

症 例

自家腸骨海綿骨骨髓細片移植により下顎骨の連続性を温存しえた
下顎骨下縁に至る骨形成線維腫の1例

中畑健太郎, 阿部 亮輔, 齋藤 大嗣*, 樋野 雅文, 山田 浩之, 武田 泰典**

岩手医科大学歯学部口腔顎顔面再建学講座口腔外科学分野

(主任: 山田 浩之 教授)

*岩手県立中央病院歯科口腔外科

(主任: 八木 正篤 部長)

**岩手医科大学病理学講座病態解析学分野

(主任: 武田 泰典 教授)

(受付: 2016年11月18日)

(受理: 2016年12月28日)

抄 録

骨形成線維腫は顎骨中心性に発生し、骨あるいはセメント質に類似した硬組織形成を伴う線維組織の増殖からなる良性腫瘍である。今回、われわれは19歳の女性の下顎骨下縁まで増大した骨形成線維腫に対して、腫瘍摘出術および自家腸骨海綿骨骨髓細片移植術による即時再建を行った1例を経験したので報告する。本症例は、当初腫瘍の大きさから区域切除の適応と考えられたが、腫瘍摘出後に下顎骨の舌側ならびに下縁の皮質骨が保存可能であったため、顎骨再建用チタンプレートによる補強と自家腸骨海綿骨骨髓細片移植術による即時再建を選択した。その結果、下顎骨の連続性を維持して形態を保ち、術後の審美障害を回避することができた。術後4年経過した現在、腫瘍の再発は認めない。

緒 言

骨形成線維腫は顎骨中心性に発生し、WHOの歯原性腫瘍の分類(2005年)では、骨あるいはセメント質に類似した硬組織形成を伴う線維組織の増殖からなる良性腫瘍と定義されている¹⁾。

従来から本腫瘍の治療は、摘出術を基本としているが、下顎骨の大きな腫瘍に対しては下顎区域切除術が選択されてきた。

われわれは、下顎骨下縁まで増大した骨形成線維腫に対して、腫瘍摘出術後に自家腸骨海綿骨骨髓細片(Particulate cancellous bone and

A case of ossifying fibroma involving the inferior border of the mandible in which mandibular continuity is preserved by iliac transplantation of particulate cancellous bone and marrow

Kentaro Nakahata, Ryosuke Abe, Daishi Saito, Masafumi Hino, Hiroyuki Yamada, Yasunori Takeda
Division of Oral and Maxillofacial Surgery, Department of Oral and Maxillofacial Reconstructive Surgery, School of Dentistry, Iwate Medical University (Chief: Prof. Hiroyuki Yamada)

* Oral and Maxillofacial Surgery, Iwate Prefectural Central Hospital (Chief: Dr. Masaatsu Yagi)

** Division of Anatomical and Cellular Pathology, Department of Pathology, Iwate Medical University (Chief: Prof. Yasunori Takeda)

1-3-27, Chuo-dori, Morioka, Iwate, 020-8505, Japan

marrow, 以下 PCBM) 移植を併用し, 下顎骨の連続性を温存して治療しえた1例を経験したので報告する.

症 例

患者: 19歳, 女性.

初診: 2011年7月.

主訴: 右側下顎大臼歯部の異常を指摘された.

既往歴・家族歴: 特記事項なし.

現病歴: 2011年7月, 歯科治療の目的で近在の歯科医院を受診した. X線検査において右側下顎骨体部に異常陰影が認められたため, 精査・加療を目的に当科を紹介され受診した.

現 症:

全身所見: 身長 162cm, 体重 49kg. 体格中等度.



図1 初診時口腔内写真
右側下顎大臼歯部の頬側に骨様硬の膨隆(矢印)を認める.

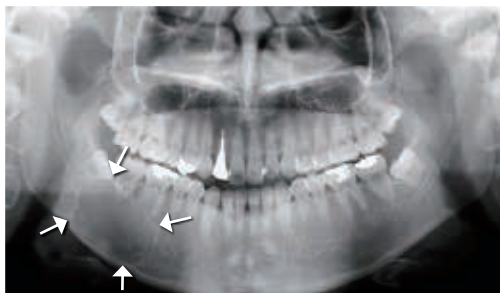


図2 パノラマX線所見
右側下顎大臼歯部根尖から下顎骨下縁にかけて, 境界明瞭で周囲に骨硬化縁を伴う透過像を認める(矢印).

