下顎骨に発生した巨大型セメント質腫の1例

山本 哲也・加藤 齊・米田 和典
前田 好正・広田 重水・尾崎登喜雄

Giantiform cementoma of the mandible: A case report

Tetsuya YAMAMOTO・Itsuki KATO・Kazunori YONEDA
Yoshimasa MAEDA・Jusui HIROTA・Tokio OSAKI

Abstract: Giantiform cementoma, a type of cementoma accorded to the WHO classification in 1971, is rarely seen in the literatures. A case of this tumor is reported with a summary as follows. A bony swelling as found on the body and ramus of the mandible of a referred 83-year-old woman. The smooth expansion covered with normal mucosa has persisted for about 40 yrs and slowly enlarged with no symptoms. In X-ray showed a demarcated radiopaque shadow with parts slightly radiolucent. The shadow seemed to be capsulated with healthy thin cortex. This was thought to be a benign tumor. A block dissection of the mandible was made. The dissected tumor was extremely hard with a yellowish cut-surface. The decarcified specimen was stained with H.E. for a subsequent microscopic examination.

Connective tissue and infiltrated cells were nearly absent. In the central portion, basophilic hard tissue had formed and seemed to be primary cementum in such characteristics as dying fatigue and split spaces with no inclusion of cells. At the peripheral, and coexistence of the bone, fibrous and fat tissues could be seen. Substitution of bone by cementum and formation of cementicles showing hematoxylin-line were also observed. On the basis of the above findings, a diagnosis of giantiform cementoma of the mandible was made.

Key words: giantiform cementoma, mandible

緒 言

セメント質腫は中胚葉系の組織に由来し、セメント質の増殖を特徴とする歯原性腫瘍である。その発現頻度は比較的少なく、臨床的・病理組織学的に種々の様相を呈するが、現在、セメント質腫は、1971年のWHOの分類により、良性セメント芽細胞腫、セメント質形成線維腫、根尖性セメント質異形成症、巨大型セメント質に分類されている。なかでも、Gorlinら²⁾により提唱された巨大型セメント質腫は、原生セメント質に似た硬組織が多量に形成され、しばしば著しい大きさに達するきわめ

てまれな疾患である。本疾患の多くは多発性に生じ、また家族性に発生することもあるため、家族性多発性セメント質腫の別名が付記されている。

今回、われわれは83歳の女性の下顎骨に発生した、長期の病歴を有する非常に大きな単発性の巨大型セメント質腫の1例を経験したので、その概要を報告する。

症 例

患 者: 83歳、女性。昭和60年12月 日、左側下顎臼歯部の腫脹・疼痛を主訴に来院。

病 歴: 家族歴、既往歴に特記事項はなく、現病歴としては、昭和20年頃より、左側下顎大臼歯部に小さな腫瘤を認めていたが無痛性のため放置していた。その後、腫瘤は徐々に増大傾向を示し、昭和60年9月頃より、同患部に軽度の自発痛を認めるようになったため、同年11月某歯科医院を受診し、当科を紹介され来院した。

高知医科大学医学部附属病院歯科口腔外科

(主任: 尾崎登喜雄教授)

Kochi Medical School Department of Oral Surgery (Chief: Prof. Tokio Osaki)

受付日: 昭和62年1月9日

表 1 血液検査結果

RBC	$452 \times 10^4/\mu l$	γ -GTP	8 I.U./l
Ht	43.0%	T-Bil	0.4 mg/dl
Hb	12.8 g/dl	D-Bil	0.1 mg/dl
Thrombo	$16.2 \times 10^4/\mu l$	ChE	307 I.U./dl
WBC	$6.7 \times 10^3/\mu l$	GPT	6 I.U./l
Bleeding Time	3.0 min	GOT	13 I.U./l
		LDH	342 I.U./l
TP	6.1 g/dl	BUN	23 mg/dl
Alb	3.6 g/dl	Na	137 mEq/l
LAP	34 I.U./l	K	4.2 mEq/l
AIP	194 I.U./l	Cl	99 mEq/l

写真 1 術前口腔内

下顎左側小臼歯相当部より左側下顎枝にかけて、小児手拳大・骨様硬の膨隆を認める。

現 症：体格中等度。高齢にもかかわらず健全な日常生活を営み栄養状態良好で、通則の血液検査においても異常なく（表1）、全身的に特記すべき事項は認められなかった。局所についてみると、顔貌は左右非対称で、左側下顎骨体部を中心として、手拳大・骨様硬の腫瘍形成を認めた。患部は非圧痛性で、患部の皮膚、所属リンパ節に特別の所見は認められなかった。口腔内は、上下顎ともに無歯顎で、下顎左側小臼歯相当部より左側下顎枝にかけて、小児手拳大で骨様硬の、表面が比較的滑沢な膨隆を認めた（写真1）。同部被覆粘膜は正常で、開口障害、口唇の知覚異常・麻痺等は認められなかった。X線写真において、下顎左側小臼歯部より左側下顎枝にかけて手拳大で散在性に透過像を伴った、やや不均一な不透過像を認め、その外側に菲薄化した周囲皮質骨が一部に認められた（写真2，3）。不透過像と正常骨との移行は比較的明確であった。

