症 例

強い侵襲性が示唆された 下顎骨セメント質—骨形成性線維腫の 1 例

松 本 堅 太 郎 桧 垣 一 夫 谷 口 邦 久*
岡 村 和 彦* 田 中 守 柴 田 博 之
若 江 秀 敏 富 岡 徳 也

要旨：セメント質—骨形成線維腫は緩徐な発育を示す非歯原性の良性腫瘍であり、限局性で再発も少ないことから、病巣の範囲によっては摘出されることがある。しかしながら、症例によっては強い侵襲性を示すものがあり、これらのものの治療には注意を要する。

今回我々は、27歳の女性に生じた下顎骨正中部から右側関節突起に及ぶ比較的大きなセメント質—骨形成線維腫を経験した。生検の結果、セメント質—骨形成線維腫の病理組織診断が得られた。しかしながら、単純X線や CT 写真では透過像と不透過像とが不規則に混在する像が認められ、また境界が不明瞭であったことより、同腫瘍は強い侵襲性を有することが示唆された。そのため、我々は下顎骨半側切除術を施行し、腸骨による即時下顎骨再建を行った。摘出物を組織学的に検討したところ、被膜の形成は明らかでなく、関節突起部で腫瘍の飛び石状の浸潤が認められた。すなわち、セメント質—骨形成線維腫のなかには臨床的あるいは組織学的に典型的な病態を呈さないものもあり、そのような場合には腫瘍の性状に基づいた治療を行うことが重要であると考えられた。

キーワード：セメント質—骨形成線維腫、下顎骨、侵襲性、生物学的性状

結 言

セメント質—骨形成線維腫は、骨組織の形成を伴う線維性組織の腫瘍性増殖物である^{1,2)}。口腔外科領域においては顎骨の無痛性の限局性膨隆として認められ下顎に多くみられる³⁾。同腫瘍は、X線所見で単胞性の境界明瞭な透過像を呈し、周囲組織と明瞭に境界されている場合が多い⁴⁾。一般的には再発は希であることから病巣の範囲が大きいものについては摘出などの処置が施されるようである⁵⁻⁷⁾。今回我々は、27歳の女性に生じた下顎骨の半側を占めるセメント質—骨形成線維腫を経験した。本症例の腫瘍は広範囲に及んでいたばかりでなく、境界が不明瞭であったことなどから強い侵襲性を有することが示唆された。その

ため、下顎頭を含む下顎骨の半側切除術を施行し、腸骨移植による即時顎骨再建を行った。摘出物を組織学的に検討したところ、本腫瘍は典型的なセメント質—骨形成線維腫とは異なる性状を有していたことを示唆する所見が得られたので報告する。

症 例

患者：27歳、女性

初診：1995年7月13日

主訴：右側下顎部の腫脹

既往歴および家族歴：3歳時と16歳時に交通事故にて頭部打撲の既往があるが、後遺症はない。その他特記すべき事項はない。

現病歴：小学5年生時に右側下顎部の腫脹に気づき近医を受診したところ、投薬処置（内容不

福岡歯科大学口腔外科学第一講座（主任：富岡徳也教授）

* 福岡歯科大学口腔病理学講座（主任：北村勝也教授）

〔1997年1月31日受付、1997年2月21日受理〕

写真 1 初診時 顔貌写真
右側下顎骨骨体部に骨様硬でびまん性の腫脹を認める。

明) を受け腫脹の消退をみたが病名については明らかにされなかった。1995年5月頃に近歯科医により保存不能との診断のもと6の抜歯がなされた。抜歯後疼痛が持続したが、約3週間程度の消炎処置を受け症状の消退をみた。1995年7月初旬5の疼痛を主訴に近歯科医を受診した際、右側下顎の腫脹を指摘され精査希望にて当科に紹介来院した。

現症：体格は中程度で、顔色栄養状態ともに良好であった。口腔外所見では、下顎正中部から右側耳前部にかけてびまん性の腫脹が認められたが、同部皮膚の色調は正常であった。硬さは骨様硬で、圧痛は認められなかった。また、開口障害ならびに下唇の麻痺も認められず、所属リンパ節に異常所見はなかった(写真1)。口腔内所見では、876は抜歯により欠損しており、同部を中心に下顎骨犬歯部から下顎枝にかけて頬舌的な腫脹が認められたが、被覆粘膜は正常であった。膨隆部は骨様硬で波動や羊皮紙様感はなかった。残存歯牙の転位や動揺は認められなかった(写真2)。

