化骨性線維腫の2例

松田由紀子・白野隆史・石井輝彦・山野井弘充
高山泰男・岩成進吉・遠山良成・田中 博
浅野正岳*・小宮山一雄*・茂呂 周*

Two cases of ossifying fibroma

Yukiko MATSUDA・Takashi SHIRANO・Teruhiko ISHII・Hiromitsu YAMANOI
Yashuo TAKAYAMA・Shinkichi IWANARI・Yoshinari TOHYAMA・Hiroshi TANAKA
Masatake ASANO*・Kazuo KOMIYAMA*・Itaru MORO*

Abstract: We have described two cases of ossifying fibroma in this paper.

The first one was a recurrent case which occurred in a 52 year-old male patient. Tumor masses were found in the lower rim of mandible and in scar tissue close to previously operated areas. Histopathological examination revealed that tumor masses were composed of a proliferation of spherical and trabecular bones and dense fibrous tissue with a high cellularity.

The second one was a case observed in a 26 year-old female patient. Histopathological examination revealed that the majority of tumors consisted of a proliferated fibrous tissue and a few immature fibrous bony tissues that were scattered at the peripheral region of this fibrous tissue.

Although the enucleation of tumor or marginal resection of mandible were recommended for the treatment of ossifying fibroma, more extensive continuous resection of mandible should be applied to the cases which small tumor nests were scattered throughout the mandible such as case 1.

Key words: ossifying fibroma (化骨性線維腫), differential diagnosis from fibrous dysplasia (線維性骨異形成症との鑑別診断), resection of mandible (下顎骨切除術)

結 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、1927年 Montgomery により初めて提唱さ

れたまれな腫瘍である¹⁾。

本疾患は fibro-osseous lesion として取り扱われる疾患群の1つであり、診断に際し、他の線維一骨性病変との鑑別が困難な場合が少なくない。

今回、わたくし達は病理組織学的に化骨性線維腫と診断された2症例を経験したので報告する。

症 例

症例1

患 者: 52歳 男性。

初 診: 昭和62年2月■日。

主 訴: 左側下顎大臼歯部手術後の精査。

既往歴および家族歴: 特記すべき事項はない。

現病歴: 約9年前、化骨性線維腫の診断で某病院口腔

日本大学歯学部口腔外科学教室第1講座

(主任: 工藤逸郎教授)

* 日本大学歯学部病理学教室

(主任: 茂呂 周教授)

The First Department of Oral Surgery, Nihon University School of Dentistry (Chief: Prof. Itsuro Kudo)

* Department of Pathology Nihon University School of Dentistry (Chief: Prof. Itaru Moro)

受付日: 昭和63年12月4日

写真 1 症例1 初診時顔貌

写真 3 初診時X線写真

写真 4 $^{99m}\text{TcMDP}$ シンチグラム

写真 2 初診時口腔内

外科において、左側下顎大臼歯部の腫瘍摘出術をうけた。同院での術後経過観察中、約5年後に再発が確認されたが、転動したため加療を受けなかった。当科初診の2週間前より同部に違和感を覚えるようになったため某歯科に受診したところ、当科を紹介され来院した。

現 症：顔貌には特に変化はない(写真1)。口腔内は「678」は欠損し、「67」相当部の歯槽部頰側には手術による陥凹が認められるが、被覆粘膜には特に異常はない(写真2)。同部の骨体部頰・舌側には境界明瞭な拇指頭大、骨様硬、無痛性の膨隆が触知される。

臨床検査所見：血液・尿および血清生化学検査成績に特に異常はなく、血清アルカリフォスファターゼ値も正常範囲内であった。

X線所見：下顎骨体部斜位X線写真では、「15」から左

側下顎角部に及ぶ骨体全域に蜂窩状のX線透過像が散在している(写真3)。CT 所見では左側下顎臼歯部から下顎枝部に及ぶ骨体は頰舌的に膨隆し、骨皮質の一部は菲薄化している。この部の顎骨内は一般に不透過性が亢進し、その内部に不規則な透過像が散在している。 $^{99m}\text{TcMDP}$ シンチグラムでは同部に一致して集積像が認められた(写真4)。

臨床診断：化骨性線維腫再発。

処置ならびに経過：昭和62年11月■日、「14」遠心から下顎枝部にわたる下顎骨区域切除術と腸骨による下顎骨再建術を施行した。現在術後約1年を経過するが、再発の徴候は認められていない。

