

上顎洞へ広範に進展した歯原性粘液腫の一例

御厨 亜希 川住 薫子 桐山 健

I. はじめに

粘液腫は、身体各部に発生する間葉系の良性腫瘍で、顎骨や筋肉、心臓に発生し、特に左心房に好発する¹⁾。口腔領域に発生することは比較的稀であり、歯原性粘液腫の発生頻度は歯原性腫瘍の3～5.1%を占める²⁾。また、被膜を形成せず、骨への局所浸潤性をもつため、良性腫瘍にも関わらず、姑息的治療では再発傾向が高い^{3,4)}と報告されている。今回我々は、上顎洞まで広く進展した歯原性粘液腫を経験したので、症例の概要に文献的考察を加えて報告する。

II. 症 例

患者：41歳 男性

初診：2007年3月

主訴：右頬部腫脹

既往歴：脳腫瘍摘出術後（28歳）、糖尿病（2006年より食事療養中）

家族歴：特記事項なし

現病歴：2005年より右側上顎歯肉の腫脹を自覚したが、疼痛はなく放置していた。腫脹増大と食事の際の接触痛を認めるようになったため、精査及び加療目的で2007年3月に当科を受診した。

現症：口腔外所見は体格中等度、栄養状態良好であり、顔面非対称と右側上顎の腫脹を認め、骨膨隆を触知した（図1）。口腔内所見は、右側上顎第一小臼歯から第二大臼歯にかける骨膨隆と接触痛を認めた（図2）。

画像所見：造影CT検査にて、右側上顎洞内に液体様物質の充満を認めた。上顎洞外側壁と下壁は菲薄化し、周囲組織を圧迫していた。内部には隔壁を認め、上顎洞内側壁と眼窩底の明らかな骨破壊は認めなかった。上顎洞内には造影病変は認めず、悪性所見は見ら

れなかった（図3）。

臨床診断：右側上顎腫瘍（エナメル上皮腫の疑い）

手術所見：腫瘍の根治的切除を目的とし、全身麻酔下で腫瘍摘出術及び右側上顎第一小臼歯から第二大臼歯と歯槽部を含めた上顎骨部分切除術を施行した。腫瘍は白色充実性であり、上顎洞内を占拠していた。同時

