下顎骨に発生した nonossifying fibroma

—症例報告と文献的考察—

別所和久¹⁾・村上賢一郎・西田光男横江義彦²⁾・兵行忠・飯塚忠彦

Nonossifying fibroma of the mandible

—Case report and review of literature—

Kazuhisa BESSHO¹⁾・Ken-Ichiro MURAKAMI・Mitsuo NISHIDAYoshihiko YOKOZ²⁾・Yukitada HYO・Tadahiko IIZUKA

Abstract: A case of nonossifying fibroma rarely found in the mandible is reported and the literature was reviewed. The patient was a 28-year-old man who had noticed slight pain and swelling in the left side of the mandible about six months before the first examination. The localized hard mass had been growing in size gradually. Radiographic examination revealed a dental crown-sized, ovoid, and well-demarcated radiolucent area in the lower border of the left mandible, with a feature of thin bulging of its bony cortex. Histopathologically, the specimen shows a presence of spindle-shaped fibroblasts and multinucleated giant cells in the swirling appearance of the fibrous connective tissue stroma, and there are no sign of bone formation.

Key words: nonossifying fibroma, benign fibrous bone tumor, mandible

緒 言 症 例

nonossifying fibroma は、比較的まれな良性の線維性骨腫瘍で、その報告の大部分は長管骨に発生したものであり、四肢骨以外での報告例はきわめて少ない¹⁾。今回、著者らは下顎骨に生じたまれな nonossifying fibroma の1例を経験したので、文献的考察を加えて報告する。

患 者：28歳 男性。

初 診：昭和59年6月■日。

主 訴：左側下顎下縁部の腫脹。

既往歴・家族歴：特記すべき事項なし。

現病歴：昭和59年1月初旬、左側下顎下縁の小豆大腫瘍に気付くも、疼痛は軽度のため放置していた。同年6月初旬より、腫瘍は増大し、疼痛も増強してきたため、某病院外科を受診したところ、京都大学医学部附属病院口腔外科を紹介され来院した。

現 症

全身所見：体格中等度、栄養状態良好で特に異常を認めなかった。

顔貌所見：左側下顎下縁に圧痛を伴う大豆大、非可動性の骨様硬腫瘍を触知した（写真1）。

口腔内所見：特に異常を認めなかった。

臨床検査所見：特別の異常は認めなかった。

X線所見：17下方の下顎下縁に1層の骨皮質を残し、類円形で下方に膨隆した境界明瞭な歯冠大透過像を認めた（写真2～4）。

京都大学医学部口腔外科学教室

（主任：小野尊睦教授）

1) 静岡県立総合病院歯科

2) 大津赤十字病院歯科

Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Faculty of Medicine, Kyoto University (Chief: Prof. Takatoki Ono)

1,2) Formerly Residents, Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Faculty of Medicine, Kyoto University, currently in the Departments of Dentistry, at Shizuoka General Hospital¹⁾ and Ohtsu Red Cross Hospital²⁾

受付日：昭和60年9月24日

写真 1 左側側貌所見
下顎下縁に腫瘤を認める (矢印).

写真 3 下顎骨 P-A X線所見

写真 2 パノラマX線所見

写真 4 左側下顎斜位X線所見
左側下顎骨の膨隆を伴う透過像を認める (写真
2～4の矢印).

写真 5 ^{99m}Tc -MDP による骨シンチグラフィ所見
左側下顎骨骨体部に RI-uptake の上昇を認める (矢印).