臨床検査所見：血液、尿および血清生化学検査で異常所見はなく、血清アルカリフォスファターゼ値も正常範囲内であった。

X線所見：パノラマX線写真では、下顎正中部から右側関節突起部にかけてX線透過像と不透過像が不規則に混在する像が認められた。病巣の境界は明らかでなく、とくに関節突起部においては

写真 2 初診時 口腔内写真
右下臼歯歯槽突起部の頬舌側に骨様硬の腫脹を認める。

写真 3 術前パノラマ写真

写真 4 CT 写真(下顎骨骨体部)

スポット状の散在する透過像がみられた(写真3)。CT写真では下顎骨正中部から下顎枝に及ぶ右側下顎骨骨体部が頬舌的に膨隆している像が得られた。皮質骨の一部は菲薄化し、顎骨内部は透過像と不透過像が不規則に混在する所見が得られた(写真4)。関節突起部のCT写真では右側

写真 5 CT 写真 (下顎頭部)

写真 6 $^{99m}\text{TcMDP}$ シンチグラム

関節頭の肥大と不透過性の亢進が認められ、その内部は点状の透過像が散在していた (写真5)。

$^{99m}\text{TcMDP}$ シンチグラムでは右側下顎骨骨体部から関節突起にかけて強い集積が認められた (写真6)。左下顎骨抜歯窩相当部にも弱い集積がみられたが、その他の部位には異常集積は認められなかった。

臨床診断：下顎骨腫瘍

生検標本の病理組織所見：細胞成分に富む線維腫様組織の増殖と梁状や小球状の骨組織の形成がみられた。骨縁には所々で骨芽細胞が配列しており、骨梁間には一部で線維性結合組織も介在していた (写真7)。

写真 7 生検時 病理組織像 (H-E 染色 $\times 50$)

写真 8 術後パノラマ写真

写真 9 摘出物 ソフトテックス像

病理組織診断：セメント質—骨形成線維腫

処置および経過：1995年8月30日、下顎骨正中部から下顎頭を含めた右側下顎骨半側切除とManchester法に準じた腸骨による下顎骨再建術を施行した (写真8)。再建は下顎枝相当部を可及的に上方まで延長した片側切除延長骨移植とした。術後の経過は良好で現在術後約1年半を経過するが再発などの徴候は認められていない。顔面の変形や下顎の偏位は僅かに認められるが顎運動は良好である。

摘出物所見：摘出した下顎骨は頬舌側に膨隆し

写真 10 摘出物病理組織モンタージュ写真

写真 11 摘出物病理組織像 (H-E 染色 ×25)

ていたが、骨皮質の欠損は認められなかった。軟 X 線撮影を行ったところ、X 線所見と同様に下顎骨正中部から関節突起部に及ぶ境界不明瞭な透過像と不透過像が混在する像が得られた (写真 9)。

摘出物病理組織所見：摘出した下顎骨は、10%ホルマリン固定後、25%硝酸溶液にて脱灰し、通常に従ってヘマトキシリン・エオジン染色を施した。下顎骨正中部から下顎頭に至る矢状断のブロック標本を数個作成し、これらを合成し全体の組織像のモンタージュ写真を作成した (写真10)。正中部の顎骨離断部付近、4~1 相当部の歯槽骨および筋突起部の骨組織は、ほぼ正常に近い組織構造がみられ、また外側の皮質骨も比較的良好に保たれていた。腫瘍組織は骨体部から関節突起部にいたる広い範囲で認められたが、被膜の形成は明らかでなかった。腫瘍は全体的に紡錘形の細胞成分に富む線維腫様組織と骨組織よりなっていたが、細い梁状や小球状を呈する骨組織が多量に出現している部位と骨組織は少なく線維性組織が主体となっている部位がみられた (写真11)。骨組織は比較的成熟した線維骨が多くみられたが、所々で

写真 12 摘出物 関節突起部病理組織像 (H-E 染色 ×2.5)

幼若な類骨組織あるいは類骨縁を有する組織などが混在する像が得られた。また、ヘマトキシリンに濃染する小球状のセメント質様硬組織も少量みられた。骨縁には骨芽細胞の配列や破骨細胞による骨吸収の所見が散見された。腫瘍の境界は正中部では比較的明瞭であるが、全体的には不明瞭で、関節突起部においては飛び石状に線維性組織の浸潤性増殖がみられた (写真12)。

