静止性骨空洞の総合画像診断について

小笠原利行・石井保雄・林 解平・伊東俊祐
西出直人・玉井 学・岩佐昌典・大野屋雅寛
齋藤 諭・西村 毅*

Combined diagnostic imaging of static bone cavities

Toshiyuki OGASAWARA・Yasuo ISHII・Kaihei HAYASHI
Syunsuke ITO・Naoto NISHIDE・Manabu TAMAI
Masanori IWASA・Masahiro OONOYA・Satoru SAITO
Takeshi NISHIMURA*

Abstract: Computed tomography (CT), CT-sialography and ultrasonography (US) were performed in 3 cases of static bone cavity.

1. Axial CT sections clearly demonstrated defects of the lingual cortex of the mandible.
2. In all three cases, CT-sialography clearly showed a lobulated submandibular gland which occupied the bone defect.
3. US performed in two of the patients, clearly detected the bone defect. The contents in the bone defect were also clearly detected; the internal echo of the contents was hyperechoic and heterogeneous. US was thereby confirmed to be a useful examination for this disease.

Both CT-sialography and conventional sialography were performed in one case to compare differences in the resulting images. Conventional sialography did not clearly demonstrate the spatial relationship between the submandibular gland and bone defect in contrast to CT-sialography. We attributed this difference to mandibular position during the X-ray.

One case in which the buccal cortex at the lesion was thin and distended underwent surgery. The intraoperative and histopathological findings were found to match the diagnostic imagings.

Key words: static bone cavity (静止性骨空洞), CT-sialography (CT ジアログラフィー), ultrasonography (超音波検査)

緒 言

静止性骨空洞は、臨床的には無症状で全身疾患とも無

関係に生じ、下顎角前下方部にみられる嚢胞様骨欠損であり、1942年、Stafne¹⁾ が最初に報告して以来、現在まで多くの報告がみられる。

欠損部の陥入内容物は唾液腺組織をはじめ、脂肪組織、リンパ組織、結合組織、筋肉、血管など種々の存在が確認されているが、本症の成因および病態についてはいまだ明確にされていない。

本疾患の画像診断法としては従来より単純X線、顎下腺造影による診断が主体を占めており、最近ではCTによる検索の有用性が報告されている。

今回、著者らは本症の3例について、従来の撮影法に加え、超音波、CT、CT sialography を用いた総合画像診断を行い、さらに、1例については観血的処置の機会

福井医科大学歯科口腔外科学講座

(主任：石井保雄教授)

* ユニチカ中央病院歯科

(主任：西村 毅)

Department of Dentistry and Oral Surgery,
Fukui Medical School (Chief: Prof. Yasuo Ishii)

* Department of Dentistry, Yunitika Central Hospital (Chief: Takeshi Nishimura)

受付日：平成4年8月12日

写真1 症例1 A: オルソパントモグラフィー所見
B: 顎下腺造影所見
(a: 副顎下腺, b: 顎下腺体)

を得たので、その結果との比較検討を含め若干の考察を加えて報告する。

症 例

症例1

患者: 49歳 女性。

初診: 昭和60年6月■日。

主訴: 右下顎骨X線透過像の精査。

既往歴・家族歴: 特記事項なし。

現病歴: 昭和60年5月、7|疼痛のため某歯科医院を受診、デンタルX線写真で7|根尖部に嚢胞様透過像を認め、歯根嚢胞の疑いで当科を紹介受診した。

現 症

全身所見: 体格、栄養状態ともに良好。

局所所見: 顔貌左右対称、右側顎下リンパ節および右下顎角部の発赤、腫脹、圧痛はなく、またオトガイ部の知覚異常など、神経障害も認められなかった。

画像所見:

(1) オルソパントモグラフィー所見

写真2 症例1 超音波所見
(a: 副顎下腺, b: 下顎骨骨陥凹)

右下顎角前方部に1層の骨硬化帯を有する拇指頭大、単胞性で下部外形線1/3欠損するX線透過像を認めた。下歯槽管の連続性は保たれており、骨欠損部においては頬舌方向への圧排が疑われた。7|歯槽硬線との連続した所見は認められなかった(写真1A)。