写真 6 超音波断層検査所見

比較的輪郭明瞭なエコー減衰像を認める (矢印)。

写真 7 病理組織所見 (H-E 染色)

このほか、 ^{99m}Tc -MDPによる骨シンチグラフィーでは、腫瘍部を中心とした下顎骨骨体部に RI-uptake の上昇を認め (写真 5)，また超音波断層検査では、腫瘍部に比較的輪郭明瞭なエコー減衰像を認めた (写真 6)。

処置および経過：以上より、下顎骨良性腫瘍あるいは慢性下顎骨骨髓炎との臨床診断にて、昭和 59 年 7 月 日、口腔内より生検を実施したが、確定診断にはいたらなかった。同年 7 月 日、全身麻酔下にて下顎骨良性腫瘍の疑いにて、同腫瘍摘出術を施行した。切開は通法どおり左側顎下部に行い、下顎骨下縁より骨膜剥離を進めると、外下方に軽度膨隆した歯冠大骨皮質を認めた。膨隆した骨皮質は菲薄化しており、表面は粗造であったが、色調は正常で、周囲組織との癒着は認められなかった。同骨皮質を除去すると、周囲骨組織との境界明瞭な淡褐色、弾性軟の線維様組織が、大豆大の骨欠損部を満たしていた。術中迅速病理組織検査にて、悪性所見なく、nonossifying fibroma または sclerosing osteomyelitis の疑いとの所見を得たため、同部の外側骨皮質を約 1.5×3.0 cm の範囲で除去し、手術を終了した。術後経過は良好で、現在のところ、再発傾向などの異常を認めていない。

写真 8 病理組織所見 (H-E 染色)

紡錘形細胞が渦巻状・柵状配列を示し、多核巨細胞が散在している。

い。

病理組織所見：紡錘形の線維芽細胞が渦巻状・柵状配列を示し、小型の多核巨細胞が散在していた (写真 7, 8)。泡沫細胞、ヘモジデリンの沈着はみられず、また骨および軟骨形成はみられなかった。一部にはリンパ球・形質細胞などの炎症細胞浸潤が強く、新生血管の盛んな像を認めた。核分裂像や異型細胞はなく、悪性所見は認められなかった。以上の組織学的所見より、nonossifying fibroma と診断した。

考 察

nonossifying fibroma については、1942 年 Jaffe & Lichtenstein²⁾ が骨形成能力を欠く良性線維性骨腫瘍として、ossifying fibroma と区別するために、nonosteogenic fibroma として発表して以来多数の報告がみられる。しかし、その本態はまだ解明されておらず、名称も統一を欠いている。Coley & Higinbotham (1953)³⁾ は著書に nonosteogenic fibroma を取り上げており、De Moraes & Fialho (1950)⁴⁾、Delvin, Bowman & Mitchell (1955)⁵⁾ らは nonosteogenic fibroma という名称を用いて、症例を報告している。これに対し、本疾患は真性腫瘍でなく发育欠陥であるという考えから、Hatcher (1945)⁶⁾、Ponseti & Friedman (1949)⁷⁾、Cunningham & Ackerman (1956)⁸⁾ は metaphyseal fibrous defect、また Caffey (1955)⁹⁾ は fibrous defect という名称を用い、nonosteogenic fibroma とするのは不適當であるとしている。また、Aegerter & Kirkpatrick (1958)¹⁰⁾ は subperiosteal cortical defect と nonosteogenic fibroma とを区別しあげながらも、nonosteogenic fibroma を真性腫瘍とする説には反対している。その後、1958 年 Jaffe¹¹⁾ は著書に fibrous cortical defect と nonossifying fibroma とを区別し記載している。そのなかで彼は、病理

組織所見としては同一であるが, fibrous cortical defect はごく一般的にみられるもので, 臨床症状なく自然消滅することが多く, 骨皮質内に限局するものであるが, それが増殖力をもち骨髓内にまで成長すれば, 腫瘍化したと考え nonossifying fibroma と呼びうるとしている. ここで注目すべきは, 彼自身が nonosteogenic fibroma として発表した時点では, 骨髓結合組織由来としていた腫瘍の起源を, fibrous cortical defect と同一, ないしはこれと密接に関係する病態として, その概念を訂正したことである. しかし Lichtenstein (1959)¹²⁾は, nonosteogenic fibroma は骨髓結合組織由来の良性腫瘍であるという説を変えず, X線像・臨床経過からも metaphyseal fibrous defect とは異なる疾患であり, 发育欠陥であるという説を否定している. もともと本疾患は, Jaffe & Lichtenstein が nonosteogenic fibroma として発表するまではあまり関心がもたれておらず, xanthoma, xanthogranuloma, healing variant of giant cell tumor などとして処理されていたようで, 本疾患についての報告は散見される程度であった (表1). それが, nonosteogenic fibroma 発表以降, 良性腫瘍説を支持するもの

