

症 例

歯原性線維腫を疑わせた歯原性粘液腫の1例

田 中 四 郎¹⁾ 住 友 伸 一 郎¹⁾ 江 原 雄 一¹⁾ 太 田 貴 久¹⁾
 村 木 智 則¹⁾ 永 山 元 彦²⁾ 田 沼 順 一²⁾ 式 守 道 夫¹⁾

A Case of Odontogenic Myxoma with Suspected Odontogenic Fibroma

TANAKA SHIRO¹⁾, SUMITOMO SHINICHIRO¹⁾, EHARA YUICHI¹⁾, OHTA TAKAHISA¹⁾, MURAKI TOMONORI¹⁾,
 NAGAYAMA MOTOHIKO²⁾, TANUMA JUN-ICHI²⁾ and SHIKIMORI MICHIO¹⁾

歯原性線維腫，粘液腫はともに間葉性あるいは歯原性外胚葉性間葉組織で歯原性上皮をみるもの，あるいはみないもので歯原性上皮性間葉組織に由来する比較的まれな腫瘍であるが，その発育形式や予後は著しく異なり，治療方針決定のためにも鑑別診断が重要と考えられる．今回，我々は歯原性線維腫様変化を呈する歯原性粘液腫の1例を経験したので，その概要に考察を加えて報告する．

患者は12歳の男子．下顎左側のエックス線透過像の精査を求めて，2004年6月に紹介来院した．初診時，顔貌に特記すべき異常はなく，下顎左側第二乳臼歯部には抜歯窩が認められるが歯肉の異常は特に認めなかった．エックス線所見で水平に埋伏した第二小臼歯を含む境界明瞭な単胞性の嚢胞様透過像を認めた．同日，抜歯窩から生検を行い，透明感のあるゼリー状の組織を採取した．生検組織の病理組織像は豊富な粘液基質と散在性の紡錘形や星状の腫瘍細胞からなり，歯原性粘液腫と診断した．反復搔爬療法を計画し，2004年9月に摘出搔爬術を施行し，摘出物の病理組織所見では線維組織の増生が大部分を占め，それらの間に粘液基質が認められたが，最終的に歯原性線維腫様変化を呈する歯原性粘液腫と診断した．2005年3月に瘢痕組織の再搔爬術を施行し，その際に得られた標本には腫瘍を疑う組織は認められなかった．再搔爬後約1年を経過した現在，再発の徴候は認められない．

キーワード：歯原性粘液腫，歯原性線維腫，下顎，小児

Odontogenic fibroma and myxoma are relatively rare tumors derived from the odontogenic ectomesenchyme. The growth patterns and prognoses of these two tumor types are quite different and differential diagnosis is important for deciding the correct treatment option. Here, a case of odontogenic fibroma with myxomatous change is presented.

A 12-year-old boy was referred to our hospital at the end of June 2004 for a complete examination and treatment of a left mandibular cystic radiolucent lesion surrounding an impacted premolar tooth. The lower left second deciduous molar tooth had been removed by his home dentist. Neither pain nor swelling was observed in his left mandible. In the radiogram, a well-circumscribed, oval and unilocular radiolucent lesion was observed surrounding the horizontally impacted second premolar tooth.

A biopsy was done through the extraction wound and a whitish translucent tumor tissue specimen was collected. Histopathologically, the tumor consisted of spindle and angular cells lying in an abundant mucoid stroma. It was diagnosed as myxoma.

Serial conservative surgery (curettage) was employed, with the first operation performed in September 2004 and the following curettage in March 2005. Histopathological findings of the first surgical specimen

¹⁾朝日大学歯学部口腔病態医療学講座口腔外科学分野

²⁾朝日大学歯学部口腔病態医療学講座口腔病理学分野
501-0296 岐阜県瑞穂市穂積1851

¹⁾Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Division of Oral Pathogenesis and Disease Control

²⁾Department of Oral Pathology, Division of Oral Pathogenesis and Disease Control

Asahi University School of Dentistry
Hozumi 1851, Mizuho, Gifu 501-0296, Japan
(平成24年2月9日受理)

showed a fibrous tumor nest in the myxomatous area, which was diagnosed as myxoma with odontogenic fibromatous change. Histopathological examination of the surgical specimen in March 2005 indicated no tumor cells present in the scar tissue.

