下顎筋突起部の骨軟骨腫 ——自験例と文献的考察——

戸塚 靖則¹⁾・中村 武之¹⁾・加納 尚¹⁾・野谷 健一¹⁾
 福田 博¹⁾・河村正昭²⁾・富田喜内³⁾・蒲原義信^{1,4)}
 飯塚 正⁴⁾・進藤正信⁴⁾・雨宮 璋⁴⁾・大森桂一⁵⁾
 山崎 岐男⁵⁾

Osteochondroma of the coronoid process of the mandible ——Report of a case and review of the literature——

Yasunori TOTSUKA¹⁾・Takeyuki NAKAMURA¹⁾・Hisashi KANŌ¹⁾
 Kenichi NOTANI¹⁾・Hiroshi FUKUDA¹⁾・Masaaki KAWAMURA²⁾
 Kinai TOMITA³⁾・Yoshinobu KANBARA^{1,4)}・Tadashi IIZUKA⁴⁾
 Masanobu SHINDOU⁴⁾・Akira AMEMIYA⁴⁾・Keiichi OOMORI⁵⁾
 Michio YAMAZAKI⁵⁾

Abstract: A case of unilateral enlargement of the coronoid process of the mandible was presented. The patient was a 37-year-old female and she complained of restricted mandibular movement and swelling of the left zygomatic region. A routine X-ray examination revealed a bony mass at the tip of the left coronoid process. A coronoidectomy was performed intraorally so that the restricted mandibular movement was improved. Computed tomography was extremely useful not only in the diagnosis of this condition but also in deciding the surgical procedure. Histologically, the specimen showed a proliferation of cartilage cells existed in a disordinary arrangement, in general, and enchondral ossification was markedly disturbed, but there was not any degree of cellular pleomorphism or atypia. The histological diagnosis of osteochondroma of the coronoid process was obtained.

The nature of this condition has been obscure. Although the majority of reported cases lack the histological evidence of the neoplastic nature, some show a proliferation of the cartilage, cellular pleomorphism or slight atypia of the cartilage cells. Our case suggests this condition has a basically neoplastic nature.

Key words: osteochondroma, coronoid process, coronoidectomy

¹⁾ 北海道大学歯学部口腔外科学第1講座
(主任: 福田 博教授)

²⁾ 北海道大学歯学部口腔外科学第2講座
(主任: 河村正昭教授)

³⁾ 東日本学園大学歯学部口腔外科学第2講座
(主任: 富田喜内教授)

⁴⁾ 北海道大学歯学部口腔病理学講座
(主任: 雨宮 璋教授)

⁵⁾ 北海道大学歯学部歯科放射線学講座
(主任: 山崎岐男教授)

¹⁾ The First Department of Oral Surgery, School of Dentistry, Hokkaido University (Chief: Prof. Hiroshi Fukuda)

²⁾ The Second Department of Oral Surgery, School of Dentistry, Hokkaido University (Chief: Prof. Masaaki Kawamura)

³⁾ The Second Department of Oral Surgery, School of Dentistry, Higashi-Nippon-Gakuen University (Chief: Prof. Kinai Tomita)

⁴⁾ The Department of Oral Pathology, School of Dentistry, Hokkaido University (Chief: Prof. Akira Amemiya)

⁵⁾ The Department of Dental Radiology, School of Dentistry, Hokkaido University (Chief: Prof. Michio Yamazaki)

受付日: 昭和60年11月22日

緒 言

開口障害は口腔外科領域の日常臨床においてしばしば遭遇する症状であるが、その多くは顎関節部の疾患や、顎骨ないし顎骨周囲の炎症性疾患に起因するもので、下顎筋突起の腫大によるものはまれである。下顎筋突起腫大には片側性のものと両側性のものとがあり、ともに進行性、無痛性の開口障害を主徴とするが、発生年齢や性差、臨床症状、組織学的所見が若干異なっており、また成因も異なると考えられることから、両者は独立した疾患とされている。Schackelfort and Brown¹⁾が初めて報告して以来現在までに片側性のものが38例^{1)~31)}、両側性のものが23例^{6,25,32~40)}報告されているに過ぎない。

著者らは、初発時に顎関節症と診断され、その後約10年にわたって高度の開口障害に悩んでいた片側性下顎筋突起腫大の1例に対し、口内法による筋突起切除術を施行し、良好な結果を得た。そこでその概要を報告するとともに、文献的考察を加えたので、あわせて報告する。

症 例

患 者：■■■■■ 37歳 ■■■■■

初 診：昭和59年10月■■■■■

主 訴：開口障害と左側頬骨部の無痛性腫脹。

家族歴・既往歴：特記事項なし。

現病歴：約10年前に軽度の開口障害に気づいた。原因や誘因と考えられるものはなく、頭顔面部に外傷の既往もなかった。某院口腔外科を受診し、左側顎関節症と診断され、数か月間理学療法を受けたが、症状は改善せず、治療を中断した。開口障害はその後徐々に進行し、約3年前にはほとんど開口不能となった。また同時期に左側頬骨部の腫脹に気づいたが、疼痛がないため放置していた。昭和59年10月初旬、左側下顎臼歯部の疼痛のため某歯科を受診し、精査の目的で北海道大学歯学部口腔外科を紹介され受診した。