表1 nonosteogenic fibroma 発表以前の報告

Chondrofibroma of the fibula—Le Londe (1922)
Localisierte osteitis fibrosa—Konjetzny (1922)
Chronic fibrous osteomyelitis—Phemister & Dallas (1925)
Osteoclastoma—Kolodny (1927)
Fibrocystic osteitis—Kienboeck (1932)
Endosteal fibroma—Cappell (1935)
Fibrous osteoma—Phemister & Grimson (1937)
Cyst-like area—Sontag & Pyle (1941)

と骨成長发育障害説をとるものに分かれ, 一時期盛んな論争が闘わされた (表2). しかし1960年以降も, これらの論争に終止符を打つような報告のないまま現在にいたっている. fibrous cortical defect と nonossifying fibroma を同一疾患と考えている者もいるが, 病理組織所見では区別がつかないとはいえ, 臨床的には前掲の Jaffe¹¹⁾ がその著書に示したような大きな違いがあることより, これらは区別し取り扱うべきであろう. また, nonossifying fibroma はその由来はともかく, 増殖力などより, 単なる发育異常である fibrous cortical defect とは違い, 良性腫瘍と考えるべきであろう. 今回, われわれの経験した症例は, 骨皮質を菲薄化, 膨隆させ, 骨髓にまで及んでおり, 増大傾向を示したことなどから, nonossifying fibroma と考えられる. しかし, 本病態の起源に言及できる新たな所見はなく, その本態をめぐって发育欠陥説を否定するものでもない.

nonossifying fibroma は全原発性骨腫瘍中約0.4%と比較的まれな骨腫瘍であり, 男女比では3:2とやや男性に多い^{13,14)}. 年齢的には10歳代が最も多く約50%を占め, 続いて10歳未満が約30%, 本症例の含まれる20歳代は約10%であり, 以下増齡的に減少しており, 若年者に好発するといえる. 部位としては大腿骨遠位内側に最もよくみられ, 大腿骨, 脛骨, 腓骨の下肢骨で約90%を占める. このほか, 上腕骨, 桡骨などの長管骨には, しばしばみることができるが, 長管骨以外に発生したという報告はきわめて少なく, 本邦においては, 軸椎¹⁵⁾, 足舟状骨¹⁶⁾, 下顎骨¹⁷⁾に生じた各1症例が報告されているのみである. 諸外国においても, 本症例のごとく下顎骨に発生したものは, 数例¹⁸⁻²¹⁾をみるにすぎない.

nonossifying fibroma は前述のように, fibrous cortical defect との異同について, 最もよく問題にされるが,

表2 nonosteogenic fibroma 発表以降の本疾患をめぐる盛んな論争

良 性 腫 瘍 説	発 育 欠 陥 説
Nonosteogenic fibroma—Jaffe & Lichtenstein (1942)	Metaphyseal fibrous defect—Hatcher (1945)
Fibrome non osteogenique—de Moraes et Fialho (1950)	Metaphyseal fibrous defect—Ponseti & Friedman (1949)
Nonosteogenic fibroma—Coley & Higinbotham (1953)	Cortical defect—Holt (1953)
Nonosteogenic fibroma—Farrow (1954)	Calcified medullary defect—Fenton & Hoffman (1953)
Nonosteogenic fibroma—Devlin, Bowman & Mitchell (1955)	Fibrous defect—Caffey (1955)
Nonosteogenic fibroma—Maudsley & Stansfeld (1956)	Metaphyseal fibrous defect—Cunningham & Ackerman (1956)
Nonosteogenic fibroma—Compere & Coleman (1957)	Fibrous metaphyseal defect—Campbell & Harkess (1957)
Nonossifying fibroma—Jaffe (1958)	無症候性骨透明巣—山口, 小祝 (1957)
Nonosteogenic fibroma—Lichtenstein (1959)	Nonosteogenic fibroma—Aegerter & Kirkpatrick (1958)

