疼痛を伴い下顎骨に発生した類腱線維腫の1例

田中 晋・美馬孝至・小倉孝文
岸野万伸*・松矢篤三

Desmoplastic fibroma in the mandible associated with pain

Susumu TANAKA・Takashi MIMA・Takafumi OGURA
Mitsunobu KISHINO*・Tokuzo MATSUYA

Abstract: A desmoplastic fibroma in the mandible of a 24-year-old female is described. This patient had complained spontaneous pain associated with a rapidly growing tumorous mass. Continuous resection of mandible, an iliac crest bone graft, and immediate reconstruction using a titanium plate were performed. The extirpated tumor measured 70×50×40 mm.

Histopathologically, the tumor was composed of many small fibroblast-like cells and abundant collagenous fibers. Ultrastructural studies revealed an intracellular matrix, mature collagenous fibers and fibroblast-like cells. The cells had a smooth nuclear membrane and many developed rough endoplasmic reticulum.

Key words: desmoplastic fibroma (類腱線維腫), mandible (下顎骨), ultrastructural studies (電子顕微鏡観察)

結 言

類腱線維腫は、骨中心性に発生するきわめてまれな間葉系腫瘍であり、その発育は一般に緩徐で、多くの場合疼痛はともなわないとされている¹⁾。組織学的に本腫瘍は、束状に増殖した多数の膠原線維と線維芽細胞様細胞から構成されており、その発生由来は、未分化間葉細胞ならびに骨髓線維芽細胞と、これらの細胞に刺激された筋線維芽細胞であるとされている²⁾。今回われわれは、疼痛をともない下顎骨に発生し、著明な増大傾向を示した本腫瘍の1例を経験した。本症例を報告するとともに、病理組織学的・電子顕微鏡学的観察を行ったので、その概要を報告する。

症 例

患 者：T.M. 24歳 女性。

初 診：平成4年6月■日。

主 訴：左側下顎角部の腫脹および疼痛。

家族歴、既往歴：特記すべき事項なし。

現病歴：平成3年5月頃より、左側下顎角部の腫脹、圧痛ならびに「78」動揺を認めるようになったため、某歯科受診し「78」抜歯、消炎処置を受けた。しかしその後も腫脹の経時的増大と間欠的自発痛を伴うようになり、当科紹介されて来院した。

現 症：全身的には体格、栄養状態ともに良好であった。局所所見としては、顔貌は左右非対称で左側頰部から顎下部にかけて骨様硬のびまん性腫脹を認めた。また顎下部触診では軽度圧痛がみられたが、左側下唇部の知覚異常は認められなかった(写真1)。口腔内所見では「4」から左側下顎枝前縁部にかけて広範囲の骨性膨隆を認めたが、表面粘膜は正常であった。

X線所見：オルソパントモ撮影で、左側下顎小白歯相当部から左側下顎上行枝にかけて辺縁明瞭な多房性のX線透過像ならびに皮質骨の非薄化が認められた。また「6」歯根の著明な吸収がみられ、下顎管は下方に圧排されていた(写真2)。

臨床検査所見：異常は認められなかった。

大阪大学歯学部口腔外科学第1講座

(主任：松矢篤三教授)

* 大阪大学歯学部附属院病検査部

(主任：石田 武部長)

The First Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Osaka University Faculty of Dentistry (Chief: Prof. Tokuzo Matsuya)

Clinical Laboratory, Hospital Attached to the Osaka University Faculty of Dentistry (Chief: Dr. Takeshi Ishida)

受付日：平成5年11月8日

写真1 初診時顔貌写真

写真2 初診時パノラマX線写真

臨床診断: 左側下顎骨腫瘍。

処置および経過: 初診当日、 $\overline{16}$ を抜歯し同部より生検を施行したところ、“類腱線維腫の疑い”との病理組織診断を得た。術前に Tc-MDP シンチグラムを施行したが、左側下顎角部のみ集積像が見られ、他臓器への取り込みは認められなかった。同年7月■日全身麻酔下にて、下顎骨連続離断術、ならびにチタンプレートと腸骨移植による即時再建術を施行した。摘出腫瘍は $50 \times 70 \times 40$ mm 大で、その断面は充実性で灰白色を呈した。術後経過は良好で、術後5か月でチタンプレート除去術を施行し、現在なお経過観察中である。

病理組織所見: 腫瘍は、束状に錯走する膠原線維と線維芽細胞様細胞から構成されており、その細胞密度は比較的高かった。腫瘍細胞の核分裂像はほとんど認められず、腫瘍組織中には上皮成分あるいは粘液腫様組織は存在しなかった(写真3)。エラスチカ・ワンギーソン染色およびアザン染色を行うと、腫瘍組織中の線維成分はそれぞれ赤色、濃青色に染色され膠原線維であることが示された。以上より類腱線維腫との病理診断を得た。

電子顕微鏡所見: 多数の錯走する膠原線維間に長紡錘型の細胞成分が観察された。細胞核は卵円形から紡錘型でその核膜は整であり、また細胞質内には多数の小胞状の粗面小胞が存在し、その内腔には電子密度の低い内容物が観察された。細胞膜の外形は凹凸不整でその周囲