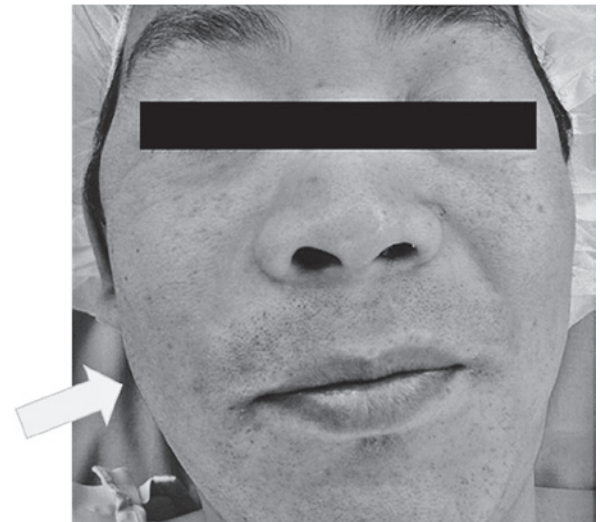


図1 口腔外所見
顔面非対称と右側上顎の腫脹を認める。

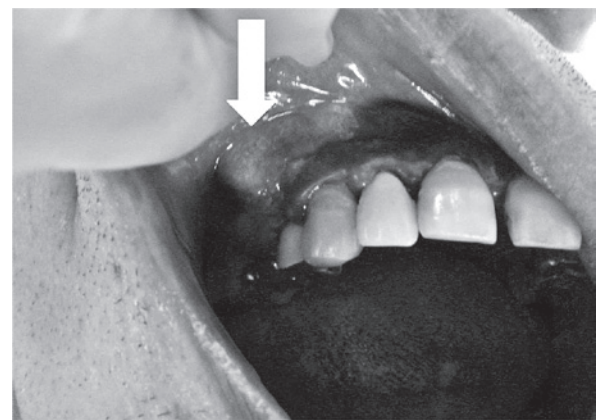


図2 口腔内所見
右側第一小臼歯から第二大臼歯にかける骨膨隆を認める。

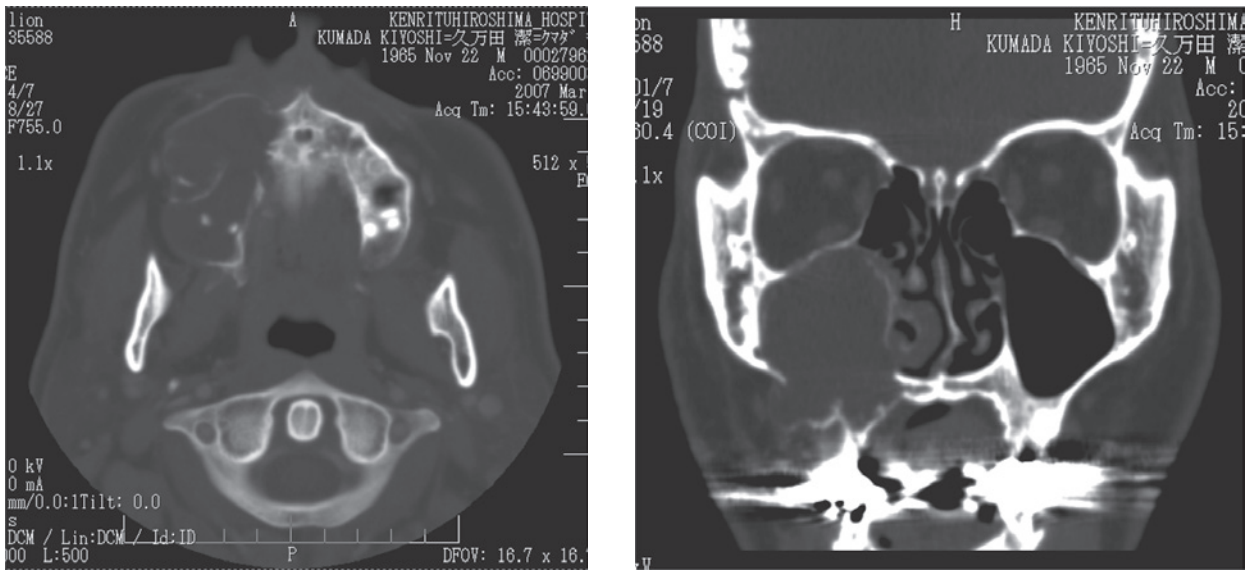
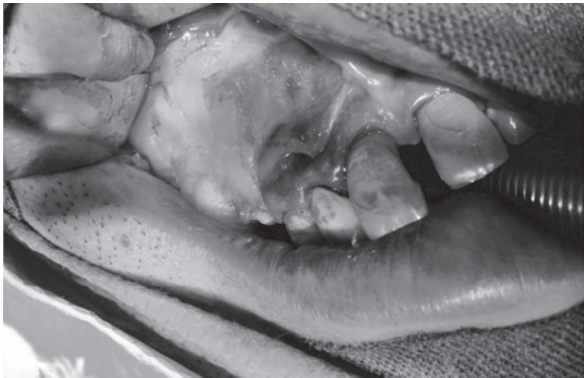


図3 CT所見
 右側上顎洞内に液体様物質の充満を認める。上顎洞外側壁と下壁は菲薄化し、周囲組織を圧迫している。
 上顎洞内には造影病変は認めず、悪性所見を認めない。



