下顎下縁に発生した周辺性骨腫の1例とその発生に関する考察

大岡 俊夫・石川 武憲・池本 公亮・前田 耕作
林 綾子・原田 直・深井直樹・下里 常弘

A peripheral osteoma of the mandibular inferior border and considerations of its development

Toshio OHOKA・Takenori ISHIKAWA・Kimiaki IKEMOTO・Kohsaku MAEDA
Tadashi HARADA・Ayako HAYASHI・Naoki FUKAI・Tsunehiro SHIMOSATO

Abstract: A case is presented of peripheral osteoma occurring at the inferior border of the mandible. Such cases are rarely presented in Japan. The procedure of the diagnosis and treatment is described. This male patient was aware of the bony lump at age 4 and first visited our Hospital with complaints at age 22. Its histopathologic diagnosis was an osteoma durum, although roentgenographs showed resemblances in appearance to osteoid osteoma of the similar region in already reported cases.

From the points of anatomical oncogenic properties and literature considerations on osteoma, a possible pathogenic mechanism of the osteoma was discussed. It was suggested that a kind of muscular and/or periosteal participation might be a causative factor, though there was not yet obvious evidence in EMG tests of the neighboring masseter muscle.

Key words: peripheral osteoma (周辺性骨腫), mandibular inferior border (下顎下縁), possible causative factor (関与因子)

緒 言

骨腫は、緩徐に発育する骨組織よりなる良性腫瘍である。しかし、口顎領域のたいていの骨腫は、反応性の骨過形成か、種々の骨性病変の過剰化骨例が多く、その名称はきわめてあいまいな使い方がなされているのが現状である。全身骨格系に発生する骨腫に比べ、頭頸部例は少なく、口腔外科領域での発生は比較的少ないとされている。しかし、顔面頭蓋骨部のうちでは、特に、頭蓋骨がその好発部位であることが判明している。発生部位により、周辺性(骨膜下性)か、または中心性の骨腫に分類されるが、今回、われわれは、下顎下縁に発生した周

辺性骨腫の1例を経験したので、文献的考察を加え報告する。

症 例

患 者：22歳 男性。

初 診：1979(昭和54)年3月■日。

主 訴：Ⅱ相当下顎下縁部の膨隆。

家族歴と既往歴：下顎骨に外傷や炎症などの特記事項なし。

現病歴：4, 5歳頃にはすでに、同部に骨様硬の腫瘤形成があり、接触時のみビリビリした痛みを時に自覚したが、普段は無痛性のため放置していた。その後の腫瘤の大きさや疼痛等の症状に著変はなかったようであった。昭和53年12月、齲歯治療で本院を受診した際、当該科で同部腫瘤の精査を勧められ、当科を紹介された。

現 症：左側下顎下縁部の腫瘤のため、顔貌は左右非対称性であった。Ⅱ相当の下顎下縁部に非可動性で、一部凹凸不整であるが、全般的に表面平滑な、2.5 cm

広島大学歯学部口腔外科学第2講座

(主任：下里常弘教授)

Department of Oral & Maxillofacial Surgery II,
Hiroshima University, School of Dentistry (Chief:
Prof. Tsunehiro Shimosato)

受付日：平成元年4月12日

径大の類球様、骨様硬の腫瘤を触知した。同腫瘤は、下顎下縁部で有茎性に連続付着していることが触知された(写真1)。腫瘤部の被覆皮膚には発赤などの異常は認められず、腫瘤との癒着もなかったが、同部には軽度の圧痛がみられた。所属リンパ節には、腫大や圧痛などの異常はなかった。なお、本患者は栄養、体格ともに中等度で、身体他部にも非対称性などの異常はなかった。

双手診で口腔内からもⅡ相当下顎骨下縁に付着連続した骨様硬の腫瘤を触知できた。同側下顎歯はすべて生活歯で、打診痛や動揺などはなかった。

X線所見：パノラマX線写真で、Ⅱ78相当下顎下縁部に連続した直径約3cm大の類円形病変は、全般的に雲架状の不透過性を呈するものの、中心部には比較的透過性の強い小部分を伴う境界明瞭な骨性病変であり、最外層の非薄な骨皮質と骨性病変間には透過性の強い層が介在していた。骨性病変に近接する下顎下縁部には、比較