統一された見解を得るにはいたっていない。病理組織学的には、同一所見を呈し、主体をなす紡錘形の線維芽細胞が渦巻状、柵状配列をしており、骨化機転をみないのを特徴としている。その他、一部にこれらの細胞融合により形成された比較的小型の多核巨細胞、出血によるヘモジリン沈着、盛んな新生血管、リポイドを含有する泡沫細胞をみることがあるとされている。しかし、一般的には fibrous cortical defect が骨皮質に限局する疾患で、臨床的に無症状で、自然消失するのに対し、nonossifying fibroma は骨髓を含み、骨皮質を菲薄化、膨隆させる増殖力をもつことから、両者の鑑別がなされているようである。

本症例においても、臨床診断の際疑われた慢性骨髓炎、特に骨皮質内骨膿瘍、Brodie 膿瘍などとの鑑別が必要ながしばしばある。これらは、いずれも病巣周囲に著明な反応性骨硬化を伴う小透明巣として現れるが、組織学的に厚い炎症性被膜のなかに小腔洞があり、滲出液、膿汁の存在を認める点より、nonossifying fibroma と鑑別される。

nonossifying fibroma は巨細胞腫の特殊型として、過去には報告されていたことがあり、組織学的には類似している。しかし、nonossifying fibroma の紡錘形細胞は巨細胞腫のそれに比して、小型で配列に特徴をもち、出現する多核巨細胞も小型でその数は少ないことから鑑別される。臨床的には、nonossifying fibroma の方が症状が軽く、術後再発などをみない。

さて、nonossifying fibroma の約50%に泡沫細胞がみられることから、ときとして黄色腫、黄色肉芽腫との鑑別が問題となることがある。これらには、網内系組織の障害により上皮細胞の存在が顕著で、通常エオジン好性細胞の浸潤や他の滲出性炎症性細胞がみられることから区別できる。

また、顎骨に発生した nonossifying fibroma については、中心性線維腫（特に非歯源性）との鑑別が必要となる²³⁾。臨床的には鑑別困難であり、組織学的に紡錘形細胞の配列状態、および中心性線維腫では、多核巨細胞、泡沫細胞を認めない点などで鑑別される。

これら以外にも、症例により、線維性骨異形成症、類骨腫、類腱線維腫、悪性線維性組織球腫などとの鑑別が必要となる。

本疾患の治療については、病巣が小さく、無症状で増大傾向をみないものについては、特に処置を必要とせず、経過観察を行えばよいとされるが、病的骨折の危険があるものや、本症例のごとく骨皮質を菲薄化、膨隆させ、疼痛を伴い、増大傾向をみせるものについては、病巣の掻爬、骨片の充填を行うとされている。また、病巣の大きなものについては骨切除、骨移植の必要が生じる²³⁾。

予後は良好であり、掻爬不完全例以外では再発はな

く、悪性化等の報告はみられない。本症例に関しては、慢性骨髓炎も疑われたため、病巣を含む外側骨皮質除去術を施行し、再発傾向もなく、良好な経過をみている。

結 語

1. 28歳男性の左側下顎骨下縁部の骨体内に生じた nonossifying fibroma の1例を経験した。

2. 本症例は、骨皮質を菲薄化、膨隆させ、骨髓にまで及んでおり、増大傾向を示したことなどより、いわゆる fibrous cortical defect とは一線を画するものと考えられ、これら nonossifying fibroma をめぐる諸問題について文献的考察を加えた。