栄養状態は良好であった.

口腔外所見: 右側頬部にびまん性の腫脹を認めた.
口腔内所見: 右側下顎大臼歯部の頬側に無痛性の膨隆を認めた. 同部の被覆粘膜に異常所見は認めなかった(図1).

X線検査所見: パノラマX線写真では右側下顎骨体部に, 境界が明瞭で, 周囲に骨硬化縁を伴う透過像を認めた(図2).



図3 CT所見
A: 水平断
右側下顎大臼歯部頬舌側の顎骨の膨隆を認め, 舌側は一部皮質骨が菲薄化している(矢印).



B: 前頭断
下顎管(矢印)は病変内部を走行している.

CT 所見：右側下顎大白歯部の歯槽部から下顎骨下縁に至る境界明瞭な単房性の低密度像を認めた。病変内部はほぼ均一で、下顎骨は頬舌的に軽度に膨隆し、部分的に皮質骨が菲薄化していた（図3）。

MRI 所見：右側下顎骨内の腫瘍は T1 強調で低信号，T2 強調で高信号を呈していた。

臨床診断：右側下顎骨腫瘍。

処置および経過：同年9月，局所麻酔下に生検を行ったところ病理組織学的に骨形成線維腫と診断された。11月，全身麻酔下に $\overline{87}$ の抜歯および腫瘍摘出術を施行した。右側頸部に10cm程度の皮膚切開を加えて，下顎骨下縁に到達した。下縁から骨膜を上方に剥離すると下顎骨体部を明示できた。ラウンドバーを用いて腫瘍の頬側の皮質骨を削除し下顎骨内部に骨様硬の腫瘍を確認した（図4A）。腫瘍内部を走行している下歯槽神経を保存するため，腫瘍を分割して摘出した。本症例では腫瘍の大きさから，当初下顎区域切除術を予定していたが，菲薄ではあるが下顎骨の舌側ならびに下縁の皮質骨を保存することができたため，顎骨再建用チタンプレートによる補強と自家PCBM移植術による即時再建を選択した。腫瘍摘出の操作で一部断裂した下歯槽神経に対しては，顕微鏡下に神経吻合を行い修復した。術後の骨折を予防する目的で骨欠損腔を跨ぐように顎骨再建用チタン

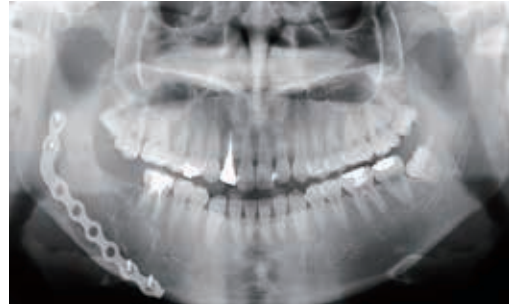


図5 術後8か月のパノラマX線写真
下顎枝前縁や歯槽部付近では骨形成が進行している

プレートを設置し（図4B），併せて骨欠損腔に腸骨から採取したPCBMを緊密に充填した。術後6か月後のパノラマX線写真では，右側下顎枝前縁部から $\overline{87}$ 歯槽部付近の骨形成が進行していた（図5）。術後10か月のCTでは $\overline{87}$ 部下顎骨には骨梁構造が認められたため（図6A,B），同月，全身麻酔下に顎骨再建用チタンプレートを除去したところ，PCBM移植部に骨新生を確認できた。術後4年経過した現在，腫瘍の再発はなく，下唇の機能的障害もみられない。

病理組織学的所見：腫瘍化した細胞密度の高い線維性組織を背景に，種々の成熟度を示す梁状あるいは類円形の塊状の硬組織の形成が認められた。これらの硬組織は骨様あるいはセメ

