下顎骨に生じた骨融解症の1例

瀬川 清・遠藤光宏・奈良栄介
工藤啓吾・藤岡幸雄・武田泰典*

A case of osteolysis of the mandible

Kiyoshi SEGAWA・Mitsuhiro ENDO・Eisuke NARA
Keigo KUDO・Yukio FUJIOKA・Yasunori TAKEDA*

Abstract: We have studied a patient with osteolysis, considered to be the initial stage of massive osteolysis suggesting a mandibular cyst, in whom an iliac bone graft was performed.

The patient was a 33-year-old male referred to our hospital for spontaneous pain on the left side of the mandible. Radiographic examination revealed that the affected site of the mandible included a mandibular canal and exhibited an oval cyst-like radiolucent image with an unclear boundary. Surgery was performed under systemic anesthesia and included extirpation and curetting of the affected region as well as an iliac bone graft. Pathologically, cortical bone and bone marrow of the mandible were completely replaced by dense and irregular collagen fibers, and abundant iron pigment was deposited in fibrous tissues. The inferior alveolar nerve was normal, but the inferior alveolar artery was extremely narrow.

At present, 2 years and 4 months postoperatively the bone graft site shows almost complete osseous conrescence both clinically and radiologically.

Key words: osteolysis (骨融解症), mandible (下顎骨), bone graft (骨移植)

結 言

Massive osteolysis (巨大な骨融解症)は、特発性の無症状に骨の融解が部分的あるいは完全に消失するまで進行する原因不明のまれな疾患である。全身のほとんどの骨に単発生あるいは多発生に生じ、腫瘍や炎症によるものではなく、Ca, P の代謝および、内分泌系には異常を認めない。顎骨の骨融解症¹⁾はきわめてまれな病変であり、しかも報告例のほとんどは病変がかなり進行したも

のである。また、本症に対する骨移植の成功例はごくわずかであり、本邦ではいまだ報告例がみられていない。

今回、わたくしどもは、下顎骨嚢胞を疑わせた骨融解症の患者に対し、病変部を摘除・搔爬後に腸骨移植を行い、良好に経過している1例を経験したので、その病理組織所見を含めて概要を報告するとともに、本病変の成因に関して若干の考察を加えたので報告する。

症 例

患 者：33歳 男性。

初 診：1989年5月■日。

主 訴：左側下顎臼歯部の自発痛。

現病歴：1989年4月から左側下顎臼歯部の咬合痛を覚えていた。同年5月9日同部の激痛のため近医歯科を受診し、X線撮影検査にて、左側下顎骨大臼歯部に嚢胞様単腔性透過像を認めたため、同年5月■日当科へ紹介されてきた。

既往歴：高校生時に硬式野球部での活動中に硬球による数度の左右下顎部への外傷。

家族歴：特記事項なし。

岩手医科大学歯学部口腔外科学第1講座
(主任：藤岡幸雄教授)

* 岩手医科大学歯学部口腔病理学講座
(主任：鈴木鍾美教授)

First Department of Oral and Maxillofacial Surgery, School of Dentistry, Iwate Medical University (Chief: Prof. Yukio Fujioka)

* Department of Oral Pathology, School of Dentistry, Iwate Medical University (Chief: Prof. Atsumi Suzuki)

受付日：平成4年1月29日

写真1 初診時のパノラマX線写真(拡大像)

写真3 腸骨移植時の写真

写真2 術中の左側下顎角部

現 症: 口腔外所見としては、左側顎角部付近に圧痛は認められたが、腫脹はみられなかった。また、左側のオトガイ神経領域の知覚異常は認められなかった。口腔内所見としては、 $\overline{67}$ は残根状態で、 $\overline{8}$ には象牙質齶蝕があり、動揺度は M_0 、打診痛(－)であった。病変部の舌側の下顎骨は、触診により陥凹感が認められた。

X線写真所見: $\overline{8}$ 根尖直下約4mmの部位から下顎管を中心に、長径約25mmほどの境界やや不明瞭な単胞性の透過像が認められ下顎管は、下顎孔付近でロート状に拡大していた。また、下縁部では一部辺縁が不明瞭であった。なお、透過像周囲に骨硬化帯は認められなかった(写真1)。

顎下腺造影所見: 静止性骨空洞との鑑別のために左側の顎下腺造影を行ったところ、造影像は正常で、骨透過像との関連性は認められなかった。

臨床検査所見: 血液化学検査で IgA が 353 mg/dl, IgM が 213 mg/dl と高値を示し、血清検査で血清補体価 CH50 が 45.3 U/ml, ASO が 333 Todd 単位と軽度上昇しており、またフェリチンが 269.6 ng/ml, β_2 -マ

