下顎骨に発生した骨肉腫の2例

真野隆充・上山吉哉・三崎昌和・松村智弘

Two cases of osteosarcoma of the mandible

Takamitsu MANO・Yoshiya UYAMA・Masakazu MISAKI・Tomohiro MATSUMURA

Abstract: Osteosarcoma of jaws does not always have characteristic clinical symptoms or X-ray findings. Moreover, the disease is sometimes difficult to diagnose histopathologically even based on biopsy specimens. Here, two cases of osteosarcoma of the mandible, which were difficult to diagnose definitely, are reported.

Case: A 38-year-old female complained of paresthesia of the mental region. Osteomyelitis was suspected on clinical examination. A biopsy was performed, but a definitive diagnosis could not be established. Subsequently, the swelling increased and the radiological examination showed a 'sun-ray' appearance. On histopathological re-examination, a diagnosis of osteosarcoma was established.

Case 2: A 38-year old male complained of paresthesia of the left lower lip and swelling of the buccal gingiva of the left lower premolar region. A biopsy was performed under a clinical diagnosis of a malignant tumor of the mandible. However, the histological diagnosis was an aneurysmal bone cyst. After total enucleation, a diagnosis of osteosarcoma was histopathologically established.

Key words: osteosarcoma (骨肉腫), mandible (下顎骨), diagnosis (診断)

緒 言

顎骨に発生する骨肉腫は比較的まれな疾患で、特徴的な臨床症状やX線所見を有しないことが多く、さらに、生検による病理組織学的所見でも、部位により多彩な像を示すため、他の疾患との鑑別が難しく、診断に苦慮することがある。今回われわれは生検を含めた臨床検査で、確定診断が困難であった下顎骨骨肉腫の2例を経験したので、若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

症例1: 38歳 女性

初 診: 昭和63年3月■日

主 訴: 左側オトガイ部の知覚麻痺

現病歴: 昭和63年2月■左側臼歯部に冷水痛を覚え、某歯科にて「4」の抜髄処置を受けたが、2月■より左側オトガイ部の知覚麻痺を生じたため3月■当科を紹介され来院した。

口腔外所見: 左側オトガイ部に知覚麻痺を認めるほかには特に異常所見はなかった。

口腔内所見: 「4-6」歯肉頬移行部に無痛性の骨様硬の膨隆を認め、「4」には軽度打診痛が存在した。

X線所見: パノラマX線写真では「4-6」根尖相当部にびまん性の骨吸収像と、その周囲に骨硬化像を認めた。またデンタルX線写真では「6」の歯槽硬線は消失していた。

臨床診断: 左側慢性下顎骨骨髓炎の疑い

処置および経過: 上記診断にて抗生剤の投与および「4」の根管治療を行ったが、知覚麻痺や腫脹が軽減しないため、4月■日、腫脹部より生検を行った。生検材料では、紡錘型あるいは類円型の核を有する腫瘍細胞が粘液様の間質を伴い疎に増殖している部位と、線維成分に富む比較的細胞密度の高い部位が認められ、線維腫の疑いとの診断を得た(写真1A)。その後

岡山大学歯学部口腔外科学第2講座

(主任: 松村智弘教授)

Department of Oral and Maxillofacial Surgery II,
Okayama University Dental School (Chief: Prof.
Tomohiro Matsumura)

受付日: 平成5年9月20日

写真 1 A; 症例 1: 初回生検材料の病理組織像 (H-E 染色) の弱拡大
B; 症例 1: 2 回目生検材料の病理組織像 (H-E 染色) の強拡大

写真 2 A; 症例 2: 初回生検材料の病理組織像 (H-E 染色) の弱拡大
B; 症例 2: 初回摘出材料の病理組織像 (H-E 染色) の強拡大

「4-6」部頬舌的に腫脹の増大を認めたため、再度 X 線撮影を行い、「4-6」根尖部の透過像の増大、皮質骨破壊、sun-ray appearance の所見を得た。そこで 5 月 11 日再度生検を行った結果、1 回目の生検材料と比較して異型性の強い腫瘍細胞が不規則な類骨を形成し、増殖しているのが観察され、また多数の核分裂像も認められたことから、最終的に骨肉腫と診断された (写真 1B)。このため 5 月 11 日、腫瘍を含む下顎骨半側切除術、左上頸部郭清術、A-O plate による下顎骨再建術を施行した。術後 Adjuvant Chemotherapy として、MTX-CF 療法を 5 クール、ADM を 4 クール施行した。術後約 6 年を経過した現在、再発、転移を認めず経過良好である。

