顎骨に発生した脈瘤性骨嚢胞の2例

佐々木 朗・西山明慶・三崎昌和
岩田光弘・松村智弘

Two cases of aneurysmal bone cysts in the jaw

Akira SASAKI・Akiyoshi NISHIYAMA・Masakazu MISAKI
Mitsuhiro IWATA・Tomohiro MATSUMURA

Abstract: Aneurysmal bone cyst is a benign cystic lesion of bone, and the incidence of this disease in the jaw is low. We reported two cases of aneurysmal bone cyst of the jaw. A 31-year-old woman presented with complaints of pain and swelling at the left side of the face. Since X-ray and CT-scan suggested a cystic lesion, cystectomy was performed. The lesion was histologically diagnosed to be an aneurysmal bone cyst. The other patient, a 40-year-old man, showed swelling at the right mandible. The patient's occlusion was impaired by the gingival swelling. X-ray findings showed the presence of a honeycomb-like lesion at the body and ramus of the mandible. CT-scan findings showed buccal and lingual expansion at the molar region. Microscopic features of the biopsy specimen were consistent with diagnosis of an aneurysmal bone cyst. We performed conservative curettage of the lesion. The post-operative courses of both of these cases were uneventful, and there has been no sign of recurrence after 7 years and 4 years, respectively.

Key words: aneurysmal bone cyst (脈瘤性骨嚢胞), cystic lesion (嚢胞性疾患), jaws (顎骨)

緒 言

脈瘤性骨嚢胞は1942年にJaffeおよびLichtenstein¹⁾によって他の孤在嚢胞性骨疾患と異なる独立した病変として報告されたが、その多くは長管骨や脊椎に発症し顎骨における発生頻度は低いとされている^{2~4)}。今回、われわれは顎骨に発生した脈瘤性骨嚢胞の2例を経験したので報告する。

症 例

患者1: 61歳, 女性。

初 診: 昭和62年5月■日。

主 訴: 左側眼窩下部の腫脹。

家族歴: 特記事項なし。

既往歴: 31歳, 肺結核, 59歳, メニエール病。

現病歴: 昭和60年頃より左側眼窩下部の無痛性腫

脹を自覚するも放置。昭和62年2月より同部に自発痛, 圧痛を認め、同年4月某歯科を受診し消炎処置を受けたが症状消失せず精査を目的に当科紹介され来院した。

現 症: 体格中等度, 栄養状態良好で、口腔外所見では、左側眼窩下部に圧痛を伴った骨様硬の腫脹を認め、左眼より流涙を認めた。口腔内所見では、13から16相当歯肉頬移行部に軽度圧痛を伴ったび慢性腫脹を認めた。

X線所見: 単純X線写真では左側上顎洞内に比較的境界明瞭な単胞性透過像を認めた。水平断CTでは、ややエンハンスされた充実性の軟組織様物が左上顎洞に充満し上顎洞壁を周囲に圧迫しており、内部は一部隔壁様の不透過像を伴っていた(写真1)。

臨床診断: 左側上顎嚢胞。

処置および経過: 昭和62年6月■日、口腔内より生検施行したが病理診断では確定できなかった。生検時、血清様内容液を認めたため、臨床的に上顎嚢胞を疑い、7月■日全麻下にて嚢胞摘出術を施行した。左側上顎洞内を占める肥厚した嚢胞壁を認め、骨との剥離は容易であり嚢胞を一塊として摘出した。術後7年

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6年8月22日

写真1 患者1のCT像(水平断)

写真3 患者2のオルソパントモグラム

写真2 患者1の病理組織像

- A. 弱拡大像
B. 強拡大像 嚢胞壁に多核巨細胞を認める。
C. 強拡大像 骨新生像。

写真4 患者2のCT像(前頭断)

経過した現在、再発もなく経過良好である。

病理組織学的所見：嚢胞壁は毛細血管に富む線維性結合組織より構成され、嚢胞腔内には血液成分の存在を認めた(写真2A)。また嚢胞壁の一部には多核巨細胞や骨組織の形成を認め脈瘤性骨嚢胞と診断された(写真2B, C)。

患者2：40歳、男性。

初診日：平成2年8月■日。

主訴：開口障害。

家族歴、既往歴：特記事項なし。

現病歴：昭和60年頃より咀嚼時に右側頬粘膜を噛むことが多かったが放置、平成2年8月■日、右側咬筋部に開閉口時痛を自覚、さらに同部に腫脹出現し軽度の発熱がみられた。翌■日某内科受診、右側顎関節症の疑いにて当科を紹介され来院した。

現症：体格は中等度、栄養状態は良好であった。口腔外所見では、開口量は24mm、右側咬筋相当部に

骨様硬の腫脹を認めた。直径約10mm、弾性軟の右側顎下リンパ節を触知したが、圧痛は認めなかった。口腔内所見では71部から下顎枝上方にかけて頬舌的に骨様硬の腫脹を認め、同部歯肉粘膜には咬傷による白斑を認めた。

X線所見：オルソパントモグラムでは71から右側下顎切痕におよぶ内部蜂巣状の構造を有するX線透過像を認めた(写真3)。前頭断CTでは右下顎枝を中心に頬舌的ならびに上方に膨隆を示す多胞性の病変を認め、皮質骨は菲薄化していた。嚢胞腔内部は軟組織もしくは液状成分を思わせる像を示した(写真4)。