(2) 超音波所見

下顎骨下縁舌側部の骨辺縁は陥凹した弧線として描画され、その内に比較的境界明瞭な heterogeneous な顎下腺の小分葉像が描出された(写真2)。

(3) 顎下腺造影所見

a) オルソパントモグラフィー所見

顎下腺造影像ではワルトン管は下顎骨X線嚢胞様透過像の下方を後方に走り、顎下腺体部は嚢胞様透過像の後方で上下に大小の2分葉を呈し、ワルトン管より上後方に分岐した副導管と小分葉が認められた。上方に位置する分葉は下顎骨下部の嚢胞様透過像内への陥入像は認められなかった(写真1B)。

b) CT-sialography 所見

上記の顎下腺造影直後、CT撮影を施行した。右下顎角前方 舌側骨壁部に骨欠損が確認され、そのなかに enhance された二分葉の顎下腺体の小分葉が陥入した画像が鮮明に描出された(写真3)。

臨床診断: 右下顎骨静止性骨空洞。

処置および経過: 上記画像診断の結果より、骨欠損部外側皮質骨は十分な厚みをもち、病的骨折など招来する危険性がないと判断し、以後、X線撮影にて定期的経過観察を行っているが、骨欠損部の変化は全く認められな

い.

症例 2

患者：60歳 女性.

初診：平成2年8月■日.

主訴：7) 抜歯依頼.

既往歴・家族歴：特記事項なし.

現病歴：某歯科医院より7) 抜歯依頼にて当科を紹介受診した.

写真 3 症例 1 CTジアログラフィー所見
(a：副顎下腺，b：顎下腺体)

現 症

全身所見：体格，栄養状態ともに良好.

局所所見：7) 慢性歯根膜炎の局所症状を認めるほか，顔貌左右対称，左顎下リンパ節，左下顎角部に異常所見ならびに自覚症状なく，オトガイ部の知覚異常など，神経症状も認められなかった.

画像所見

(1) オルソパントモグラフィー所見

口内精査のため，オルソパントモグラフィーを撮影．左下顎角前方部に1層の骨硬化帯に囲まれた拇指頭大，半円形単胞性で下部外形線が欠損したX線透過像を認めた．骨透過像上方にはX線透過性の高い下歯槽管の近接する像が認められた(写真4).

写真 4 症例 2 オルソパントモグラフィー所見

写真 5 症例 2 A：CT 所見
B：CT ジアログラフィー所見
(a：副顎下腺，b：顎下腺体)

(2) CT 所見

左側下顎角前下方の舌側骨壁部には、舌側に開放し、顎骨内部へ拡大した骨欠損像を認めた。骨欠損部内には low density mass で満たされていた。なお頬側の骨皮質はやや菲薄になっているものの頬側方向への膨隆などの骨変化像は認められなかった (写真 5 A)。

(3) 顎下腺造影所見

a) CT-sialography 所見

骨欠損部内に enhance された分葉状の顎下腺体の陥入像が描画されたが、欠損部後方部においては、low density area が認められた (写真 5 B)。

臨床診断：左下顎骨静止性骨空洞。

処置および経過：上記診断にて、以後定期的に経過観

察を行っているが、大きさ、形状に変化は認められない。

症例 3

患 者：55歳 男性。

初 診：平成元年 4 月■日。

主 訴：左下顎部 X 線透過像の精査。

写真 6 症例 3 オルソパントモグラフィー所見

写真 7 症例 3 超音波所見
(a : 副顎下腺, b : 顎下腺体)

写真 8 症例 3 A : CT 所見
B : CT ジアログラフィー所見
(a : 副顎下腺, b : 顎下腺体)

既往歴：糖尿病にて現在通院加療中。

家族歴：特記事項なし。

現病歴：51う蝕加療のため某歯科受診。同医のオルソパントモグラフィーで、左下顎骨部に嚢胞様X線透過像を認め、精査のため当科を紹介受診した。

現 症

全身所見：体格、栄養状態ともに良好で、空腹時血糖は91～120にコントロールされている。

局所所見：左下顎角部に境界明瞭な骨様硬の腫脹が触知されるが、局所の発赤、圧痛、オトガイ部の知覚麻痺などの他覚的、自覚的な異常所見は認められなかった。

画像所見：

(1) オルソパントモグラフィー所見

左下顎角部前下方部に拇指頭大で、周囲は1層の骨硬化帯により囲まれ橢円形単胞性の骨透過像が認められた。骨透過像部では下歯槽管は上方に圧排されていた(写真6)。

(2) 超音波所見

下顎骨舌側骨縁に sonolucent な弧線として描画された骨欠損部が認められ、その内に heterogeneous な顎下腺の小分葉像が描出され、さらにその内側に顎下腺体部が描画された(写真7)。