症例 2: 38 歳 男性

初 診: 平成元年 5 月 11 日

主 訴: 左側下唇知覚麻痺

現病歴: 平成元年 2 月頃より左側下顎臼歯部の無痛性腫脹を自覚したが、その他に症状はなく放置していた。同年 5 月 11 日より左側下唇の知覚麻痺が出現したため、5 月 11 日某歯科医院を受診し、同院にて X 線検査を受けたところ、左側下顎体部に X 線透過像を認めたため、当科を紹介され来院した。

口腔外所見: 左側下唇に知覚麻痺を、また左側下顎体部には軽度の腫脹を認めた。

口腔内所見: 「67」歯肉頬移行部に境界明瞭な波動を触知する腫脹を認めた。また「3-7」に打診痛を認めた。

X 線所見: パノラマ X 線写真より「5-7」根尖から下顎下縁にかけて、境界不明瞭な X 線透過像がみら

れ、下顎下縁皮質骨は菲薄化していた。また CT 像で、左側下顎骨に頬舌側皮質骨の破壊を認めた。

臨床診断: 下顎骨悪性腫瘍の疑い

処置および経過: 上記診断にて 5 月 11 日生検を施行した。生検は「6」根尖部頬側歯肉より行い、肉眼的には非充実性で嚢胞様であり、内腔より多量の出血を認めた。病理組織学的検索では血液を含む大小不規則な管腔様構造がみられ、その周囲に大型の円形核と、比較的豊かな胞体をもつ細胞が密に増殖していた。また部位により類骨の形成、多数の多核巨細胞の出現が認められ、脈瘤性骨嚢胞との診断を得た (写真 2A)。そこで 6 月 11 日嚢胞摘出術を施行した。手術所見では、嚢胞様壁は「67」根尖と接触はなく、「6」根尖下方から「8」後方に及ぶ骨欠損を認めた。摘出材料の病理所見では、異型性の強い腫瘍細胞が密に増殖し、多数の核分裂像が散見された。またこれらの腫瘍細胞が不規則に類骨を形成しているのが認められ、骨肉腫との診断を得た (写真 2B)。このため 7 月 11 日腫瘍を含む下顎骨連続離断術、左上頸部郭清術、A-O plate による下顎骨再建術を施行した。術後 Adjuvant Chemotherapy として、MTX-CF 療法を 3 クール、ADM を 4 クール施行した。術後外来にて経過観察を行っていたが、平成 3 年 11 月 X 線検査にて前方骨断端部に再発を認めたため、平成 3 年 12 月 11 日腫瘍を含む下顎骨離断術を施行した。現在外来にて経過観察中である。

考 察

顎骨骨肉腫は四肢原発の骨肉腫と比べ、その発生年

齢・症状・予後などに相違がみられる¹⁾。特に顎骨骨肉腫は初期症状に乏しく、X線や生検による診断も容易でなく確定診断に苦慮する場合が多いと報告されている^{2,3)}。

初期症状として両症例ともに無痛性腫脹と知覚麻痺を認めたが、これら症状は今までの報告にも初期症状の一つとして記載されている^{3,4)}。症例1では局麻下抜髄によるオトガイ神経の損傷の可能性があったが、下顎の知覚麻痺は下歯槽神経に浸潤した悪性腫瘍において特徴的な症状であり、知覚麻痺が存在する場合、悪性腫瘍を疑う必要がある。さらに四肢原発例の大多数の症例に出現する疼痛を顎骨原発例で認めることは少なく、自験例のように無痛性腫脹である場合が多い³⁾。