No evidence of recurrence was observed in the patient for over one year from the last surgical treatment.

Key words: odontogenic myxoma, odontogenic fibroma, mandible, child

緒 言

歯源性粘液腫は歯源性腫瘍のWHO組織学的分類(2005)によると「豊富な粘液様間質内に紡錘形および星状の細胞からなる局所浸潤性の新生物」と定義される。一方、歯源性線維腫は「成熟した線維性基質の増殖から成り、そのなかに非活動性と思われる歯源性上皮成分が種々の程度にみられる腫瘍」と定義される¹⁾。しかしながら、組織学的多様性により、完全に統一された見解は示されていない。今回、われわれは歯源性線維腫様変化を示す顎骨中心性歯源性粘液腫の1例を経験したので、症例の概要に文献的考察を加えて報告する。

症 例

患 者：12歳，男子。

初 診：2004年6月。

主 訴：下顎左側第二小臼歯部の異常エックス線所見の指摘

既往歴・家族歴：特記事項なし

現病歴：近医歯科で、下顎左側第二乳臼歯の動揺が大きいと、交換期による動揺と考へて抜去された。その際、膿の排出とともに抜歯窩の根尖部からさらに深部に多量の肉芽様組織を認めたとのことであった。パノラマエックス線写真による検査で、下顎左側第二小臼歯の歯冠を含むエックス線透過像を認めたために、精査を求めて当科に紹介された。

現 症：顔貌に特記すべき異常はなく、口腔内では下顎左側第二乳臼歯の抜歯窩が認められたが、周囲の歯肉には腫脹や発赤などの異常は認めなかった(図1)。

画像所見：パノラマエックス線写真で水平に埋伏した下顎左側第二小臼歯の歯冠を含む境界明瞭な直径が約30mmの単胞性嚢胞様透過像を認め、隣在歯は傾斜していた(図2)。CT検査では、エックス線透過像は30×20mmの類円形で、頬側皮質骨は菲薄化するとともに、膨隆し、埋伏歯を含む以外の内部構造は均質であった(図3)。

臨床診断：下顎左側第二小臼歯部歯源性腫瘍

処置および経過：初診当日、局所麻酔下にて下顎左側



図1 初診時口腔内所見



図2 パノラマエックス線写真所見

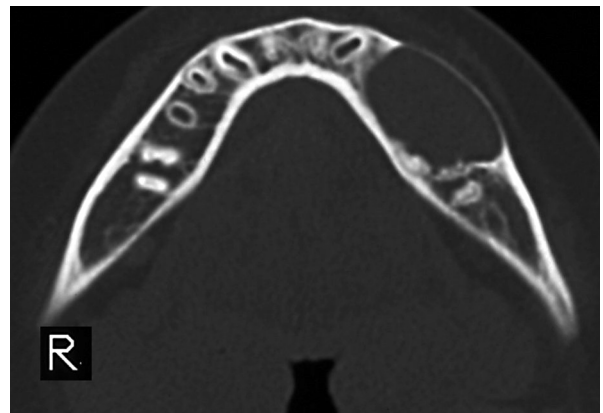


図3 CTエックス線写真所見

第二乳臼歯の抜歯窩から生検を行い、透明感のあるゼリー状の組織を採取した。

生検組織のH-E染色標本では、多量の粘液基質を背景に、紡錘形あるいは星状の腫瘍細胞が散在性に存在する所見を認め、歯原性粘液腫と診断した(図4)。

反復搔爬療法を計画し、2004年9月に全身麻酔下に摘出搔爬術を施行した。腫瘍は容易に骨面から剥離摘出することができ、摘出後の骨面も平滑であったが、粘液腫の浸潤性を考慮して、周囲一層の骨を削除し、開放創として治癒経過を観察した。