(3) CT 所見

左下顎角前下方舌側骨壁部に舌側に開放した骨欠損が認められ、頰側の骨皮質は菲薄化し外側に膨隆していた。また骨欠損部内には軟組織と思われる low density mass の陥入像が認められた(写真8A)。

(4) 顎下腺造影所見

a) CT-sialography 所見

骨欠損部内全体に enhance された多分葉の顎下腺組織の陥入像が認められ、単純CTでみられた骨欠損部内の軟組織像の形態と一致していた(写真8B)。

臨床診断：

左下顎骨静止性骨空洞。

処 置：上記画像診断の結果より、骨欠損部頰側皮質骨が菲薄であり、病的骨折を招来する可能性が危惧されたため、手術適応と考え全身麻酔下で摘出術を施行した。

手術所見：骨欠損部内には正常唾液腺と連絡した分葉状副顎下腺を認め、欠損部頰側皮質骨は菲薄で暗紫色を呈していた。術中、骨欠損部と唾液腺との位置関係を検討するために下顎骨を前方に牽引すると骨欠損部内の顎下腺は内側後方に移動牽引されて可動性を認め、顎骨欠損部内は空隙を生じた(写真9A)。陥入している副顎下腺を顎下腺体部より結紮、切離して除去した。なお、菲薄な頰側皮質骨は除去し、欠損部内にはフィブリン接着剤(ペリプラストP®)を用いて、人工骨の結晶化ガラス顆粒を填塞した(写真9B)。

摘出物所見：大きさは18×20mm、弾性軟、多分葉を呈する顎下腺組織であった(写真10A)。

写真9 症例3 A：手術所見

B：結晶化ガラス填塞時所見

(a：副顎下腺，b：顎下腺体)

病理組織所見：

正常顎下腺組織(写真10B)。

経過：術後、左オトガイ部に軽度の知覚異常が認められたが、術後1週間で軽快した。なお術後顎下腺の唾液分泌機能に異常所見は認められない。術後3か月のCT像では填塞した結晶化ガラス顆粒は安定、硬化し良好な経過が認められ現在経過観察中である(写真11)。

考 察

本症は、Stafne¹⁾が1942年に、臨床的に無症状で下顎骨体部にX線上、嚢胞様透過像を呈した34症例に対し、“bone cavities situated near the angle of the mandible”と題して報告したのが最初である。名称に関しては、static bone cavity^{2,3)}、developmental bone defect^{4,5)}、latent bone cyst^{6,7)}、lingual mandibular bone cavity^{8,9)}、aberrant submandibular gland tissue in the mandible^{10,11)}などと報告者によりさまざまで、いまだ統一されていない。しかし、嚢胞腔を有さない下顎骨舌側の骨陥凹であるという点で見解は一致している。

発生頻度は、オルソパントモグラフィーにより検索した本邦および諸外国の報告^{3,5,12,13)}によると、207～372

写真 10 症例 3 A: 摘出物所見
B: 病理組織所見 (×100)

例に 1 例とそれほどまれな疾患ではないとされてきている。

成因については、Stafne¹⁾ の下顎角部における軟骨残遺説、Fordyce¹⁴⁾ による顎の発育異常説、Jacobs¹⁵⁾ の顎骨形成期の隣接軟組織による組織陥入説、Thoma⁷⁾ の動脈瘤説、Rushton ら¹⁶⁾ の solitary bone cyst の圧迫残遺説、Choukas ら¹⁷⁾ の顎下腺肥大による骨融解説など、諸説報告されいまだ定説をみないが、現在では後天的に周囲軟組織により骨への圧迫吸収によって生じるとする意見^{7,17-19)} が大半のようである。

今回著者らが経験した 3 例は、全例、副顎下腺の形成および顎下腺体の肥大が認められた。成因としてはまず先天的に副顎下腺の形成異常が存在し、肥大した副顎下腺の圧迫と次いで唾液分泌機能の変化など骨へのなんらかの後天的要因として長期間の骨への圧迫刺激が加わり、局所的骨吸収を生じたものと推測された。