写真3 手術摘出物の病理組織写真

写真4 電子顕微鏡写真

には多数のマイクロフィブリルがみられた(写真4)。

考 察

類腱線維腫は1958年、Jaffe により初めて骨における独立した腫瘍として報告された³⁾。その腫瘍の性格は、軟組織における類腱腫とほぼ類似したものとされており、良性であるものの局所的に周囲組織への浸潤性を有し、不十分な外科的切除により高い再発傾向を示すことが知られている。Mirra ら⁴⁾は、骨腫瘍を組織学的に分類し、本腫瘍は、非骨化性線維腫などの良性腫瘍と線維肉腫などの悪性腫瘍との中間的な性格を持つ腫瘍として位置づけている(表1)。

本腫瘍は比較的若年者に好発し、性差はないとされている。その臨床症状としては、頭頸部に発症した場合、局所の腫脹と顔貌の非対称が一般に認められる。また腫瘍の増殖は緩慢で疼痛は伴わないとされているが¹⁾、本症例においては、初診時より疼痛をともない、手術までの約1か月の間にも腫瘍は増大傾向を示した。摘出腫瘍は $70 \times 50 \times 40$ mm と、本邦においてわれわれが渉猟した範囲で最も大きいものであった⁵⁻⁷⁾。

組織学的には、本腫瘍は多量の膠原線維間に異型性のほとんどみられない線維芽細胞様の腫瘍細胞が散在するのが特徴とされている。本症例においてはその細胞密度は比較的高かったことより、腫瘍組織中の細胞密度とその発育速度との相関性が推測された。

また電子顕微鏡による観察においては、膠原線維束中

表 1 Mirra ら⁴⁾による骨腫瘍の組織学的分類

A STANDARD HISTOGENETIC CLASSIFICATION OF BONE TUMORS

Cell or Tissue of Origin	Benign Lesions	Disputably Benign to Low-Grade	High-Grade
Fibroblastic to Fibrohistiocytic	<ul style="list-style-type: none">• Fibrous cortical defect• Nonossifying fibroma	<ul style="list-style-type: none">• Low-grade Fibrosarcoma• Desmoid tumor of bone (Desmoplastic fibroma)	<ul style="list-style-type: none">• High-grade Fibrosarcoma• Malignant fibrous histiocytoma

(BONE TUMORS: Joseph M. Mirra 1989 より抜粋)

に、多数の発達した粗面小胞体を含む長紡錘型の腫瘍細胞が観察された。小胞体周囲には、マイクロフィブリルが認められ、本腫瘍細胞が線維基質を旺盛に産生していることが観察された。

本腫瘍と鑑別を要する疾患には、化骨性線維腫と線維性骨異形性症があるが、類腱線維腫は骨形成能を全くもたないため、X線所見・病理組織所見より鑑別は可能である。最も鑑別を要する疾患としては、低分化線維肉腫があげられるが、X線所見として類腱線維腫に比べX線透過性に優れること、類腱線維腫に特徴的な小柱様構造が見られないことから、また組織学的には細胞異型性があり核の染色性・有糸分裂像に富み、膠原線維が比較的疎であることより区別されている⁸⁾。

治療法については外科的切除が中心とされるが、本腫瘍の特徴ともいうべき高い再発傾向から、十分な辺縁を設定して処置することが必要とされている⁹⁾。また Makek ら¹⁰⁾ は最低3年間の術後経過観察が必要と提唱している。

結 語

われわれは、24歳女性の左側下顎骨に発生した類腱線維腫の1例を経験し、病理組織学的・電子顕微鏡的観察を行ったので報告した。

本論文の要旨の一部は、第24回日本口腔外科学会近畿地方会（平成5年6月5日）において発表した。

引 用 文 献

1) Prein, J., Remagen, W., et al.: Atlas of Tumors of the Facial Skeleton. 1st Ed, Springer-Verlag Berlin Heidelberg, 1986, p 135-136.

2) Lagace, R., Delage, C., et al.: Desmoplastic fibroma of bone. An ultrastructural study. Am J Surg Pathol 3: 423-430 1979.

3) Jaffe, H.L.: Tumors and Tumorous Conditions of the bones and joints. 1st Ed, Lea & Febiger, Philadelphia, 1958, p 298-303.

4) Mirra, J.M.: Bone tumors, 1st Ed, Lea & Febiger Ltd. Philadelphia, 1989, p 20-23.

5) 小野富昭, 白石豊彦, 他: 下顎骨に発生した類腱線維腫の2例. 日口外誌 26: 1322-1327 1980.

6) 高山泰雄, 松永心子, 他: 下顎骨に生じた類腱線維腫の1例. 日口外誌 37: 1485-1489 1991.

7) 森田章介, 三ヶ山茂樹, 他: 下顎骨に発生した類腱線維腫の1症例. 日口外誌 39: 499-501 1993.

8) Juria, R.C., Richard, H.G., et al.: Desmoplastic fibroma of bone: Radiographic Analysis. Radiology 172: 827-832 1989.

9) Paul, H.J.K., Bruce, B.H., et al.: Desmoplastic fibroma of the jaws: Surgical management and review of the literature. Head & Neck Surg 11: 67-75 1989.

10) Makek, M., Lello, G.E.: Desmoplastic fibroma of the mandible. J Oral Maxillofac Surg 44: 385-391 1986.