下顎骨両側に現われた Fibrous Dysplasia の一症例について

九州歯科大学第1口腔外科学教室(指導:平川正輝教授)

空閑祥浩・蒲池世史郎・阿部成善

(昭和46年6月30日受理)

A CASE OF FIBROUS DYSPLASIA ON THE BOTH SIDES OF LOWER JAW

By

Yoshihiro KUGA, Seishiro KAMACHI and Naruyoshi ABE

First Department of Oral Surgery (Director: Prof. Masateru HIRAKAWA)

Kyushu Dental College, Kitakyushu, Japan

Comparatively, Fibrous Dysplasia of jaw is rare. Fibrous Dysplasia on the both sides of lower jaw has been reported only in a few cases, in Japan.

We had Fibrous Dysplasia on the both sides of lower jaw. The affected region presented on the body of lower jaw bone. Curettement of the affected region was the only employed in this case. The healing was uneventful. There has been no sign of recurrence, and roentgenograms taken a year after the operation showed an evidence of new bone formation in the affected area.

Patient, 32 year old, house woman visited a dental office for 321 treatment on 25, May, 1970. She had no sensible symptom. Roentgenograms were taken, and affected regions were pointed out. When she visited our hospital next day, a slight swelling was palpated on the body of the left lower jaw, and there were no other findings.

Roentgenograms showed thumb tip size of radiolucency. Histologically, specimen showed the findings of Fibrous Dysplasia. And it showed a cementiclelike mass partially.

緒 言

Fibrous Dysplasia は Polyostotic Fibrous Dysplasia, Monostotic Fibrous Dysplasia に分けられ, Fibrous Dysplasia のあるものは Albright 氏症候群, Recklinghausen 氏病, Paget 氏病などの名称で呼ばれている。

顎領域に現われる Fibrous Dysplasia は比較的稀れとされており, 本邦において, 私達の収集した範囲では, 石田ら¹⁾が下顎骨の片側に発生した限局性線維性骨異栄養症の二例, 小林ら²⁾が一例の報告をしている。また下顎骨両側に現われた症例は, 林, 今井ら³⁾の報告による下顎両側に Fibrous Dysplasia および上顎両側に Follicular Cyst を認めた一症例を除き見当たらない。

今回, 私達は両側の下顎骨体部に現われた Fibrous Dysplasia の一症例を経験したので報告する。

症 例

患者; 大〇久〇, 32才, 主婦
初診; 昭和45年5月26日
主訴; 左側下顎骨体部の腫脹
家族歴ならびに遺伝的關係; 特記すべき事項は認められない。

既往歴; 6才の時, ジフテリーに罹患
現病歴; 約14年前 7 6 | 6, 約4~5年前 4 5 7 の抜歯手術を受け, その時, 顎骨の異常に気付かず, その後, 自覚症状もなく経過。昭和45年5月25日 3 2 1 の治療のため, 某歯科医院を訪れ, X線撮影により両側下顎骨体部の異常を指摘され, 本院を受診したものである。

現症; 体格栄養中等度, 来院時体温36.5°C, 脈搏78, 眼瞼結膜の貧血なし。顔貌は, ほぼ対称である(写真1

術前（写真1）

）。触診により左側下顎骨体部に軽度の骨様硬の膨隆を触知するが、右側下顎骨体部には膨隆を触知しない。左右顎下リンパ節の腫脹は認めない。開口障害はなく上下顎切歯間距離は開口時3横指である。

口腔内所見では、左側下顎大臼歯部頬側歯肉に骨様硬の膨隆を触知する他は異常を認めない。76 4|4 5 6 7欠損、5| に Crown 装着、各歯牙の骨植は堅固である。

X線所見；両側下顎骨体部の大臼歯部相当部位に、多房性を思わせる様な比較的境界明瞭な拇指頭大のレ線透過像を示し、その中に米粒大の不透過像が認められる。透過像の周辺は綿雲状のレントゲン像を示している（写真2～4）。

臨床検査所見；

血液検査所見；特に異常は認められない（表1）。

尿検査所見；蛋白定性（－），ウロビリノーゲン（±）

ミネラル検査所見；特に異常は認められない（表2）

。生化学検査；特に異常は認められない。（表3）

術前（写真2）

術前 右側（写真3）

術前 左側（写真4）

（表1）

赤血球数	375×10 ⁴ /mm ³	白血球百分比	
白血球数	7750/mm ³	骨髓芽球	0%
血小板数	26.25×10 ⁴ /mm ³	好塩基球	1%
Hb 値	12.2g/dl	好酸球	5%
Ht 値	37%	好中球	
出血時間	7分	前骨髓細胞	0%
血液凝固時間	10分30秒	骨髓細胞	0%
血液型	A type	後骨髓細胞	0%
		桿状核球	7%
		分葉核球	41%
		リンパ球	41%
		単球	5%
		形質球	0%
		計	100%

