下顎頭の骨内に発生したガングリオンの1例

嵐山 貴徳・高木 律男・小林 龍彰
福田 純一・長島 克弘・鈴木 誠*

A case of intraosseous ganglion of the temporomandibular joint

Takanori ARASHIYAMA・Ritsuo TAKAGI・Tatsuaki KOBAYASHI
Jun-ichi FUKUDA・Katsuhiro NAGASHIMA・Makoto SUZUKI*

Abstract: A ganglion is a cyst-like lesion comprised of a fibrous capsule containing hyaluronic acid. In general, such lesions occur in the intramedullary juxtaarticular regions of the wrist, ankle, and knee joints. We report an extremely rare case of intraosseous ganglion of the condylar head.

A 23-year-old woman was referred to our clinic on November 22, 1999 because of radiating pain around the right temporomandibular joint. She had no history of trauma. Pain increased on mouth opening and occlusion. The range of mouth opening was 33 mm between the upper and lower incisors.

On computed tomography (CT), the surface of the right condylar head was flattened and partly defective; the bone marrow showed irregular resorption. The condition of the bone deteriorated on subsequent CTscans, and magnetic resonance images showed the lesion to be an irregular mass, measuring 0.8 cm × 0.6 cm with a clearly defined margin. Right condylectomy including the articular disc was performed to make a pathological diagnosis on October 25, 2000.

Histopathologically, the condylar head contained cell-rich fibrous tissue associated with increased synovial tissue, including mucous changes, cystic changes, or both. The diagnosis was an intraosseous ganglion.

As of 14 months postoperatively, there has been no recurrence or dysfunction.

Key words: intraosseous ganglion (骨内ガングリオン), temporomandibular joint (顎関節), condylar head (下顎頭)

緒 言

ガングリオンは、薄い線維性被膜内にヒアルロン酸を含む嚢胞様構造物で、手関節背側、足背、膝関節の周囲軟組織に好発する。今回わたしたちは、顎関節のしかも下顎頭の骨内に生じた非常にまれな1例を経験したので報告する。

症 例

患 者：23歳、女性。

初 診：平成11年11月■日。

主 訴：開口時の右顎関節痛。

既往歴、家族歴：特記事項なし。

現病歴：平成7年頃に左顎関節にカクカクというクリック音が生じた。持続性の痛み、開口障害も伴ったため開業歯科医院を受診し、スプリント療法、咬合調整を受けた。1年程通院し左顎関節部の自発痛は消失したが、開口障害は軽度残存した。平成11年になると反対側の右顎関節に無痛性のクリック音が生じ、夏頃より開口時の関節痛を生じるようになった。関節痛は徐々に増悪し、同年11月頃になりクリック音が消失し、持続性の自発痛、開口障害が出現したため同年11月■日当科を受診した。

現 症：

全身所見：特記事項なし。

新潟大学大学院医歯学総合研究科顎顔面口腔外科学分野
(主任：高木律男教授)

*新潟大学大学院医歯学総合研究科顎口腔病理学分野
(主任：朔 敬教授)

Niigata University Graduate School of Medical and
Dental Sciences, Division of Oral and Maxillofacial
Surgery (Chief: Prof. Ritsuo Takagi)

*Niigata University Graduate School of Medical and
Dental Sciences, Division of Oral Pathology (Chief:
Prof. Takashi Saku)

受付日：2002年3月15日

採択日：2002年8月20日

写真1 CT像

A: 水平断 B: 矢状断

下顎頭海綿骨を中心に不整な吸収像と、皮質骨の一部断裂を認める。

口腔外所見；顔貌は対称で顔色は良好であった。両側顎下リンパ節は大小1個ずつを触知し、可動性で圧痛はなかった。開口に伴い下顎頭は左右とも回転運動が中心で、滑走運動はわずかに触知するのみであった。また右側に関節痛および咬合痛が認められたが、雑音は触知しなかった。右顎関節部から周囲への放散痛を訴えたが、両側顎関節部および咀嚼筋に発赤、腫脹、圧痛はなかった。