現 症：体格は中等度で、全身的には特に異常を認めない。顔貌は非対称で、左側頬骨部に41×36 mm大、表面平滑な骨様膨隆を認める(写真1)。圧痛はなく、同部皮膚に特に異常はないが、開閉口時、膨隆部の後上方にわずかに可動性を触知する。顎関節部にも異常はなく、開閉口時にわずかながら下顎関節突起の動きを触知する。下顎運動は著明に制限されており、開口度は上下中切歯間で2 mmで、開口時下顎正中は約2 mm左側に偏位する(写真2)。口腔内所見では歯冠の崩壊が高度で、低位咬合となっており、また歯肉粘膜全体に軽度の腫脹がみられるが、その他の部位には異常はなく、左側筋突起部にも特に異常はない。

Ⅹ線検査：オルソパントモグラフィーならびにWaters

図1 ワイヤーによる牽引

法で撮影した顔面Ⅹ線像において、左側筋突起先端部に境界比較的明瞭な類円形の骨様陰影が認められた(写真3)。頬骨は外側に圧排され突出し、一部に骨欠損が認められた。computed tomography 検査では、腫瘤は類球形、不均質で、側頭窩ならびに側頭下窩の前2/3を占め、外側に偏位した頬骨弓内側面や上顎洞側に偏位した上顎骨側壁と接していた。側頭窩、側頭下窩の後1/3は側頭筋などの筋組織で占められていたが、翼状突起や頭蓋骨には特に異常は認められなかった(写真4)。顎関節部の骨構造には異常はみられず、顎関節造影検査でも上・下関節腔に異常は認められなかった。

臨床検査：特記すべき異常値はなかった。

臨床診断：左側下顎筋突起部の良性腫瘍。

処置および経過：左側筋突起切除術の目的で昭和59年11月■■■■■入院した。昭和59年12月■■■■■、経鼻挿管法によるGOF全身麻酔下に、口腔内より左側筋突起切除術を施行した。左側筋突起前縁部の粘膜および骨膜を切開し、骨膜下で剝離を行い筋突起基部を露出した。側頭筋腱を筋突起付着部から可及的に上方まで剝離し、筋突起と腫瘤との境界を確認したのち、フィッシャー・パーを用いて筋突起をその基部で切離した。次いで切離部の約5 mm上方で筋突起に小孔を形成し、牽引用のワイヤーを通したのち、右側上下臼歯間に開口器をかけて強制的に開口させ、切離した筋突起をワイヤーで牽引しながら側頭筋腱をさらに上方まで剝離した(写真5、図1)。筋突起切離端部を鉗子にて把持し、前後左右に回転させて周囲組織との間に癒着がないことを確認したのち、筋突起をまず後下方に、次いで内下方に回転させながら口腔内に摘出した。頬骨眼窩壁と頬骨体上縁部に一部骨欠損が触知されたが、上顎骨では明らかではなかった。切除後の開口度は強制開口で28 mmであった。創を洗浄

表 1 片側性下顎筋突起腫大の報告例

報 告 者（年）	性	年 齢		開口 度	開口時 顎偏位	顔貌の 変形	診 断	手 術 法	そ の 他
		初発時	初診時						
Shackelfort & Brown (1943)	M	12	15	12.6		+	Osteochondroma	頬骨弓部	不正咬合
	M	17	19	10		+	Osteochondroma	頬骨弓部	
Brandt (1943)	F	32	37	25		+	Exostosis	口外法	
Hallam (1947)	M	16	18	制限		+	Exostosis		
Shackelfort & Brown (1949)	M	33	38	制限		+	Osteochondroma	頬骨弓部	
Braisfort (1952)	M	23	28	12.7	+	+	Osteochondroma		
Holmes (1956)	M	14	36	8	+		Osteochondroma		顔面部外傷
Levine et al. (1957)	F	43	73	6		+	Osteochondroma		
Dingman & Natvig (1957)	M	27	27	8		—	Osteochondroma	口内法, 頬骨弓部	顎関節部痛
Decaume et al. (1957)	F	48	50	制限			Osteoma		
	F	40	42	14			Osteoma		
Chemin et al. (1957)	M	6	20	20			Hypertrophy		
Antoni et al. (1958)	M	27	29	正常	—	+	Osteochondroma	口内法	顔面部外傷
Pap & Friedman (1958)	M	26	30	<10	+	+	Osteochondroma	頬骨弓部, 顎下部	顔面部外傷
Lewars (1959)	M	14	15	3	+	+	Osteoma	側頭部	筋の萎縮
Lebo (1961)	M	13	18	14		—	Osteochondroma	頬骨弓部	
Maurer & Wildin (1964)	M	17	19	20			Hypertrophy		
	M	12	18				Hypertrophy		
	M	10	20				Hypertrophy		
	M	21	24				Hypertrophy		
Davidson (1965)	M	?	27	制限		+	Hypertrophy		顎関節部の異常
Allen & Reid (1967)	F	31	32	16	+	—	Exostosis	口内法	
	M	21	22	13	+	+	Exostosis	口内法	
Barlovic (1968)	F	14	27	制限			Exostosis		
Meyer (1972)	M	9	10	20	+	—	Osteochondroma	口内法	不正咬合
西嶋ら (1972)	M	23	25	10	+	—	Exostosis	口内法, 頬骨弓部	顎関節部の異常
Allan & Scott (1974)	F	42	43	制限	+		Exostosis		
James et al. (1974)	F	32	52	5		+	Osteochondroma	顎下部	
Cooper & Finch(1974)	F	42	43	24*	+	—	Osteochondroma	口内法	顔面部外傷
武田ら (1975)	F	13	14	10	+	—	Osteochondroma	側頭部	
Singer & Schultz (1976)	M	64	64	5		+	Osteochondroma	頬骨弓部	
Ramon et al. (1977)	M	44	45	制限	+	+	Osteochondroma	口内法, 側頭部	
Javid (1981)	M	22	23	11	+	—	Hyperplasia	口内法	顔面部外傷
伊藤ら (1981)	F	16	20	3	+	+	Osteochondroma	顎下部	
Lucaya et al. (1982)	F	9	9	22	—	+	Hyperplasia		
石井ら (1982)	F	26	32	7	+	+	Osteochondroma	口内法	顎関節脱臼
	M	23	53	20		+	Osteochondroma	口内法, 口外法	腫瘍は孤立性 顎骨の異常
Tucker et al. (1984)	M	14	16	22	+	+	Hyperplasia	口内法	矯正治療
本 例 (1985)	F	27	37	2	+	+	Osteochondroma	口内法	

