成人の下顎歯肉に発生した筋線維腫の1例

津山 泰彦・三橋健一郎・森 良之
安部 貴大・江口智明・高戸 毅

A case of myofibroma of the mandibular gingiva in an adult

Yasuhiko TSUYAMA・Kenichiro MITSUHASHI・Yoshiyuki MORI
Takahiro ABE・Tomoaki EGUCHI・Tsuyoshi TAKATO

Abstract: We report a rare case of myofibroma arising in the mandibular gingiva in an adult. Myofibroma is a solitary fibroblastic proliferative neoplasm occurring primarily in infants and children. The patient was a healthy 28-year-old woman with a painless mass in the right lower premolar region. Radiographic examination showed radiolucency with an ill-defined border. The tumor was resected with a margin of adjacent tissue and teeth. There was no sign of recurrence at 18 months' follow-up. Microscopic examination revealed irregular proliferation of spindle-shaped cells. A pericytoma-like pattern was found in the center of the tumor. Immunohistochemically, tumor cells were positive for vimentin and HHF-35. On the basis of these findings, the tumor was diagnosed as a myofibroma.

Key words: myofibroma (筋線維腫), gingiva (歯肉), adult (成人)

緒 言

筋線維腫 (Myofibroma) は単発性で病理組織学的に紡錘形細胞の増殖を特徴とするまれな腫瘍である。本症は、おもに乳幼児および子供に好発し、成人での発生はきわめて少ないとされている¹⁾。本邦における顎口腔領域からの報告は、われわれが渉猟し得た限りでは、4例をみるにすぎず²⁻⁵⁾、このうち成人での報告は1例のみである²⁾。

今回、われわれは28歳、女性の下顎歯肉に発生した本症の1例を経験したのでその概要を報告する。

症 例

患 者：28歳、女性。
初 診：平成10年10月 ■■■。
主 訴：右側下顎小白歯部舌側歯肉の腫瘍。
既往歴および家族歴：特記事項なし。
現病歴：平成10年9月中旬頃に右側下顎小白歯部舌側歯肉の腫瘍を自覚した。徐々に増大したため平成10年10月 ■■■

■近歯科医院を受診し、精査目的に当科を紹介され来院した。

現 症：
全身所見：体格中等度、栄養状態は良好であり他の部位に腫瘍性病変を認めなかった。

口腔内所見：⁵ 部舌側歯肉に10×8 mm 大、表面平滑、弾性硬、無痛性、境界不明瞭な腫瘍を認めた。⁵ は生活歯であったが、軽度の動揺を認めた (写真1)。

X線所見：⁵ 歯槽部を中心に境界不明瞭な透過像を認めた (写真2)。

臨床検査所見：異常所見なし。
臨床診断：下顎歯肉腫瘍の疑い。

処置および経過：平成10年10月 ■■■ に腫瘍摘出術を予定したが、腫瘍は拇指頭大に増大し、⁵ に著しい動揺を認めたため悪性腫瘍を疑い同日生検を行った。その結果は著明な好中球浸潤と血管増生が認められる肉芽組織であり確定診断は得られなかった。平成10年11月 ■■■ 全身麻酔下に腫瘍摘出術を行った。腫瘍と周囲軟組織との境界が不明瞭であったため、周囲安全域を5 mm に設定し、⁵ と一塊に摘出した。その後 ⁶ を抜歯し、^{6 5} 部の歯槽骨整形を行い閉鎖創とした。術後の病理組織診断にて筋線維腫と診断されたため、腫瘍シンチグラムによる全身検索を行い

東京大学医学部附属病院顎口腔外科・歯科矯正歯科
(主任：高戸 毅教授)
Department of Oral-maxillofacial Surgery, Dentistry and Orthodontics, The University of Tokyo Hospital
(Chief: Prof. Tsuyoshi Takato)
受付日：平成12年10月23日