摘出物のH-E染色標本では、線維性組織の増殖が主体であり、コラーゲン線維束の間に粘液様基質を認め、粘液腫様変化を呈する歯原性線維腫を疑ったが、明らかな腫瘍被膜は確認されず、粘液基質が観察されたため歯原性粘液腫と診断した(図5)。免疫組織化学染色では紡錘形あるいは星状の細胞はすべて非上皮系の細胞骨格であるビメンチンに陽性を示したが、上皮の細胞骨格である広範囲サイトケラチン(AE1/AE3)は陰性であった(図6)。また、増殖性をみるKi-

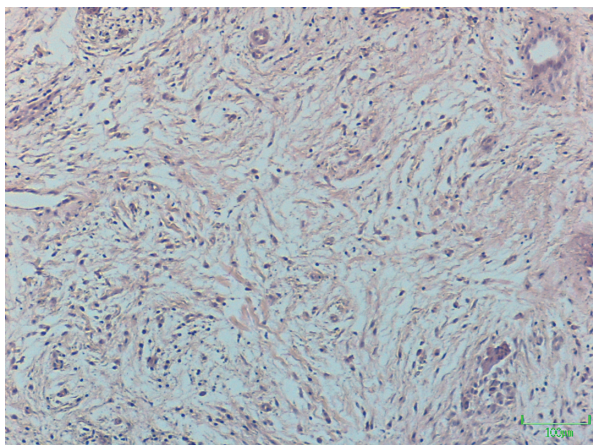


図4 生検組織の病理組織所見 (HE 染色) (×100)

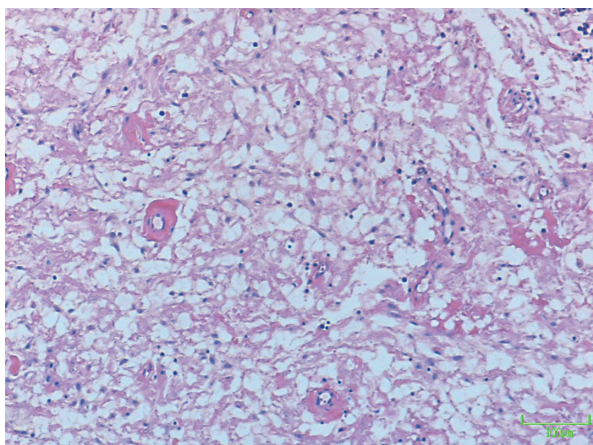


図5 摘出搔爬術時の病理組織所見 (HE 染色) (×100)

67 (MIB1) では、紡錘形の腫瘍細胞の核に陽性を示したが、その陽性率は低かった。

約半年の経過観察後、2005年3月に全身麻酔下に腫瘍摘出後の陥凹が残る骨表面を覆う瘢痕組織に対し、骨再生を促進し、残存腫瘍細胞による再発を防ぐために再搔爬術を施行した。再搔爬時の標本には腫瘍を疑う組織所見は得られなかった。

再搔爬術後約1年を経過した現在、再発の徴候は認められない(図7)。

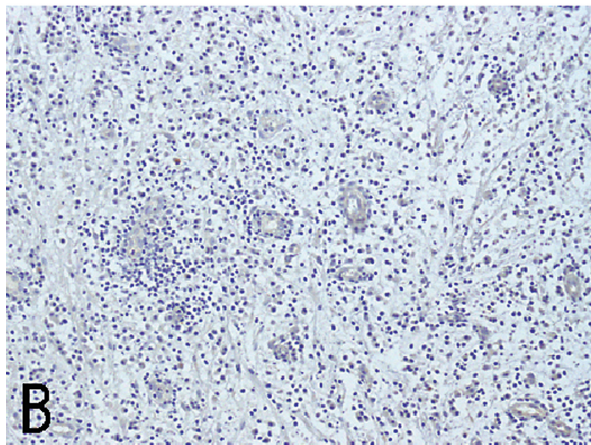
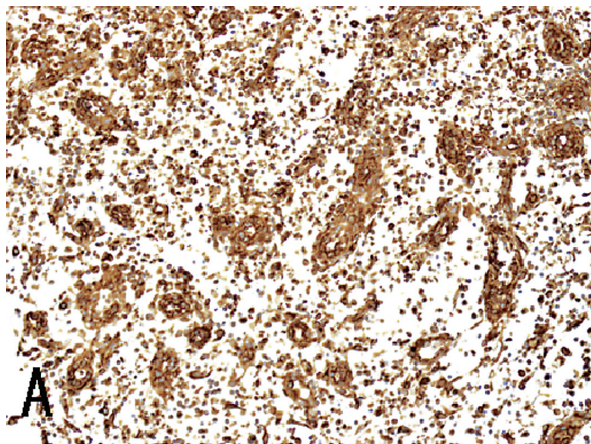


