

AMCoR

Asahikawa Medical University Repository <http://amcor.asahikawa-med.ac.jp/>

日本口腔外科学会雑誌 (1983.08) 29巻8号:1439～1444.

下顎骨に発生した脈瘤性骨嚢胞の1例

西村泰一、松田光悦、津山 建、小門浩一、松田千寿子、
池畑正宏、北 進一

下顎骨に発生した脈瘤性骨嚢胞の1例

西村 泰一・松田 光悦・津山 建・小門 浩一
松田 千寿子・池畑 正宏・北 進一

A case of aneurysmal bone cyst of the mandible

Tai-ichi NISHIMURA・Mitsuyoshi MATSUDA・Ken TSUYAMA・Hirokazu KOKADO
Chizuko MATSUDA・Masahiro IKEHATA・Shin-ichi KITA

緒 言

脈瘤性骨嚢胞 (aneurysmal bone cyst) は1942年に Jaffe and Lichtenstein によってはじめて報告された疾患で、長管骨や脊椎に好発し顎骨にはまれである。われわれは軽症血友病Aを伴い臨床的にエナメル上皮腫が疑われ、摘出物の病理組織診断にて脈瘤性骨嚢胞の診断を得た1例を経験したのでその概要を報告する。

症 例

患者：[] 15歳 男性。

初診：昭和53年9月 []

主訴：右側頬部の腫脹。

家族歴：親戚に血友病といわれた人がいるが、その詳細については明らかでない。

既往歴：10年前にE1抜歯後、止血困難であった。7年前に舌を咬んだ時、容易に止血せず輸血して止血した。

現病歴：昭和53年9月上旬、右側頬部の無痛性腫脹に気づき某歯科を受診し、抗生物質の投与を受けたが軽快せず当科を紹介されて来院した。

現症：体格中等度、栄養状態は良好で全身的に特に異常は認められなかった。顔貌は左右非対称性で右側頬部にびまん性腫脹が認められた。同部の皮膚は色調正常、可動性であり、右側下顎枝に骨様膨隆を触知したが圧痛はなかった。下嘴唇の知覚麻痺、開口障害はなく、所属リンパ節の腫脹もなかった(写真1)。口腔内では7|相当部の頬粘膜に径約10mmの潰瘍が認められた。また87|相当部歯槽堤から右側下顎枝前縁部にかけて



写真1 初診時顔貌所見

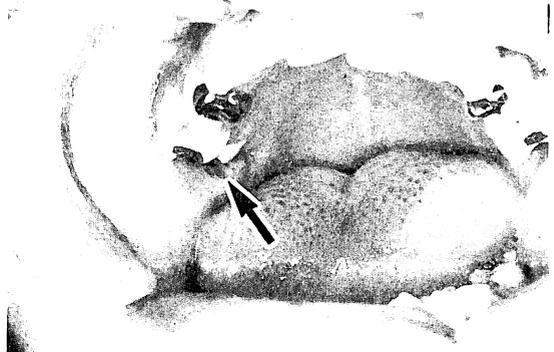


写真2 初診時口腔内所見(矢印は潰瘍)

表面粘膜色正常なびまん性腫脹を認め、一部に波動を触知した(写真2)。76|は口蓋側に転位し、上顎歯列弓に歪があったため咬合状態は悪く7/7のみが咬合してい

旭川医科大学附属病院歯科口腔外科
(主任：北 進一教授)
Department of Oral Surgery, Asahikawa Medical College (Chief: Prof. Shin-ichi Kita)
受付日：昭和58年2月22日

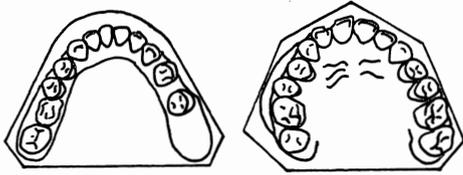


図 1

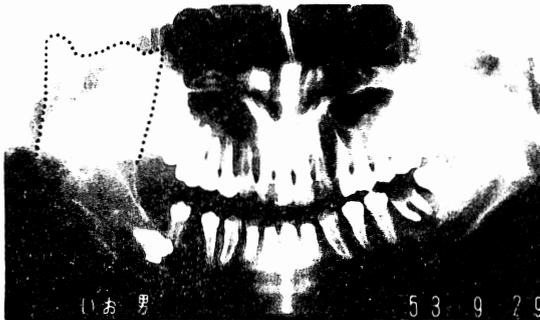


写真 3 初診時X線所見 (点線は下顎枝の外形を示している)

た (図1).