3. 術後1年を経過した現在、再発傾向などの異常所見を認めず、経過良好である。

稿を終えるにあたり、ご校閲を頂いた京都大学医学部口腔外科学教室小野尊睦教授に、深甚なる謝意を表します。

引用文献

- 1) 塚本憲甫監修：骨・軟部腫瘍図譜。中山書店、東京、1972、274-275頁。
- 2) Jaffe, H.L. and Lichtenstein, L.: Non osteogenic fibroma of bone. *Am J Path* 18: 205-221 1942.
- 3) Coley, B.L. and Higinbotham, N.L.: Tumors of bone, A Roentgenographic Atlas. PB Hoeber, New York, 1953, p 100-101, p 111-113.
- 4) De Moraes, F. and Fialho, F.: Sur un de fibrome non-osteogenique de femur. *Rev d'Orthop* 36: 35-41 1950.
- 5) Devlin, J.A., Bowman, H.H., et al.: Nonosteogenic fibroma of bone. *J Bone & Joint Surg* 37-A: 472-486 1955.
- 6) Hatcher, C.H.: The pathogenesis of localized fibrous lesions in the metaphyses of long bones. *Ann Surg* 122: 1016-1030 1945.
- 7) Ponseti, I.V. and Friedman, B.: Evolution of metaphyseal fibrous defects. *J Bone & Joint Surg* 31-A: 582-583 1949.
- 8) Cunningham, J.B. and Ackerman, L.V.: Metaphyseal fibrous defects. *J Bone & Joint Surg* 38-A: 797-808 1956.
- 9) Caffey, J.: On fibrous defects in cortical walls of growing tubular bones, their radiologic appearance, structure, prevalence, natural course and diagnostic significance. *Advance Pediat* 7: 13-51 1955.
- 10) Aegerter, E. and Kirkpatrick, J.A.: Orthopedic Diseases. WB Saunders Co, Philadel-

- phia and London, 1958, p 516-522.
- 11) Jaffe, H.L.: Tumors and Tumorous Condition of the bone and joints. Lea and Febiger, Philadelphia, 1958, p 76-91.
 - 12) Lichtenstein, L.: Bone Tumors. 2nd Ed, C V Mosby Co, St Louis, 1959, p 109-118.
 - 13) 伊丹康人, 赤松功也: 骨腫瘍. 金原出版, 東京, 1980, 180-194頁.
 - 14) 津山直一監修: 整形外科クルズス. 南江堂, 東京, 1984, 276-283頁.
 - 15) 原田征行, 王子知行, 他: 軸椎椎体および歯突起に発生した non-ossifying fibroma の1例. 臨整外 12: 1198-1201 1977.
 - 16) 宮川俊平, 陶山哲夫, 他: 足舟状骨に生じた non-ossifying fibroma の1例. 臨整外 19:955-958 1984.
 - 17) Ide, F., Kusuvara, S., et al.: Xanthic variant of non-ossifying fibroma (so-called xanthofibroma) of the mandible. Acta Pathol Jpn 32: 135-142 1982.
 - 18) Liaw, W.J., So, T.K., et al.: Nonossifying fibroma of the mandible. a case report. J Formosan Med Assoc 78: 795-802 1979.
 - 19) Makek, M.: Non-ossifying fibroma of the mandible. A common lesion with unusual location. Arch Orthop Traumat Surg 96: 225-227 1980.
 - 20) Park, J.K., Levy, B.A., et al.: Non-ossifying fibroma of the mandible. report of a case. J Baltimore Coll Dent Surg 35: 1-5 1982.
 - 21) Elzay, R.P., Mills, S., et al.: Fibrous defect (nonossifying fibroma) of the mandible. Oral Surg 58: 402-407 1984.
 - 22) 別所和久, 小牧正美, 他: 下顎大臼歯部に発生した中心性線維腫の1例. 静岡県立総合病院医誌 1: 69-73 1985.
 - 23) 前山 巖: 整形外科科学. 改訂第2版, 金原出版, 東京, 1974, 73頁.