本症は大部分が、無症状で機能障害や異常などを認めないため、画像診断においては一般 X 線撮影によるものが主体であったが、唾液腺との関連性を検索するため 1960 年、Seward²⁰⁾ により顎下腺造影が施行され、Oikarinen ら²¹⁾ や田畑²²⁾ は、ステレオ撮影による顎下腺造影を試みている。

写真 11 症例 3 術後 3 か月 CT 所見

この顎下腺造影検査の有用性に関しては従来より多数報告がみられる^{5,6,14,20-26)}。

一方、竹之下²⁷⁾ や D' Eramo ら²⁸⁾ は、造影検査では明瞭に診断できなかったと報告している。また、Seward²⁰⁾ や有地²⁹⁾ は単純造影検査の側面像では、顎骨と腺体とが重複するため両者の関係を把握するためには、咬合撮影や斜位像など多方向からの検索が必要であると述べている。

最近では、CT による検索が有用であるとの報告もみられる²³⁾ が、実際に、CT 像を供覧報告しているものは少なく^{23-25,29,30)}、さらに CT-sialography を呈示したものとしては、有地²⁹⁾、井上³⁰⁾ の報告をみるに過ぎない。

今回著者らは 3 症例に対し CT 検査を施行し、症例 1 については、従来の顎下腺造影との比較を行うため顎下腺造影後、オルソパントモグラフィーと、CT の両者による検査を施行した。その結果、CT-sialography においては、骨陥凹内の腺体組織の造影像を明瞭に描画し得たが、オルソパントモグラフィーでは腺体の陥入は認められなかった。

今回のオルソパントモグラフィーと CT-sialography との所見の相違は、症例 3 の術中所見の結果より、オルソパントモグラフィー撮影時、下顎を切端咬合位まで前突させるためにそれに伴う顎下腺組織を含む軟組織の後下方への移動によるものと考えられ、撮影時の下顎位についても考慮する必要があると思われる。その点、CT 撮影時では安静仰臥位で下顎骨周囲軟組織が生理的な状態を保持しつつ撮影することが可能であり、上記の問題

点は解消されるものと思われた。また、本症の特徴である下顎骨舌側に開放した骨欠損の描出²⁹⁾、さらにその内に顎下腺造影像が明瞭に陥入している像を描画でき、病態の把握および他の類似疾患との鑑別が容易であった。

近年口腔領域の各種疾患に対して非侵襲的で簡便である利点から超音波検査が繁用されている^{31~33)}が、従来より一般に軟組織に対する検査法として用いられており、硬組織疾患に対する応用³³⁾は少ないようである。今回著者らは本症に対し検索を試みたが、下顎骨骨欠損状態、陥入内容物および両者の関係を簡便に描画でき、本症の疑いに際して CT-sialography に先がけ first choice とする有用性が認められた。

骨陥凹内内容物に関しては、本邦報告例の文献的集計^{18, 29, 34, 35)}によると、唾液腺組織が大多数を占め他にリンパ組織、脂肪組織、結合組織がみられ、諸外国では、血管⁷⁾、筋組織⁸⁾などが報告されている。今回の著者らの治験例では、超音波検査および CT による画像診断の結果から、3 症例とも分葉状を呈した副顎下腺組織の陥入が認められた。特に症例 3 においては、外科的処置の結果、手術所見および病理組織学的所見と画像診断は一致した結果が得られた。

以上、本症の診断として単純 X 線検査により本症が疑われた場合、さらに超音波、CT により骨陥凹状態を 3 次元的に把握し、陥凹内内容物の確認については顎下腺組織が大半であることより、著者らは CT-sialography による併用が臨床診断上きわめて有用であると考えている。また、陥凹内内容物が唾液腺以外であった場合においても、今後 CT 値の計測^{29, 30)}、超音波検査による症例の蓄積により内容物の推定が可能になると思われる。CT のスライス方向については症例 3 のように欠損部頰側皮質骨が膨隆、非薄化している症例の場合、今後発育増大する可能性を示唆しており、本症の病態の把握には矢状面よりも水平面における骨欠損部の観察が重要と思われる。