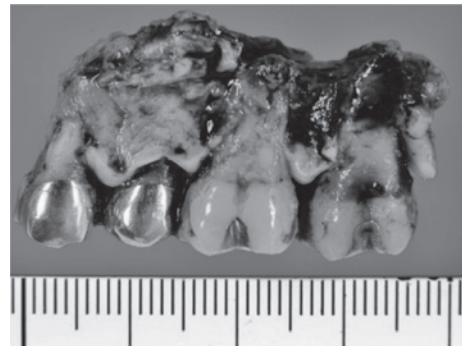
a



b



c

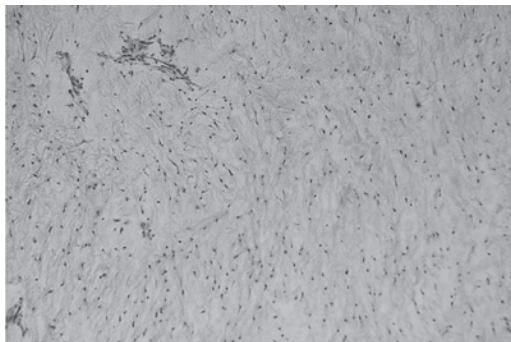


d

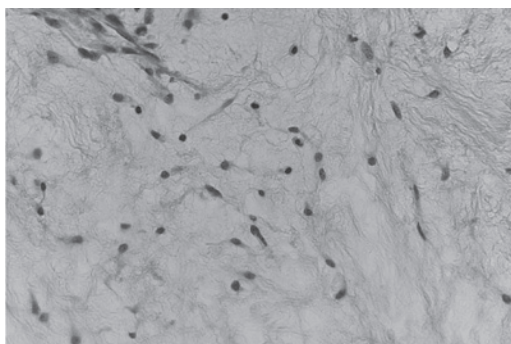
図4 手術所見
 a 骨膜剥離後。白色充実性の腫瘍を認める。 b 腫瘍摘出後。腫瘍は上顎洞内を占拠していた。
 c 摘出した腫瘍。 d 右上第一小白歯から第二大臼歯と歯槽部を含めて切除した上顎骨。

に上顎洞外側壁と下壁の一部は切除し、上顎洞粘膜は全て切除した(図4 a, b, c, d)。下鼻道に対孔を形成し、上顎洞内から対孔へタンポンガーゼを挿入、留置した。創部は粘膜骨膜弁に減張切開を加え、閉創した。病理組織学的所見：浮腫性間質内に両極性あるいは星芒状の紡錘形細胞が疎に増殖する腫瘍組織を認めた。腫瘍細胞の核には軽度の大小不同を認め、過染色性であるが、悪性を示唆する所見は認めなかった(図5 a, b)。腫瘍は歯根部周囲の髄腔にも増殖を示した。免疫染色では、紡錘形細胞においてVimentin (+), Alcian Blue (+), S100 protein (-), NES (-), CD34 (-), Factor VIII (-)の結果であった(図6 a, b, c, d)。以上の所見と、腫瘍が歯根部周囲を含めた上顎骨内に発生したことを踏まえ、上顎洞内に発生した歯原性粘液腫と診断した。

術後経過：術後7日目でタンポンガーゼを抜去し、右上小白歯部の一部に創哆開を認めた。口腔内と上顎洞との交通は認めなかった。その後、創は上皮化に伴い



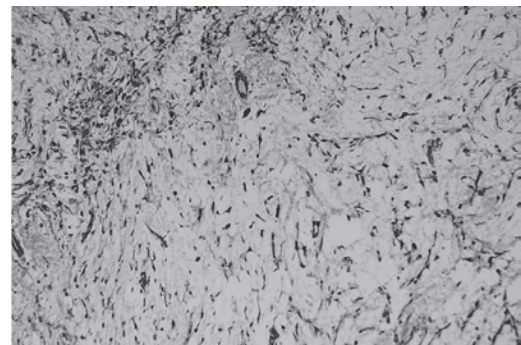
a 40倍



b 400倍

図5 H-E染色

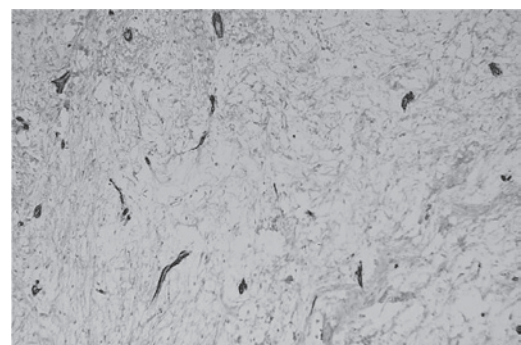
浮腫性間質内に両極性あるいは星芒状の紡錘形細胞が疎に増殖する腫瘍組織を認める。



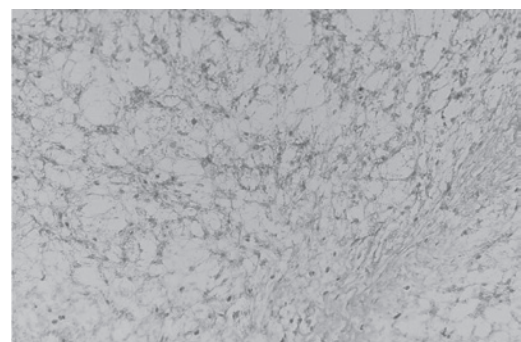
a Vimentin(+)