表 2 両側性下顎筋突起腫大の報告例

報 告 者 (年)	性	年 齢		開口度	診 断	手術法
		初発時	初診時			
Ginestet et al. (1957)	M	7	19	5		口内法
van Zile & Johnson (1957)	M	14	30	7	Exostosis	頬骨弓部
Shira & Lister (1958)	M	13	14	8	Develop. anomaly	顎下部
van der Vijver (1962)	M	15	18	18		口内法
Mohnac (1962)	M	14	18	18	Osteochondroma	顎下部
Rowe (1963)	M	12	15	15	Develop. hyperplasia	口内法
	M	13		10	Develop. hyperplasia	
Lyon & Sarnat (1963)	M	13	27	11	Generalized enlargement	口内法
van de Veld (1969)	M	16		14		
	M	?		23		
Allison et al. (1969)	M	15	18	21	Hyperplasia	口内法
Nickerson et al. (1969)	M	12	22	9	Develop. hyperplasia	顎下部
Fitzpatrick (1970)	M	18	27	14	Hyperplasia	口内法
van Hoof & Besling (1973)	M	12		13	Develop. hyperplasia	
	M		20	9	Develop. hyperplasia	口外法
	M			17	Develop. hyperplasia	
	M	10	15	24	Develop. hyperplasia	口内法
	M	13	18	17	Develop. hyperplasia	口内法
Sperling (1973)	M	13	23	16	Hypertrophy	口内法
Rusconi & Brusati (1974)	M	12	21	18	Hyperplasia	口内法
Singer & Schultz (1976)	M	18	25	18	Hyperplasia	口内法
Hecker & Corwin (1979)	M	14	16	16	Hyperplasia	口内法
姉崎ら (1985)	M	15	16	16	Hyperplasia	口内法

し、縫合したのち、保存不可能な歯を抜歯した。

術後 5 日目に創の一部が哆開したが、洗浄を続けることにより術後 2 週目には完全に閉鎖した。術後 2 週目より開口練習を開始し、4 週目には開口度は 32 mm まで増加し退院した。その後も開口練習を続け、術後 6 か月目には開口度は 42 mm となり、また左側頬骨部の膨隆も徐々に軽減している (写真 6)。

摘出物所見および摘出物軟 X 線所見：摘出物は基部と腫大部とからなり、前者は骨様で、一部に筋組織が付着していた。腫大部は 31×20×30 mm 大、mushroom 状で、上面は軟骨様組織で被覆され、下顎頭に類似していた (写真 7)。軟 X 線所見では、基部は緻密骨様の均一な X 線不透過像を示したが、腫大部は X 線透過性の部分と不透過性の部分が混在する像を示した (写真 8)。

病理組織学的所見：筋突起先端部に楔状に増殖している軟骨組織がみられ、筋突起は鎌型を呈していた (写真 9)。

表層は、全体に骨膜ないし軟骨膜様の組織で覆われていたが、一部では緻密な骨質が露出していた。軟骨膜様の組織で覆われている部位では、軟骨細胞が内方に向か

ってやや規則的に配列し、いわゆる軟骨帽状を呈しており、その深部には不規則ながら骨化傾向も認められた。骨化傾向は主として血管周囲に認められ、骨質は緻密で、明瞭な層板構造を示すものが多く、軟骨基質と骨基質との境界は全般に明瞭であった (写真 10)。

楔状の集塊を形成し、腫瘤の主要部分を成している軟骨組織は、基本的には硝子軟骨様を呈していたが、部位により多少異なった性状を示し、線維成分に富み線維軟骨様を呈する領域も認められた。また細胞成分に富み、不規則な増殖形態を示す領域もみられたが、異型性や分裂像はほとんど認められなかった。軟骨組織は全般に基質に富み、緻密であったが、その配列は不規則で、内部では石灰化や骨化の傾向は全く認められなかった。軟骨組織は、全般にその周囲を緻密で骨髓腔をほとんどもたない層板骨で囲まれていたが、一部では緻密な太い骨梁と脂肪髄よりなる海綿骨と接していた。