写真1 初診時の側貌

的限局した骨硬化層がみられた。また、ⅢとⅢ根尖部に、それぞれ小骨硬化部を認めたが、他部位の顎骨には異常所見はなかった(写真2)。

臨床検査所見：血液一般、肝機能、腎機能、尿、心電図等の臨床検査成績に異常はなかった。

臨床診断：周辺性骨腫(類骨骨腫の疑い)

処置と経過：初診の11日後に、GOF全麻下に、腫瘍の摘出を行った。顎下部の皮切後、下顎下縁に有茎性に付着した球状の骨性腫瘤を剝出した。なお、同腫瘤と周囲軟組織との癒着はなかった(写真3A)。腫瘤と下顎骨体との移行部から約1cm骨体側で、かつ下顎管を損傷しない高さで、被覆骨膜も含めて腫瘤の摘出を行った(写真3B)。術後2年後までの観察中は、手術に伴う不快症状もなく、経過良好であった(写真4)。遠隔地への就職により、それ以後の経過はみていないが、現在まで不快症状のないことを聴取している。

病理組織所見：摘出した腫瘤実質は、散在する髓腔を有する成熟した層板骨で構成されていたが、最外層部には層状に形成された未熟な骨質がみられた。なお、類骨の所見は認められなかった(写真5)。

病理組織診断：緻密骨腫

考 察

骨腫は、骨膜より外方に突出増殖する周辺性/骨膜下性(peripheral/subperiosteal type)および、骨髓内で増殖して増大する中心性(central type)の骨腫に大別される。まれに、矢追ら¹⁾の報告したごとく、既存の骨組織とは隔離した軟組織中に発生した例、また、舌に発生した分離腫などの例²⁾もあり、その発生機序に興味あ

写真2 初診時のX線写真(A:後頭前頭位, B:パノラマX線像の一部)。

Ⅱ部下顎下縁に発生付着した骨腫の外周には均一な幅の化骨不完全なX線透過層がみられる。腫瘍の中心部は不均一な雲架状の不透過性を呈している。

写真3 A: 骨膜で被包されたまま、剥出した球状腫瘍の術中写真
B: 周囲の健全顎骨を含み摘出した骨腫瘍。

る問題を提示している。

病理組織学的には、正常の骨質から不完全な化骨状態のものまで種々のものがあり³⁾、また、それらの混在するものもある。一般には、成熟した層板骨から形成されている緻密骨腫 (osteoma durum) の例が多いが、時に、骨質が比較的疎な海绵骨腫 (osteoma spongiosum) 例もある。本症例は、臨床病態的に下顎下縁に発生した周辺性骨腫で、組織学的には緻密骨腫の症例であった。本症例と鑑別を要する疾患には、骨増生である外骨症 (exostosis) も口腔領域ではよくみられるものであるが、本症例のごとく、外骨症の好発部位でない部位に生じ、かつ有茎性の腫瘍では、骨組織が限局性に増殖した骨腫性病変以外は想定しにくいことから、臨床的に骨腫の診断は簡単であるが、臨床病態のみからでは、“類骨骨腫”との鑑別はきわめて困難である。本例のX線所見では、中心部に透過性の比較強い小部分を伴っており、文献的に示されている類骨骨腫の症例⁴⁾にきわめて類似した所見を呈していたことから、臨床的段階でもその病変を疑ったが、組織学的に類骨の所見がみられなかった。この結果、臨床病理学的に、周辺性骨腫と診断した。

骨腫の好発部位として、上顎骨と下顎骨を比較すると、上顎骨に多発する説⁵⁾や、下顎骨に好発する説⁶⁾もあり一定していない。西嶋ら⁷⁾は、本邦における顔面頭蓋領域の骨腫138例を検討し、上顎に多発傾向があったと述べている。広瀬ら⁸⁾は、骨組織の発生源から考えて、腫瘍を含む病的骨組織は、膜性骨の型をとることが多いと述べている。上顎骨は膜性骨型をとるのに対し、下顎骨は軟骨性骨型をとることから、上顎骨に骨腫の多発する素因が潜在していると考察されている。ところで、上顎のなかでも犬歯窩、硬口蓋、洞部などが、また、下顎では下顎角の内外縁、下顎下縁、臼歯部の舌側、オトガイ部下縁などが好発部位としてあげられている^{3,9)}。

写真4 術後約2年時のパノラマX線写真における同部の骨形成状態。

写真5 病理組織像

- A: 最外層部の層状に形成された骨質状態 (H-E, ×50).
B: 髄腔を伴う成熟した層板骨よりなる骨腫の中心部 (H-E, ×100).