考 察

本症例の腫瘍は下顎正中部から右側下顎頭に及んでいた。我々が検索した限りでは、本邦での顎口腔領域におけるセメント質一骨形成線維腫の報告は過去11年間に38例あった。これらの症例についてみると鶏卵大程度の大きさのものが多く、本症例と同程度の大きさを有していたものは3例のみであった⁸⁻¹⁰⁾。一般的にセメント質一骨形成線維腫は、境界明瞭な単胞性の X 線混合像として認められる⁴⁾。しかしながら本症例の X 線写真においては、腫瘍の境界は不明瞭であった。とくに関節突起部では腫瘍が飛び石状に浸潤増殖していることを示唆する像を得た。さらに、腫瘍は透過像と不透過像が不規則に混在する X 線像を呈していた。後日、摘出物を病理組織学的に観察したところ、術前 X 線所見を裏付ける結果が得られた。すなわち、関節突起部において飛び石状の腫瘍の浸潤がみられ、腫瘍組織中にみられる骨組織は規則

性を欠いており多様性に富んでいた。これらのことから本症例の腫瘍は比較的大きなものであるだけでなく、従来顎口腔外科領域で報告されている典型的なセメント質一骨形成線維腫とは性状を異にしており、強い侵襲性を有する可能性が考えられた^{11,12)}。

本症例では被膜の存在は明らかではなかった。一般的な腫瘍の性状として、被膜を形成するものは境界が明瞭であり浸潤傾向は弱く、被膜の形成がないものについては境界が不明瞭で浸潤傾向がみられることが多い。被膜の存在はセメント質一骨形成線維腫の組織学的診断基準の根拠であり、これを線維性骨異形成症との鑑別点とするむきもあるが、山本らは必ずしも被膜の存在が証明されるわけではないとしている¹³⁾。本症例では生検の際に、下顎骨大臼歯部外側皮質骨が病巣部より容易に分離できたため、病巣の正常組織との連続性は乏しいものと考えられた。このことは線維性骨異形成症としての所見よりはむしろセメント質一骨形成線維腫の所見と合致するものと思われる。セメント質一骨形成線維腫における被膜の存在と侵襲性の関連性については、未だ明らかにされているとはいえず、今後検討を行う必要があると考えられる。

小学生時に原因不明の下顎の腫脹があり、腫瘍が比較的広範囲に及んでいることは、若年性(侵襲性)化骨性線維腫 juvenile (aggressive) ossifying fibroma の可能性を示唆する¹⁴⁾。しかしながら、同腫瘍の病理組織学的特徴とされる豊富な骨芽細胞を伴う幼若な類骨組織については散見されるにすぎず、巨細胞や破骨細胞などの存在も特徴的ではなかった¹⁵⁾。さらに、本症例の腫瘍の多くの部分は、種々の大きさや形状の骨組織を有する線維組織より構成されていたが、線維性骨異形成症に類似する部位やセメント質様硬組織が種々の程度に形成されている部位あるいは線維性組織が主体をなしている部位などもみられた。これらのことから、本症例の腫瘍は、学童期に若年性(侵襲性)化骨性線維腫様の病態を有していたものが、何らかの機序で腫瘍の性状が変化し、部位によっては侵襲性が示唆されるセメント質一骨形成線維腫の組織像を呈するようになった可能性が考えられる。

手術に先立ち確定診断を得るため生検を施行したところ、典型的なセメント質一骨形成線維腫と考えられる病理組織像が得られた^{2,3)}。典型的なセメント質一骨形成線維腫は、比較的再発も少なく境界も明瞭であることから、その範囲によっては摘出術がなされることもある⁵⁻⁷⁾。本症例については、臨床的所見から腫瘍は強い侵襲性を有していることが示唆されたため、下顎頭を含む下顎骨半側切除を施行した。術後摘出物を組織学的に観察したところ、下顎頭の組織像は生検で得られた大臼歯部の組織像とは異なる所見が得られた。このことは、限られた範囲の検体より得られる病理組織像は必ずしも腫瘍の生物学的性状を反映しているとは限らないことを示している。的確な病理組織診断を得るためには、適切な部位より生検を行うことが重要であるが、病巣が広範囲に及ぶ症例については、複数の部位より検体を採取することも考慮すべきであろう。本症例の場合には、関節突起部より生検を行えばよりの確に腫瘍の性状が把握でき得た可能性はある。しかしながら、同部からの生検は患者への負担が大きいため大臼歯部からのみの生検にとどめた。本症例に限らず顎骨の線維一骨性病変のなかには、定型的でない病変が報告されていることから¹⁶⁾、そのような病変の取り扱いについては、生検によって得られる病理組織診断のみならず臨床的所見も充分考慮したうえで、総合的に腫瘍の性状を把握することが重要であると考えられる。