両組織の境界部では、一部に軟骨基質が石灰化ならびに不規則ながら骨化傾向を示す像も認められたが (写真 11)、軟骨基質と骨基質との境界は全般に鮮明で、軟骨組織は明瞭な層板構造を呈する骨組織と密に接してい

た。骨組織は不規則ながら Havers 管を形成していたが、Osteon の間には残存した未石灰化軟骨基質が介在し、モザイク状を呈する領域も認められた (写真12)。

病理組織学的診断：骨軟骨腫。

考 察

下顎筋突起の腫大はまれなもので、著者らが渉猟しえた限りでは片側性のものが38例^{1)~31)}、両側性のものが23例^{6),25),32)~40)}報告されているに過ぎない (表1, 2)。ただし従来の報告のなかには同時に複数例を報告しているものが少なくなく、このため本疾患は従来考えられていたほどまれなものではなく、報告が少ない理由は本疾患が正しく診断されずに見逃されているか、単に報告されずにいることによると考えるものもある^{4),5)}。なお、上述の症例以外にも本疾患に類似した症例の報告がみられるが、骨折後の骨過形成によるものなど原因が明らかなもの^{4),35),41)}や、病変の主体が筋突起以外のもの^{42),43)}は今回の検討から除外した。

性、初発年齢をみると、両側性のものでは著しい偏向が認められ、本邦⁴⁰⁾での1例を含めて全例が男性で、初発年齢も7~18歳と大部分のものが思春期に発症していた (表2, 図2)。他方片側性のものでは男性が25例、女性が14例と男性に多く、初発年齢は6~64歳と各年齢層にみられたが、30歳以下のものが全体の約70%を占めていた (表1, 図3)。他部位の Osteochondroma や Cartilagenous Exostosis⁴⁴⁾ に比べてやや高齢であるが、これは筋突起に生じたものでは病変を自覚するまでに比較的長期間を要することに関係するものと考えられる。

下顎筋突起の腫大に共通した症状は進行性、無痛性の開口障害で、これが初発症状となることが多い。開口障害は初期には比較的軽度で、進行も緩やかなため、顎関節部の疼痛や雑音を欠くにもかかわらず、顎関節症と誤診されたり^{4),20),26),38)}、原因不明のまま放置されることが少なくないが^{1),2),11),28)}、病変の進行とともに高度となり、初診時ないし手術時の開口度は過半数のものが15 mm以下であった (表1, 2)。開口以外の顎運動も障害され、両側性のものでは側方運動が全く行えなくなり、他方片側性のものでは健側方向への動きが障害され、顎運動時に下顎は患側に偏位する^{33),36)} (表1)。咬合状態は一般に正常で、う歯や歯周疾患も少ないが、なかには長期間歯科治療を受けられず高度の歯冠崩壊や歯周疾患を伴うものもある^{7),23),28),30)}。片側性のものでは頬骨部や頬骨弓部の膨隆による顔貌非対称を呈するものが多く、これが初発症状となることもある^{1),7),11),12),17),30)}。膨隆部は骨様硬で、圧痛を欠き、表面平滑であるが、顎運動時に腫大した筋突起の動きや雑音を認めるものがあり^{17),21),26)}、また腫大部の大きさや腫大方向によっては、側頭部ないし口腔内から腫大部を直接触知しえるものもある^{8),12),22),24),25)}。顎

図2 両側性筋突起腫大の年齢別頻度

図3 片側性筋突起腫大の年齢別頻度

関節部は一般に異常がなく、可動範囲は制限されているが、下顎頭の動きを触知しうる。通常疼痛は認められないが、顎運動時に側頭部や頬骨弓部に軽度の疼痛を訴えるものもある^{17),20),26),27),30)}。

初発から手術までの期間をみると、両側性のものでは大部分が2~10年であったが、片側性のものでは過半数が2年以内であった。ただし10年以上のものが8例と、手術までに長期間を要した症例も少なくなく、このなかには今回報告した症例と同様に原因不明のまま放置ないし経過観察されていたものも含まれている。

初期にはX線検査で筋突起の異常を発現することはかなり困難であるが^{1),2),33)}、ある程度進行したものでは筋突起先端部に骨様陰影が認められる。両側性のものでは、両側筋突起が対称性に肥厚ないし過長した像を示すが、形態は正常の筋突起に類似している。また、上顎骨側壁や頬骨ないし頬骨弓内側面に接する像もみられるが、これらの骨組織を吸収ないし圧排することはない³³⁾。他方片側性のものでは腫大部の形態はさまざまで、単に

一側の筋突起の肥厚や過長を呈するものもみられるが、先端部が腫大し、mushroom 状や結節状を呈するものが多い^{28,30)}。腫大した筋突起先端部は一般に上顎骨側壁と頬骨ないし頬骨弓内側面との間に陥入し、偽関節状を呈するが、さらに進行したものでは周囲骨組織の吸収や圧排、変形をきたす。通常腫大部に連続した筋突起基部も肥厚し、また腫大部が接触する上顎骨側壁や頬骨弓内側面に骨肥厚をきたすものもある^{6,16,29)}。