骨肉腫のX線像は石灰化物の占める割合で骨破壊型、骨硬化型、およびその混合型の3つの像に分けられ、さらに骨膜反応による sun-ray appearance が特徴的であると言われている^{5,6)}。今回の両症例とも初診時X線像では骨破壊性の像を呈していたが、sun-ray appearance はともに初診時の撮影では認められなかった。ただ症例1にて生検後腫瘍増大時に再撮影したときに確認されたが、X線投影方向によりたまたま発見されたとも考えられる。奥山ら⁷⁾は顎骨骨肉腫の特徴として、骨硬化像や骨膜反応の欠如例が多く、さらに解剖学的に鮮明な像が得にくい点からもX線診断は長管骨骨肉腫よりもはるかに困難であると報告している。また他に特徴的なX線所見として歯根膜腔の拡大や下顎管の拡大が報告されているが^{2,6)}、両症例とも歯根膜腔の拡大は認められず、下顎管の拡大についても明示できなかった。症例1では古川ら⁸⁾が特徴的なX線所見の1つにあげている歯槽硬線の消失が認められた。

確定診断を得るために行われる生検においては、採取部位により多彩な像を示すため一ヶ所からの検索や、小部分のみの検索では確定診断がつきにくく⁴⁾、さらに顎骨領域の骨肉腫では、異型性や核分裂像が少なく、類骨の形成も少量である症例が多いため診断が困難となると報告されている⁹⁾。症例1では最初の生検で確定診断を得ることはできず再生検を余儀なくさせられた。この症例の摘出材料を検討したところ、部位により多彩な像を示しており、1回目の生検材料では異型性の乏しい部分が採取され、本来の異型性の強い悪性腫瘍組織が含まれていなかった可能性が考えられる。症例2では、生検材料で類骨の形成および多核巨細胞

が認められた。これらは骨肉腫でも認められるものであるが悪性所見はなく、また血液を含む管腔様構造がみられることより脈瘤性骨嚢胞との診断を得た。また特に顎骨原発の同疾患は四肢原発に比べ腫瘍細胞の異型性は軽度であるとも言われており^{4,9)}、そのため良性・悪性の鑑別に苦慮することがある。Lindqvistら²⁾も初回の生検で骨肉腫との診断を得たものは9例中3例で、全症例の確定診断を得るまでに要した期間は平均6か月であったと報告している。両症例とも最終的に腫瘍性類骨の形成が確認され骨肉腫と診断された。

結 語

診断に苦慮した下顎骨骨肉腫の2例を経験し、確定診断の困難さを中心に若干の文献の考察を加えて報告した。従来からの報告にあるように臨床的に知覚麻痺が存在する場合は、悪性腫瘍を念頭におく必要のあることを再認識させられた。

文 献

- 1) Clark, J.L., Unni, K.K., et al: Osteosarcoma of the jaw. *Cancer* 51: 2311-2316 1983.
- 2) Lindqvist C., Teppo L., et al: Osteosarcoma of the mandible: Analysis of nine cases. *J Oral Maxillofac Surg* 44: 759-764 1986.
- 3) 樋口勝規, 田代英雄, 他: 顎骨骨肉腫の臨床的・病理組織学的検索. *日口外誌* 30: 1575-1586 1984.
- 4) 三浦尚徳, 野谷健一, 他: 下顎骨に生じた骨肉腫の2例. *日口外誌* 35: 893-904 1989.
- 5) Stafne, E.C. and Gibilisco, J.A.: *Oral roentgenographic Diagnosis*, 4th Ed, W.B. Saunders Co, Philadelphia, 1975, p213-214.
- 6) Soderholm Anna-Lisa, Lindqvist, C., et al: Bone resection in patients with mandibular sarcoma. *J Cranio-Max-Fac Surg* 16: 224-229 1988.
- 7) 奥山武雄, 堀内淳一, 他: 顎骨骨肉腫—13症例の分析—. *日医放射会誌* 42: 281-287 1982.
- 8) 古川惣平, 藤下昌巳, 他: 顎骨に於ける骨肉腫のX線学的検討. *齒放* 22: 8-16 1982.
- 9) 佐藤博道, 藤田 甫, 他: 顎骨骨肉腫—自験2例と本邦報告23例の文献的考察—. *癌の臨床* 26: 75-80 1980.