摘出物所見：摘出下顎骨の頰舌側および下縁部は全般に膨隆し、頰側から下顎下縁にわたる骨皮質はきわめて菲薄化しているが骨質の消失はない(写真5)。

摘出物X線所見：腫瘍内部には多数のX線透過像が散在している(写真6)。

病理組織所見：腫瘍は組織学的に下顎骨骨体下縁部および前回手術時の瘢痕組織周囲に小胞巣が散在性に認められ、このような胞巣が切除した下顎骨全域に散在して認められる。胞巣は密に増殖する細胞成分に富む結合組織中に球状ないし梁状の骨新生像が認められる。新生骨組織は周囲に立方型ないし円柱状の骨芽細胞の配列を伴っ

写真 5 摘出物

写真 7 前回手術瘢痕組織周囲の弱拡大

写真 6 摘出物X線写真

写真 8 前回手術瘢痕組織周囲の強拡大

ている。骨内部には大小不同の骨細胞を多数含有し、辺縁部に比べ石灰化の亢進が認められた(写真7, 8)。

症例 2

患 者: 26歳 女性。

初 診: 昭和62年8月■日。

主 訴: 左側下顎部の膨隆。

既往歴および家族歴: 特記すべき事項はない。

現病歴: 当科初診の5年前より、左側下顎部の膨隆を自覚しており、その間漸次増大する傾向がみられたが疼痛がないまま放置していた。最近、齲歯治療のため某歯科に受診したところ、当科を紹介され来院した。

現 症: 顔貌は左側下頰部から下顎下縁部にかけて軽度のびまん性の腫脹がみられる(写真9)。口腔内は、18は欠損し、14~18相当下顎骨体部は頰・舌側にわたり骨様硬、無痛性の膨隆が触知される。この部の歯肉には特に異常はない(写真10)。

臨床検査所見: 血液・尿および血清生化学検査成績には特に異常はなく、血清アルカリフォスファターゼ値も正常範囲内であった。

X線所見: オルソパントモ X線写真では14から左側下顎切痕部にわたる下顎骨全域は著しく膨隆しており、

この部の骨梁は消失し、不規則な斑状のX線不透過像で置換されている(写真11)。CT 所見では、この部の下顎骨は頰・舌的に膨隆し、その内部は不規則な斑状の不透過像と透過像で占められている。^{99m}TcMDP シンチグラムでは同部に一致して集積像が認められた(写真12)。

臨床診断: 化骨性線維腫または線維性骨異形成症。

処置および経過: 生検で、化骨性線維腫の診断を得たため、昭和61年12月■日、13部で左側下顎骨の関節離断術を施行し、Manchester 法に準じた腸骨移植術を施行した(写真13)。

現在術後11か月を経過するが再発の徴候は認められていない(写真14, 15)。

摘出物所見: 摘出下顎骨は著しく膨隆し、下顎切痕は平坦である(写真16)。

摘出物X線所見: 骨梁は消失し、腫瘍内部に不規則なX線不透過像が散在している(写真17)。

病理組織所見: 腫瘍は、種々の方向に走る膠原線維の増成よりなり、細胞成分に富んだ結合織中に多数の封入細胞を含む梁状の骨新生像が認められるものの線維成分が多量に認められる。新生骨組織は一般に周囲に立方型ないし円柱状の骨芽細胞の配列を伴い中央部では強い線

写真 9 症例2 初診時顔貌

写真 12 $^{99m}\text{TcMDP}$ シンチグラム

写真 13 Manchester 法による腸骨移植

写真 10 初診時口腔内

写真 11 初診時オルソパントモX線写真

写真 14 術後11か月の口腔内

写真 15 術後11か月のX線写真

写真 16 摘出物

写真 17 摘出物X線写真

維性を呈している。骨内部には大小不同の骨細胞を多数含有し、辺縁部のものに比べ石灰化の亢進が認められた(写真18, 19)。

考 察

骨組織が種々の量の石灰化物を含む線維性組織によって置換されることを特徴とする一連の病変については近年 Fibro-osseous lesion と総称されている。顎骨領域の Fibro-osseous lesion としては セメント芽細胞腫、骨芽

写真 18 病巣中心部弱拡大

写真 19 骨様硬組織部強拡大

細胞腫、セメント質形成線維腫、化骨性線維腫、根尖性セメント質異形成症、いわゆるセメント質腫などがあげられているが²⁻⁵⁾、これらの疾患相互には臨床的、病理組織学的に類似点が多く、その異同、相互関係などについては必ずしも明確にはされておらず、鑑別診断に困難をきたす例も少なくない⁶⁾。