以前はX線検査で筋突起の異常を早期に的確に診断することは困難とされ、本疾患の診断に当たっては中心X線が筋突起の長軸を通るように頭部を患側に傾けた顔後頭方向撮影法が推奨されていたが¹⁻⁴⁾、断層撮影法が普及し、さらに近年CT検査が導入されるようになって本疾患に対するX線診断はきわめて容易となった^{30,31)}。とくにCT検査の利用価値は高く、軸面と前額面の断層撮影を行うことにより、腫大部の形態や大きさが明瞭に描出されるばかりでなく、周囲骨組織や軟組織との関係も明瞭に把握され、診断のみならず、手術法の選択に際してもきわめて有用である³⁰⁾。ただしスクリーニング検査としては依然単純撮影法が重要で、ある程度進行した症例ではオルソパントモグラフィーやWaters撮影法でも描出される^{22,24,26)}。Maurer and Wildon¹⁵⁾は、頭部側面撮影像において筋突起上端が頬骨弓下縁の上方15mmより上方にあるものでは本疾患の可能性が高いと述べており、筋突起が単に肥厚や過長を呈する症例においては診断の目安になると思われる。

上述したように、本疾患の初期においては無痛性開口障害以外の症状を欠くことが多く、X線検査でも筋突起の異常を発見することが困難なことから、顎関節症や顎関節強直症と誤診され、誤った治療が行われたり^{7,20,26,38)}、原因不明のまま放置されることが少なくない^{1,2,11,26)}。本疾患の診断に当たって最も重要なことは本疾患を念頭におくことで、さもないと顎関節部に注意が集中し、筋突起の異常が見逃されることになる^{20,26,36)}。無痛性、逆行性の開口障害や原因が明らかでない開口障害がみられる場合は本疾患を疑い、適切な撮影法によるX線検査を行うべきである。また両側性のものでは初発年齢や性、片側性のものでは頬骨部の膨隆が参考となる。

本疾患に対する唯一の治療法は腫大した筋突起を外科的に切除することである。従来は頬骨弓部水平切開や側頭部切開、顎下部切開など、口外法による切除が行われていたが、顔面神経損傷の危険性が高いことや、頬骨弓切除あるいは瘢痕形成などによる醜形を残すことから¹¹⁾、最近では口内法による切除が行われている(表1, 2)。ただし、本疾患においては高度の開口障害を呈するものが多く、腫大部の大きさや腫大方向によっては口腔内からの切除が困難なものも少なくない^{8,13,20,26,30)}。今回報告した症例は既報告例中最も大きなものの1つで、開口障害も最も高度であった。このため当初は口外法による切

除を予定していたが、CT所見を再度検討した結果、側頭窩ならびに側頭下窩の空隙は腫大部の大きさよりも若干大きいことが確認され、側頭筋を筋突起付着部から剝離し、上方に圧排することにより、口腔内へ摘出しうると判断されたため、まず口内法による切除を試みた。結果は良好で、側頭筋の剝離ならびに切除した筋突起を口腔内へ摘出する際の誘導に多少の困難を感じたが、切離した筋突起に小孔を形成し、そこに牽引用ワイヤーを通し、さらに筋突起の一部を鉗子で把持し、後方ならびに内方に回転させながら牽引することにより、口腔内へ摘出できた。ワイヤーによる牽引³³⁾は手術野が狭小な口内法による切除の際にきわめて有効であった。Tuckerら³¹⁾はワイヤーを通す小孔を形成するかわりにRichard's screwを用いているが、骨を穿孔することは比較的困難なことから有効な方法と思われる。

術後の開口練習はきわめて重要である。とくに術前の開口障害が高度なものや長期間に及ぶものでは一般に術直後の開口度は予想していたよりも少なく、開口障害の改善は術後の積極的な開口練習によるところが大きい。今回報告した症例においても、術直後の開口度は強制開口で28mmと予想していたよりもかなり少なかったが、積極的に開口練習を行わせた結果、退院時には32mm、さらに約半年後には42mmと、著明に改善した。

本疾患の成因ならびに本態に関しては従来から多くの見解が述べられている^{22,27,32,33,36)}。Rowe³³⁾は自験例2例を加えた17例を検討し、両側性のものと片側性のものとはそれぞれ独立した疾患としたうえで、前者はいずれも思春期に発症し、形態も筋突起に類似していることから、脳下垂体前葉ホルモンに関係した发育異常と考えた。また後者に関しては、真の骨軟骨腫や骨腫はきわめてまれで、多くは外骨症であろうと述べ、さらに本疾患が筋突起に発症する理由として側頭筋腱が直接筋突起の皮質骨に付着している^{1,4)}ことをあげている。

両側性のものは、その後に報告されたものもすべて思春期に発生しており、形態も筋突起に類似し、また发育は限局性で、周囲骨組織の吸収や変形を生じることがなく、組織学的にも成熟した骨組織からなるものが多いことなどから、一般に发育異常に関連した疾患と考えられている^{36,38)}。なお家族内に生じた例が報告されており³⁷⁾、また従来は報告がいずれも男性であることから、性遺伝子との関連を考えるものもいる^{37,38)}。

一方、片側性のものにおいてはその成因や本態に関する見解はさまざまで^{4,13,15,17,22,23,27)}、従来は報告例をみてもOsteochondromaのほか、OsteomaやHyperplasia, Hypertrophy, Exostosisなど多くの診断が行われている(表1)。臨床症状や組織所見に若干の差異は認められるものの、ほぼ類似した疾患に対してこのように多くの診断名が用いられている理由は、本病変が腫瘍性病変であるのか否かがいまだ明らかでないため、その原因とし

