両側下顎骨化骨性線維腫の1例

杉田 雅 治・木下 鞆 彦・本間 義 郎・桐ヶ久保光弘
小林 優・大塚 亨・中村 昌幸・志村 介三

Bilateral ossifying fibroma of the mandible: Report of a case

Masaharu SUGITA - Yukihiro KINOSHITA - Yoshiro HONMA
Mitsuhiro KIRIGAKUBO - Masaru KOBAYASHI - Tohru OHTSUKA
Masayuki NAKAMURA - Kaizo SHIMURA

Abstract: A case of ossifying fibroma arising in the bilateral sides of the mandible of a 26-year-old female was reported. Radiographic findings, revealed a multicystic radiolucent image with a sharp demarcation of 8—4], and an oval radiopaque image surrounded with a radiolucent layer of 6. Histopathological findings of both lesions presented the images of ossifying fibroma. Formation of the hard tissue in the left lesion was more remarkable than in the right.

We performed mandibular marginal resection and immediate reconstruction by an artificial bone that consists of HAP-PTFEMA-Titanium on the right lesion, and extraction of a tumor on the left lesion.

This case shows a favorable course without relapse at present, for one year and six months after resection. We carried out further review of literature on this tumor, comparing it with other cases of fibro-osseous lesion.

Key words: ossifying fibroma (化骨性線維腫), bilateral (両側性), mandible (下顎骨)

緒 言

化骨性線維腫は骨組織の形成を伴う線維性組織の腫瘍状増殖物であり、通常顎骨中心性に単発性に生じ、多発性に発現することはまれである。
今回、われわれは下顎骨の両側性に生じた化骨性線維腫の1例を経験したので報告する。

症 例

患 者：26歳 女性。
初 診：昭和62年4月
主 訴：右側下顎臼歯部の疼痛。

既往歴・家族歴：特記事項なし。
現病歴：昭和60年11月、5]部歯肉圧痛のため某病院歯科を受診したところ、嚢胞の臨床診断で5]抜歯と病巣摘出術を受けた。その後、補綴処置を受け経過良好であったが、昭和62年4月、再び同部に疼痛を生じ某歯科を受診し、当科に紹介来院した。
現 症：体格はやや肥満傾向だが、全身的には特に異常は認められなかった。顔貌は左右対称で、顔色良好であった。口腔内所見では654]にブリッジが装着され、7—4]部舌側歯肉に軽度の腫脹が認められた(写真1)。また6]に打診痛と根尖部歯肉に軽度の圧痛がみられた。リンパ節所見では左右顎下リンパ節が小豆大、可動性で、圧痛は認められなかった。
X線所見：64]は根管充填が施され、7—4]部に相当する下顎骨内に境界明瞭な多胞性の透過像が認められ、67]歯根は互いに離開していた。また6]は根管充填がみられ、6]近心根から7]近心根部にわたり顎骨内に円形の不透過像が認められ、その周囲には一層のX線透過像を介し骨硬化像が認められた(写真2)。なお全

神奈川歯科大学口腔外科学教室
(主任：志村介三教授)
Department of Oral Surgery, Kanagawa Dental college (Chief: Prof. Kaizo Shimura)
受付日：昭和63年11月24日

写真 1 初診時口腔内

写真 2 初診時オルソパントモグラム

写真 3 手術時所見

身骨格には特に異常は認められなかった。

臨床検査所見：一般血液検査，血清生化学検査，尿検査では特に異常所見は認められなかった。

臨床診断：両側性下顎骨腫瘍の疑い。

処置および経過：上記の臨床診断の下に，「87」を抜去し抜歯窩より生検を行ったところ，化骨性線維腫と診断された。そこで昭和62年6月，GOF 麻酔下にて右下顎骨辺縁切除術と左側腫瘍摘出術を行った。すなわち右側病変には，下顎下縁の下方約 1 cm にこれと平行な皮膚切開を加え，下顎骨体を露出させ，「4」を抜去後，