これら一連の疾患のうち、化骨性線維腫については WHO の分類では歯源性腫瘍の類縁疾患として osteogenic neoplasms に区分され⁷⁾、“種々の量の化生骨および、丸い外形と小数の封入細胞を有する石灰化物を含んだ線維性組織からなる被包された新生物”と定義されている。本疾患の病理組織学的特徴は、細胞成分に富んだ線維性組織の中に、種々の大きさ、形の硬組織が形成されていることであり⁸⁾、線維組織は密に増殖し、束状配列を示すことが多く、硬組織は骨・類骨組織で不規則な梁状あるいは塊状の線維骨である場合が多い。自験例では、2症例とも腫瘍は層板構造の明瞭な梁状の既存の骨組織にとり囲まれていたが、症例1では細胞成分に富んだ線維性結合組織の増殖が認められ、その中に球状ないし梁状の骨様組織が散在し、いわゆる化骨性線維腫の組織像を呈していた。しかし、腫瘍巣自体の分布状態は

前回手術時の瘢痕組織周囲や骨体内の全域に小さな胞巣を作って散在するものであり、このような所見は、著者が渉猟した化骨性線維腫の再発例においても記載がなく^{3,4,9-14}、かなり特異的な所見であると思われた。前回手術時の組織像があきらかでないため、この小胞巣が広範囲に散在する所見は再発例であることに起因するものか否か明確でないが、このような例ではいわゆる腫瘍摘出術によっては腫瘍胞巣の一部を残存させる可能性が高いと思われ、より広範な顎の切除が必要であると考えられた。一方、症例2では、腫瘍の中心部は線維成分の増殖が主体で、その周辺部に未熟で不定型な骨の形成をみる例で、その硬組織形成様式から線維性骨異形成症との異同が問題となるが、腫瘍は線維組織の増生を主としているために、化骨性線維腫と診断した。

化骨性線維腫と線維性骨異形成症との異同については従来からさまざまな議論がなされており、Jaffeら¹⁵、Zimmerman ら¹⁶は両者は同一の病変であるとしているのに対し、Thoma¹⁷、Waldron¹⁸らは別個の病変として区別し得るとしている。しかし、一般には両者は別個に取り扱う傾向にあり、WHO の分類でも化骨性線維腫を osteogenic neoplasm、線維性骨異形成症を non-neoplastic bone lesion に区分して記載されている⁷。

両疾患の相違点として病理組織学的には化骨性線維腫では周囲と比較的明瞭に境界され、線維組織は束状配列を示すことが多い。線維性骨異形成症では境界が不明瞭で、線維の配列も不規則であり、骨組織の形成もより多量で、骨梁の成熟程度に異常がみられるとされている。いずれの場合も病的状態では定型的な組織像を示さないことが多いものと思われる。

一方臨床的には化骨性線維腫では被膜が存在し、X線的には境界明瞭なX線透過像に種々の程度の不透過物を含んでいるのに対し、線維性骨異形成症では被膜はなく、境界不明瞭ないわゆるスリガラス状の不透過像を呈することが特徴とされている^{8,10,19,20}。このうち、周囲との境界が明瞭であるか否かは組織所見にもまして重要な鑑別点であるとされているが、化骨性線維腫の24例を報告した岩佐ら¹⁴によれば、X線所見で境界があまり明瞭でない例が3例(9.7%)みられたと述べている。

異形成的な病変である線維性骨異形成症では病変の進行停止が期待されるため^{19,21}、病巣の搔爬が行われるが、一方、腫瘍性の病変である化骨性線維腫では腫瘍の摘出ないし顎の切除が選択されることが多い。山本ら¹²は線維性骨異形成症と診断されたため、数回の部分的な病巣削除処置にとどまっている間に巨大に発育した化骨性線維腫の1例を報告し、鑑別診断の重要性を強調しているが、本腫瘍の診断にあたっては臨床所見、X線所見、病理組織学的所見などの総合的な判断が重要と考えられる^{2,8,10,18,22-25}。

化骨性線維腫の処置としては、腫瘍の大きさに応じて

腫瘍の摘出ないし顎骨の切除が行われており、予後は一般に良好で再発はほとんどないとされているが、再発例の報告も散見される^{2,8,10,22-25}。自験例では2症例とも腫瘍は病変部の下顎骨全体を占めていたため顎骨の切除と腸骨移植術を施行したが、ことに第1例のような特異な病理組織像を呈した例では十分な健康域をもうけた顎骨切除が必要と思われた。