しかし、本症例に関連して、下顎下縁に発生した骨腫例を、本邦での過去10年間に於ける報告例で文献的に検索した限りでは、同部に発生した骨腫例の報告はなく、本症例は発生部位においてまれな症例といえる。すでに、その好発部位として、定説として記載されている下顎下縁の症例はなく、またその移行部ともいえる下顎角内外縁での症例は、幼児の下顎骨に発生した井上ら¹⁰⁾の報告以外にはみられなかった。同範疇の類骨骨腫についてみても、西欧での報告例はみられる^{4,11,12)}が、われわれの知る限りでは、本邦での報告例はないようである。

周辺性骨腫の骨体部への付着形態としては、有茎性のものと広基性のものがあるが、有茎性に付着する例は下顎に発生しやすいとされている¹³⁾。本症例も、下顎下縁に有茎性に付着し、下垂するかのごとく発生した骨腫例であった。

骨腫はすべての年齢者に生じうる^{6,14)}が、40歳以上に多いとする説⁶⁾や、逆に若年者層に多いとする説¹⁴⁾があ

る。われわれの症例では、既往歴より、4歳時にはすでに本腫瘍は発生していたようであった。

骨膜の活性は、幼若年者のものほどより強いことは周知の事実である。このことは、Garréの骨髓炎時の層状骨肥厚の例で説明されていることから容易に推察されることであり、この骨膜反応の点から、まず本症の発生機転を考慮する必要がある。

誘因には、遺伝、内分泌障害、外来刺激、慢性炎症などがあげられるが、断定的な明確なものはない。本症例でも原因と考えられる明確な根拠はなかったが、本症例では骨腫を被包する後方部の骨膜は、咬筋付着の前方部ときわめて近接し、関連していたことから、次の点も考えられる。すなわち、文献的には、筋付着部位に相当する下顎角部が骨腫の好発部位とされ、また、咬筋肥大症の患者には顎角部の骨肥大症の生じやすいことを示す症例¹⁵⁻¹⁸⁾、また石川らの示した蝶形骨翼状突起外側板に発生した骨腫例で、内側翼突筋の牽引力が関与した可能性を示す例¹⁹⁾、および筋牽引力が筋突起肥大や筋突起の骨腫性病変に関与したと考えられる説を示唆する報告例^{20,21)}も多くあることから、咀嚼筋も、時には、骨膜を牽引する力となり、骨腫発生の誘因になる可能性は否定できないと考えられる。ここで、さらに上記の下顎における骨腫の好発部位は、筋牽引力の影響を比較的受けやすい部位と考えられる。すなわち、出生後の下顎骨の発育をみると、臼歯から顎角へ後方に行くにつれ下顎骨体の頰側骨皮質は添加するが、下顎下縁から舌側の骨皮質は吸収を受ける場所であり、骨層の弱い部位となる²²⁾。このため筋牽引力が働けば、容易に変化の生じやすくなることが考えられる。X線所見より考えると、腫瘤相当の最表層の骨皮質はきわめて薄く、内在する主病変との間に一様な増骨所見がなく、外部からの骨膜牽引により生じた骨皮質層を追いかけるかのように骨病変がみられるのは、上記の点を示唆するものと考えたい。しかし、咬筋のEMGの結果では、左右側に特別な不均衡状態はみられず、左右側に同様な腫瘤が発生していないことから、本例では、咬筋の牽引力が直接の誘因になったとする断定的な根拠は得られなかった。

外科的切除が骨腫治療の最優先法であり、切除により、再発する例はほとんどない。本例では、骨腫に隣接する下顎骨体下部に明瞭な骨硬化像がみられたことから、この部も含めた下顎下縁の部分切除を行った。同部は下顎管に近接しており、下歯槽神経・血管束を損傷させない注意が必要な例であった。術後10年を経た現在、異常な症状は聴取していない。