写真 4 術後1年半のオルソパントモグラム

写真 5 切除物の軟X線写真

「4」から「8」部にわたり健康な下顎下縁を残して，腫瘍と「87654」部を含む顎骨を一塊として切除した。ついでチタンを芯材とした HAP-PTFEMA 複合材からなる人工骨を骨欠損部に適合し，これをサファイヤ・スクリューにて固定した後，周囲結紮を行った（写真3）。左側病変は「16」を抜去後，口腔内よりマイセルにて腫瘍を分割摘出した。

術後経過は良好で，1年半の現在，再発の徴候はなく，X線写真における異常や顔貌の変化も認められない（写真4）。

摘出物所見：右側病変の摘出物では頬側皮質骨の膨隆，菲薄化がみられ，断面をみると顎骨内に弾性硬の充実性組織が充満していた。その軟X線写真では，境界明瞭な多胞性の透過像内にさまざまな形状の不透過像が認められた（写真5）。また左側腫瘍はボソボソした粗造感のある比較的硬い組織からなっていた。

病理組織学的所見：右側病変の最大断面をみると歯槽頂より，下顎管周囲にいたる骨髓は線維性の組織によって置換され，その頬側皮質は外方に圧迫吸収されていた（写真6）。腫瘍組織と既存骨との境界は明瞭であり，「6」頬側歯槽骨はほとんど吸収消失し腫瘍組織と歯根膜は直接接していた（写真7，A，B）。腫瘍組織は細胞成分に富んだ線維性結合組織内に，封入細胞を有する種々

写真 6 摘出物の断面 (H-E 染色標本, ×3)

の大きさ、形状の梁状ないし塊状の硬組織が散在性に認められ、それらは骨芽細胞で縁取られていた。また硬組織周囲の膠原線維の大部分は密に束状にそれを取り囲むように走行していた (写真 8 A, B)。左側腫瘍は右側のものに比べて硬組織の形成が活発であるが、本質的には右側腫瘍と同様な組織像を呈していた (写真 9)。[6 歯根と腫瘍との連続性はみられなかった。なお両腫瘍組織とも細胞異型は認められなかった。

確定診断：両側下顎骨化性線維腫。

考 察

硬組織の形成を伴う顎骨の線維性組織の増殖病変には化骨性線維腫、セメント質形成性線維腫、線維性骨異形成症、根尖性セメント質異形成症や骨芽細胞腫など種々の病変が存在するが、それらの病態は類似点も多くしばしば鑑別に困難をきたす。また近年ではこれら病変に対し顎骨の fibro-osseous lesion (線維・骨性病変) なる総称が用いられるなど、個々の疾患本態についても未解明な点が多い。なかでも化骨性線維腫は、以前には骨線維腫、線維骨腫とも呼ばれ、その本態、分類には諸説がある。1971年に W.H.O. により歯源性腫瘍の¹⁾、また1972年には同じく骨腫瘍の分類²⁾、名称が発表されたが、化骨性線維腫の取り扱いについては両分類の間に微妙な相違がみられる。すなわち前者では化骨性線維腫を骨に関連する独立した腫瘍として分類し、病理組織学的には「被包化された新生物で種々の量の化生性骨や石灰化物を含む線維性組織から構成され、これらの硬組織は辺縁が丸くわずかな封入細胞をもつ³⁾」と定義している。一

写真 7 病理組織像

A：腫瘍組織と既存骨との境界面 (H-E 染色標本, ×35)

B：腫瘍組織と歯根との境界面 (H-E 染色標本, ×35)

方、後者では ossifying fibroma の分類名は採用されておらず、「現在は osteoid osteoma and osteoblastoma として知られているものを、かつて ossifying fibroma と呼んだことがあるが、現在は顎骨の fibro-osseous lesion のあるものにのみ用いる」と記載されている。また1982年、「整形外科病理悪性腫瘍取り扱い規約⁴⁾」で顎骨にしばしばみられるとしながらも「化骨性線維腫を独立の腫瘍として扱うには時期尚早である」としている。しかし現在、口腔病理、口腔外科学領域では、歯源性腫瘍を含む顎骨腫瘍の特異性から1972年 W.H.O. の歯源性腫瘍の見解を取り、独立疾患としての化骨性線維腫の存在意義を認める者が多い^{5,6,7)}。