X線所見: 右側下顎枝に著明な骨の膨隆がみられ、筋突起部、下顎切痕部では特に著しく解剖学的に形態異常を呈していた。また「4」の遠心部から下顎頭および筋突起の先端部にかけて蜂窩状の透過像が認められた。「6」は完全埋伏しており、「87」は先天的に欠如していた (写真3)。

臨床検査所見: 一般血液検査所見では軽度の貧血が認められたが、その他異常はなく、また血清生化学的検査結果には異常は認められなかった (表1)。しかし問診にて出血性疾患が疑われたため、本大学第1内科に精査を依頼したところ凝血学的所見から軽症血友病Aとの診断を得た (表2)。

処置および経過: 昭和53年10月20日、局麻下で「8」相当部より病変部の生検を行ったが確定診断は得られなかった。なお生検時に該部の穿刺により鮮紅色の血液約5mlを吸引した。X線所見および臨床所見より臨床診断をエナメル上皮腫の疑いとし、昭和53年11月16日、全麻下で腫瘍摘出術を施行した。右側耳前部から顎下部にかけて皮膚切開を加え、骨膜を剝離して下顎骨を露出した。下顎骨の表面は暗赤色で膨隆しており、筋突起周囲では腫瘍は骨膜と直接癒着していたため、骨膜を含めて切離した。ついで下歯槽動脈を結紮切断し、「4」を抜歯した上同部で下顎骨を離断し摘出した。術中、周囲組織から湧出性の出血が常にあり処置に困難をきたした。なお軽症血友病Aを有することから、cryoprecipitateを手術2時間前より術中にかけて200単位、術後8時間目に200単位、

表 1 臨床検査所見

末梢血液検査		血清生化学的検査	
WBC	6,100/mm ³	TP	6.9 g/dl
RBC	381 × 10 ⁴ /mm ³	Alb	4.3 g/dl
Hb	11.7 g/dl	A/G	1.65
Ht	34.7%	TTT	0.8 M.u.
Platelet	20 × 10 ⁴ /mm ³	ZTT	8.2 K.u.
		T. Bili	0.4 mg/dl
		GOT	14 U.
		GPT	5 U.
		LDH	395 U.
		Na	140 mEq/l
		K	4.0 mEq/l
		Cl	103 mEq/l
		Ca	8.3 mg/dl
		P	4.2 mg/dl
		CRP	(-)
		ASLO	120 Todd. U

表 2 凝血学的検査所見

出血時間 (2~5分)	3分30秒
凝固時間 (10±2分)	16分30秒
PT (12.3~13.5秒)	13.3秒
APTT (25~31秒)	36.0秒
fibrinogen (200~400 mg/dl)	195 mg/dl
FDP (10 μg/ml 未満)	10 μg/ml 未満
第Ⅷ因子活性	20%
TEG	
γ	26分
K	37分
Max	42 mm

位、以後8時間おきに100単位ずつ総量1,300単位の輸注を行った。術後、顔面皮膚縫合部に沿って数箇所血腫の形成がみられたが、特に異常な出血もなく、経過は良好で同年12月20日退院した。

摘出物所見: 下顎枝は全体的に膨隆しており、特に筋突起から下顎切痕部にかけて骨膨隆は著しく、数箇所に骨の菲薄な部分があり羊皮紙様感を呈していた。摘出物の重量は約60gであった (写真4~6)。

