上顎骨、下顎骨および側頭骨にみられた好酸球肉芽腫の1例

真野 隆 充・上山 吉 哉・大山 和 彦・岸本 晃 治
栗坂 成 年・松村 智 弘

A case of eosinophilic granuloma in the maxilla, mandible, and temporal bone

Takamitsu MANO・Yoshiya UHEYAMA・Kazuhiko OHYAMA
Kouji KISHIMOTO・Shigetoshi KURISAKA・Tomohiro MATSUMURA

Abstract: We report a case of eosinophilic granuloma in the maxilla, mandible, and temporal bone of a 21-year-old man. Resorption of the maxilla was accidentally found on radiologic examination, and a histological diagnosis of eosinophilic granuloma was obtained on examination of a biopsy specimen. The lesion of the temporal bone was enhanced by Tc scintigraphy. Surgical therapy was therefore performed for each lesion.

After 7 months, the lesion at the temporal bone recurred, and a new lesion appeared at the mandible; radiation therapy was therefore performed.

After treatment the patient's course has been good, and there has been no recurrence for 15 months.

Key words: eosinophilic granuloma (好酸球肉芽腫), bone (骨), surgical therapy (外科的治療), radiation therapy (放射線治療)

緒 言

骨の好酸球肉芽腫は組織球の増殖と浸潤を特徴とする Histiocytosis X の1病型で、骨に単発あるいは多発の腫瘤をきたす原因不明の比較的まれな良性疾患である。発生部位としては頭蓋骨、大腿骨、骨盤骨、肋骨、椎体、下顎骨、肩甲骨などがあげられている¹⁾。今回われわれは上顎骨、下顎骨および側頭骨にみられた多発性の好酸球肉芽腫の症例に対し、外科的治療および放射線治療を施行したのでその概要を報告する。

症 例

患 者：21歳、男性。

初 診：平成7年2月■日。

主 訴：左側上顎臼歯部の精査。

家族歴：特記事項なし。

既往歴：20歳時アルコール性肝炎にて内服治療を受けた。また3～4年前に左側上顎臼歯部打撲の既往があった。

現病歴：平成7年2月初旬、齲蝕治療のため某歯科を受診し、X線検査で左側上顎臼歯部に骨吸収像を認めたため、紹介により2月14日当科を受診した。

現 症：口腔外所見では左側頬部に軽度の腫脹を認めた。両側顎下リンパ節には腫脹、圧痛はなかった。口腔内所見では|2-6|部頰側に圧痛を伴う軽度の腫脹を認めた(写真1a)。また|45|には高度の動揺を認めた。|2-6|の歯髄反応は陰性であった。なお、|4|部には特に症状はなかった。

X線所見：パノラマX線写真にて、|2-6|部に境界明瞭なX線透過像を認め、同部の歯牙は浮遊歯の状態を呈していた。また|4|根尖相当部にもX線透過像を認めた(写真1b)。

臨床検査所見：CRPは軽度上昇していたが、その他異常所見はなかった。

臨床診断：左側上顎骨腫瘍の疑い。

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9年6月20日

写真1 初診時

a : 口腔内写真

b : パノラマ X 線写真

写真2 骨シンチグラム
両側上顎骨および右側側頭骨に集積を認める

写真3 側頭骨 CT 写真

a : 放射線治療前

中耳への腫瘍の進入および周囲の骨破壊を認める

b : 放射線治療後 (8 か月)

中耳内の腫瘍は消失し、骨の再生がみられる

処置および経過：2月■日左側上顎臼歯部より生検を施行し、病理組織学的に骨好酸球肉芽腫と診断されたため、右側上顎部臼歯部からも生検を行い、同様の結果を得た。骨シンチグラムにて両側上顎臼歯部から上顎洞底部にかけ、また右側側頭骨への集積を認めたため(写真2)、脳神経外科を受診し、側頭骨も臨床的に好酸球肉芽腫と診断された。4月■日当科入院し、4月■日全身麻酔下で両側上顎腫瘍掻爬術を施行した。両側ともに上顎洞底部まで骨の吸収を認め、肉芽様組織が存在し、上顎洞粘膜まで及んでいたため、洞粘膜を含めて除去した。当科退院後の5月■日脳神経外科にて側頭部の腫瘍掻爬術を受けた。以後経過は良好であったが、12月中旬、右側耳鳴、耳漏を認めたため、近

耳耳鼻科を受診したところ、外耳道に肉芽様病変を認め、生検が施行され、右側側頭骨部腫瘍の再発と診断された(写真3a)。また平成8年2月より左側下顎臼歯部舌側歯肉に潰瘍を認め、治癒傾向を示さないため生検を施行し、好酸球肉芽腫の診断を得た。CTにて精査したところ両側下顎骨に病変が存在することが判明した(写真4a)。そこで平成8年3月■日より耳鼻科にて外耳道の腫瘍の可及的な除去と放射線照射8 Gy (Linac, 2 Gy/day)を施行し、3月■日より両側下顎骨に対し放射線照射6 Gy (Linac, 2 Gy/day)を施行した。以後外来にて経過観察中であるが、耳鳴、耳漏は消失し、いずれの部位も経過良好である(写真3b, 4b)。

摘出物病理組織学的所見：ほぼ円形で、くびれた核を有する組織球が多数の結節を形成しつつ増殖していた。それら結節の周囲には好酸球の浸潤が、またリンパ球、形質細胞など炎症性細胞浸潤、毛細血管の増生が認められた(写真5)。