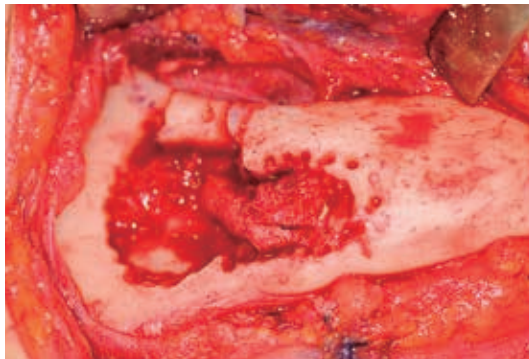


図4 術中写真
A：腫瘍の明示，



B：腫瘍摘出後に顎骨再建用チタンプレートによる補強を行っている。

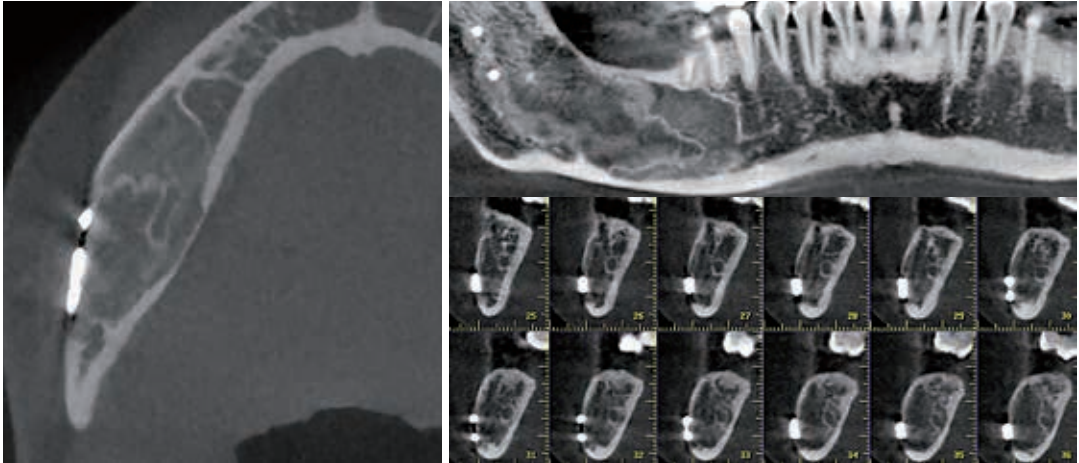


図6 術後10か月のCT写真
A：水平断
頬舌側の顎骨の膨隆は改善している。

B：Dental-MPR 画像
右側下顎大臼歯部に骨梁構造が認められ、右側下顎管の連続性も保たれている。

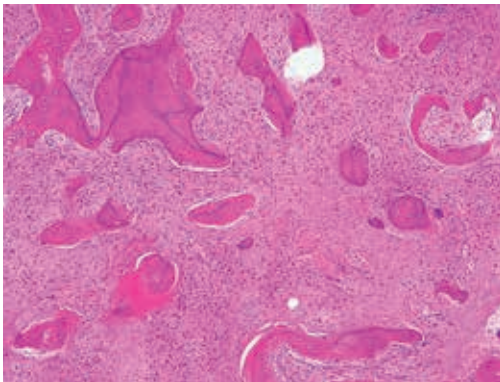


図7 病理組織像 (H-E 染色 ×100)
梁状あるいは類円形を呈する骨組織の周囲に、腫瘍化した細胞密度の高い線維性組織が比較的密に存在している。

ント質様を呈していた (図7)。
病理組織学的診断：骨形成線維腫

考 察

骨形成線維腫は骨様あるいはセメント質様硬組織からなる良性腫瘍で、20～30歳の女性に多く発症する^{2,3)}。好発部位は下顎臼歯部であるが、その発症頻度は比較的低い。1971年の

WHOによる歯原性腫瘍の分類ではセメント質形成線維腫と化骨性線維腫に分けられていたが⁴⁾、1992年の分類ではセメント質骨形成線維腫として統合され⁵⁾、2005年の分類では、セメント質と骨との区別が困難であることに加えて、両者を識別することに大きな臨床的意義がないことから骨形成線維腫として一括して扱われることになった¹⁾。

骨形成線維腫の特徴は被膜が必ずしも存在しないものの、腫瘍組織と周囲の骨組織との境界が明瞭な点である¹⁾。また、細胞成分に富んだ線維性組織の中に、セメント粒やそれらの癒合したセメント質様塊、不規則な形の類骨や骨を種々の程度に形成している⁶⁾。自験例においてもこれらの所見が認められた。