本論文の要旨の一部は第29回日本口腔科学会九州地方部会(1996年12月7日、福岡市)において発表した。

文 献

- 1) Montgomery, A.H.: Ossifying fibroma of the jaw. Arch Surg 15: 30-44, 1927.
- 2) Kramer, R.L.H., Pindborg, J.J., et al. eds: World Health Organization. Histological typing of odontogenic tumors. 2nd ed, WHO, 1992, 27-31.
- 3) Stewart, J.C.B.: Benign non-odontogenic tumors. Regezi, J.A. and Sciubba, J.: Oral pathology, 2nd ed, W.B. Saunders Co, Philadelphia, 1993, 399-401.
- 4) Waldron, C.A. and Giansanti, J.S.: Benign fibro-osseous lesions of the jaws. A clinical-radiologic review of 65 cases. Oral Surg 35: 340-350, 1973.

- 5) Waldron, C.A.: Fibro-osseous lesions of the jaws. J Oral Maxillofac Surg 43: 249-262, 1985.
- 6) Evansole, L.R., Leider, A.S., et al.: Ossifying fibroma: A clinicopathologic study of sixty-four cases. Oral Surg Oral Med Oral Pathol 60: 505-511, 1985.
- 7) Hammner, J.E., Scofield, H.H., et al.: Benign fibro-osseous jaw lesions of periodontal membrane origin. Cancer 22: 861-878, 1968.
- 8) 松田由紀子, 白野隆史, 他: 化骨性線維腫の2例. 日口外誌 35: 1462-1467.
- 9) 早津良和, 葛山 司, 他: 下顎骨に発生した若年性化骨性線維腫の1例. 児口外 5: 174-178, 1995.
- 10) 八木原一博, 岡部貞夫, 他: 下顎骨2/3を占めた化骨性線維腫の1例. 口科誌 42: 958-959, 1993.
- 11) Reaume, C.E., Schmid, R.W., et al.: Aggressive ossifying fibroma of the mandible. J Oral Maxillofac Surg 43: 631-635, 1985.
- 12) Waldron, C.A.: Fibro-osseous lesions of the jaws. J Oral Maxillofac Surg 51: 828-835, 1993.
- 13) 山本 肇, 茅野照雄: 顎骨の fibro-osseous lesions. 口病誌 52: 483-489, 1985.
- 14) Slootweg, P.J. and Muller, H.: Juvenile ossifying fibroma. Report of four cases. J Craniomaxillofac Surg 18: 125-129, 1990.
- 15) Slootweg, P.J., Panders, A.K., et al.: Juvenile ossifying fibroma. An analysis of 33 cases with emphasis on histopathological aspects. Oral Pathol Med 23: 385-388, 1994.
- 16) Koury, M.E., Regezi, J.A., et al.: 'Atypical' fibro-osseous lesions: diagnostic challenges and treatment concepts. Int J Oral Maxillofac Surg 24: 162-169, 1995.

A case of aggressive cemento-ossifying fibroma of the mandible

Kentaro Matsumoto, Kazuo Higaki, Kuniyoshi Taniguchi*, Kazuhiko Okamura*,
Mamoru Tanaka, Hiroyuki Shibata, Hidetoshi Wakae and Tokuya Tomioka

Department of Oral and Maxillofacial Surgery, I, Fukuoka Dental College
(Chief: Prof. Tokuya Tomioka)

* Department of Oral Pathology, Fukuoka Dental College
(Chief: Prof. Katsuya Kitamura)

Abstract

Cemento-ossifying fibroma is a slow-growing benign non-odontogenic neoplasm, commonly enucleated from normal bone with ease. However, some lesions behave aggressively, demanding special treatment.

A 27-year-old female patient with a cemento-ossifying fibroma extending from the anterior to the right condylar process of the mandible, was presented. Although a biopsied specimen showed a 'typical' feature of ossifying fibroma, X-ray and CT scan showed a mixed radiolucent/radiopaque lesion with a poorly-defined margin at the ramus, suggesting aggressive behavior of the tumor. Thus, hemimandibulectomy and immediate reconstruction by autogenous iliac bone graft were performed. On histologic evaluation of the surgical specimen, multiple tumor nests were found at the ramus. In conclusion, when the lesions do not clearly fit into a known diagnostic category clinically and histologically, treatment should be based on the biological behavior of the tumor.

Key words: cemento-ossifying fibroma, mandible, aggressive, biological behavior

Requests for reprints to: Dr. Kentaro Matsumoto, Department. of Oral and Maxillofac. Surgery. I, Fukuoka Dental College. 2-15-1, Tamura, Sawara-ku, Fukuoka, (814-01) Japan