図6 免疫組織化学染色写真所見

A : ビメンチン (×100)

B : サイトケラチン (AE1/AE3) (×100)



図7 再搔爬後1年のパノラマエックス線写真所見

考 察

本症例において鑑別診断する上で、非新生物性に肥厚した歯小嚢、歯原性線維腫および歯原性粘液腫が重要であると考えられる。

未萌出歯の歯冠周囲にみられる比較的狭い範囲の病変は、病理組織学的にはコラーゲン線維に富む線維性結合組織から粘液様にいたる様々な所見を呈し、歯原性線維腫、粘液線維腫あるいは粘液腫に類似するが、最近では真の腫瘍と考えるよりも、非新生物性に肥厚した歯小嚢として取り扱われている²⁾。しかし、本症例においては、病変は埋伏歯冠を含むが、およそ30×30×20mmの大きさを有し、頬側への骨膨隆も認められることから新生物と考えるべき疾患と思われる。

WHOの組織分類(2005)によると、「間葉性あるいは歯原性外胚葉性間葉組織で歯原性上皮をみるもの、あるいはみないもの」のなかに歯原性線維腫、歯原性粘液腫/粘液線維腫およびセメント芽細胞腫が含まれる¹⁾。歯原性粘液腫については、1992年の概念を変更することなく採用し、「豊富な粘液様間質内に紡錘形または星状の細胞からなる局所浸潤性の新生物」と定義し、これに加えて、線維成分の多いものは粘液線維腫と診断されるとしている。歯原性線維腫は「成熟した線維性基質の増殖から成り、そのなかに非活動性と思われる歯原性上皮成分が種々の程度にみられる腫瘍」と定義される^{1,3)}。以前は、歯原性線維腫にみられる上皮成分の多寡や石灰化の有無が臨床病態に差異をもたらさないことから区別する必要はないとの意見もあった⁴⁾。

しかし、今回の分類では、1992年のWHO分類に見られる組織学的観点による細分化をさらに明確にして、これまで単純型(simple type)と呼ばれていた「上皮成分に乏しい型」と複雑型あるいはWHO型(complex type or WHO type)と呼ばれていた「上皮成分に富む型」の2種類に分類した^{1,3)}。上皮成分に乏しい型は歯小嚢に由来し、上皮成分に富む型は歯根膜由来と考えられており、上皮成分に富む型のほうが線維性基質の細胞成分も多く、異型セメント質や類骨、象牙質といった硬組織を形成することも多い^{1,3)}。歯原性線維腫のsimple typeはコラーゲン線維を多量に含む、粘液腫の組織学的バリエーションとも考えられている²⁾。本症例において、歯冠を含む腫瘍形態からsimple typeを疑った。

歯原性粘液腫と歯原性線維腫の臨床的所見や推奨される治療方針などは、まったく異なっている。粘液腫では皮膚が欠如し、粘液基質が浸潤性発育を示し、局所再発が多いため、安全域を含めた顎骨切除が推奨さ

れる⁵⁾。これに対して、歯原性線維腫では局所再発が少なく、悪性転換もないため、腫瘍関連歯の抜去および腫瘍の摘出が推奨されている^{6,7)}。このような、予後の差異には組織学的性状が強く関与すると考えられている。すなわち、歯原性粘液腫では粘液性の腫瘍実質が周囲組織の細かい間隙に浸透してゆくことで、浸潤性、破壊的に増殖するが、コラーゲン線維が多い歯原性線維腫では粘液腫のような挙動は採れず、周囲組織を一様に圧迫、排除しつつ膨張性に拡大すると考えられる。しかし、歯原性粘液腫においても本腫瘍を摘出後、腫瘍周囲の骨面を十分に搔爬することにより、顎骨の温存と良好な予後が得られたとの報告もみられる^{8,9)}。