下顎骨に生じた本腫瘍の治療法としては、腫瘍摘出術、下顎辺縁切除術および下顎区域切除術を腫瘍の大きさや進行程度によって使い分けてきた。とくに腫瘍が増大して皮質骨に及んだ症例や、臨床的に進行が速い症例では術後再発が多いことから、拡大手術を行うべきとする報告もある^{7,8)}。また、骨形成線維腫から肉腫化した症例も報告されている⁹⁾。しかし、本腫瘍は一般に発育緩慢な良性腫瘍で、比較的低位年齢

層の女性に好発することなど、QOL や審美的な観点から、初回治療での顎骨切除を躊躇させる要素が多い。

本邦における 1994 年以降の下顎骨に発症した本腫瘍の報告例¹⁰⁻²³⁾は、われわれが渉猟し得た限りでは、自験例を除いて 18 例あった。病巣の範囲がほぼ下顎枝全域に及んでいた若年性(侵襲性)化骨性線維腫の症例¹¹⁾や、病巣の範囲が下顎骨正中から関節突起に及んでいたことに加え、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症例¹²⁾および、再発をきたした 2 例^{14,18)}を除き、いずれも腫瘍摘出術が選択されていた(表 1)。

本症例では腫瘍の大きさから比較的強い侵襲性を有すると判断し、当初下顎区域切除術を予定していたが、腫瘍摘出術後に下顎骨の舌側ならびに下縁の皮質骨を保存することができたため、顎骨再建用チタンプレートによる補強と自家 PCBM 移植術による即時再建を選択した。その結果、下顎骨の連続性を維持して形態を保ち、術後の審美障害を回避することができた。

本症例では、術後 10 か月後に顎骨再建用チタンプレートを除去した。自家 PCBM 移植後の骨形成には 2 つの段階があり、初めに PCBM に含まれる造骨細胞により骨形成がなされ、次いで新生骨にリモデリングが生じることにより

表 1 1994 年以降の下顎骨に発症した骨形成線維腫の報告例

症例	報告者	報告年	年齢	性別	発生部位	大きさ	治療法
1	荒谷ら	1994	46	女	左側大白歯部	鶏卵大	摘出
2	〃	1994	15	女	右側小白歯部	鶏卵大	摘出
3	早津ら	1995	13	男	右側大白歯部～右下顎枝	鶏卵大	区域切除術,PCBM 移植
4	松本ら	1997	27	女	正中～右筋突起	下顎半側	半側切除術,PCBM 移植
5	赤間ら	1999	14	男	右側大白歯部	鶏卵大	摘出,PCBM 移植
6	〃	1999	43	男	右側大白歯部	拇指頭大	摘出,PCBM 移植
7	〃	1999	47	男	右側小白歯部	拇指頭大	摘出,PCBM 移植
8	岡村ら	1999	30	女	正中～右側大白歯部	下顎半側	区域切除術,PCBM 移植
9	鎌田ら	2002	6	男	┌2-6 部	38×28mm 大	摘出
10	伊藤ら	2004	40	女	右側小白歯部	小指頭大	摘出
11	〃	2004	47	女	右側大白歯部	拇指頭大	摘出
12	水谷ら	2004	15	女	左右大白歯部	鶏卵大	摘出
13	前田ら	2006	44	女	┌1+5 部	鶏卵大	辺縁切除術
14	富田ら	2006	66	女	┌43 部	小指頭大	摘出
15	難波ら	2006	18	女	┌6-1 部	31×30mm 大	摘出
16	金塚ら	2010	40代	女	左側大白歯部	鶏卵大	摘出,プレート固定
17	佐藤ら	2011	30代	女	右側大白歯部	鶏卵大	摘出
18	金子ら	2015	12	女	右側大白歯部	45×20mm 大	摘出,PCBM 移植
19	自験例	2016	19	女	右側大白歯部	鶏卵大	摘出,PCBM 移植

移植床に近似した骨への置換が生じる²⁴⁾。自家PCBM移植では、移植骨は6か月程度でほぼ成熟した骨組織に置換すると報告²⁵⁾されているように、術後6か月を経過すればプレートを除去できると思われる。