病理組織学的所見: 摘出物の大部分には、血液を充満した大小多数の腔が認められた (写真7)。しかし内皮細胞および血管壁の構造は明らかでなかった (写真8)。腔壁は毛細血管に富む線維性結合組織からなり、形質細胞を主体とする炎症性細胞の浸潤が軽度で認められた。また一部には出血巣がみられ、ヘモジデリンの沈着も観察された (写真9)。一方、骨周辺部には巨細胞が数に



写真 4 摘出物の外側面

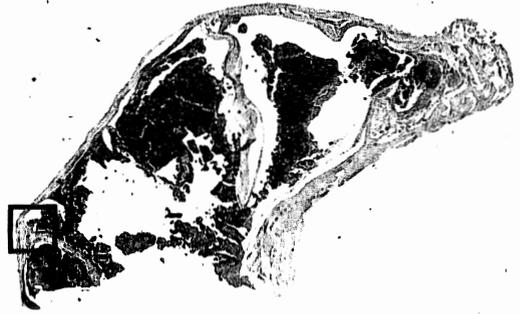


写真 7 摘出物の筋突起部の横断面（弱拡大）



写真 5 摘出物の内側面



写真 8 写真 7 の□の枠の中拡大



写真 6 摘出物を上方よりみた写真

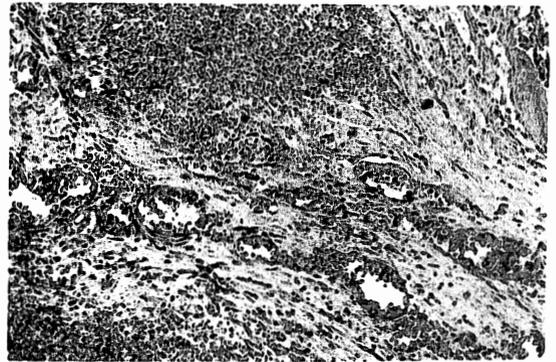


写真 9

し、類骨の形成が認められた(写真 10, 11). エナメル上皮腫の所見は認められなかった.

診断: 摘出物の病理組織学的所見より脈瘤性骨嚢胞と診断された.

考 察

脈瘤性骨嚢胞は、血液を充満した大小種々の多数の腔

をもつ良性の骨内性病変である。本症は1942年に Jaffe and Lichtenstein によって孤在嚢胞性骨疾患から区別され、独立した疾患として報告された。それまで本症は、ossifying hematoma, periosteal hematoma, hemorrhagic osteomyelitis, aneurysmal giant cell tumor, subperiosteal giant cell tumor, atypical giant cell tumor, giant cell tumor, expansile hemangioma, atypical subperiosteal giant cell tumor, osteitis fibrosis cystics などと呼

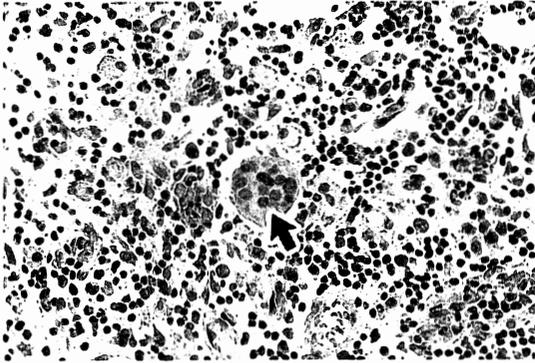


写真 10 矢印は巨細胞

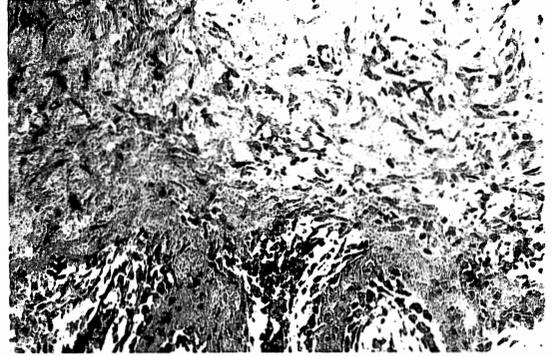


写真 11

ばれ報告されていた。

本症は長管骨、脊椎に好発するが顎骨にはきわめてまれで、Deeb²⁾の文献的調査によると、下顎骨に発生した脈瘤性骨嚢胞は、1980年までに21例しか報告されておらず、上顎骨における発生はさらに少なく17例にすぎない。またSaltzman³⁾も同様の報告をしている。本邦における過去の報告例はきわめて少ない⁴⁻¹¹⁾。