口腔内所見；自力無痛開口量は左側中切歯切縁間で31mm、有痛開口量は33mmでOverjet 3mm、Overbite 2mmであった。上顎および下顎正中は顔面正中に比しそれぞれ右側へ3mm、左側へ2mm偏位していた。白歯の咬合関係は両側ともAngle Class IIで右側側切歯において交叉咬合であった。また、左側方運動時、右顎関節痛が認められた。

画像所見；パノラマX線撮影法、側斜位経頭蓋撮影法、眼窩下顎頭方向撮影法ともに、異常は認めなかった。CT像では、右側下顎頭は左側に比し腫大しており、関節面に平坦化を認めた。また皮質骨が一部断裂し、海綿骨内に辺縁不整な骨吸収を認めた(写真1)。関節円板は非復位性前方

写真2 MR像

A: T1強調画像 B: T2強調画像

右下顎頭関節面に、前後径0.8×上下径0.6cm程度の辺縁不整な病変を認め(A)、T2強調画像にて高信号域を示す(B)。

転位であった。

臨床診断：変形性顎関節症。

処置および経過：初診時よりロキソプロフェンナトリウム60mgを朝夕2回内服し、右顎関節部を中心とする放散痛は消失した。12月■日より上顎にスタビライゼーション型スプリントを装着し、平成12年1月■日より赤外線療法を併用して、開口訓練を開始した。開口量、関節痛に変化ないため、平成12年2月■日局所麻酔下に右側顎関節腔内洗浄療法を施行した。しかし右顎関節の関節痛が残存した。7月■日のMR像および7月■日のCT像にて、右側下顎頭骨内の吸収は前回のCT像に比し増大しており、海綿骨部はT2強調MR像にて前後径0.8cm×上下径0.6cm程の不整形、境界明瞭な高信号域を示した(写真2)。さらに9月■日のMR像にて下顎骨内部の透過像に増大が認められ、腫瘍性病変が疑われたため、10月■日全身麻酔下に右側下顎頭および関節円板の切除術を施行した。上関節腔を開放したところ、関節円板は円板後部組織で断裂し、前外側への転位を認めた。しかし、関節円板および下顎窩表面は平滑で白色を呈し、下顎窩、関節包および関節円板との癒着も認めなかった。下顎頭内部の病変を充分に含むように関節突起の頸部を日安に骨切りを行い、下顎頭と円板を切除した。切除標本は、13×12×14mmで、前面には白色の腱組織および暗褐色の外側翼突筋が付着していた。下顎頭表面は頂部および外側部でわずかに凹凸を認めた。

病理組織学的所見：下顎頭頂部を覆う線維、軟骨組織の一部が欠損して骨が露出していた(写真3A)。下顎頭の内部では骨梁が吸収され、線維組織により置換されていたが、その一部には限局した粘液変性がみられ(写真3B)、同部はコロイド鉄、アルシアンブルー等に陽性であり、トルイ

写真3 病理組織像

(H-E 染色, A: $\times 20$ B: $\times 40$)

- A: 下顎頭頂部を覆う線維, 軟骨組織の一部が欠損して骨の露出がみられ, 皮質骨直下に嚢胞状腔が認められる。
 B: 線維組織内に局限した粘液変性をきたし, さらに嚢胞化を示す。

ジンプルーには異調染色性を示した。また一部では, 粘液性組織が認められ嚢胞状の腔を形成していた。さらに, 皮質骨の直下にも複数の嚢胞状の腔を形成していたが, 内腔面に上皮細胞や滑膜細胞は認められなかった(写真3A)。

下顎頭頂部では一部に皮質骨の欠損を認め, 骨表面の組織から連続する線維組織が骨内に延びており(写真4A), 内部には細胞密度の高い線維組織の結節状の増生が認められた(写真4B)。線維組織の一部は周囲の不規則な形態の骨梁と移行的であり, また, 一部の骨梁辺縁は破骨細胞により吸収されていた(写真4B)。

病理組織学的診断: 下顎頭骨内ガングリオン。

術後経過: 術後2週より開口練習を開始した。術後14か月の現在, 開口量は42.5mmで, 咬合関係は, 術前に比較して特記すべき変化は認められない。開口時下顎は右側へ3mm程偏位するものの, 右顎関節の関節痛は軽度で, 関節雑音は認められない。

