頬骨弓下縁部に生じた骨形成線維腫の1例

木村 嘉宏・小牧 完二
長谷川正午・奥村 嘉英

A case of ossifying fibroma arising at the inferior
border of the zygomatic arch

KIMURA Yoshihiro · KOMAKI Kanji
HASEGAWA Shogo · OKUMURA Yoshihide

Abstract: We describe a case of ossifying fibroma arising at the inferior border of the left zygomatic arch. A 22-year-old woman presented with a swelling and pain in her left cheek. A bony hard mass was found in the diffuse swelling of the cheek, adjacent to the zygomatic arch. CT imaging showed a bony, dense lesion in the left zygomatic/masseteric region. Interposition of soft tissue between the bony tumor and the zygomatic arch was recognized. Under a diagnosis of a benign bony tumor, the tumor was enucleated with the patient under general anesthesia. The histopathological diagnosis was an ossifying fibroma. An ossifying fibroma arising at the inferior border of the zygomatic arch has not been reported previously, and the origin of the tumor is unclear. The patient has remained relapse free for more than 2 years after the operation.

Key words: ossifying fibroma (骨形成線維腫), zygomatic arch (頬骨弓), bone-related lesions (骨関連病変)

緒 言

骨形成線維腫とは、骨組織の形成を伴う線維性組織の腫瘍状増殖物である。1927年にMontgomery¹⁾により初めて提唱されて以来、多くの報告があるが、頬骨弓下縁部に生じた報告はない。今回我々は、左頬骨弓下縁部に生じた骨形成線維腫の1例を経験したので報告する。

症 例

患 者：22歳、女性。
初 診：平成16年11月。
主 訴：左頬部の疼痛、腫脹。
既往歴：特記事項なし。

現病歴：平成16年5月頃より、左頬部の疼痛を自覚。その後、自発痛および圧痛が次第に増悪し、左頬部の腫脹を繰り返すようになり、当科を受診した。

現 症：左頬部の自発痛および左頬骨弓下縁部に直径約20mmのびまん性の腫脹を認めた。その中心部には、直径約10mmの骨様硬の腫瘤を触知した。同部に圧痛を認めた

が、皮膚には発赤などの異常所見はなく、顔面神経麻痺、知覚麻痺、開口時痛や開口障害も認められなかった。また、左耳下腺唾液の流出は良好で、排膿も認められなかった。

画像所見：パノラマX線所見では、左頬骨弓下縁部に直径約10mmの骨様不透過像を認めた(写真1)。CT所見では、腫瘤は境界明瞭な半球状で、骨よりもやや低信号を呈し、不均一で、咬筋付着部に存在していた。しかし、頬骨弓との連続性は不明瞭で、軟組織の介在が疑われた(写真2)。

検査所見：血液検査、胸部X線所見などに、特に異常は認められなかった。

臨床診断：左頬部骨形成性腫瘍。

処置および経過：平成17年6月21日、全身麻酔下に腫瘍摘出術を施行した。腫瘍は境界明瞭で、咬筋と容易に剥離された。頬骨弓側では、頬骨弓骨膜付近での切離時にわずかに硬い感触があり、軽度の癒着が疑われたが、明らかな骨性の癒着ではなく、メスにて切離された(写真3)。術後の経過は良好で、左頬部の疼痛は消退し、現在まで再発は認められていない。

摘出標本所見：腫瘍の咬筋側面は、骨様硬、乳白色を呈し、直径約10mmのやや不正な半球状であった。頬骨弓側面では、やや粗造な面を呈していた(写真4A, B)。

病理組織学的所見：腫瘍外縁に成熟した骨組織を認め、

市立四日市病院歯科口腔外科
(主任：小牧完二部長)
Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Yokkaichi
Municipal Hospital (Chief: Dr. KOMAKI Kanji)
受付日：2007年5月21日
採択日：2007年12月25日

写真1 パノラマX線写真
左頬骨弓下縁部に骨様の不透過像を認めた(矢印).