（表2）

Na	137mEq/l	HCO	26mEq/l
K	5.1mEq/l	P	2.1mg/dl
Cl	112mEq/l	Ca	4.3mEq/l

(表 3)

血清蛋白	8.0g/dl	アルカリ・フォス	1.7u.
アルブミン	3.6g/dl	ファターゼ	
グロブリン	4.4g/dl	コレステロール	170mg/dl
A/G比	0.82	硫酸亜鉛混濁試験	6 u.
黄疸指数	5	NPN	26mg/dl
CCLF	(-)	Urea N	11mg/dl
コリンエステラーゼ	0.93PH	トランスアミナーゼ	GOT 4.5u. GPT 2.0u.

臨床診断；エナメル上皮腫の疑い。

手術ならびに経過；手術は昭和45年6月19日、G-O-P気管内麻酔のもとで、通法により両側下顎骨に行われた。下顎下縁やや内側に約7cmの皮膚切開を加え下顎骨膨隆部を露出後、下顎骨々体部下縁より骨膜を剥離、膨隆部緻密骨質を除去すると拇指頭大の骨腔を認めた。骨腔内面は粗造な骨壁を示し、特に右側骨腔内面には、米粒大の歯牙様物質が認められた。鋭匙にて骨腔内面を搔爬し、創は抗生剤により処理した後、各層の縫合を行い一次閉鎖創として手術を終った。手術後毎日ペニシリンGゾル60万単位の筋注を2週間行い、術後経過は良好で22日目に退院した(写真5, 6)。1年後のX線所見においても同部は、X線的に骨修復像を示している(写真7~9)

剔削物の肉眼的所見；米粒大で灰黄色を呈する骨様の硬度を有する歯牙様の物質が右側の骨腔内面からの剔削物である。また両側骨腔壁の剔削物はザリザリした骨様の組織である。

術後1年(写真5)

術後1年(写真6)

術後1年(写真7)

術後1年右側(写真8)

病理組織学的所見；両側骨腔壁および右側骨腔内面付着の組織は通法により病理組織標本を作製し観察した。左側骨腔壁の切片標本は大部分が疎なる線維組織よりなり、線維組織中に孤島状の骨組織およびセメント質粒様の組織が散在している。また部分的に破骨細胞が多数認められ骨吸収が著明であり、その反側部には造骨細胞も

術後1年左側（写真9）

右側（写真10）

左側（写真11）

認められる。右側骨腔壁の切片標本では左側とほぼ同様の所見を呈し、ただ左側に比し破骨細胞の出現が少く、染色性が低く、層板構造に乏しい骨所見が顕著である（写真10, 11）。右側骨腔内面に付着していた歯牙様物質の切片標本は、象牙質に近似しており象牙細管様のものが走行しその周囲をセメント質様の物質にて包囲されていた。

組織学的診断；下顎骨両側性の線維性骨異栄養症

総括ならびに考按

Fibrous Dysplasia について、Thoma⁴⁾ は顔面部が多

数の小さな骨の結合よりなるために、Polyostotic Fibrous Dysplasia, Monostotic Fibrous Dysplasia の呼称が不適当なることを指摘し、下顎骨を除き顔面骨に発生するものを、顔面骨線維性異形成症とみなしている。

病理組織学的に諸家の報告をみれば、乱雑な線維組織、針状骨、類骨組織、孤島状異型骨、セメント質粒様組織、稀れではあるが極小の嚢胞が認められ、破骨細胞、造骨細胞の出現の不均衡などが述べられている。

本症例における組織像では、針状骨および嚢胞の存在は認められなかったが、Gold¹⁰⁾ の云うセメント質粒様組織などが認められ、典型的な歯性の所見とよく一致した。このセメント質粒様組織の出現は下顎骨という特殊性において、その潜在が覚醒し形成したものであろう。また右側骨腔内面より摘出された歯牙様物質は象牙細管の走行が見られ、その周囲をセメント質が包囲しているため、抜歯時根尖部の破折を来し取り残されたものであろうと判断した。

この種の病変が現われた症例において（1）皮膚色素沈着（2）骨の異常発育（3）性的早熟を伴うものを Albright 氏症候群^{7, 11)}、骨軟化、骨萎縮による骨の変形があり、血中の Ca 値増加、血中 P 値低下、血清のアルカリ性フォスファターゼ値の上昇などを特徴とした Recklinghausen 氏病^{12~14)}、また罹患骨の肥厚、変形、X線像における骨多孔像、組織像における脂肪髄の線維髄への変化が認められ、骨の新生、吸収は認められず、血清の Ca 値および P 値は正常でアルカリ性フォスファターゼ値の上昇を特徴とする Paget 氏病¹⁵⁾がある。