b Alcian Blue(+)



c CD34(-)



d S-100 Protein(-)

図6 免疫染色

自然閉鎖した。術後2ヶ月と5か月の造影CT検査にて、明らかな再発所見は認めなかった(図7)。術後半年まで経過観察を行ったが、その後は受診が途絶えてしまい、2014年に他部位の歯科治療目的にて約7年ぶりに来院し、歯源性粘液腫の経過観察を再開した。顔貌は左右対称であり、創に炎症所見はなく、口腔内

の腫脹や骨膨隆等は認めなかった。術後約8年の造影CT検査にて、手術後の右側上顎洞にわずかに粘膜肥厚または粘液貯留の残存を認めたが、明らかな再発所見は認めなかった(図8)。現在、術後9年が経過し、再発所見なく経過良好である(図9)。

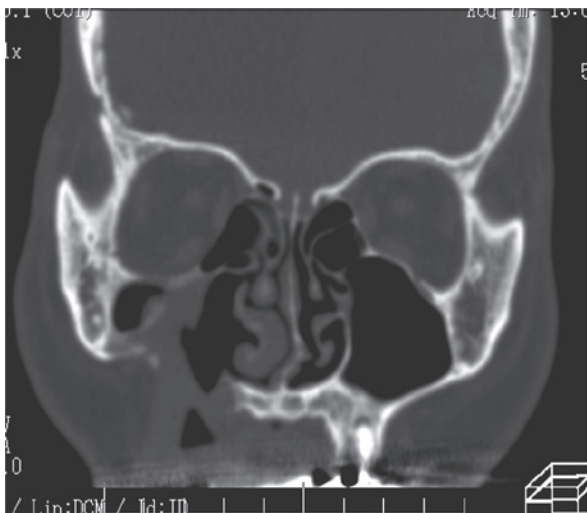
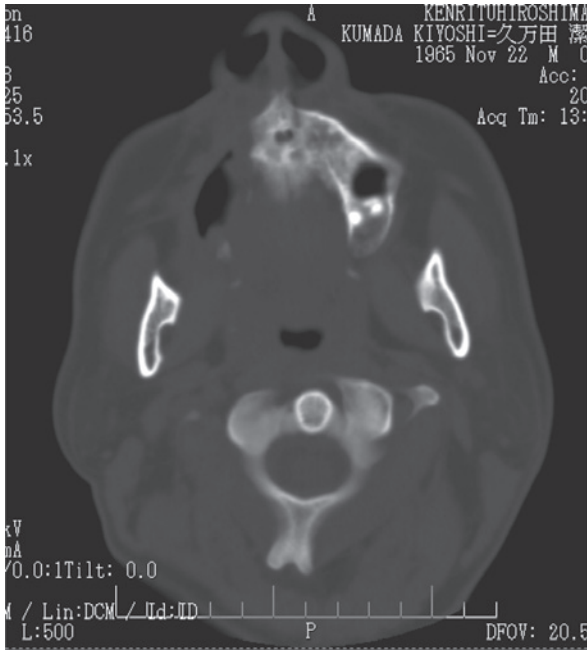


図7 CT画像(術後5ヶ月)
右上顎洞の壁に沿って陰影を認め、明らかな増大傾向はなく、辺縁に含気が増加している。他の副鼻腔に著変なく、明らかな再発所見は認めない。

