を経た現在再発の徴候もなく経過良好である。

本論文の要旨は、第10回日本口腔外科学会北日本地方会において発表した。

引 用 文 献

- 1) Jaffe, H.L.: Benign osteoblastoma. *Bull Hosp Joint Dis* 17: 141-151 1956.
- 2) Lichtenstein, L.: Benign osteoblastoma. A category of osteoid-and bone-forming tumors other than classical osteoma, which may be mistaken for giant-cell tumor or osteogenic sarcoma. *Cancer* 9: 1044-1052 1956.
- 3) Jackson, R.P., Reckling, F.W., et al.: Osteoid osteoma and osteoblastoma, Similar histologic lesions with different natural histories. *Clin Orthop* 128: 303-313 1977.
- 4) Dahlin, D.C.: Bone tumors. General aspects and data on 6221 cases. 3rd Ed, Charles C. Thomas publisher, Springfield, Illinois, 1978, p 86-98.
- 5) Huvos, A.G.: Bone tumors. Diagnosis, treatment, and prognosis. W.B. Saunders Co, Philadelphia, London, Toronto, 1976, p 33-46.
- 6) Borello, E.D., Sedano, H.O.: Giant osteoid osteoma of the maxilla. Report of a case. *Oral Surg* 23: 563-566 1967.
- 7) Krammer, H.S.: Benign osteoblastoma of the mandible. Report of a case. *Oral Surg* 24: 842-851 1967.
- 8) Anand, S.V., Davey, W.W., et al.: Tumors of the jaw in west Africa. A review of 256 patients. *Brit J Surg* 54: 901-917 1967.
- 9) Byers, P.D.: Solitary benign osteoblastic lesions of bone. Osteoid osteoma and benign osteoblastoma. *Cancer* 22: 43-57 1948.
- 10) Kopp, W.K.: Benign osteoblastoma of the coronoid process of the mandible; report of case. *J Oral Surg* 27: 653-655 1969.
- 11) Kent, J.N., Castro, H.F., et al.: Benign osteoblastoma of the maxilla. Case report and review of the literature. *Oral Surg* 27: 209-219 1969.
- 12) 赤坂庸子, 長山 勝, 他: 下顎骨に発生した良性骨芽細胞腫. *口科誌* 20: 140-144 1971.
- 13) 伊藤輝夫, 松瀬洋一, 他: 珍しいBenign osteoblastoma の再発例について. *口科誌* 20: 847-855 1971.
- 14) Brady, C.L., Browne, R.M.: Benign osteoblastoma of the mandible. *Cancer* 30: 329-333 1972.
- 15) Smith, N.H.H.: Benign osteoblastoma of the mandible; report of case. *J Oral Surg* 30: 288-292 1972.
- 16) 伊藤輝夫, 曾我宏世, 他: 下顎筋突起に発生した benign osteoblastoma の一例. *日口外誌* 19:

- 183-185 1973.
- 17) Yip, W.K. and Lee, H.T.L.: Benign osteoblastoma of the maxilla. *Oral Surg* 38: 259-263 1974.
- 18) Remagen, W. and Prein, J.: Benign osteoblastoma. *Oral Surg* 39: 279-283 1975.
- 19) Hsu, S.M.: Osteoblastoma of mandible (report of case). *J Formosan Med Assoc* 74: 620-626 1975.
- 20) Farman, A.G., Nortj, C.J., et al.: Periosteal benign osteoblastoma of the mandible. Report of a case and review of the literature pertaining to benign osteoblastic neoplasms of the jaws. *Brit J Oral Surg* 14: 12-22 1976.
- 21) Labayle, J., Bacular, J., et al.: Benign osteoblastoma. A case situated in the maxilla. *Ann Oto-Laryng (Paris)* 93: 661-668 1976.
- 22) Brochériou, C., Raquat, J.P., et al.: Benign osteoblastoma of the mandible. Apropos of a case. *Rev Stomatol Chir Maxillofac* 77: 50-53 1976.
- 23) 迫田由起子: 顎骨の fibro-osseous lesion 第1編 単発性病変について. *口病誌* 44: 217-235 1977.
- 24) 田中陽一, 下野正基, 他: 下顎骨に発生した良性骨芽細胞腫の1例——光学顕微鏡ならびに電子顕微鏡の観察. ——*日口外誌* 25: 406-413 1979.
- 25) 入 久巳, 犬山征夫: 頭蓋骨, 顔面骨における良性の骨性および線維——骨性病変. *耳鼻咽喉科誌* 50: 179-185 1978.
- 26) Chatterji, P., Purohit, G.N., et al.: Benign osteoblastoma of the maxilla (periosteal). *J Laryngol Otol* 92: 337-345 1978.
- 27) Greer, R.O. and Berman, O.N.: Osteoblastoma of the jaws; current concepts and differential diagnosis. *J Oral Surg* 36: 304-307 1978.
- 28) 鼻山節子, 鈴木鍾美, 他: 良性骨芽細胞腫の1例——光顕ならびに電顕の検討(抄). *口科誌* 27: 597-598 1978.
- 29) Nowzarast, B., Mesgarzadah, A., et al.: Benign osteoblastoma. A clinico-pathologic review and report of a case. *Int Oral Surg* 8: 386-390 1979.
- 30) Miller, A.S., Rambo, H.M., et al.: Benign osteoblastoma of the jaws; report of three cases. *J Oral Surg* 38: 694-697 1980.
- 31) Schajowicz, F., Lemons, C.: Osteoid osteoma and osteoblastoma. Closely related entities of osteoblastic derivation. *Acta Orthop Scandinav* 41: 272-291 1970.
- 32) 平塚博義, 山本悦秀, 他: 下顎骨に発生した良性骨芽細胞腫の1例. *日口外誌* 28: 225-230 1982.
- 33) 南雲正男, 倉地洋一, 他: 良性骨芽細胞腫の1例. *日口外誌* 22: 681-685 1976.
- 34) 小倉 壽, 中村太保, 他: 顎骨に於ける Benign osteoblastoma のX線学的検討. *齒放* 22: 1-7 1982.
- 35) 瀧川富雄, 佐藤 博, 他: 下顎に生じた良性骨芽細胞腫と思われる1例. *日大歯学* 53: 6-13 1979.
- 36) 古館 厚, 丸茂町子, 他: 下顎骨良性骨芽細胞腫の1例. *口科誌* 33: 140-149 1982.
- 37) Sidhu, S.S., Parkash, H., et al.: Benign osteoblastoma of the mandible. *J Dentistry* 8: 254-256 1980.
- 38) Danielidis, J., Triaridis, C., et al.: Mandibular ramus osteoblastoma. A case report. *J max-fac Surg* 8: 251-254 1980.
- 39) Van der Waal, I., Greebe, R.B., et al.: Benign osteoblastoma or osteoid osteoma of the maxilla. Report of a case. *Int J Oral Surg* 12: 355-358 1983.
- 40) 石川梧朗監修: *口腔病理学Ⅱ*. 永末書店, 京都, 1982, 557-559頁.
- 41) 小田島哲世, 篠崎文彦, 他: 顎骨粘液腫の4症例. *日口外誌* 22: 551-556 1976.
- 42) 武田勝男: *新病理学総論*. 第10版, 南山堂, 東京, 1971, 351-356頁.
- 43) Seki, T., Fukuda, H., et al.: Malignant transformation of benign osteoblastoma. *J Bone Joint Surg* 57: 424-426 1975.