考 察

ガングリオンは一般に手首, 肘, 膝関節などに発生することが多く, わたくしたちが検索した限り顎関節部での報告は18例^{1-8, 17, 18)}のみで, このうち骨内に発生したものはわずか3例^{3, 5, 6)}であった。

今回の症例は23歳女性に発生したが, これまでの顎関節部の報告は26歳から64歳と幅広く, 平均は46.2歳であった。

写真4 病理組織像

(H-E 染色, A: $\times 10$ B: $\times 40$)

- A: 下顎頭表面(写真の上端部)の皮質骨を穿通し, 同部より骨内に連続する線維性組織が認められる。
 B: 下顎頭内部の骨髓相当部に線維組織の結節性増生があり, 周囲の骨梁辺縁は破骨細胞により吸収されている。

また性差では, 18例中, 14例が女性(1例が不明)であった。この点に関して, 他部位に発生するガングリオンでは, 10歳から20歳台の女性に多いとされており⁹⁾, 顎関節部に関してはやや好発年齢が高い傾向が認められた。

主訴は, 開口時の痛みであったが, この点に関して, 顎関節部のこれまでの報告では, 腫脹のみが9例, 疼痛を伴った腫脹, 腫瘍6例, 疼痛のみ1例, 耳漏1例, 不明1例で, このうち骨内に発生した3例は, 疼痛を伴った腫瘍1例, 疼痛1例, 耳漏1例であった。また他関節の軟組織に発生するガングリオンも同様に腫脹, 腫瘍を主訴にすることが多いものの, 骨内のものは腫脹は少なく痛みを主訴にすることが多いとされている。このように骨内ガングリオンの場合は, 腫脹を伴わないことが多く, 疼痛も伴わない場合には, 発見が難しい。

ガングリオンの発生機序に関して, 軟組織に発生するものについては, 1970年に Byers ら¹⁰⁾が提唱した結合組織の粘液変性説が最も有力とされている。すなわち線維芽細胞が産出したムチンが貯留して, いくつかの偽嚢胞が形成され, 同時に線維芽細胞と膠質の増殖により線維性の壁を形成するという説である。しかしその後も数々の説が提唱されており, Lichtenstein¹¹⁾は外傷などにより関節包または腱鞘の膠原線維が粘液変性を起こすためと主張し, Rosai¹²⁾は関節包周囲組織への滑液の流出が原因で生じると説明している。また, Enzinger⁹⁾は発生部位の顎関節とは全く無関係で粘液腫によるものと報告している。一方, 骨内に認められたガングリオンについては, 骨髓内発生説と骨外からの侵入説に大きく分けられる。Schajowicz ら¹³⁾は

両方の説を提唱している。すなわち骨表面の機械的ストレスや反覆する微小外傷が骨髓内の血行障害を起こし、それに続発して結合組織の再生と線維化が起こる。その過程で粘液変性をきたし生じるとする説と、もう1つは骨外のガングリオンが隣接する骨内に穿通するとする説である。同様にKay¹⁴⁾は骨膜、滑膜より発生したガングリオンが増大し、骨皮質を圧迫吸収して徐々に骨のなかへ沈下し、骨膜および滑膜との連絡が断たれ、最終的に骨内ガングリオンになると推測している。またGoldman¹⁵⁾や荻野¹⁶⁾は骨内ガングリオンと軟組織のガングリオンは、組織学的にみても結合組織の粘液変性の過程により生じるとしてその類似性を強調している。このようにガングリオンの形成に関しては未だ明らかではない。しかし、関節に発生するため、運動に伴う慢性外傷、負担荷重などの誘因が関与していることが十分に推測できる。今回の症例でも、術中所見にて関節円板の転位および後部組織の断裂が認められ、負担荷重による慢性外傷が加わっていたと思われる。これまでの顎関節に発生した症例では、円板の転位など周囲組織の変化に言及した報告はない。今後、発生部位および機序について考察するためにも、これらの所見を蓄積する必要があると思われる。

病理組織学的診断の根拠として、滑膜嚢胞は関節周囲組織のヘルニアによる腔形成と考えられ、腔面に滑膜細胞の被覆を有するものとする報告が多い¹⁷⁾。本例では皮質骨の欠損部を通じて内外の線維性組織の連続がみられていたため、下顎頭からの刺激が骨内に及んでいたことが考えられる。骨髓相当部には粘液変性を経て嚢胞状腔にいたる経過が明らかであった。また腔の内面に滑膜細胞による被覆は認められないことから、ガングリオンと診断した。