写真1 初診時口腔内写真
表面平滑，弾性硬の腫瘍を認める。

写真3 摘出物像
5]と一塊に摘出した。

写真2 デンタルX線写真
境界不明瞭なX線透過像を認める。

写真4 病理組織像 (H-E 染色, 弱拡大)
腫瘍実質部分：楕円形の核と淡好酸性の胞体を有する紡錘形細胞の増生を認める。

写真5 病理組織像 (H-E 染色, 強拡大)
血管周皮腫様部分。
中心部分ではスリット状の小血管が多数みられた。

単発性であることを確認した。術後1年6か月経過した現在，再発なく経過良好である。

病理組織学的所見：摘出物は30×18×14mm大，表面平滑，弾性硬で明らかな被膜は認められなかった（写真3）。組織学的には楕円形の核と淡好酸性の胞体を有する紡錘形の細胞が束をなして不規則に増生していた。核分裂像は明らかでなかった。中心部分ではスリット状の小血管が目立ち，血管外皮腫様の部分がみられた（写真4，5）。

Anti-muscle-specific actin antibody (HHF-35)，抗ビメンチン，抗デスミン，CD34各抗体を用いて免疫組織染色を行った。HHF-35染色，ビメンチン染色において腫瘍細胞は陽性を示した（写真6，7）。

病理組織診断：筋線維腫（Myofibroma）。

写真6 病理組織像
免疫染色（ビメンチン，強拡大）
ビメンチン染色にて腫瘍細胞は陽性を示す。

写真7 病理組織像
免疫染色（HHF-35，強拡大）
HHF-35染色にて腫瘍細胞は陽性を示す。

表1 成人における顎口腔領域での筋線維腫報告例

No	Author	Age	Sex	Location	Size (cm)
1	Jennings (1984) ⁹⁾	25	M	Sublingual	NS
2	Daimaru (1989) ²⁾	35	M	Buccal mucosa	2.2 × 0.9
3	Sahin (1990) ¹⁰⁾	77	M	Tongue	2.0 × 1.5
4	Speight (1991) ¹¹⁾	41	F	Tongue	2.5
5	Jones (1994) ¹²⁾	25	F	Buccal mucosa	0.8 × 0.5
6	〃	35	M	Mandibular vestibule	0.78 × 0.5
7	〃	46	F	Lower lip	1.0 × 0.8
8	〃	53	M	Buccal mucosa	2.0 × 2.0
9	〃	55	F	Tongue	0.4 × 0.3
10	〃	70	F	Mandibular gingiva	0.8 × 0.5
11	Uğar (1999) ¹⁾	21	M	Mandibular gingiva	2.0 × 1.5
12	本症例	28	M	Mandibular gingiva	1.0 × 0.8

考 察

筋線維腫はこれまでさまざまな名称で報告されてきた。1954年 Stout⁶⁾ が Congenital Generalized Fibromatosis として初めて報告した。その後、1981年に Chung と Enzinger⁷⁾ が新生児から12歳までに発生した61例の臨床病理組織学的検討を行い、88%が2歳までに発生していたことから Infantile Myofibromatosis の名称を用い、さらに、単発性および多発性に分類し、単発性のほうが多いことや腫瘍細胞が myofibroblast であることを報告した。1995年に Enjinger⁸⁾ は単発性のものを筋線維腫 (Myofibroma)、多発性のものを筋線維腫症 (Myofibromatosis) と呼ぶことを提唱し、現在にいたっている。本症例は、右側下顎小臼歯部舌側歯肉にのみに認められたことから、Enjinger の分類

に従い筋線維腫とした。
筋線維腫は乳幼児や子供のみならず成人にも発生するが、顎口腔領域における成人での報告例は少ない。われわれが渉猟し得た限りでは、成人での本症の報告例は自験例を含めて12例であった^{1, 2, 9~12)} (表1)。これら12例の発症年齢は21歳から77歳と幅広く分布していたが、20歳台4例、30歳台2例と20~30歳台で半数を占めていた。性別では男性6例、女性6例で差はなかった。17歳以上で臨床統計を行った乾らの報告⁴⁾ では、男女比は1 : 1と今回と同様に差はなかった。これに対して乳幼児および子供では、男性が多いとする報告がみられる⁷⁾。
発生部位は、成人例では骨から発生したものはなく、全例軟組織からであった。一方、乳幼児および子供では、下顎