本症は若年者に好発するが性差は明確でなく、Deeb²⁾の報告では、その約75%が20歳以下で平均年齢18歳、男女比は47対53である。

本症は限局した無痛性の腫脹として現れることが多く、発育は緩慢な良性の疾患である。また病巣に近接している歯が移動し不正咬合を生じる場合が多い^{2,12)}。本症例では76|が口蓋側に転位し、上顎歯列弓が歪められ咬合状態が不良であったが、これは脈瘤性骨嚢胞の長期にわたる発育により歯列弓が圧迫されて歪が生じたものと考えられる。

X線的には単房性、多房性、蜂窩状など種々の骨透過像を呈し、X線所見から他の歯原性ないし骨原性疾患と鑑別することは困難である。本症例は蜂窩状であった。また後藤⁶⁾、黒柳⁸⁾は下顎に発生した場合、下顎管、下顎孔の拡大を認めているが、本症例の場合明らかでなかった。

血管造影についても多くの報告があり^{9,11,13,14)}、後藤⁶⁾は本症の診断に有用だったと述べている。

本症の成因に関しては諸説がある。GeschickterとCopeland¹⁵⁾は、外傷による骨膜下出血とその後の器質化によって生じると述べている。Wang¹⁶⁾、Thompson¹⁷⁾は文献的調査において、本症の71%に外傷の既往が存在していたと報告している。しかしLichtenstein¹⁸⁾、Deeb²⁾は、外傷とは無関係に発生する症例も多いことからこの説に反対している。1950年Lichtenstein¹⁸⁾は、局所的な循環障害と血液動態の異常、すなわち静脈血栓や動静脈瘤のために静脈圧が上昇して血管床の拡張、充血が起こり、続いて骨が吸収されると述べている。1962年Do-

naldson¹⁹⁾は、血管床内の血液は凝固していないこと、術中組織から血液が湧出することがしばしばあることから、血液はこの血管床内を流れている、つまりこの腔は血管に起因するものであると述べ、Lichtensteinの説を支持している。しかし1958年BernierとBhaskar²⁰⁾は、血管床の壁は形態学的に血管壁の構造とは異なるという事実に基づいてLichtensteinの説を否定している。彼らは本症と中心性巨細胞修復性肉芽腫(central giant cell reparative granuloma)とは骨内における血腫の器質化の異なった段階を示すものであって、障害された血管とつながりを維持しているのが脈瘤性骨嚢胞であり、つながりの無くなったものが中心性巨細胞修復性肉芽腫であると述べている。1970年Biesecker²¹⁾は、骨の原発性病変が骨の動静脈性奇形を惹き起こし、その血液動態力によって二次的に反応性の骨内病変を発生する。それが脈瘤性骨嚢胞であると述べ66例中21例(32%)に何らかの病巣を認めたと報告している。嚢胞内または嚢胞に近接した部位に認められた病巣は、線維腫6例、軟骨芽細胞腫5例、巨細胞腫4例、骨芽細胞腫2例、巨細胞修復性肉芽腫、線維性骨異形成症、粘液線維腫、単純性骨嚢胞がそれぞれ1例となっている。本邦でも1981年に堀越¹¹⁾は中心性線維腫が先行し、二次的に脈瘤性奇形が生じて嚢胞が発生したと考えられた1例を報告している。1956年HaddersとOsterdoorn²²⁾は、本症は骨の血管腫であると主張している。