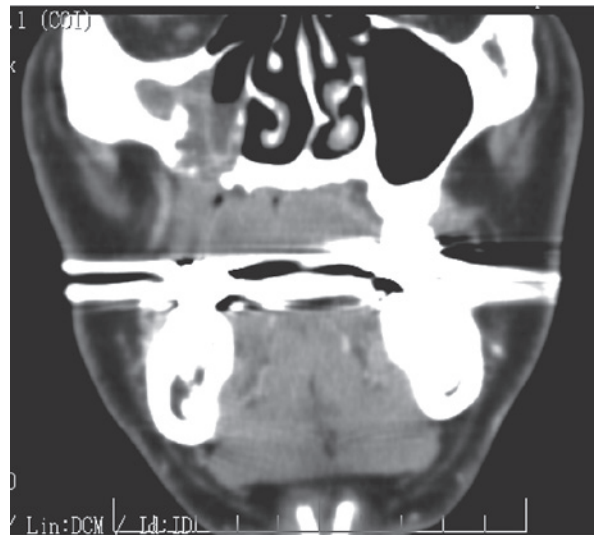


図8 CT画像(術後8年)
手術後の右上顎洞にはわずかに粘膜肥厚または粘液貯留が残存している。



図9 顔貌及び口腔内所見(術後9年)
顔貌は左右対称。口腔内と上顎洞は交通せず、
歯肉腫脹や骨膨隆は認めない。

Ⅲ. 考 察

歯原性粘液腫の発症年齢は10-50歳代で、平均年齢は30歳前後である⁵⁾。男女比は1:1.5とやや女性に多い。発生部位は上顎骨:下顎骨が1:2と下顎骨に多いと言われ⁶⁾、下顎臼歯部に好発する⁵⁾。また、発育は緩慢で無痛性あり^{5,7)}、顎骨の膨隆や顔面の変形等で発見されることが多いとされている⁸⁾。また、本邦における1932年以降2013年までの82年間に報告された歯原性粘液腫114例のうち、上顎洞内に発生した歯原性粘液腫は29例(25.4%)、その他の部位に発生したのは85例(74.5%)であった^{6,9-15)}。

今回、我々が経験した症例は41歳の男性であり、腫瘍は上顎洞内に発生したことから、歯原性粘液腫の中

でもまれな症例であると考えられる。また、現病歴から少なくとも2年以上前から徐々に増大してきたものと考えられるが、疼痛やその他の神経症状は自覚していなかった。

歯原性粘液腫は、良性腫瘍に分類されるが、被膜を形成せず、局所浸潤や骨破壊を伴って増大する性質がある^{3,4)}。再発率は20%前後から45%と報告されており¹⁶⁾、切除後2年以内に再発することが多い傾向にある¹⁷⁾。再発率が高いため悪性腫瘍に準じて扱う必要があり、治療法として安全域を含めた顎骨切除が推奨されている。しかし、若年者では顎顔面の成長との関連があり、拡大切除が困難な場合もある。悪性化の報告は非常に少ないが、上顎に発生した悪性歯原性粘液腫の報告もある¹⁸⁾ため、悪性腫瘍との鑑別も重要となる。Zimmermanら⁴⁾によると、歯原性粘液腫26例中6例に組織学的に悪性が認められたと報告している。また、歯原性粘液腫に対して放射線治療が有効であるという意見は少なく、一般には抵抗性を示しており、近年では術前ならびに術後に放射線治療を施行したという報告はない¹⁹⁾。

今回、我々が経験した症例は41歳であり、再発予防のため根治的治療として腫瘍摘出術及び上顎骨部分切除術を行い、顔貌及び咀嚼機能は温存され、術後約9年経過し、再発所見なく経過良好である。患者の年齢と成長を考慮した上で、周囲健全骨の搔爬や削除を行う必要があり、同時に十分な経過観察が必要であると考えられる。

粘液腫の一般的なX線所見として、直線的または曲線的で境界明瞭な多房性の透過像を示し、腫瘍内に既存の骨梁が存在すると樹枝状の不透過像が透過像内に認められる⁵⁾。

今回、我々が経験した症例は、CT画像において多房性の透過像を認め、内部には一部で骨梁の残存様の不透過像を認めた。X線学的に粘液腫の特徴的所見と考えられるが、X線画像のみでのエナメル上皮腫などの腫瘍との鑑別は困難であった。