本症例において病理組織検査では歯原性粘液腫と診断されたが、線維成分が多く、エックス線検査では明瞭な境界を有する単胞性透過像を呈し、頬側に膨隆する骨膜反応を認め、隣在歯は根吸収を受けずに傾斜を示すといった緩慢な膨張性の増殖を示唆する所見であった。これらの所見に患者の年齢も考慮し、摘出・搔爬反復療法を計画し、一次治療として摘出・搔爬術を施行した。摘出時の標本では、生検時の標本と比べると、明らかにコラーゲン線維束の増生が認められたため粘液腫様変化を示す歯原性線維腫を疑ったが、明らかな腫瘍被膜は確認されず、粘液基質が観察されたことから最終的には歯原性粘液腫と診断した。このように生検時と摘出時の所見が異なる理由として、生検部位が腫瘍の中央部であったため循環不全による異栄養化を起こしたこと、あるいは乳臼歯を介した弱毒性菌の慢性感染による組織変性が考えられる。

本症例では摘出時の組織像において観察された粘液様基質によって浸潤性の増殖形態を示す危険性は残されることが考えられる。骨欠損部の再生を促進し、残存腫瘍細胞による再発を防ぐために反復療法を行い、そこで得られた標本では腫瘍の再発を疑わず所見は認められなかった。しかし、患者が若年者であり、歯原性粘液腫の再発は少ないため、今後とも経過観察を継続していく予定である。

結 語

われわれは12歳の男子の下顎左側第二小臼歯部に発現し、歯原性線維腫様変化を呈する歯原性粘液腫の1例を経験したので、その概要に考察を加えて報告した。

文 献

- 1) Philipsen HP, Reishart PA, Sciubba JJ, van der Waal I, and Buchner A, Odell EW; Odontogenic fibroma,

- Odontogenic myxoma / myxofibroma. Barnes L, Eveson JW, Reichart P and Sidransky D, ed. World Health Organization Classification of Tumours, World Health Organization Classification of Tumours, Pathology and Genetics of Head and Neck Tumours. 1st ed. Lyon: International Agency for Research on Cancer; 2005: 315-317.
- 2) Gardner DG. Central odontogenic fibroma current concepts. *J Oral Pathol Med.* 1996; 25: 556-561.
 - 3) 武田泰典, 高田隆. WHOによる歯原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.* 2006; 52: 54-61.
 - 4) Handlers JP, Abrams AM, Melrose RJ and Danforth R. Central Odontogenic Fibroma: Clinicopathologic Features of 19 Cases and Review of the Literature. *J Oral Maxillofac Surg.* 1991; 49: 46-54.
 - 5) Simon EN, Merkx MA, Vuhahula E, Ngassapa D and Stoelting PJ. Odontogenic myxoma: a clinicopathological study of 33 cases. *Int J Oral Maxillofac Surg.* 2004; 33: 333-337.
 - 6) 森一将, 竹島浩, 田島義文, 馬殿展子, 田草川徹, 田村暢章, 草間薫, 嶋田淳. 上顎前歯部に発症した歯原性線維腫の1例. *日口診誌.* 2005; 18: 365-368.
 - 7) Daniels JS. Central odontogenic fibroma of mandible: A case report and review of the literature. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod.* 2004; 98: 295-300.
 - 8) 門野昌平, 吉田博昭, 坂田岳一, 渡邊岳, 福地和秀, 福田あおい, 森田章介, 富永和也, 田中昭男. 下顎に生じた歯原性粘液線維腫の1例. *日口診誌.* 2009; 22: 299-302.
 - 9) 柳下葉子, 重松久夫, 堀智一, 鈴木正二, 田中章夫, 草間薫, 坂下英明. 顎骨保存外科療法を施行した顎骨中心性粘液線維腫の1例. *日口診誌.* 2007; 20: 120-129.
-