表 3 片側性筋突起腫大の腫大部形態，周囲骨組織の吸収ないし変形ならびに軟骨組織の有無

診 断	症例数	腫大部の形態			周囲骨組織の吸収 ないし変形			軟骨組織の存在		
		腫瘤状	過 長	不 明	有	無	不 明	有	無	不 明
Osteochondroma	20	19	1		14	5	1	17		3
Osteoma	3	1		2	1		2		1	2
Exostosis	7	4	2	1	3	2	2	5	1	1
Hyperplasia	3	1	2		2	1		3		
Hypertrophy	6		5	1	1		5		1	5
合 計	39	25	10	4	21	8	10	25	3	11

て従来より以下の 2 点が問題となっている。

1) 病変部は mushroom ないし下顎頭に類似した腫瘤状を呈し、また病変の進行に伴い周囲骨組織の吸収や変形をきたすなど、臨床的に腫瘍性発育を示すこと。

2) 病変部は軟骨組織と骨組織とからなるが、組織学的に正常の軟骨組織や骨組織と区別しえないものが多く、腫瘍としての特徴が認められないこと。

そこで片側性下顎筋突起腫大の成因ならびに本態をより明らかとする目的で、今回報告した 1 例を加えた 39 例を対象として上述の問題点について検討した (表 3)。病変部の形態が明らかであったものは 35 例で、このうち mushroom ないし下顎頭に類似した形態を呈したものは 25 例と、約 70% のものが腫瘤状であった。周囲骨組織の吸収や変形は、記載のあった 29 例中 21 例 (72.4%) に認められた。また腫瘤状形態あるいは周囲骨組織の吸収や変形のいずれかが認められたものは 35 例中 27 例 (77.1%) と、臨床的にみる限り、従来から述べられているように腫瘍性発育を示すものが多かった。

一方、組織学的性状をみると、記載のあった 28 例中 25 例 (89.3%) に軟骨組織が認められたが、その多くはいわゆる軟骨帽状を呈し、発育中の長管骨骨端部や下顎頭部に類似したものであった。一部に、軟骨層 (軟骨帽) が若干厚いもの^{8,12,20,21,23,26)}や塊状を呈するもの²⁵⁾、軟骨細胞に富むもの^{12,17)}、あるいは軟骨細胞の配列の乱れや異型性を呈するもの^{17,26)}もみられたが、その程度はいずれも軽度で、本病変が腫瘍性病変であることを明らかにしうるものではなかった。本例も病変部は軟骨組織と骨組織とからなり、基本的には従来の報告例と同一のものと考えられたが、両組織の配列ならびに割合は著しく異なっていた。すなわち軟骨組織は病変中央部から先端部にかけて塊状に存在し、部位により軟骨内化骨機転を示す像もみられたが、軟骨細胞の配列は不規則で、いわゆる軟骨帽状の配列は一部に認められたのみであった。また骨組織との境界は全般に鮮明で、一部に両組織が混在する像もみられたが、その境界は明瞭でモザイク状を呈していた。これらの所見は、新生された軟骨組織にお

いて軟骨内化骨機転が途中で障害されたことを示しているが、大部分の軟骨細胞が未成熟なことやその配列が不規則なこと、あるいは軟骨組織が残存している領域でも血管周囲には骨化がみられかつ骨改造も認められることなどから、軟骨内化骨機転の障害は成熟能の欠如した軟骨細胞が多量に増殖した結果、その成熟、消失に伴って生じる血管新生が起らなかったことに起因し、本病変が腫瘍性に発育したことを示唆するものと考えられた。

このように片側性下顎筋突起腫大例のなかに、臨床症状のみならず組織学的にも腫瘍性発育を示唆する症例が認められたことは、本疾患の多くが臨床的に腫瘍性発育を示すことや、既報告例のなかに軽度ながら軟骨細胞の配列の乱れあるいは異型性を伴う症例がみられることとともに、本病変は症例間で程度の差はあるものの基本的に腫瘍性性格を有する病変であることを示すものと思われる。

本病変の発生母地に関しては従来より多数の見解が述べられているが^{1,4,19,26,32,41,44)}、いずれも推論の域を出ていない。伊藤ら²⁵⁾は、これらの仮説を軟骨細胞の由来によって、残遺軟骨説、化生軟骨説ならびに正常軟骨の変化あるいは置換説の 3 つに分類している。また、本病変の主因あるいは誘因として側頭筋の異常な筋緊張の亢進^{15,27)}や顎顔面部の外傷をあげるものがあり、報告例のなかにも外傷の既往を有するものが少なくないが^{6,11,12,21,22)}、明らかな関連の認められるものは少ない。

結 語

高度の開口障害をきたした、37 歳、女性の左側下顎筋突起腫大の 1 例を報告した。口内法による筋突起切除術を行い、症状の著明な改善が得られたが、診断ならびに手術法の選択に当たって CT 検査はきわめて有用であった。本例は、臨床的に明らかな腫瘍性発育を示し、また組織学的にも軟骨細胞の配列の乱れや軟骨内化骨の異常など、腫瘍性発育を示唆する所見が認められたことから、骨軟骨腫と診断した。