写真2 CT像
前額断: 左頬骨弓下縁部に高信号域を認めたが、骨よりも不透過性が低く、不均一で、咬筋付着部に存在していた(矢印).

写真3 手術時写真
ZA: 頬骨弓, MM: 咬筋, OF: 骨形成線維腫
腫瘍は境界明瞭で、頬骨弓下縁部に存在していた。頬骨弓との明らかな連続性は認められなかった。

写真4 摘出標本写真
A: 咬筋側面 直径約10mmのやや不正な半球状の腫瘍を認めた。
B: 頬骨弓側面 やや粗造な面を呈していた。

細胞成分に富んだ線維性組織の著明な増生があり、そのなかには骨芽細胞によって縁取られた種々の形態の骨組織の形成が認められ、骨形成線維腫と診断された(写真5A, B)。腫瘍の咬筋側は、成熟した骨組織に被覆され、頬骨弓側の粗造面部には、線維性組織のなかに幼弱な骨や軟骨の形成が認められた(写真5C, D)。

考 察

骨形成線維腫は、良性、進行性の骨腫瘍類似疾患、線維-骨性病変(fibro-osseous lesion)のひとつに分類され、ossifying fibromaとしてMontgomery¹⁾により初めて提唱された。病理組織学的特徴は、細胞に富み、膠原線維に乏しい結合組織が増殖するなかに不規則な類骨や骨梁の形成を認め²⁾、骨芽細胞によって縁取られた種々の形態の骨組織形成が認められる³⁾こととされている。1992年のWHOの歯源性腫瘍の分類⁴⁾では、セメント質・骨形成線維腫として、骨原性新生物のなかに分類され、特に、形成された石灰化物が骨組織である場合には、化骨性線維腫と

写真5 病理組織像

- A : 弱拡大所見 (H-E 染色, $\times 20$)
腫瘍外縁に成熟した骨組織を認めた。
- B : 強拡大所見 (H-E 染色, $\times 100$)
細胞成分に富んだ線維性組織の著明な増生があり, そのなかには骨芽細胞によって縁取られた種々の形態の骨組織の形成が認められた。
- C : 咬筋側 (H-E 染色, $\times 40$)
腫瘍の咬筋側は, 成熟した骨組織に被覆されていた。
- D : 頬骨弓側 (H-E 染色, $\times 40$)
頬骨弓側の粗造面部には, 線維性組織の中に幼弱な骨や軟骨の形成が認められた。

称されていた⁵⁾。しかし, 2005年の新分類⁶⁾では, 骨形成線維腫として, 骨関連病変のなかに分類され, これまでのセメント質形成線維腫, セメント質・骨形成線維腫, 若年性骨形成線維腫が一括して扱われている⁷⁾。

好発年齢は20～30歳台で, 一般には女性に多いといわれ⁵⁾, 好発部位は下顎臼歯部であるが, 上顎や顎骨以外にも発生するといわれている^{8, 9)}。しかし, これまでに頬骨弓下縁部に生じた報告例は渉猟できなかった。また, 本腫瘍の発育速度は緩慢で無痛性とされる。被膜を有することはまれであるが, 腫瘍と周囲の骨との境界は明瞭で, X線写真的にも, 硬組織の形成の程度により透過像もしくは種々の不透過像を呈するといわれている¹⁰⁾。われわれの症

例は, 20歳台の女性であり, 発生時期は不明であったが, 炎症に由来すると思われる自発痛を伴っていた。本報告例の腫瘍の境界は明瞭で, 被膜の存在は認められなかったが, 頬骨弓下縁部の咬筋付着部に存在しており, 頬骨弓に由来した骨形成線維腫と考えられた。