イクログロブリンが 2.06 μ g/ml と高値を示していた以外は、AIP, InP, Ca 値は正常範囲内であった。

臨床診断: 左下顎骨囊胞の疑い。

処置および経過: 1989年6月■日入院し、外傷性骨囊胞の疑いのもとに口腔外から試験穿刺を試みたが、内容物を吸引できなかったため、組織生検を施行した。病理組織検査の結果は外傷性病変の疑いであった。同年7月■日全身麻酔下に、口腔外からの切開により下顎骨病変部の摘出、および周囲健全骨を含めた搔爬術と同時に、腸骨および細片海綿骨骨髓移植術を施行した。術中の所見としては、頬側の皮質骨は直径15mmの大きさで消失しており、そこに茶褐色の線維性および瘢痕様組織が下顎管内容物を中心に、取り巻くように存在していた(写真2)。また、舌側でも皮質骨は消失し、線維性組織と骨膜とは癒着していた。これらの所見から骨融解症と考え、この線維性の軟組織を一塊として切除摘出した。切除された材料は、30×20mmの大きさで、楕円形であった。骨移植にあたって、腸骨は、海綿骨を付けた皮質骨を採取後に骨欠損部の概形に合わせてトリミングし、移植を行い、さらに舌側の骨膜側へは細片海綿骨骨髓を填塞した(写真3)。

病理組織学的所見: 瘢痕様の硝子化した密な膠原線維束が主体をなしており(写真4)、一部には肉芽組織や毛細血管の目立つ部分がみられた。さらに、瘢痕様組織が周囲に拡大し、筋組織を巻き込んでいる所見もみられた。下歯槽神経に相当すると考えられる太い神経線維束は正常であったが、動脈は著しく狭小化されていた。また、線維性組織内には多量の鉄色素の沈着が認められた。病変の範囲が比較的限局している点と、X線所見で骨吸収の範囲が比較的明瞭な点が異なるものの、臨床所見、手術所見、ならびに病理組織学的所見を総合して、下顎骨に生じた早期の massive osteolysis と診断した。また、大量の鉄色素の沈着をみることから、外傷性因子が関与していたことが推察された。

骨シンチグラム所見: 術後16日目に施行したが、手術

写真4 手術材料の病理組織像

部位以外への集積は認められなかった。

⁶⁷Ga シンチグラム所見：術後24日目に施行したが、骨シンチと同様に手術部位以外への集積は認められなかった。

術後経過：手術中の下歯槽神経切除のために左側下口唇の知覚麻痺を後遺した。下顎部および左腸骨部の治療状態が良好につき、術後22日目に退院した。

術後2年4か月のX線所見：手術部位は、ほぼ均一なX線不透過像を示し、再発による骨吸収像は認められていない(写真5)。

考 察

Massive osteolysis¹⁾は、1838年の Jackson²⁾による上腕骨に発症した報告が最初である。しかし、まれな疾患であり、その後の報告例は少なく、現在まで国外では約100例のみで、本邦³⁻⁹⁾では10例にもみえない現状にある。また、その成因も不明であるが、その1つに外傷説がある。本症例においても患者は野球部の正選手であり、幾度とない顔面外傷の既往が存在していた。Heffezら¹⁰⁾と Gorham ら¹¹⁾の文献的検索を総合すると、外傷の既往が明確な症例は、56例中27例(48.2%)であり、外傷の既往が全くないものは15例(26.8%)、不明の症例は14例(25%)であった。本疾患に外傷の既往が多いことから、massive osteolysisにおける骨の破壊吸収は、外傷の際に形成された骨髓内血腫が血管腫様病像となり、その機械的圧迫が作用していると考えられている³⁾。本症例でもフェリチンが高値を示し、手術材料で下歯槽動脈の著しい狭小化が認められたことから、上述の説が

写真5 術後2年4か月のパノラマX線写真(拡大像)

支持される。しかし、病変が骨膜下の血管網から生じるものか、あるいは骨髓側から発症する³⁾ものかについては、本症例の検索ではあきらかにできなかった。Heffezら¹⁰⁾と Gorham ら¹¹⁾の報告例および文献的検索の結果を総合して検討すると、本症例のように顎顔面骨¹²⁾に単発性あるいは多発性に発症したものは、56例中10例とわずかであった。それら10例の性別は、男性4例、女性6例ではほぼ性差はなく、全例とも下顎骨が含まれていた。また、外傷を受けやすい下顎角部に多く発生していることから、外傷の既往との関係が示唆される。また、同部における発生については、下歯槽動脈の走行を考えると、骨吸収に関して動脈圧が大きく作用³⁾しているとする説を支持できる。しかし、下歯槽動脈が正常であった症例¹³⁾も報告されており、確定的なことは不明である。