片側性下顎筋突起腫大の成因ならびに本態はなお明らかではないが、本疾患の多くが臨床的に腫瘍性発育を示すことや、本病変のなかに軟骨細胞の配列の乱れや異型性を伴うものがみられることに加えて、本例において組織学的にも腫瘍性発育を示唆する所見が認められたことから、本病変は基本的には腫瘍性性格を有する病変と考えるのが妥当と思われる。

本論文の要旨は、第6回顎関節研究会(1985年7月、東京)および第30回日本口腔外科学会総会(1985年9月、東京)において発表した。

引用文献

- 1) Schackelfort, R.T. and Brown, W.H.: Osteochondromas of the coronoid process of mandible. *Surg Gynecol Obstet* 77: 51-54 1943.
- 2) Brandt, K.: Deformation congenitale de l'apophyse du maxillaire inferieur. *Acta Orthop Scand* 14: 219-224 1943. 25), 38) から引用.
- 3) Hallam, J.W.: Exostosis of coronoid process of mandible and true joint formation with zygomatic arch. *Br J Surg* 34: 432-433 1947.
- 4) Schackelfort, R.T. and Brown, W.H.: Restricted jaw motion due to osteochondroma of the coronoid process. *J Bone Joint Surg* 31: 107-114 1949.
- 5) Brailfort, J.F.: Unusual osteochondroma from coronoid process of mandible. *Br J Radiol* 25: 555-556 1952.
- 6) Holmes, F.H.: Mandibular block by osteochondroma of coronoid process. *Radiol* 67: 578-581 1956.
- 7) Levine, M.H., Chesson, J., et al.: Osteochondroma of coronoid process of mandible. Report of case and review of literature. *New Engl J Med* 257: 374-376 1957.
- 8) Dingman, R.O. and Natvig, P.: Reduced mandibular motion due to osteochondroma of coronoid process of mandible. *Am J Surg* 94: 907-910 1957.
- 9) Dechaume, M.: Osteomes de la coronoide. *Rev Stomat* 58: 237 1957. 25), 38) から引用.
- 10) Chemin, G.: Coexistence et articulation d'une exostose malaire et d'une hypertrophie du corone. *Rev Stomat* 58: 360 1957. 25), 38) から引用.
- 11) Pap, G. and Friedman, E.: Restricted mandibular movements due to osteochondroma of coronoid process. *Br J Plast Surg* 11: 169-173 1958.
- 12) Antoni, A.A., Brown, A., et al.: Osteochondroma of coronoid process of mandible. *J Oral Surg* 16: 514-517 1958.
- 13) Lewars, P.H.: Osteoma of mandible. *Br J Plast Surg* 12: 277-283 1959.
- 14) Lebo, C.P.: Osteochondroma of mandibular coronoid process. Report of case and review of literature. *Laryngoscope* 71: 814-822 1961.
- 15) Maurer, R.M. and Wildin, R.E.: Hypertrophy of coronoid process of mandible: cause of restricted opening of mouth. Report of four cases. *Radiology* 83: 1060-1063 1964.
- 16) Davidson, J.S.H.: Unilateral coronoid hypertrophy causing restricted opening of mouth. *Br J Radiol* 38: 478-479 1965.
- 17) Allan, I.B.M. and Reid, W.H.: Unilateral exostosis of coronoid process of mandible. *Br J Oral Surg* 5: 20-24 1967.
- 18) Barlovic, M.: Egzostoza muskularnog nastavka mandibule. *Chir Maxillo-fac (Zagreb)* 6: 113 1968. 25), 38) から引用.
- 19) Meyer, R.A.: Osteochondroma of coronoid process of mandible: report of case. *J Oral Surg* 30: 297-300 1972.
- 20) 西嶋克己, 藤井康博, 他: 左側下顎筋突起の外骨腫に由来した開口障害の1例. *日口外誌* 18: 473-479 1972.
- 21) Allan, J.M. and Scott, J.S.: Osteochondroma of the mandible. *Oral Surg* 37: 556-565 1974.
- 22) James, R.B., Alexander, R.W., et al.: Osteochondroma of the mandibular coronoid process. *Oral Surg* 37: 189-195 1974.
- 23) Cooper, J.C. and Finch, L.D.: Coronoid osteochondroma presenting as a corono-zygomatic ankylosis. *Br Dent J* 137: 99-102 1974.
- 24) 武田 進, 長内 剛, 他: 下顎筋突起に発生し高度の関口障害を来した osteochondroma の1例. *日口外誌* 21: 580-586 1975.
- 25) Singer, R. and Schultz, P.: Eingeschränkte Mundöffnung durch Hyperplasie oder Osteochondrom des Processus Coronoideus; Literaturübersicht. *ZWR* 85: 685-690 1976.
- 26) Ramon, Y., Horowitz, I., et al.: Osteochondroma of the coronoid process of the mandible. *Oral Surg* 43: 692-697 1977.
- 27) Javid, B.: Unilateral hyperplasia of the coronoid process of the mandible: Case report. *J Oral Surg* 10: 145-147 1981.
- 28) 伊藤信明, 大串匡志, 他: 下顎筋突起部の骨軟骨腫. 自験例ならびに文献的考察. *日口外誌* 27: 863-872 1981.
- 29) Lucaya, J., Herrera, M., et al.: Unilateral hyperplasia of the coronoid process in a children: A cause of restricted opening of the mouth. *Radiology* 144: 528 1982.
- 30) 石井純一, 天竺光雄, 他: 下顎筋突起部の骨軟骨腫により開口障害を来した2例. *日口外誌* 29: 507-513 1983.