自験例の第1例は術後1年、第2例は11か月経過するが現在のところ再発の徴候はみられていない。

結 語

1) 化骨性線維腫の2症例を経験した。病理組織学的に第1例は本腫瘍の定型像を呈していたが腫瘍胞巣自体は小型で散在性に広く分布していた。第2例は硬組織形成様式が本腫瘍の定型像とやや異なったが、線維成分の増殖が主体であったため化骨性線維腫と考えた。

2) 第1例のような腫瘍胞巣の分布を示す例では顎骨切除が必要であると考えた。

本論文の要旨は第33回日本口腔外科学会総会(昭和63年9月30日、名古屋)において発表した。

引 用 文 献

- 1) Montgomery, A.H.: Ossifying fibroma of the jaw Arch Surg 15: 30 1927.
- 2) Hamner, J.E., Scofield, H.H. et al.: Benign fibro-osseous jaw lesions of periodontal membrane origin, An analysis of 249 cases. cancer 22: 861-878 1968.
- 3) 迫田由紀子: 顎骨の Fibro-osseous lesion, 第1編 単発病変について. 口病誌 44: 217-235 1977.
- 4) 迫田由紀子: 顎骨の Fibro-osseous lesion, 第2編 多発病変について. 口病誌 44: 340-356 1977.
- 5) 藤沢容子, 戸塚盛雄, 他: 顎骨中心性の良性線維性病変に関する病理学的検討, 第4報 線維性病変. 岩手医大誌 8: 187-195 1983.
- 6) 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: 1622-1627 1987.
- 7) Pindborg, J.J. and Krammer, I.R.: Histological Typing of Odontogenic Tumours, Jaw Cysts, and Allied Lesions. WHO, Geneva, 1971, p 36.
- 8) 石川梧朗, 秋吉正豊: 口腔病理学Ⅱ. 改訂版, 永末書店, 京都, 1982, 546-549頁.
- 9) 平川正輝, 梶谷貴大: 肉腫化を起こし死の転帰を取った下顎対称性 Osteofibroma に就いて. 九州歯会誌 6: 11-18 1952.
- 10) 茂呂 充: 顎骨に生ずる中心性線維性腫瘍なら

- 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.
- 11) 岩佐俊明, 佐藤 修, 他: 上下顎に発生した化骨性線維腫の1例. 日口外誌 24: 759-764 1978.
 - 12) 山本悦秀, 京極順二, 他: 手掌大に發育した上顎化骨性線維腫の1例. 日口外誌 33: 1566-1573 1987.
 - 13) 滝川富雄, 金子健司, 他: 上顎化骨性線維腫の1例. 日口外誌 6: 235-238 1960.
 - 14) 岩佐俊明, 曾田忠雄: 化骨性線維腫24例の臨床的觀察. 口病誌 47: 329-335 1980.
 - 15) Lichtenstein, L. and Jaffe, H.L.: Fibrous dysplasia of bone. Arch Path 33: 777-816 1942.
 - 16) Zimmerman, D.C., Dahlin, D.C. et al.: Fibrous dysplasia of the maxilla and mandible. OS. OM. OP. 11: 55-68 1958.
 - 17) Thoma, K.H.: Differential diagnosis of fibrous dysplasia and fibro-osseous neoplastic lesions of the jaws and their treatment. J Oral Surg 14: 185-194 1956.
 - 18) Waldron, C.A.: Fibro-osseous lesions of the jaws. J oral Surg 28: 58-64 1970.
 - 19) Thoma, K.H. and Goldman, H.M.: Oral Pathology. 4th Mosby Co, St Louis, 1954, p 1274-1283.
 - 20) Sherman, R.S. and Waldemar, C.A.: The roetgen appearance of ossifying fibroma of bone. Radiology 50: 595-609 1948.
 - 21) 藤岡幸雄: 中心性顎骨線維腫の種々相について. 口科誌 9: 323-333 1960.
 - 22) 前川 徹: 線維性良性腫瘍について, Fibrous dysplasia とその類似疾患. 臨床放射線 5: 118-134 1960.
 - 23) Waldron, C.A. and Giansanti, J.S.: Benign fibro-osseous lesion of the jaws. A clinical radiologic-histologic review of sixty-five cases. Oral Surg 35: 190-201, 340-350 1973.
 - 24) Schmaman, A., Smith, I., et al.: Benign fibro-osseous lesions of the mandible and maxilla. Cancer 26: 303-312 1970.
 - 25) 安住知彦, 万羽晴一, 他: 化骨性線維腫の6症例. 日口外誌 23: 150-159 1977.