1. 鑑別診断について

本腫瘍の発生由来は多くの場合、歯根に近い部分から生じ、セメント芽細胞へも骨芽細胞へも分化しうる歯根

写真 8 病理組織像

- A : 線維性結合組織内に塊状の硬組織を散在性に認める (H-E 染色標本, $\times 280$)
 B : 膠原線維が硬組織を取り囲むように走行する (渡銀染色標本, $\times 280$)

膜の間葉系前駆細胞にあるとされている^{5,8,9}。そのため化骨性線維腫とセメント質形成線維腫の病理組織像は類似しており、またセメント質、骨組織のいずれにも類似した硬組織を混在することもあるなど両者の鑑別が困難な場合も少なくない。最近、骨組織とセメント質の鑑別には、偏光顕微鏡下での硬組織の膠原線維束の走行や型で区別が可能であるという報告^{8,10}や、また膠原線維の生化学的分析による比較^{11,12,13}も試みられてはいるが、未だ確立されてはおらず通常、硬組織の封入細胞の多少、硬組織内の線維の走行状態によって鑑別されている⁹。

本症例では左右いずれの病変もセメント質に特徴的な層状構造や放射状の線維模様認められず、形成された硬組織は梁状ないし塊状を呈し、封入細胞が比較的多く見られるなど骨質に類似していた。

また骨組織の形成を伴う線維性病変が多発性に生じた場合には特に、線維性骨異形成症との異同、鑑別が問題になるが、本症例ではX線的に、病理組織学的に周囲骨組織との境界が明瞭であること、さらに線維組織が細胞成分に富み比較的密に束状配列を示していたことなどから

写真 9 病理組織像

硬組織形成が活発な左側腫瘍組織 (H-E 染色標本, $\times 280$)

総合的に判断して線維性骨異形成症とは鑑別されよう。

しかし本症例のごとく化骨性線維腫が多発性に生じた場合には家族性にみられたとの報告もあり¹⁷、本態的に異形成性病変の可能性もまったく否定できず⁵、今後の課題であろう。

2. 臨床的事項

本腫瘍は年齢的には、若年および壮年期に多く、特に20歳代に好発する⁵。性差は明らかでないとする報告もあるが¹⁴、比較的女性に多いとする意見が多い^{5,9,15}。発生部位では下顎に圧倒的に多く、特に臼歯部に好発する^{3,5,16}。本症例のように多発性に生じることは少なく、これまで迫田¹⁷の6例、Hamner ら³の3例、岩佐ら¹⁶の2例、Bradly¹⁸および平川ら¹⁹の各1例の計13例が報告されているにすぎない (表1)。このうち家族性にみられたものは3例、上下顎骨にみられたもの9例で、本症例のように下顎骨の両側にみられたものは4例であった。

臨床症状としては無症状の場合が多く、腫瘍の発育は緩慢で徐々に顎骨を膨隆させ、顔面の変形や咬合障害を生じ、時として神経症状や歯痛を訴える場合もある^{8,20,21,22}。

本症例では「7-4」に鈍痛と同部舌側歯肉に腫脹が認められ、また「6」に打診痛および根尖部歯肉に圧痛が認められたが、いずれも軽度であった。

X線所見の特徴は境界明瞭な単胞性ないし多胞性の透過像を呈し、その内部に硬組織の形成に応じた不規則な不透過像が混在するが、透過像と不透過像の割合はさまざまである^{5,9}。Shafer⁷らは病変の初期で骨形成量の少ない時期には内部の不透過像も少なく腫瘍の成熟につれて骨形成量も多くなり不透過像が増すと報告し、また、藤岡¹⁵や Gorlin ら²³は年齢が高くなるにつれて化骨像が強くなると述べている。