- 31) Tucker, M.R., Guilford, W.B., et al.: Coronoid process hyperplasia causing restricted opening and facial asymmetry. *Oral Surg* 58: 130-132 1984.
- 32) Mohnac, A.M.: Bilateral coronoid osteochondroma. *J Oral Surg* 20: 500-506 1962.
- 33) Rowe, N.L.: Bilateral developmental hyperplasia of the mandibular coronoid process. *Br J Oral Surg* 1: 90-104 1963.
- 34) Lyon, L.Z. and Sarnat, B.G.: Limited opening of mouth caused by enlarged coronoid process: report of case. *JADA* 67: 644-650 1963.
- 35) Allison, M.L., Wallace, W.R., et al.: Coronoid abnormalities causing limitation of mandibular movement. *J Oral Surg* 27: 229-233 1969.
- 36) Nickerson, J.W., Graft, M.L., et al.: Bilateral coronoid process enlargement. Report of case. *J Oral Surg* 27: 885-890 1969.
- 37) van Hoof, R.J. and Besling, W.T.: Coronoid process enlargement. *Br J Oral Surg* 10: 339-348 1973.
- 38) Rusconi, L. and Brusati, R.: Restricted opening of the mouth from symmetrical bilateral hyperplasia of the coronoid process. *J Oral Surg* 32: 452-456 1974.
- 39) Hecker, R. and Corwin, J.O.: Bilateral coronoid hyperplasia: review of the literature and report of case. *J Oral Surg* 38: 606-608 1980.
- 40) 姉崎研哉, 豊田由美子, 他: 内側性下顎骨筋突起過形成により開口障害をきたした1症例(抄). 第39回日本口腔科学会総会予稿集130頁, 1985.
- 41) Brady, F.A., Sapp, J.P., et al.: Extrachondylar osteochondromas of the jaws. *Oral Surg* 46: 658-668 1978.
- 42) Schwartz, H.C. and Kagan, A.R.: Zygomatico-Coronoid Ankylosis Secondary to Heterotopic bone Formation: Combined Treatment by Surgery and Radiation Therapy -A Case Report. *J max-fac surg* 7: 158-161 1979.
- 43) Boland, J. and Beirne, O.R.: Zygomatic exostosis. *Int J Oral Surg* 12: 124-126 1983.
- 44) Dahlin, D.C.: BONE TUMORS. 2nd Ed, Charles C Thomas Publisher, Springfield, 1967, p 18-27.
- 45) Spjut, J.H., Ackerman, L.V., et al: ATLAS OF TUMOR PATHOLOGY, TUMORS of BONE and CARTILAGE. 2nd series, Universities Associated for Research and Education in Pathology, Inc. Bethesda, 1971, p 59-70.

写 真 説 明

写真 1 初診時顔貌所見

写真 2 初診時口腔内所見

開口度は 2 mm で、開口時に下顎は左方に偏位する。

写真 3 X線所見 (Waters 法)

左側筋突起先端部に類円形の骨様陰影が認められる。健側に比較して、筋突起基部の肥厚ならびに頬骨、頬骨弓の外側偏位が明らかである。

写真 4 Computed Tomography 所見

類球形、不均質な腫瘤が側頭窩の前外側 2/3 を占め、上顎骨と頬骨との間に陥入している。頬骨は外側に圧排され、一部に骨欠損も認められる。

写真 5 手術時所見

筋突起を基部で切離したのち、ワイヤーで牽引しながら側頭筋腱を剝離し、腫瘤を摘出した。

写真 6 術後顔貌所見

術後 6 か月のもので、開口度は 42 mm まで回復し、左側頬骨部の膨隆も著明に軽減した。

写真 7 摘出物所見

摘出物の後上面像で、先端腫大部は mushroom 状を呈し、上面は軟骨様組織で覆われ、下顎頭に類似している。

写真 8 摘出物軟X線所見

腫大部の中央から先端にかけて、境界はやや不明瞭であるが、X線透過像と不透過像とが混在する楔状の領域が認められる。

写真 9 摘出物全割標本

筋突起先端部に楔状に増殖している軟骨組織が認められる (PAS, $\times 1.9$)。

写真10 写真 9 の A の強拡大像

表層は軟骨膜様の組織で覆われ、軟骨細胞が内方に向かって比較的規則的に配列し、いわゆる軟骨帽状を呈している。深部には不規則ながら血管周囲に限局した骨化が認められる (H-E $\times 25$)。

写真11 写真 9 の B の強拡大像

軟骨組織と骨組織との境界部で、軟骨細胞の消失と軟骨基質の石灰化がみられ、また不規則ながら一部に骨化傾向も認められる (H-E, $\times 125$)。

写真12 写真 9 の C の強拡大像

軟骨基質と骨基質との境界は全般にきわめて鮮明で、osteon の間に未石灰化軟骨基質が介在しモザイク状を呈している。骨組織は明瞭な層板構造を示す (PAS, $\times 50$)。

写真 1

写真 4

写真 5

写真 2

写真 3

写真 6

写真 7

写真 8

写真 9

写真 10

写真 11

写真 12