以上のような、臨床経過ならびに所見およびX線像より下顎骨良性腫瘍と判断した。高齢ではあったが、自発痛が生じてきたことおよび腫瘍が大であったことより病巣を切除することとした。

写真 2 初診時パノラマX線写真

下顎左側小臼歯部より左側下顎枝にかけて散在性に透過像を伴った、辺縁がやや不均一な不透過像を認める。その外側には菲薄化した周囲皮質骨を認める。

写真 3 初診時下顎骨斜位X線写真

写真 4 手術後パノラマX線写真
連続切断欠損部をA-Oプレートにて連結

写真 6 摘出物断面

厚さ約 5 mm、黄白色の硬組織に囲まれた、黄色で充実性の硬質な組織が認められた。

写真 5 摘出物

下顎小白歯から下顎枝に及ぶ下顎骨体部の著しい膨隆を伴う腫瘍で、表面滑沢・黄白色で骨様硬。（大きさ 5.2×5.0×4.4 cm 全重量約 120 g）

治療および経過：昭和 60 年 12 月 日入院後、同 日 G.O.F. 全身麻酔下に、下顎骨区域切除による腫瘍摘出および下顎骨再建術を施行した。通法に従い下顎骨を剖出すると、表面がやや黄色の骨様硬の腫瘍が、オトガイ孔より下顎枝上方まで認められた。腫瘍と骨膜の癒着はなく、骨膜の剝離は容易であった。健康な下顎頭・筋突起は保存すべく、下顎切痕より約 1.5 cm 下方で切離し、近心側は左側第 1 小白歯相当部にて切離し腫瘍を摘出した。摘出後、欠損部は A-O プレートにて連結した（写真 4）。

摘出物所見：摘出物は、大きさ 5.2×5.0×4.4 cm、全重量約 120 g の下顎小白歯部から下顎枝に及ぶ下顎骨体部の著しい膨隆を伴う腫瘍で、表面は滑沢、黄白色で骨様硬であった（写真 5）。歯科用タービン・ダイヤモンドポイントにより割を入れると、厚さ約 5 mm、黄白色の緻密骨と思われる硬組織に囲まれた、黄色で充実性の硬質な組織が認められた（写真 6）。

病理組織学的所見：摘出物を脱灰後、H.E. 染色にて鏡検した。全体的には線維性結合組織は乏しく、細胞浸潤も認められず、腫瘍中心部では、Hematoxylin に好染する比較的均一な原性セメント質に類似した硬組織の増生

写真 7 病理組織像（H-E 染色，×40）

Hematoxylin に好染する比較的均一な原生セメント質に類似した硬組織が認められ、所々には亀裂空隙が散見されるが、封入細胞は認めない（腫瘍中心部）

写真 8 病理組織像（H-E 染色，×40）

骨・線維組織・脂肪組織がセメント質と混在（腫瘍辺縁部）

が認められた。所々には亀裂空隙が散見され、セメント小腔構造に類似していたが、その腔内には封入細胞は認められなかった（写真 7）。一方、辺縁部では、骨・線維

組織・脂肪組織がセメント質と混在し、骨組織がセメント質に置換されているところも見られ、また、Hematoxylin-line が明確なセメント小瘤も認められ(写真8)、骨・線維組織が中心部より辺縁部にかけ徐々にセメント質に置換されているように観察された。このような組織学的所見ならびに臨床像より、巨大型セメント質腫と考えられた。

考察ならびにまとめ

巨大型セメント質腫は、1961年 Gorlin⁹⁾により初めて提唱されたもので、1971年 WHO の歯源性腫瘍の分類¹⁾によれば、セメント質腫の中に分類されている。巨大型セメント質腫は一般に、中年の黒人女性に多く認められ、両側性あるいは上下顎の左右側に生じ、また、家族性に発現することもあるため、家族性多発性セメント質腫とも呼ばれている¹⁾。その発現頻度は非常にまれで、欧米ではいくつかの報告例²⁻⁵⁾があるが、本邦においてわれわれが渉猟し得た範囲では、6例の報告⁶⁻¹¹⁾を見るにすぎず、そのため、臨床的に不明な点が多い。本症例においては、家族性・多発性は否定されたが、臨床経過が約40年と非常に長く、本疾患は緩徐に増大することを示しているように思われる。当然のことながら、本疾患は歯牙組織にその発生源が求められ、それもセメント質腫はほとんどが萌出歯牙に関係して生じるとされ、Scannell¹²⁾は、その発生原因について、炎症反応、外傷、軽度の感染症、内分泌異常、ビタミン欠乏、全身的疾患を挙げている。しかしながら、この点に関しては、不明な点が多く、本症例においても、40年前の歯牙に関する患者の記憶はあいまいであり、発生原因についてはより一層不明確である。