本症例では、比較的大きな右側腫瘍は多胞性透過像を

表 1 化骨性線維腫の多発例

症例	報告者	年齢	性別	発生部位	治療	備考
1	平川, 梶谷 ¹⁹⁾	2	女性	左右下顎骨	顎骨切除	
2	Hamner ら ³⁾	不明	女性	左右下顎骨	不明	
3	Hamner ら ³⁾	不明	女性	左右下顎骨	不明	
4	Hamner ら ³⁾	不明	女性	上下顎骨 (左右は不明)	不明	
5	Bradly & Leake ¹⁸⁾	6	女性	左右下顎骨	摘出, 上顎部分切除	
6	迫田 ¹⁷⁾	31	女性	左右上下顎骨	摘出	
7	迫田 ¹⁷⁾	34	女性	左右下顎骨, 右上顎骨	摘出	
8	迫田 ¹⁷⁾	61	男性	左右下顎骨, 左上顎骨	摘出, 骨削除	
9	迫田 ¹⁷⁾	46	男性	左右下顎骨, 左上顎骨	摘出, 上顎部分切除	家族性
10	迫田 ¹⁷⁾	24	女性	左右上下顎骨	摘出, 骨削除	家族性
11	迫田 ¹⁷⁾	18	女性	左右上下顎骨	全摘出	家族性
12	岩佐 ¹⁶⁾	57	女性	左右上顎骨, 左下顎骨	顎骨部分切除	
13	岩佐 ¹⁶⁾	26	女性	左右上顎骨, 左下顎骨	上顎部分切除, 下顎区域切除	
14	著者ら	26	女性	左右下顎骨	下顎辺縁切除	

呈していたが、左側腫瘍では単胞性の透過像内に高度の不透過像がみられるなど両病変の化骨像には病理像と一致してかなりの差がみられた。

3. 治療および予後について

化骨性線維腫の治療としては、腫瘍を含めた下顎骨辺縁切除術ないし上顎部分切除術が一般的に行われている²⁴⁾

本症例では、腫瘍が小範囲に限局していた左側病変では口腔内から腫瘍摘出術を、比較的広範な右側病変は辺縁切除術および人工骨による即時再建術を行った。今回用いた人工骨は、当教室と増原^{25,26,27)}との共同により開発したハイドロキシapatite・フルオロポリマー・チタンによる三元系多相系生医学材料からなっている。本材は機械的性質が骨ときわめて近似し、また構造支持材として十分な強度と靱性を有すること、生物化学的適合性や組織接着性さらに加工操作性が良いこと、義歯装用が可能であるなど従来のものに比べて有利な点を持っている^{28,29)}。

予後は良好で再発はほとんどないとされているが³⁰⁾、平川¹⁹⁾の報告のように二次的に肉腫化し、死の転帰をとった骨線維腫の例もあるので術後の十分な経過観察が必要である。本症例は術後1年半を経過しているが、顔貌に変化はなくX線的にも異常は認められず、経過順調である。

結 語

われわれは、下顎骨の両側に生じた化骨性線維腫の1症例を経験したので、若干の文献的考察を加え、その概要を報告した。

本論文の要旨は、第139回日本口腔外科学会関東地方会（昭和62年10月24日、松戸）において発表した。

引 用 文 献

1) Pindborg, J.J. and Kramer, I.R.H.: Histological typing of odontogenic tumors, jaw cyts, and allied lesions. International histological classification of tumors, No. 5 WHO, Geneva, 1971, p 1-44.

2) Schajowicz, F., Ackerman, L.V., et al.: Histological typing of bone tumors. International histological classification of bone tumors, No. 6 WHO, Geneva, 1972.

3) Hamner, J.E., Scofield, H.H., et al.: Benign fibro-osseus jaw lesion of periodontal membrane origin. An analysis of 249 cases. Cancer 22: 861-878 1968.

4) 日本整形外科学会. 軟部腫瘍委員会編：悪性骨腫瘍取扱規規約, 第1版, 金原出版, 東京, 1982.

5) 石川梧朗監修：口腔病理学Ⅱ. 第2版, 永末書店, 京都, 1982, 546-549頁.

6) Archer, W.H.: Oral and maxillofacial surgery, 5th ed, W.B Saunders, Philadelphia, London, Tronto, 1975, p 861-888.

7) Shafer, W.G., Hine, M.K. et al.: A textbook of Oral Pathology, 4th ed., WB Saunders, Philadelphia, London, Toronto, Mexico City, Rio de Janeiro, Sydney, Tokyo, 1983, p 142-144, 694-699.