年齢については、20歳代が4例、30歳代が2例、10歳代、40歳代、50歳代、60歳代が各1例となっていた。それらのうち33歳以下の症例が、7例と多数を占め(70%)、外傷との関連が年齢からも示唆された。本症例も33歳であり、好発年齢⁷⁾に含まれており、また、高校時代に硬式野球部に所属し、下顎骨への外傷の既往があった。病巣が下顎管内様物を包含していたことも骨融解症の診断が支持され、病変が進行すると大量の骨融解へと移行することが考えられる。また、Cherrick¹²⁾らの報告例は、下顎骨の巨大な嚢胞様X線透過像を呈していたことや、Johnsonら¹⁴⁾は massive osteolysisの最初のX線学的所見は、不明瞭な斑点状の骨多孔症として観察されると述べていることなどからも、今回の病変は massive osteolysisの初期の病態¹⁵⁾と考えられた。骨融解症に対する骨移植¹⁶⁾に関しては、成功例¹⁷⁾は少なく、ほとんどの症例において移植骨も吸収されている。しかし、早期に病巣を切除できる症例では、進行を予防できる⁵⁾ことから、骨移植が成功する可能性がある。本症例では、比較的限局

性の初期病変であったことが、骨移植後2年4か月を経た現在においても、良好に経過している要因と考えられた。

結 語

今回われわれは、33歳男性の下顎骨に生じた骨融解症に対する腸骨移植の1例を経験した。本症例は、massive osteolysisの初期病変と推察された。また、顎顔面骨に生じた massive osteolysis について文献的に若干の考察を加えた。

引 用 文 献

- 1) Shafer, W.G., Hine, M.K., et al.: A textbook of oral pathology. 4th Edi Saunders Co., Philadelphia, 1974, p 693-694.
- 2) Jackson, J.B.S.: A singular case of absorption of bone (a boneless arm). Boston Med Surg J 18: 368-369 1838.
- 3) 植木壽一, 中村克己, 他: Massive osteolysis. 臨整外 9: 69-78 1974.
- 4) 菊間洋子, 佐藤雅志, 他: 多数歯にわたり歯内吸収を伴った massive osteolysis の1例. 日口外誌 28: 453-458 1982.
- 5) 阿部光俊, 張 紹元, 他: Massive osteolysis について. 整外 26: 347-354 1975.
- 6) 柴田貞彦, 大屋高德, 他: 下顎骨に生じた Massive osteolysis の1例—特にその臨床所見について—. 日口外誌 33: 718-722 1987.
- 7) 有松俊明, 楊 榮展, 他: 下顎骨の massive osteolysisの1例. 口科誌 32: 183-188 1983.
- 8) 小谷庸一, 山本 勇, 他: Massive osteolysis を伴った悪性線維性組織球腫. 臨放 35: 947-948 1990.
- 9) 兼松秋生, 武内章二, 他: Massive osteolysis について. 整外 34: 133-144 1983.
- 10) Heffez, L., Doku, H.C., et al.: Perspectives on massive osteolysis. Report of a case and review of the literature. Oral Surg 55: 331-343 1983.
- 11) Gorham, L.W. and Stout, A.P.: Massive osteolysis. J Bone Joint Surg 37-A: 985-1004 1955.
- 12) Cherrick, H.M., King, O.H., et al.: Massive osteolysis (disappearing bone, phantom bone, acute absorption of bone) of the mandible and maxilla. J Oral Med 27: 67-74 1972.
- 13) Takeda, Y., Kuroda, M., et al.: Massive osteolysis of the mandible. Acta Pathol Jpn 37: 677-684 1987.
- 14) Johnson, P.M. and McClure, J.G.: Observation on massive osteolysis. A review of the literature and report of a case. Radiology 71: 28-42 1958.
- 15) Sage, M.R., Allen, P.W., et al.: Massive osteolysis, Report of a case. J Bone Joint Surg 56-B: 130-135 1974.
- 16) Booth, D.F. and Burke, C.H.: Massive osteolysis of the mandible: an attempt at reconstruction. J Oral Surg 32: 787-791 1974.
- 17) Butler, R.W., McCance, R.A., et al.: Unexplained destruction of the shaft of the femur in a child. J Bone Joint Surg 40-B: 487-493 1958.