骨から発生した報告がみられ^{7,12)}, 本邦での成人例以外での3例はいずれも下顎骨から発生したものであった。本症例は下顎骨に透過像があり, 下顎骨から発生したとも考えられたが, 手術所見で下顎骨からの剥離が容易であり, 連続性がなかったこと, 病理組織学的に腫瘍の中に骨組織の残存がみられなかったことから舌側歯肉に発生し, 腫瘍の増大に伴い舌側歯槽骨を圧迫吸収したものと考えられた。

治療は一般に外科的切除が行われる⁷⁾。成人例全例に腫瘍切除が行われていたが, 再発例は1例も認めなかった。本症例では, 腫瘍摘出と「65」拔牙を行った。「5」は動揺があり, 腫瘍との連続性が疑われたため腫瘍と剥離することなく腫瘍とともに一塊に摘出した。また, 術創に, 「6」近心, および舌側歯根が完全に露出したこと。摘出物に被膜がなかったことから「6」周囲の腫瘍残存の可能性を考え拔牙した。

本症の鑑別診断としては, 神経鞘腫, 平滑筋腫, 神経線維腫などがあげられる⁸⁾。しかし, 一般的に臨床所見, 病理組織所見とも共通点が多く, 鑑別が困難なことが多い。Vigneswaranら¹³⁾は, 免疫組織学的所見としてビメンチン, アクチンがともに陽性であること。S-100蛋白, デスミンが陰性であることが本症の診断に有用であると述べている。本症例では, 腫瘍細胞はHHF-35染色, ビメンチン染色に陽性を示し, デスミン, CD34染色に陰性を示した。

結 語

今回, われわれは28歳女性の下顎歯肉に発生した筋線維腫の1例を経験したのでその概要を報告した。

稿を終えるにあたり, 本症例の病理組織学的診断に関して貴重な御意見を賜りました東京大学医学部附属病院病理部の先生方に深謝いたします。

引 用 文 献

- 1) Uğar, D.A. and Karaca, I., et al.: Solitary Mucosal "Infantile" Myofibroma in a 21-year-old Man. *J Oral Maxillofac Surg* 57: 448-451 1999.
- 2) Daimaru, Y., Hasimoto, H., et al.: Myofibromatosis in adults. *Am J Surg Pathol* 13: 859-865 1989.
- 3) Sugatani, T., Inui, M., et al.: Myofibroma of the mandible. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 80: 303-309 1995.
- 4) 乾 真登可, 田川俊朗, 他: 下顎骨に発生した筋線維腫症の1例. *日口外誌* 43: 628-630 1997.
- 5) 中村誠司, 篠原正徳, 他: 下顎に発生した孤立性小児筋線維腫症の1例(抄). *口腔腫瘍* 9: 181 1997.
- 6) Stout, A.B.: Juvenile fibromatosis. *Cancer* 7: 953-978 1954.
- 7) Chung, E.B. and Enjinger, F.M.: Infantile myofibromatosis. *Cancer* 48: 1807-1818 1981.
- 8) Enjinger, F.M. and Weiss, S.W.: Soft tissue tumors. 3rd Ed, Mosby, St Louis, 1995, p238-245.
- 9) Jennings, T.A., Duray, P.H., et al.: Infantile myofibromatosis: *Am J Surg Pathol* 8: 529-538 1984.
- 10) Sahin, A.A., Ro, J.Y., et al.: Myofibroblastoma of the tongue. *Am immunohistochemical, ultrastructural, and flow cytometric study. Am J Clin Pathol* 94: 773-777 1990.
- 11) Speight, P.M., Dayan, D., et al.: Adult and infantile myofibromatosis: A report of three cases affecting the oral cavity. *J Oral Pathol Med* 20: 380-384 1991.
- 12) Jones, A.C., Freedman, P.D., et al.: Oral Myofibromas: A report of 13 cases and review of the literature. *J Oral Maxillofac Surg* 52: 870-875 1994.
- 13) Vigneswaran, N. and Boyd, C.L.: Solitary infantile myofibromatosis of the mandible. Report of three cases. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 73: 84-88 1992.