しかし, 術中所見では, 頬骨弓と本腫瘍との明らかな連続性は認められなかった。鑑別疾患として軟組織内に硬組織を形成する疾患を考えると, 化骨性骨膜炎, 化骨性筋炎, 軟部組織に発生する骨腫等が挙げられる。これらは, いずれも異所性に硬組織形成を認めるが, 骨腫では線維成分がみられないため, 病理所見が異なる。また, 化骨性骨膜炎, 化骨性筋炎は, 多彩な炎症所見を伴い境界不明瞭で, その

発症には外傷の関与が指摘されている¹¹⁾。本症例では外傷の既往もなく腫瘍の境界は明瞭で、化骨性骨膜炎、化骨性筋炎とは一致しない。本症例の骨形成線維腫が頬骨弓との連続性を喪失した理由を推測すると、咬筋付着部に生じた腫瘍に対する咬筋による牽引力の繰り返し、もしくは、その他の外力により、頬骨弓から腫瘍が分離し、軟組織の介在が生じたと考えられた。また、腫瘍の頬骨弓側の粗造面には、幼若な骨組織、軟骨、線維性組織の形成が認められており、このため、やや硬い感触を感じながらも、メスにて切離できたものと考えられた。疼痛の理由については、咬筋付着部で分離した腫瘍が可動性を有し、開閉口等の運動に伴い周囲組織を刺激したため、局所に炎症を生じ、疼痛、腫脹が惹起されたと推測された。

骨形成線維腫の治療法は、全摘出が原則であり、病巣の完全な摘出がなされれば一般に予後は良好で再発はないとされている²⁾。本症例においても、術後約2年が経過したが、再発もなく経過良好である。

結 語

今回我々は、左頬骨弓下縁部に生じた骨形成線維腫の1例を経験したので報告した。

謝辞

稿を終えるにあたり、本症例の病理診断に際して、御助言ならびに御指導を賜りました、名古屋大学名誉教授竹内 純先生に深謝致します。

引 用 文 献

- 1) Montgomery, A.H.: Ossifying fibroma of the jaw.

Arch Surg 15: 30-44 1927.

- 2) 石川梧郎, 秋吉正豊: 口腔病理学Ⅱ. 第4版, 永末書店, 京都, 1990, 546-549頁.
- 3) Sciubba, J.J., Fontasia, J.E., et al.: AFIP Atlas of Tumor Pathology, Tumors and Cysts of the Jaw., American Registry of Pathology, 2001, p141-160.
- 4) Kramer, I.R.H., Pindborg, J.J., et al.: Histological typing of odontogenic tumours, WHO International Histological Classification of Tumours. 2nd ed, Springer-Verlag, Berlin, 1992, p27-31.
- 5) 二階宏昌: WHO分類に基づく口腔腫瘍の診断(その4) セメント質-骨形成性腫瘍ならびに非腫瘍性顎骨病変. Hosp Dent 13: 15-20 2001.
- 6) Barnes, L., Eveson, J., et al.: World Health Organization Classification of Tumours, Pathology and Genetics of Tumours of the Head and Neck, International Agency for Research on Cancer, Lyon, 2005, p319-320.
- 7) 武田泰典, 高田 隆: WHOによる歯源性腫瘍の新たな組織分類とそれに関連する上皮性嚢胞について. 日口外誌 52: 54-61 2006.
- 8) 加藤伸一郎, 神谷祐司, 他: 上顎洞を充滿したセメント質形成性線維腫の1例. 愛院大歯誌 37: 561-564 1999.
- 9) 藤本泰幸, 加藤昌樹, 他: 篩骨に発生した嚢胞形成性の cemento-ossifying fibroma の1例. 耳喉 58: 957-962 1986.
- 10) 二階宏昌: 顎骨のセメント質-骨形成性病変. - WHO分類(1992)における扱い方. 歯放 38: 149-156 1998.
- 11) 山本一彦, 井上公秀, 他: 外傷を契機に発見された上顎セメント質骨形成線維腫の1例. 日口診誌 17: 264-268 2004.