臨床診断：歯源性腫瘍もしくは線維-骨性病変。

処置および経過：初診時、試験穿刺で膿汁様内容液の混在した茶褐色の血清様内容液を吸引し、生検では脈瘤性骨嚢胞の診断を得た。そこで術前に血管造影を施行したが造影剤の嚢胞への集積は認めなかった。平成2年11月■日、全身麻酔下に嚢胞を摘出した後に創腔を搔爬し、術創は開放創とした。病変は菲薄な骨により隔てられた多数の小腔よりなり内部には血液を伴う暗赤色の易出血性軟組織を認めた。術後4年経過した現在、嚢胞摘出部は新生骨により置換し再発もなく経過良好である。

病理組織学的所見：嚢胞腔内に血液成分を認め、嚢胞壁は毛細血管に富む線維性結合組織よりなり出血巣やヘモジデリンの沈着を認めた。またセメント質様硬組織を形成する部位も認めた(写真5A)。嚢胞壁には骨の新生像や多核巨細胞が多く認められ、脈瘤性骨嚢胞と診断された(写真5B, C)。

写真5 患者2の病理組織像

- A. 弱拡大像
B. 強拡大像, 嚢胞壁に多数の多核巨細胞を認める。
C. 強拡大像, 骨新生像を認める。

考 察

脈瘤性骨嚢胞は、WHO 分類では non-neoplastic bone lesion に分類される疾患で、特徴的な臨床症状に乏しく、X線的にも単胞性、多胞性、蜂巣状と多様であるため、他の顎骨中の嚢胞性疾患や歯源性腫瘍などの鑑別診断がきわめて困難であり、手術材料により診断が確定することが多い。本邦における報告例のうち臨床診断の段階で脈瘤性骨嚢胞を疑い得た症例⁵⁻⁹⁾はいずれも血液性の穿刺内容液や歯肉出血を認めており血液の存在は本疾患の診断において非常に重要な所見と思われる。Reiter ら⁴⁾は術中所見で 106 例中 65 例にのみ血液が存在していたことを報告しており、自験例のように明確な血液を認めない場合では生検が診断上必要となる¹⁰⁾。しかしながら本疾患が、線維骨性病変や巨細胞性病変と類似した像を示すためその鑑別は重要である。また血管造影が有効であるとの報告もあるが^{8, 9, 11)}、症例 2 を含め造影剤の集積を認めないことも多く⁶⁾、その診断的価値は不明である。しかし大出血を回避するための栄養血管の結紮など術式の決定において有用と思われる。

本疾患の治療において、病変自体が出血し易く、多くの小腔よりなり病変の境界が不明瞭なことから摘出搔爬術か顎切除かの選択には議論の多いところであるが^{3, 6, 7, 10)}Jaffe は¹²⁾不適当な搔爬でも自然に縮小することを報告しており顎切除は極力避けるべきだと

思われる。今回報告した症例 1 は臨床的に嚢胞疾患を疑ったことから摘出術を施行し、症例 2 は内容液や、血管造影所見から大量出血の危険性は低いと判断し、顎の機能保存を考え摘出搔爬術を選択した。現在のところ 2 例とも再発も無く経過良好であるが今後十分な経過観察が重要と考えている。

結 語

今回、われわれは顎骨に発生した脈瘤性骨嚢胞の 2 例を経験したのでその概要を報告した。

引 用 文 献

- 1) Jaffe, H. L. and Lichtenstein, L.: Solitary unicameral bone cyst with emphasis on the roentgen picture, the pathologic appearance and the pathogenesis. Arch Surg 44 : 1004-1025 1942.
- 2) Sherman, R. S. and Soong, K. Y.: Aneurysmal bone cyst. Its roentgen diagnosis. Radiology 68 : 54-64 1957.
- 3) Biesecker, J. L., Marcove, R. C., et al.: Aneurysmal bone cysts. A clinicopathologic study of 66 cases. Cancer 26 : 615-625 1970.
- 4) Ruiters, D. J., van Rijssel, T. G., et al.: Aneurysmal bone cysts. A clinicopathological study of 105 cases. Cancer 39 : 2231-2239 1977.
- 5) 植野 茂, 木村明祐, 他: 脈瘤性骨嚢胞の 1 例. 日口外誌 33 : 161-167 1987.
- 6) 加藤 斎, 尾崎登喜雄, 他: 下顎骨にみられた脈瘤性骨嚢胞について, 日口外誌 30 : 856-860 1984.
- 7) 田代直也, 後藤孝博, 他: 下顎骨に発生した Aneurysmal bone cyst の 1 症例. 日口外誌 30 : 204-209 1984.
- 8) 北村完二, 村瀬博文, 他: 下顎に発生した脈瘤性骨嚢胞の 1 例. 日口外誌 33 : 783-790 1987.
- 9) 中田正之, 浦出雅裕, 他: 下顎に発生した脈瘤性骨嚢胞の 1 例. 日口外誌 35 : 2945-2948 1989.
- 10) Toljanic, J. A., Lechewski, E., et al.: Aneurysmal bone cysts of the jaws. A case study and review of the literature. Oral Surg Oral Med Oral Pathol 64 : 72-77 1987.
- 11) 後藤 潤, 福武公雄, 他: 顎骨内に発生した Aneurysmal bone cyst の一症例. 日口外誌 17 : 260-266 1971.
- 12) Jaffe, H. L.: Tumors and tumorous conditions of the bones and joints. Lea and Febiger, Philadelphia, 1964, p 56-61.