治療としては、粉碎、穿刺吸引、切開、ステロイド注入、放射線照射および外科的切除が報告されている^{2, 18, 19)}。また再発率については粉碎では50%、吸引、切開では80%と比較的高く、外科的切除が最も有効といわれている¹⁹⁾。今回わたくしたちは、下顎頭切除術を施行したが、手術前には腫瘍性病変の可能性もあり、確定診断を得るためにも手術は妥当であったと考える。今後も再発や反対側の発生を考慮し、十分な経過観察が必要と思われる。

結 語

今回わたくしたちは、非常にまれな下顎頭骨内に発生したガングリオンに対し、下顎頭切除術を施行した。術後14か月経過した現在、再発および機能障害もなく経過良好である。

謝辞

稿を終えるにあたり、さまざまな御教示を頂きました新潟

大学大学院医歯学総合研究科顎顔面放射線学分野 小林富貴子先生に感謝致します。

引 用 文 献

- 1) Nablieli, O., Lewkowicz, A., et al.: Ganglion cyst of the temporomandibular joint: report of case and review of literature. *J Oral Maxillofac Surg* 58: 216-219 2000.
- 2) 柴原孝彦, 野間弘康, 他: 顎関節部におけるガングリオンの1例. *日口外誌* 39: 923-925 1993.
- 3) Bridgeman, A.M., Wiesenfeld, D., et al.: Intraosseous ganglion of the mandibular condyle: a case report. *J Oral Maxillofac Surg* 56: 1449-1451 1998.
- 4) 小宮山高之, 木野孔司, 他: 顎関節に発生したガングリオンの1例. *日口外誌* 45: 844-846 1999.
- 5) Albright, J.T., Diecidue, R.J., et al.: Intraosseous ganglion of the temporomandibular joint presenting with otorrhea. *Otolaryngol Head Neck Surg* 126: 665-668 2000.
- 6) Patel, N.S., Pellettiere, E.V., et al.: Intraosseous ganglion of the temporomandibular joint. *J Oral Surg* 37: 829-831 1979.
- 7) Takaku, S., Sano, T., et al.: Ganglion of the temporomandibular joint: case report. *J Oral Maxillofac Surg* 59: 224-228 2001.
- 8) 磯野伸雄, 佐々木健司, 他: 極めてまれな顎関節部ガングリオンの1例. *形成外科* 43: 813-817 2000.
- 9) Enzinger, F.M., Weiss, S.W., et al.: Soft tissue tumours. Mosby Co, St Louis, 1983, p698-705.
- 10) Byers, P.D. and Wadsworth, T.G.: Periosteal ganglion. *J Bone Joint Surg* 52: 290-295 1970.
- 11) Lichtenstein, L.: Diseases of bone joint. Mosby Co, St Louis, 1975, p222.
- 12) Rosai, J.: Pathology. Mosby Co, St Louis, 1977, p2041.
- 13) Schajowicz, F., Sainz, M.C., et al.: Juxta-articular bone cyst (intra-osseous ganglia). *J Bone Joint Surg* 61-B: 107-116 1979.
- 14) Kay, N.R.M.: Sub-periosteal ganglia. *Acta Orthop Scand* 42: 173-177 1971.
- 15) Goldman, R.L., Friedman, N.B., et al.: Ganglia ("synovial" cyst) arising in unusual locations. *Clin Orthop* 63: 184-189 1969.
- 16) 荻野幹夫, 古谷 誠, 他: 骨内 ganglion について—自験3例を中心として. *臨整外* 10: 802-809 1975.
- 17) 日浅匡彦, 辺見達彦, 他: 腰部脊柱管内に発生した滑膜嚢腫の1例. *臨整外* 33: 915-918 1998.
- 18) Hopper, C. and Bnks, P.: A ganglion of the temporomandibular joint: a case report. *J Oral Maxillofac Surg* 49: 878-880 1991.
- 19) Heydt, S.: A ganglion associated with the temporomandibular joint. *J Oral Surg* 35: 400-401 1977.