われわれは、腫瘍摘出後の骨欠損腔に対する再建方法として、自家PCBM移植術を選択したが、海外では、Cicciùら²⁶⁾が下顎骨区域切除後の骨欠損に対する再建方法としてチタンメッシュトレーと骨形成蛋白であるrhBMP-2 (Recombinant human bone morphogenetic protein-2)を用い、良好な結果を得た症例を報告している。またSándorら²⁷⁾は、10cmにおよぶ下顎骨区域切除後の骨欠損に対し、チタンメッシュトレーとrhBMP-2に浸漬した β -リン酸三カルシウム(β -TCP)、脂肪由来間葉系幹細胞を用いて顎骨を再建し、後にインプラント体を埋入しうるまで顎骨が再生した症例を報告している。今後は医療における低侵襲化の傾向が強まるなか、自家骨を用いない再生医療はより重要性を増していくものと思われる。

自験例では術後4年が経過し、再発は認められていないが、腫瘍摘出術後わずか5か月後に再発した症例報告²⁸⁾もあり、引き続き経過観察を継続する予定である。

本論文に関して、開示すべき利益相反状態はない。

引用文献

- Barnes, L., Eveson, J., Reichert, P., Sidransky, D.: World Health Organization Classification of Tumours, Pathology and Genetics of Tumours of the Head and Neck, International Agency for Research on Cancer Research Press, Lyon, 319-320, 2005.
- 白砂兼光, 古郷幹彦: 口腔外科学. 第3版, 医歯薬出版, 東京, 224-225 ページ, 2012.
- 立川哲彦: 口腔顎顔面疾患学 臨床口腔病理診断学. 第1版, 学建書院, 東京, 121 ページ, 2010.
- Pindborg, J.J. and Kramer, I.R.H.: Histological typing of odontogenic tumours, jawcysts, and allied lesions. International histological classification of tumours, 5, WHO, Geneva, 18, 1971.
- Kramer IRH and Pindborg JJ, M: Histological typing of odontogenic tumours: WHO international histological classification of tumours. 2nd ed. Springer-Verlag, Berlin, 27-31, 1992.
- 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-骨形成線維腫ならびに非腫瘍性顎骨病変, Hosp Dent Oral-Maxillofac Surg, 13: 15-20, 2001.
- 大西正信, 日下雅裕, 古賀賢三郎, 根本辰朗, 岸本源, 阿部本晴, 谷田修三, 麻生昌邦, 山田祐敬: セメント質形成線維腫の2症例, 日口外誌, 26: 1235-1243, 1980.
- 松田由紀子, 白野隆史, 石井輝彦, 山野井弘充, 高山泰男, 岩城進吉, 遠山良成, 田中博, 浅野正岳, 小宮山一雄, 茂呂周: 化骨性線維腫の2症例, 日口外誌, 35: 1462-1467, 1989.
- 平川正輝, 梶原貴大: 肉腫化を起し死の転帰を取った下顎対照性Osteofibromaに就いて, 九州歯会誌, 6: 11, 1952.
- 荒谷恭史, 市川健司, 仁井内徹夫, 宮内忍, 吉賀浩二, 高田和彰: 下顎骨下縁まで進展したセメント質骨形成線維腫の2症例とその顎骨保存処置, 口腔腫瘍, 6: 50-54, 1994.
- 早津良和, 葛山司, 平山丈二, 篠崎文彦: 下顎骨に発生した若年化骨性線維腫の1例, 小児口外, 5: 174-178, 1995.
- 松本堅太郎, 檜垣一夫, 谷口邦久, 岡村和彦, 田中守, 柴田博之, 若江秀敏, 富岡徳也: 強い侵襲性が示唆された下顎骨セメント質骨形成線維腫の1例, 口腔腫瘍, 9: 70-75, 1997.
- 赤間淳, 今村英夫, 井原功一郎, 角田隆規, 豊田純一朗, 後藤昌昭, 香月武: セメント質骨形成線維腫3例の臨床病理学的検討, 口腔腫瘍, 11: 23-28, 1999.
- 岡村和彦, 谷口邦久, 林宗史, 船越和行, 門司達也, 前田顕之, 下田恒久, 本田武司: 大きな嚢胞形成を伴うセメント質骨形成線維腫の1例: 移植骨における再発例, 福岡歯大誌, 26: 33-40, 1999.
- 鎌田伸之, 北岡栄一郎, 山之内浩司, 桃田幸弘, 林良夫, 長山勝: 6歳児の下顎骨に発生した若年化(侵襲性)化骨性線維腫の1例, 小児口外, 12: 25-28, 2002.
- 伊藤雅樹, 林升, 末原佐枝, 相澤隆, 大森桂二, 江藤ゆかり, 林透, 日高圭太郎, 大関悟, 本田武司: 下顎臼歯部にみられたセメント質骨形成線維腫の2例, 福岡歯大誌, 30: 91-96, 2004.
- 水谷雅英, 高田訓, 小坂橋勉, 大野敬, 千葉卓, 三科正見: 15歳女児の両側下顎大臼歯部に発生したセメント質骨形成線維腫の1例, 日口外誌, 50: 380-383, 2004.
- 前田有美, 松山博道, 中橋一裕: 下顎前歯部に再発したセメント質骨形成線維腫の1例, 日口誌, 19: 160-163, 2006.
- 富田真貴, 中山洋子, 木村晃大, 安田浩一, 古澤清文: 高齢者に認められたセメント質骨形成線維腫の1例, 松本歯学, 32: 33-36, 2006.