8) 迫田由紀子：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.
- 9) 山本 肇, 茅野照雄: 顎骨の fibro-osseus lesion —特に線維性骨異形成症と化骨性線維腫について— 口病誌 52: 483-489 1985.
 - 10) Schman, A., Smith, I, et al.: Benign fibro-osseous lesion of the mandible and maxilla. Cancer 26: 303-312 1970.
 - 11) 名倉英明, 小山弘治, 他: 硬組織形性線維腫のコラーゲンについて. 口科誌 26: 585-586 1977.
 - 12) 久保木芳徳, 他: 各種腫瘍 コラーゲンの研究 (第1報). 骨代謝 10: 173-179 1977.
 - 13) Waldron, C.A., Giasanti, J.S., et al.: Sclerotic cemental masses of the jaw (so-called chronic sclerosing osteomyelitis, sclerosing osteitis, multiple enostosis, and gigantiform cementoma). Oral Surg 39: 590-604 1975.
 - 14) 藤沢容子, 戸塚盛雄, 他: 顎骨中心性の良性ならびに線維性病変に関する病理学的検討 第4報. 岩手医大歯誌 8: 187-195 1983.
 - 15) 藤岡幸雄: 中心性顎骨線維の種々相について. 口科誌 9: 323-333 1960.
 - 16) 岩佐俊明, 曾田忠雄: 化骨性線維腫24例の臨床的観察. 口病誌 47: 329-335 1980.
 - 17) 迫田由紀子: 顎骨の Fibro-osseous Lesion 第2編 多発性病変について. 口病誌 44: 340-356 1977.
 - 18) Bradly, E.S. and Leak, D.: Ossifying fibroma involving the maxilla and mandible. OS OM OP 26: 605-614 1968.
 - 19) 平川正輝, 梶谷貫大: 肉腫化を起こし死の転帰をとった下顎対称性 Osteofibroma に就いて. 九州歯会誌 6: 11-18 1952.
 - 20) 荒木正弘, 佐野和生, 他: 嚢胞を思わせた下顎骨化骨性線維腫の1例, 日口外誌 33: 142-147 1987.
 - 21) Gay, I., Sela, J., et al.: Ossifying fibroma; report of case. J Oral Surgery 33: 368-371 1985.
 - 22) 茂呂 允: 顎骨に生ずる中心性線維腫ならびに線維性異形成症に関する臨床病理学的研究. 日大歯学 41: 389-432 1967.
 - 23) Gorlin, R.J. and Goldman, H.M.: Thomas Oral Pathology. 6th ed. Louis, 1970, p 503.
 - 24) 藤井英治, 塩田重利: 顎骨の fibro-osseus lesion —臨床— 病理と臨床 3: 873-879 1985.
 - 25) 志村介三, 木下鞆彦, 他: 骨適合性をもつハイドロキシアパタイト・合成高分子・金属多相系生医学材料. 医学のあゆみ 136: 225-226 1986.
 - 26) 桐ヶ久保光弘: 骨適合性を有する多相系生医学材料に関する研究—第1報—ハイドロキシアパタイト—合成高分子—金属多相系材料の機械的性質. 日口外誌 32: 1541-1560 1986.
 - 27) 桐ヶ久保光: 弘骨適合性を有する多相系生医学材料に関する研究—第2報—ハイドロキシアパタイト—合成高分子複合材の生体内組織反応について. 日口外誌 32: 1561-1580 1986.
 - 28) 小林 優, 木下鞆彦, 他: 骨適合性を有する多相系生医学材料に関する研究—第3報—ハイドロキシアパタイト—ポリマー複合材の細胞培養試験. 日口外誌 34: 618-628 1988.
 - 29) 桐ヶ久保光弘, 木下鞆彦, 他: Hydroxyapatite-Polymer-Metal 多相系材による顎骨再建. 頭頸部腫瘍 14: 68 1987.
 - 30) 宮崎 正編集: 口腔外科学. 第1版, 医歯薬出版, 東京, 1988, 158頁.