病理組織学的には、線維性組織が乏しく、細胞封入のきわめて少ない塊状の原生セメント質が増形成され、これらが増大融合し、硬性腫瘍を形成するとされている^{13, 14)}。さらに、Pindborg¹⁵⁾は、本腫瘍におけるセメント質は大部分が無細胞性で、好塩基性の石灰化物からなり、周囲の骨と容易に区別することができるかと述べている。本症例では、ヘマトキシリンに好染する比較的均一な原生セメント質類似の硬組織の増生を認め、腫瘍の中心部ではセメント小腔様構造が散見されたが、封入細胞は認めなかった。一方、辺縁部では、骨・線維組織・脂肪組織がセメント質と混在し、骨・線維組織が中心部より辺縁部にかけて徐々にセメント質に置換されていることがうかがえた。このような組織所見からは、腫瘍性増殖の性格を汲み取ることとはできず、本疾患を腫瘍に位置づけることは、病理組織学的に議論の生じる所と思われる。なお、X線所見および組織学的所見を考慮した時、本例は Thoma & Goldmann¹⁶⁾のいうセメント質腫の発育段階での最終段階すなわち Mature inactive stage が妥当と

思われる。

ところで、本例における処置についてであるが、高齢無歯顎者に対する顎固定の問題、さらには、生理的な骨吸収のため、骨離断面積が非常に小さく、移植骨の生着が懸念されたことより、下顎骨連続離断後に自家骨の移植は行わず、A-O プレートによる連続固定を試みた。幸いに、術後1年近く経過した現時点では止めネジの緩みはなく、経過良好である。なお、本疾患の性格および年齢を考慮して、骨の膨隆部を削除、削合し、骨折に注意を払いながら保存的に観察するのも一法であったかもしれない。

以上、83歳女性の下顎骨に発生した巨大なセメント質腫の経験症例を臨床・病理組織学的所見をまじえて報告した。

本論文の症例は、昭和61年4月、第15回日本口腔外科学会中国・四国地方会で発表した。

引用文献

- 1) Pindborg, J.J. and Krammer, I.R.H.: Histological Typing of Odontogenic Tumors, Jaw Cysts, and Allied Lesions, International Histological Classification of Tumors. No. 5, WHO Geneva: 1-37 1971.
- 2) Gorlin, R.J.: Odontogenic tumors. Classification, histopathology, and clinical behavior in man and domesticated animals. *Cancer* 14: 73-101 1961.
- 3) John, S.C., Eugene, E.K., et al.: Gingantiform cementoma, report of two cases (mother and son). *J Oral Surg* 38: 65-70 1980.
- 4) Van der Waal, I. and van der Kwast, W.A.: A case of gingantiform cementoma. *Int. J. Oral Surg* 3: 44-444 1974.
- 5) Punniamoorthy, A.: Gingantiform cementoma, review of the literature and a case report. *Br. J Oral Surg* 18: 221-229 1980.
- 6) 鈴木孝三, 小笠原佑吉, 他: Familial multiple cementoma (Gingantiform cementoma) の兄妹例(抄). *日口外誌* 18: 653 1972.
- 7) 熊本順彦, 朝波惣一郎, 他: 上顎片側に多発したセメント質腫の1例. *日口外誌* 20: 458-461 1974.
- 8) 岸本 源, 江口敏雄, 他: 全顎に発生した Gingantiform Cementoma の1症例. *日口外誌* 22: 875-879 1976.
- 9) 高井勇学, 水野治郎, 他: セメント質腫の3例. *口科誌* 25: 451-456 1976.
- 10) 西嶋克巳, 石田利広, 他: 顎骨に発生した多発性セメント質腫の2例. *日口外誌* 24: 76-82 1978.
- 11) 日高英治, 藤原利彦, 他: 巨大型セメント質腫の1例(抄). *日口外誌* 31: 3016 1985.

- 12) Scannel, J.M.: Cementoma. *Oral Surg* 2: 1169-1180 1949.
 - 13) 石川梧朗, 秋吉正豊: 口腔病理学Ⅱ. 永末書店, 京都, 1977, 948-950頁.
 - 14) Gorlin, R.J. and Goldman, H.M.: *Thoma's Oral Pathology I*. 6th Ed, Mosby Co, St Louis, 1970, p 503-506.
 - 15) Pindborg, J.J.: *Pathology of dental hard tissues*. 1st Ed, Munksgaard Copenhagen, 1970, p 409-416.
 - 16) Thoma, K.H. and Golodman, H.M.: *Oral Pathology*. 6th Ed, Mosby Co, St Louis, 1950, p 1301-1306.
-