結 論

22歳男性の左側大臼歯部相当下顎下縁に発生した周辺性骨腫を治癒したが、病理組織学的診断は緻密骨腫であ

った。下顎下縁に発生した本症の報告例は本邦ではきわめて少なく、稀有な症例であった。その発生要因として同部の解剖発生学的特性と、骨膜に及ぼす筋・筋膜牽引力の関与などにつき若干の文献的考察を加えた。

本論文の要旨は、第13回広島大学歯学会総会（於広島市、昭和55年7月）において発表した。

引 用 文 献

- 1) 矢追秀彦, 伊藤 実: 顎下部に発現した稀有な孤立性骨腫の1症例について. 口科誌 10: 347-350 1961.
- 2) 五百蔵一男, 松本めぐみ, 他: 舌盲孔付近に発生した骨性分離腫の1例. 日口外誌 32: 1057-1060 1986.
- 3) 石川悟朗監修: 口腔病理学Ⅱ. 改訂版, 永末書店, 京都, 1982, 553-554頁.
- 4) Foss, E.L., Dockerty, M.B., et al: Osteoid osteoma of the mandible. Report of a case. Cancer 8: 592-594 1955.
- 5) 久野吉雄, 古屋英毅, 他: 下顎骨舌側に発生した大きな骨腫の2症例について. 日口外誌 17: 48-51 1971.
- 6) Gorlin, R.J. and Goldman, H.M.: THOMA'S Oral pathology. 6th Ed, Mosby Co, St Louis, 1970, p 560-562.
- 7) 西嶋克己, 岸 幹二, 他: 右側顎関節部に発生した骨腫の1例. 日口外誌 20: 365-369 1974.
- 8) 広瀬洋二, 服部千秋, 他: 上顎に発生した周辺性骨腫の1例. 日口外誌 21: 221-224 1975.
- 9) 広谷 勝, 内橋隆志, 他: 下顎頭に発生した骨腫の1例. 日口外誌 28: 795-800 1982.
- 10) 井上哲生, 岡部貞夫: Myxo-Lipo-Fibroma(Benign Mesenchymoma)を伴った幼児下顎骨Osteomaの1例(抄). 口科誌 28: 576 1979.
- 11) Stoopack, J.C.: Sialolith and osteoid osteoma. Oral Surg Oral Med Oral Pathol 11: 1220-1225 1958.
- 12) Jurgens, P.E.: Osteoid osteoma of the mandible: report of case. J Oral Surg 26: 129-132 1968.
- 13) Stafne, E.C.: Oral Roentgenographic Diagnosis. 4th Ed, W.B. Saunders Co, Philadelphia, 1975, p 192-195.
- 14) Shafer, W.G., Hine, M.K., et al.: A Text Book of Oral Pathology. 4th Ed, W.B. Saunders Co, Philadelphia, 1983, p 163-164.
- 15) Maxwell, J.H. and Waggoner, R.W.: Hypertrophy of the masseter muscles. Ann Otol Rhinol Laryngol 61: 538-548 1951.
- 16) Caldwell, J.B. and Hughes, K.W.: Hypertrophy of the masseter muscles and mandible. J Oral Surg 15: 329-331 1957.

- 17) Eubanks, R. J.: Surgical correction of masseter muscle hypertrophy associated with unilateral prognathism: report of case. *J Oral Surg* 15: 66-69 1957.
- 18) Oppenheim, H. and Wing, M.: Benign hypertrophy of masseter muscle. *A.M.A. Arch Otolaryngol* 70: 207-210 1959.
- 19) Ishikawa, T., Yashima, S., et al.: Osteoma of the lateral pterygoid plate of the sphenoid bone. *Int J Oral Maxillofac Surg* 15: 786-789 1986.
- 20) Maurer, R.M. and Wildin, R.E.: Hypertrophy of the coronoid process of the mandible: A cause of restricted opening of the mouth. Report of four cases. *Radiology* 83: 1060-1063 1964.
- 21) 作田正義, 原田尚紀, 他: 下顎骨筋突起に発生した骨軟骨腫の1例. *日口外誌* 32: 61-67 1986.
- 22) Stöckli, P.W.: Postnataler Wachstumsverlauf, Kieferwachstum und Entwicklung der Dentition p 38-43. (Hotz, R.P.: Zahnmedizin bei Kindern und Jugendlichen. Thieme Verlag, Stuttgart, 1981, p 38-43.)