粘液腫と病理組織学的鑑別を要するものとして、肉腫や間葉系腫瘍などの粘液変性しやすい腫瘍、すなわち脂肪肉腫、横紋筋肉腫、軟骨肉腫の粘液変性が挙げられる²⁰⁾。歯科領域においては、エナメル上皮腫や角化嚢胞性歯原性腫瘍が挙げられる。

畑田ら²¹⁾の報告によると、東京歯科大学における一年間の新患総数は約8,000例あり、そのうち歯原性腫瘍は年間平均25例(0.32%)であった。また、2008

年の「日本口腔腫瘍学会のガイドライン」ワーキング・グループ²²⁾によると、国内の61施設において、1995年1月から2004年12月までの10年間で調査した結果、歯原性腫瘍の総数は5,193例であり、その内訳は良性5,151例(99.2%)、悪性42例(0.8%)と良性腫瘍が圧倒的に多かった。疾患別では、良性歯原性腫瘍で最も多いのはエナメル上皮腫(28.3%)、次いで角化嚢胞性歯原性腫瘍(24.4%)、歯牙腫(20.9%)であった。歯原性粘液腫/粘液繊維腫が1.8%で稀有な腫瘍と言える。

本腫瘍の発生については、間葉系組織由来の腫瘍説と線維性病変の粘液変性説の二つがある⁹⁾。本症例では、線維芽細胞の存在は確認できなかったが、間葉系由来細胞のマーカーであるVimentin(+), 酸性粘液多糖類を示すAlcian Blue(+)であることから、前者の説に該当すると考えられた。

歯原性由来か否かに関しては、欠損歯あるいは未萌出歯の存在、腫瘍内に歯原性上皮の存在が認められることなどにより、腫瘍と歯牙との関係があるとされてきた⁹⁾。過去に報告された歯原性粘液腫のうち、歯原性上皮を認めたものは10%程度と少なく^{9, 11, 12)}、本腫瘍における歯原性上皮の検出頻度は低いものと考えられる。2005年のWHO²³⁾による歯原性粘液腫の診断には、歯原性上皮の存在は要求されていない。

今回、我々が経験した症例でも腫瘍内に明らかな歯原性上皮成分を確認することはできなかったが、発生部位が歯槽部を含む上顎骨であったことと、歯根周囲の髄腔にも腫瘍の増殖を認めたことから、歯原性と診断した。

IV. まとめ

今回我々は比較的にまれな歯原性粘液腫を経験した。

腫瘍は周囲の骨を圧迫しながら上顎洞まで進展しており、根治的切除を目的として腫瘍摘出術及び上顎骨部分切除術を施行した。

術後約9年が経過し、再発傾向なく経過良好である。本腫瘍は再発率が高いため、今後も経過観察を継続する方針である。

引用文献

- 1) Virchow, R: 細胞病理学, 482, 吉田富三訳, 南山堂, 東京.
- 2) Regezi, J. A., Kerr, D. A., Courtney, R. M.: Odontogenic tumors: analysis of 706 cases. *J Oral Surg.* 36: 771~778, 1978
- 3) Borros, R. E., et al.: Myxoma of the jaw. *Oral Surg.* 27: 225~236, 1969.
- 4) Zimmerman, D. C. and Dahin, D. C.: Myxomatous tumors of the jaws. *Oral Surg.* 11: 1069~1080, 1958.
- 5) 高木實他: 口腔病理アトラス, 2, 文光堂, 東京, 2009.
- 6) 沖津光久, 平沼康彦, 亀山達也, 他: 下顎骨に発生した歯原性粘液腫の1例. *日口外誌* 35: 2126~2135, 1989.
- 7) 山本耕司, 加藤孝邦, 鴻信義, 他: 上顎に発生した歯原性粘液腫の1症例. *耳展* 51: 140~144, 2008.
- 8) 大野敬, 森井栄作, 高田和雄, 他: 上顎骨に発生した顎中心性粘液繊維腫の1例. *日口外誌* 28: 934~943, 1982.
- 9) 安居孝純, 鬼澤勝弘, 兵藤明子, 他: 上顎洞を占拠した歯原性粘液腫の1例. *日口外誌* 56: 80~84, 2010.
- 10) 橋元亘, 森川秀広, 篠原文明, 他: 二期的に摘出術を施行し下顎形態を温存した歯原性粘液腫の1例. *日口外誌* 57: 350~354, 2011.
- 11) 田中四郎, 住友伸一郎, 江原雄一, 他: 歯原性繊維腫を疑わせた歯原性粘液腫の1例. *岐歯学誌* 39: 16~20, 2012.
- 12) 丸中秀格, 折田頼尚: 1歳6カ月の上顎骨に生じた歯原性粘液腫の1例. *小児耳* 34: 48~52, 2013.
- 13) 高橋喜浩, 山形純平, 神崎夕貴, 他: 温熱処理骨と自家骨移植で再建を行った下顎骨歯原性粘液腫の1例. *日口外誌* 59: 9~13, 2013.
- 14) 鈴木滋, 鎌田孝広, 大久保博基, 他: 小児の上顎骨に発生した歯原性粘液腫の1例. *日口外誌* 60: 199~203, 2014.
- 15) 石田純一, 今井裕一郎, 柳生貴裕, 他: 統合失調症患者に発生した下顎骨歯原性粘液腫の1例. *日口外誌* 60: 267~271, 2014.
- 16) 田村敦, 山下拓, 塩谷彰浩: 上顎洞に進展した歯原性粘液腫の1例. *耳喉頭頸* 81: 535~538, 2009.
- 17) Lo Muzio, L, Nocini PF: Odontogenic myxoma