- 20) 難波竜児, 斎藤謹子, 鯨岡裕晃, 鶴見徹, 中田康一, 山口明子, 青木暁宣, 秋葉正一: 血管性病変を疑った骨形成線維腫の1例, 日大口腔科学, 32: 72-76, 2006.
- 21) 金塚文子, 豊島貴彦, 鈴木麻衣子, 河本清司, 新谷悟: 手術シミュレーションに基づく腫瘍分割摘出により顎骨を保存し得た下顎骨骨形成線維腫の1例, 口腔腫瘍, 22: 75-80, 2010.
- 22) 佐藤翔, 齋藤翔太, 乾琢真, 肥後智樹, 山元貴弘, 西川正典, 山本学: 下顎骨下縁にまで増大した骨形成線維腫に対し, CT分析により保存的処置を施行した1例, 日口誌, 24: 340-346, 2011.
- 23) 金子忠良, 前川紀雄, 原八重子, 白土博司, 大木秀郎, 米原啓之: 12歳女児の下顎に生じた骨形成線維腫の1例, 小児口外, 25: 19-24, 2015.
- 24) Axhausen, W.: The osteogenic phases of regeneration of bone, a historical and experimental study., J Bone Joint Surg Am, 38:593-600, 1956.
- 25) 飯野光喜: チタンメッシュと自家腸骨海綿骨細片による顎骨・顎堤再建, 日口外誌, 55: 268-275, 2009.
- 26) Cicciù, M., Herford, A.S., Stoffella, E., Cervino, G., Cicciù, D.: Protein-Signaled Guided Bone Regeneration Using Titanium Mesh and Rh-BMP2 in Oral Surgery: A Case Report Involving Left Mandibular Reconstruction after Tumor Resection., Open Dent J., 6:51-55, 2012.
- 27) Sándor, G.K., Tuovien, V.J., Wolff, J., Patrikoski, M., Jokinen, J., Nieminen, E., Mannerström, B., Lappalainen, O.P., Seppänen, R., Miettinen, S.: Adipose stem cell tissue-engineered construct used to treat large anterior mandibular defect: a case report and review of the clinical application of good manufacturing practice-level adipose stem cells for bone regeneration., J Oral Maxillofac Surg., 71: 938-950, 2013.
- 28) 山崎正, 吉沢邦一, 田中寿: 顎骨の硬組織形成線維腫に関する病理組織学的考察, 日口外誌, 28: 1907-1105, 1982.

A case of ossifying fibroma involving the inferior border of the mandible in which mandibular continuity is preserved by iliac transplantation of particulate cancellous bone and marrow

Kentaro Nakahata, Ryosuke Abe, Daishi Saito*, Masafumi Hino,
Hiroyuki Yamada, Yasunori Takeda**

Abstract : Ossifying fibroma, occurring in the jawbone centrality, is a neoplastic growth composed of fibrous tissue with a similar calcification to that of the bone and cementum. Here, we report a case of ossifying fibroma involving the inferior border of the mandible in a 19-year-old female patient, which was reconstructed immediately via jawbone tumorectomy and iliac transplantation of particulate cancellous bone and marrow. Initially, the case was regarded as an adaptation of a segmentectomy based on the size of the tumor. However, it was possible to maintain the structure of the jaw and to avoid esthetic defects, by preservation of the lingual side of the jaw and an inferior border cortical bone. There was no evidence of a recurrence of the tumor during the 4-year follow-up.

Key words : Ossifying fibroma, The inferior border of the mandible, Iliac transplantation of particulate cancellous bone and marrow