本症例において、皮膚色素沈着、性的早熟は認められていない。また X 線的には他骨に本病変は認められず、全身骨の骨軟化、萎縮による変形、血中 Ca 値の増加、血中 P 値の低下、アルカリ性フォスファターゼ値の上昇は認められなかった。また脂肪髄の線維性髄への変化は認められず、X線による骨多孔像も認められない。

X線所見について他報告例をみれば、骨全域に亘る不透過像、嚢胞様骨透過像、緻密骨質の菲薄化、骨幹の拡大が一般的な像であるが、小林²⁾ は多房性アーチ形の像が認められたことを報告している。

本症例においても同様の所見を認めている。

本疾患の治療法として、従来、顎切除、顎切除後の腸骨移植術、顎切除と放射線照射の併用、搔爬術、搔爬術と放射線照射の併用、放射線の単独照射および手術後のビタミン D、蛋白同化ステロイドホルモンの併用投与が行われてきたが、Zimmerman¹⁶⁾ は放射線によって悪性化した症例を報告している。

今日では主として搔爬術が行われており、林³⁾らは搔爬術を施し良好な経過を得た症例を報告している。

今回、私達は搔爬術を行い、臨床的、X線的に、術後1年を経て良好な経過を得ている両側下顎骨体部に発生した Fibrous Dysplasia の一症例を経験したので報告した。

結 論

私達は両側下顎骨々体部に現われた Fibrous Dysplasia の症例を経験したのでその概要を報告した。

処置は病変部の搔爬摘出を施行し、約1年の経過観察では、再発傾向もなく、X線的に骨修復像が認められた。

組織像において、セメント質粒様組織が認められたが、顎骨という特殊な組織において歯牙組織形成潜能が覚醒したために出現したものではないかと思われる。

稿を終るに臨み、御懇切なる御指導、御校閲を賜りました恩師平川正輝教授に心からの謝意を捧げます。病理学的な面におきまして終始、御指導の労を惜まれなかった口腔病理学教室、上野正康教授に深く感謝の意をさげます。

参 考 文 献

1. 石田勝一他；限局性線維性骨異栄養症の2例：日口外誌，1(2)，46—49，(1955)。
2. 小林岳敏他；若年者に発生した巨大な限局性線維性骨異栄養症の一例について：口腔外科学会雑誌，2(2)，71—73，(1956)。
3. 林 一・今井利広他；下顎両側に Fibrous Dysplasia および上顎両側に Follicular Cyst を認めた一症例：日口誌，17(1)，217—221，(1968)。
4. Thoma K. H. ; Oral Path., St. Louis, (1954)。
5. H. G. Schlumberger ; Fibrous Dysplasia (Ossifying Fibrosa) of the Maxilla and Mandible : American Journal Orthodontic & Oral Surg., 3(9)，579—587，(1946)。
6. 宮崎吉夫他；口腔病理学(後編)，永末書店，393。
7. Hamilton B. G. Robinson ; Osseous Dysplasia ; Reaction of bone to injury : Journal of Oral Surgery, 114(1)，3—14，(1956)。
8. 山蔦正雄他；稀れに見る多発性線維性骨異栄養症の一例に就いて：口外科誌，3(3)，162—165，(1957)。
9. 橋本茂；Fibrous Dysplasia の2例：整形外科，6(3)，185—189，(1955)。
10. Gold ; The classification and Pathogenesis of Fibrous Dysplasia of the jaw : Oral Path., 856—861，(1955)。
11. 清水和幸他；Albright's syndrome を完備した一例を含む Polyostotic Fibrous Dysplasia の3例：日口外誌，19(3)，741—748，(1970)。
12. Henry L. Jaffe ; Hyperparathyroidism (Recklinghausen's disease of Bone) : Arch. of Path., 16, 63—112，(1933)。
13. 説田武他；Polyostotic Fibrous Dysplasia の一症例，とくに Hyperparathyroidism との鑑別について：総合臨床，16(8)，1665—1675，(1967)。
14. John J. Morton ; The genalized type of osteitis Fibrosa Cystica von Recklinghausens Disease : Arch. Surg., 4, 534—566，(1922)。
15. 志村介三他；特に頭蓋ならびに顎骨に著明な変化が見られた Paget 氏骨病様疾患の一例：口科外誌雑誌，4(2)，153—157，(1958)。
16. Donald Zimmerman ; Fibrous Dysplasia of the Maxilla and Mandible : Oral. Surg. Oral Med. Oral. Path., 11(1)，55—68，(1958)。
17. Louis Lichtenstein ; Polyostotic Fibrous Dysplasia : Arch. Surg., 36(6)，874—898，(1938)。