考 察

口腔に発生する骨好酸球肉芽腫の症状としては、局所の腫脹、疼痛、歯牙の弛緩、動揺、脱落、潰瘍形成、口臭、咀嚼障害、排膿、出血などがあげられ、これらの症状は慢性辺縁性歯周炎の症状と類似しており、特有の口腔症状はあきらかでない²⁾。自験例の症状として、上顎では局所の腫脹および歯牙の動揺を、また下顎では潰瘍形成を認め、一般的な好酸球肉芽腫の症状の一部を示していたが、これらの症状のみでは確定診断には至らなかった。上顎ではX線所見などから腫瘍を疑ったが、最終的には生検を必要とした。側頭骨ではおもに乳突洞の骨髓より発生し、無症候性に側頭骨を広範に融解して周囲へ浸潤してゆき、臨床的には反復性耳漏、耳後部皮下腫瘍で初発することが多く、外耳道ポリープ、難治性外耳道炎、真珠腫性中耳炎、難聴、急性乳突洞炎などを呈する³⁾。前田ら⁴⁾は真珠腫性中耳炎との鑑別が重要で、外耳道後壁に肉芽が存在する、鼓膜穿孔がない、中耳炎の既往がない、側頭骨X線にて境界鮮明な骨欠損像を認める、などを鑑別点としてあげている。自験例では初診時には側頭部の自覚症状は認められず、骨シンチグラムで病変の存在が明らかとなり、再発時に耳漏、外耳道ポリープが認められた。

治療法については、本疾患の成因が不明な点が多いため、確立された方法がないのが現状のようである。

写真4 下顎骨 CT 写真

- a : 放射線治療前
両側下顎骨舌側の骨破壊を認める
- b : 放射線治療後 (3 か月)
両側の病巣周囲の骨硬化像がみられる

写真5 摘出物の病理組織像
(H-E 染色, $\times 200$)

足立ら⁵⁾は一般に単発性の好酸球肉芽腫では外科的に到達可能な骨病巣に対して搔爬, 摘出などが行われ, 病巣の多発症例で手術が完全に実施し得ない症例では, 化学療法, ステロイド療法あるいは放射線療法が行われるが, 口腔内に限局した病巣に対しては外科的に病巣の摘出が最も有効な治療手段であろうと述べている。杉原ら⁶⁾は, 若年者に多発するということもあり, 化学療法, 放射線療法, ステロイドの副作用のことも考え合わせると, 発生部位によっては診断をかねた摘出のみにとどめ, 十分な経過観察を重ねていくのがよいと思われると述べている。また自然治癒の症例もみられるが, Hand-Schüller-Christian 病に移行した症例⁷⁾も認められるため, 積極的に根治的治療を行うべきかの検討も必要である。自験例では上顎に対しては, 動揺が著しく保存不可能な歯牙が存在したため外科的治療を選択し, 下顎に対しては, 歯牙の動揺はなく外科的治療に伴う拔牙を回避するため, 放射線治療を選択した。照射線量については少線量でよいとするものが多いが, 明確な基準はないようである。Darte⁸⁾は, 浅表性の病巣では 4~6 Gy, より広範で深在性の病巣では 9~12 Gy 程度が必要であると述べ, また

Richter⁹⁾は骨病変に対して総線量 6~10 Gy を勧めている。高橋¹⁰⁾は 20 Gy 以上照射しても効果がない場合は治療効果は期待できず, 線量はできるだけ少量にとどめるべきであり, 治療に反応する場合には, 病巣周囲に骨硬化像の発生をみたり, 辺縁が不明瞭となり, 次いで骨の再生が認められるようになると述べている。自験例では少線量でよいとの考えに基づき, 側頭骨, 下顎骨に対しそれぞれ 8 Gy, 6 Gy の放射線治療を行い, 病巣周囲の骨硬化像が認められ良好な結果が得られた。口腔に発生した本疾患で, 歯牙を保存するという観点からは放射線治療は有用であると考えられた。しかし, この線量で十分とはいきれず, 再発に対して慎重な経過観察が必要である。また本疾患は多発性にみられることも多く, 自験例のように経過観察中に新たな病巣の出現がみられることもあるため, 十分な経過観察が必要である。

結 語

今回われわれは多発性にみられた骨好酸球肉芽腫の 1 例に対し, 外科的治療および放射線治療を施行したので報告した。

引 用 文 献

- 1) 石川悟朗, 秋吉正豊: 口腔病理学 II. 改訂版, 永末書店, 京都, 1982, 298-300 頁。
- 2) 遠藤盛孝, 石川好美, 他: 骨好酸球肉芽腫の 3 例. 日口外誌 28: 1777-1787 1982.
- 3) 鰐淵伸子, 石塚洋一, 矢部多加夫: 外耳道腫瘍性病変の 7 症例—臨床症状, 側頭骨 CT の有用性について—. 耳鼻臨床 83: 1511-1520 1990.
- 4) 前田秀彦, 児玉 章: 側頭骨 histiocytosis X の診断と治療—症例報告を中心に—. 耳喉 52: 659-665 1980.
- 5) 足立邦彦, 島田桂吉, 他: Histiocytosis X の一例並びに文献的考察. 口科誌 30: 134-143 1980.
- 6) 杉原 司, 谷口 昌, 他: 前頭骨眼窩縁に発生した好酸球肉芽腫の 1 例. 形成外科 36: 559-563 1993.
- 7) 下里常弘, 杉山正仁, 他: 顎に主症状を有する Histiocytosis X の 2 症例. 口科誌 19: 924-934 1970.
- 8) Darte, J.M.: Radiation therapy in childhood; Progress in radiation therapy. Vol 3, Grune & Stratton, New York, 1965, p141.
- 9) Richter, M.P. and D'Angio, G.J.: The role of radiation therapy in the management of children with Histiocytosis X. Am J Pediatr Hematol Oncol 3: 161-163 1981.
- 10) 高橋睦正, 鴨井逸馬: Histiocytosis X のレントゲン診断. 臨床放射線 15: 641-654 1970.