- of the jaws. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 82: 426 ~ 433, 1996.
- 18) Pahl S., Henn W.: Malignant odontogenic myxoma of the maxilla: Case with cytogenic confirmation. *J Larygol Otol* 114: 533 ~ 535, 2000.
- 19) 中島敏文, 近藤壽郎, 濱田良樹, 他: 高度に進展した上顎歯原性粘液腫の1例. *鶴見歯学* 29: 159 ~ 163, 2003.
- 20) Fu, Y-S., Perzin, K. H.: Non-epithelial tumors of the nasal cavity, paranasal sinuses and nasopharynx: A clinicopathologic study. *Myxomas. Cancer* 39: 195 ~ 203, 1977.
- 21) 畑田憲一, 野間弘康, 他: エナメル上皮腫の治療法に関する臨床統計学的検討. *口腔腫瘍* 11: 143 ~ 150, 1999.
- 22) 柴原孝彦, 森田章介, 杉原一正, 他, 2005年新WHO国際分類による歯原性腫瘍の発生状況に関する疫学的研究. *口腔腫瘍* 20: 245 ~ 254, 2008.
- 23) Barnes, L., Eveson, J., et al.: *World Health Organization Classification of Tumors, Pathology and Genetics of Tumors of the Head and Neck*. International Agency for Research on Cancer, Lyon, 2005.

A case of large odontogenic myxoma that extended to the maxillary sinus

Aki Mikuriya, Takiko Kawasumi, Takeshi Kiriyaama

Department of Dentistry and Oral and Maxillofacial Surgery, Hiroshima Prefectural Hospital

Summary

Odontogenic myxoma is a relatively rare mesenchymal benign tumor that comprises approximately 3 to 5% of odontogenic tumors, does not form a capsule, and is locally invasive into the bone. Therefore, the tendency to relapse is reportedly high with palliative treatment.

In this study, we hereinafter report on a case of odontogenic myxoma widely extended to the maxillary sinus. The patient was a 41-year-old man. He visited our hospital with a chief complaint of swelling of the right upper jaw. At the first visit, bone expansion was observed in the right upper jaw, while upon CT examination, a liquid-like substance had filled the right upper jaw sinus, thinning of the maxillary sinus bone wall was found, and the surrounding tissue was compressed. However, no malignant findings such as contrasted lesions in the maxillary sinus and images of bone destruction were observed. With a diagnosis of a right maxillary tumor and for the purpose of radical resection of the tumor, tumor resection was performed under general anesthesia, along with partial resection of the maxillary bone posterior to the right maxillary first premolar. Histopathological examination revealed the existence of tumor tissue in which bipolar or asteroid spindle cells had sparsely proliferated in the edematous stroma, resulting in a diagnosis of odontogenic myxoma. Currently, nine years have passed since surgery and the patient is doing well with a good outcome and no signs of recurrence.