以上のように本症の成因に関してはいろいろな見解があり、いまだ明確な病因論は確立されていない。われわれの症例について考えてみると、外傷の既往はなく、また摘出物の分割切片を作り組織学的に精査をしたが、骨の原発性病変もなかったことから、上記の仮説のうちLichtensteinの局所循環障害説にあてはまるのかもしれない。しかし血管造影等の検査所見はなく明確な病因は不明である。

本症と鑑別を要する疾患としては巨細胞修復性肉芽腫、巨細胞腫等がある。巨細胞修復性肉芽腫と脈瘤性骨

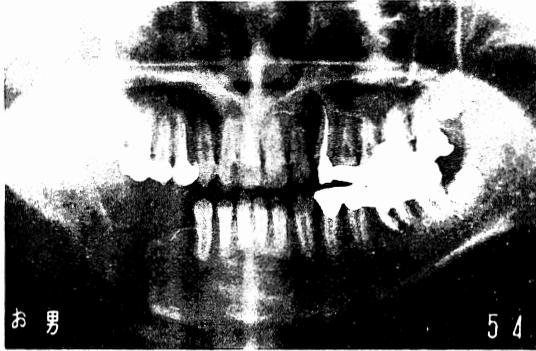


写真 12 術後4か月目
新生骨の形成を認める。

嚢胞とは同一疾患の異なった段階であるという学説もあり非常に類似しているが、脈瘤性骨嚢胞には血液を満たした多くの腔が存在する。巨細胞腫とは好発年齢、好発部位、予後などで相違しているほか組織学的にも脈瘤性骨嚢胞には巨細胞が少なく、結合織の膠原化、類骨形成など巨細胞腫にはみられない所見を認める。

治療法としては、搔爬、摘出、切除などが行われている。Biesecker²¹⁾の報告によると搔爬のみの場合59% (26/44) に再発がみられたとあり、あまり推奨されていない。手術が不可能な部位には放射線療法が行われているが、照射後、肉腫に発展する危険を避けるために2,000 r 以下におさえるべきであるといわれている^{2,4,10,16)}。また病巣の部位によっては凍結療法が応用されており、再発が少なく予後も良好であると報告されている^{3,21)}。

本症の予後は一般に良好で、悪性化の報告はみられない。

われわれの症例では患者が血友病Aであったことから、術前、該部の穿刺によって血液を吸引したが、これは血友病Aに起因する出血と判断した。したがって臨床所見、X線所見から腫瘍、特にエナメル上皮腫を疑っていたこと、また患者が血友病Aであったことから、手術回数ではできるだけ少なくしたかったこと、さらにX線所見より下顎骨の保存は不可能と考えられたことから下顎骨連続離断術を施行した。また血友病Aのため術後の血腫により移植骨の生着が困難と考えられたこと、および患者の年齢を考慮した場合、骨移植による下顎骨の即時再建を行わなくても、母骨あるいは骨膜に由来する新生骨の形成により骨欠損部の修復が期待されることから、骨移植による下顎骨の即時再建は行わず、術後、滑面板を装着して顎の偏位を防止した。術後、縫合部に沿って数箇所血腫の形成が繰り返しみられ、創部の治癒遅延の大きな原因となったことから上記の処置は適切であったと思われる。術後4か月目で骨欠損部には骨膜あるい

は母骨に由来すると考えられる新生骨による修復がすでに認められた(写真12)。しかし腫瘍摘出時に骨膜を切除した下顎切痕部にはX線上、骨の形成が認められていない。さらに母骨断端部と新生骨との癒合も認められていない。このことは新生骨の形成が骨膜由来であることを示唆するものと考えられる。