本症の処置に関しては、Stafne¹⁾ は、5 症例につき、11 年間の経過観察を行い骨欠損部の大きさに変化は認められなかったと述べ、後に Tolman⁴⁾ は X 線像上正常であった 2 例で、1 例は 7 年後、1 例は 10 年後に本症の出現を認めたと報告しているが、一般的に機能障害や自覚症状を認めなければその処置は必要なく、X 線的に経過観察を行うとする意見^{22, 24, 26, 34, 35)}が大半のようである。しかし、内容物が多形性腺腫であったという Simpson³⁶⁾ の報告や、最近では外科的摘出後、欠損部の化骨形成を認めたという報告³⁷⁾もみられる。著者らの症例 3 のように発育増大傾向を示唆しているものは“developmental bone defect”の名称が示す状態であり、従来の static な状態とは病態が異なり注意を要するものと思われた。

そこで、本症の病態と陥入内容物との関係を検討する

ため、過去の報告例のうち著者らが渉猟し得た範囲で developmental な病態を示し、かつ内容物の確認を行ったもの 9 例の内在組織をみると、正常唾液腺組織 4 例^{14, 38~40)}、脂肪組織 2 例²⁹⁾、多形性腺腫 1 例³⁶⁾、粘液腺組織 1 例⁴¹⁾、筋組織 1 例⁴²⁾と多彩であった。少数例ではあるがこの結果より、病態と陥入内容物には特定の関連性は認められなかったが、いずれにせよ本症の成因に関して明確でない現在、static なものか、developmental なものかを的確に画像診断などで鑑別する必要があり、もし後者であった場合は積極的な治療も許容されると著者らは考えている。

結 語

静止性骨空洞の 3 例に対し、CT、CT-sialography、超音波による総合画像診断を施行し、下顎骨欠損部内に副顎下腺の小分葉の陥入像が認められた。さらに、1 例については観血的処置を行い、その術中所見と画像診断所見は一致した結果が得られた。

引 用 文 献

- 1) Stafne, E.C.: Bone cavities situated near the angle of the mandible. J Am Dent Assoc 29: 1969-1972 1942.
- 2) Bernstein, H.F., Lam, R.C., et al.: Static bone cavities of the mandible: review of the literature and report of case. J Oral Surg 16: 46 1958.
- 3) Karmiol, M. and Walsh, R.F.: Incidence of static bone defect of the mandible. Oral Surg 26: 225-228 1968.
- 4) Tolman, D.E. and Stafne, E.C.: Developmental bone defects of the mandible. Oral Surg 24: 488-490 1967.
- 5) 江原昌弘, 内海 潔, 他: いわゆる Developmental bone defect の 24 症例のエックス線写真の検索. 齒放 17: 44-51 1977.
- 6) 西嶋克巳, 友沢 基, 他: いわゆる Latent bone cyst の 1 例. 日口外誌 15: 205-208 1969.
- 7) Thoma, K.H.: Case report of a so called latent bone cyst. OS OM OP 8: 963-966 1955.
- 8) Olech, E. and Arora, B.K.: Lingual mandibular bone cavity. Oral Surg 14: 1360-1366 1961.
- 9) Hansson, L.: Development of a ligual mandibular bone cavity in an 11-year-old boy. Oral Surg 49: 376-378 1980.
- 10) Stene, T. and Pederson, K.N.: Aberrant salivary gland tissue in the anterior mandible. Oral Surg 44: 72-75 1977.