現在、術後4年を経過しているが腫瘍の再発はなく、顔貌の変形もなく満足すべき状態で経過している。

結 語

15歳の少年の下顎骨に発生した脈瘤性骨嚢胞の1例を経験したのでその概要を報告し、若干の文献的考察を行った。

なお、本論文の要旨は昭和54年10月5日第24回日本口腔外科学会総会(於、名古屋)において報告した。

引用文献

- 1) Jaffe, H.L. and Lichtenstein, L.: Solitary unicameral bone cyst with emphasis on the roentgen picture, the pathologic appearance and the pathogenesis. Arch Surg 44: 1004 1942.
- 2) Deeb, M.E., Sedano, H.O. and Waite, D.E.: Aneurysmal bone cyst of the jaws. Report of a case associated with fibrous dysplasia and review of the literature. Int J Oral Surg 9: 301 1980.
- 3) Saltzman, E.I. and Jun, M.Y.: Aneurysmal bone cyst of the mandible. Report of a case. J. Surg Oncol 17: 385 1981.
- 4) 野坂保次, 中沢明彦: 上顎に発生した Aneurysmal bone cyst 症例. 耳喉 40: 389 1968.
- 5) 副島公生, 田島基紀: 顎骨に発生した動脈瘤性骨嚢胞 (Aneurysmal bone cyst) の1症例. 歯科評論 322: 49 1969.
- 6) 後藤 潤, 福武公雄, 他: 顎骨内に発生した Aneurysmal bone cyst の1症例. 日口外誌 17: 260 1971.
- 7) 常葉信雄, 広瀬達男, 他: 顎骨内 Aneurysmal bone cyst (いわゆる脈瘤性骨嚢胞) の1例. 日科誌 20: 892 1971.
- 8) 黒柳錦也, 佐藤 仁, 他: 下顎骨に発生した Aneurysmal Bone Cyst の1例と文献的考察. 歯科学報 78: 147 1978.
- 9) 井上靖彦, 片岡良雄, 他: 右上顎に発症した脈瘤性骨嚢胞の1症例. 日口外誌 25: 1519 1979.
- 10) 辻 龍雄, 他: 下顎骨に発生した Aneurysmal bone cyst の1症例. 日科誌 29: 479 1980.
- 11) 堀越 勝, 他: 脈瘤性骨嚢胞を伴った下顎骨中心性線維腫の1例. 日口外誌 27: 72 1981.

- 12) Gruskin, S.E. and Dahlin, D.C.: Aneurysmal bone cysts of the jaws. *J Oral Surg* 26: 523 1968.
 - 13) Lindbom, Å., Söderberg, G., Spjut, H.J., et al.: Angiography of aneurysmal bone cyst. *Acta Radiol* 55: 12 1961.
 - 14) Ring, S.M., Beranbaum, E.R., Madayag, M.A. and Nicolosi, C.R.: Angiography of aneurysmal bone cyst. *Bull Hosp Joint Dis* 33: 1 1972.
 - 15) Geschickter, C.F. and Copeland, M.M.: Osteitis fibrosa and giant cell tumor. *Arch Surg* 19: 169 1929.
 - 16) Wang, S.Y.: An aneurysmal bone cyst in the maxilla. *Plast Reconstr Surg* 25: 62 1960.
 - 17) Thompson, P.C.: Subperiosteal giant-cell tumor. ossifying subperiosteal hematoma-aneurysmal bone cyst. *J Bone Joint Surg* 36-A: 281 1954.
 - 18) Lichtenstein, L.: Aneurysmal bone cyst. A pathological entity commonly mistaken for giant-cell tumor and occasionally for hemangioma and osteogenic sarcoma. *Cancer* 3: 279 1950.
 - 19) Donaldson, W.F.: Aneurysmal bone cyst. *J Bone Joint Surg* 44-A: 25 1962.
 - 20) Bernier, J.L. and Bhaskar, S.N.: Aneurysmal bone cysts of the mandible. *Oral Surg* 11: 1018 1958.
 - 21) Biesecker, J.L., Marcove, R.C., Huvos, A.G. and Miké, V.: Aneurysmal bone cysts. A clinicopathologic study of 66 cases. *Cancer* 26: 615 1970.
 - 22) Hadders, H.N. and Osterdoom, H.J.: The identification of aneurysmal bone cysts with hemangioma of the skeleton. *J Path* 71: 193 1956.
-