- 11) Araiche, M. and Brode, H.: Aberrant salivary gland tissue in the mandible. *Oral Surg* 12: 727-729 1959.
- 12) Correll, R.W., Jensen, J.L., et al.: Lingual cortical mandibular defects. *Oral Surg* 50: 287-291 1980.
- 13) 佐藤 眞, 小松久高, 他: いわゆる Developmental bone defect エックス線学的観察, 岡山歯誌 3: 127-131 1984.
- 14) Fordyce, G.L.: The probable nature of so-called latent haemorrhagic cysts of the mandible. *Brit Dent J* 101: 40-42 1956.
- 15) Jacobs, M.H.: The traumatic bone cyst. *OS OM OP* 8: 940-949 1955.
- 16) Rushton, M.H. and Cantab, B.Ch.: Solitary bone cysts in the mandible. *Brit D J* 81: 37-49 1946.
- 17) Choukas, N.C. and Toto, P.D.: Etiology of static bone defect of the mandible. *J Oral Surg* 18: 16-20 1960.
- 18) 伊藤輝夫, 曾我宏世, 他: 下顎眼局性骨欠損および骨腔の臨床病態とその成因に関する考察, 口科誌 23: 441-451 1974.
- 19) Harvey, W. and Noble, H.W.: Defects on the lingual surface of the mandible near the angle. *Br J Oral Surg* 6: 75-83 1968.
- 20) Seward, G.R.: Salivary gland inclusions in the mandible. *Brit Dent J* 108: 321-325 1960.
- 21) Oikarinen, V.J., Wolf, J., et al.: A stereosialographic study of developmental mandibular bone defects (Stafne's idiopathic bone cavity). *Int J Oral Surg* 4: 51-54 1975.
- 22) 田畑 修, 黒木敏士, 他: 顎下腺造影により確認された“Static Bone Defect”の一例, 歯放 22: 348-349 1983.
- 23) Shiratsuchi, Y., Tashiro, H., et al.: Posterior lingual mandibular bone depression. *J Oral Maxillofac Surg* 15: 98-101 1986.
- 24) 高谷康男, 西嶋克巳, 他: Idiopathic Bone Cavity の 2 症例 および その文献的考察, 口科誌 34: 225-232 1985.
- 25) Uemura, S., Fujishita, M., et al.: Radiographic interpretation of so-called developmental defect of mandible. *Oral Surg* 41: 120-127 1976.
- 26) 飯野ゆき子, 草刈 潤, 他: いわゆる Static bone defect の 1 症例, 耳喉 49: 645-651 1977.
- 27) 竹之下康治, 友寄喜樹, 他: 下顎骨の後方舌側骨陥凹 (Stafne's idiopathic bone cavity) について, 日口外誌 25: 1457-1468 1979.
- 28) D'Eramo, E.M. and Poidmore, S.J.: Developmental submandibular gland defect of the mandible: Review of literature and report of a case. *Oral Surg* 39: 14-19 1975.
- 29) 有地栄一郎, 田畑 修, 他: いわゆる Stafne's bone cavity 3 例の CT による検索, 口科誌 37: 303-314 1988.
- 30) 井上照夫, 井田端枝: CT-Sialography による静止性骨空洞の観察, 歯放 25: 22-23 1985.
- 31) Chodosh, P.L., Silibey, R., et al.: Diagnostic use of ultrasound in diseases of the head and neck. *The Laryngoscope* 90: 814-821 1980.
- 32) Shawker, T.H., Sonies, B.C., et al.: Soft tissues anatomy of the tongue and floor of the mouth: An ultrasound demonstration. *Brain and Language* 21: 335-350 1984.
- 33) 小林明男: 顎骨疾患に関する超音波医学的研究, 日口外誌 30: 257-273 1984.
- 34) 和田 明, 林 洋紀, 他: 静止性骨空洞の 6 例, 日口外誌 30: 185-191 1984.
- 35) 大谷端夫, 泉 誠一, 他: いわゆる Static bone defect の 3 症例, 日口外誌 26: 804-809 1980.
- 36) Simpson, W.: A Stafne's mandibular defect containing a pleomorphic adenoma: report of case. *J Oral Surg* 23: 553-556 1965.
- 37) 池本公亮, 石川武憲, 他: Stafne 氏静止性骨空洞の 2 症例, 日口外誌 35: 2716-2722 1989.
- 38) 倉科憲治, 北和田信吾, 他: Static bone cavity の 1 例, 口科誌 27: 69-73 1978.
- 39) 佐藤泰則, 埜口五十雄, 他: 顎下腺造影により診断した静止性骨空洞の 1 例, 日口外誌 34: 1437-1443 1988.
- 40) 柴田 肇, 江良謙次, 他: 増大傾向を示した静止性骨空洞に対する手術後の経過(抄), 日口外誌 2: 273 1989.
- 41) Camilleri, G.: Salivary gland inclusion in the mandible. *Brit Dent J* 114: 515-516 1963.
- 42) 古川博雄, 岩瀬雅彦, 他: 腫瘍を疑わしめた静止性骨空洞の 1 例(抄), 日口外誌 34: 2331-2332 1988.