

症例報告

顎骨保存外科療法を施行した 巨大なセメント芽細胞腫の1例

山口かれん¹⁾ 佐藤 仁^{*2)} 佐藤有里子¹⁾
鈴木 沙季¹⁾ 永井 大輝²⁾ 祝部亜紗美¹⁾
嶋根 俊和²⁾ 代田 達夫¹⁾

抄録：セメント芽細胞腫はまれな良性歯原性腫瘍で、歯根に関連して発生する。不完全な摘出は再発を生じるため、下顎骨の下縁に至る巨大な本腫瘍に対しては区域切除などの根治的手術が行われることも多い。今回われわれは摘出・搔爬術による顎骨保存外科療法を施行した巨大なセメント芽細胞腫の1例を経験したので報告する。症例は18歳、男性。近在歯科医院にてパノラマX線撮影を行ったところ、右側下顎臼歯部に不透過像を指摘され、精査・加療目的に当科を受診した。当科初診時には、右側下顎臼歯部の口底粘膜下に下顎骨と連続する骨様硬の腫瘍が認められた。パノラマX線およびCTでは、同部位に32×30×28mm大で、右側下顎第一大臼歯の歯根に連続する類円形の高濃度病変が認められた。セメント芽細胞腫の臨床診断の下、全身麻酔下に腫瘍摘出・搔爬術および腸骨海綿骨細片移植術を施行した。病理組織学的には、根尖より連続した不規則な梁状のセメント質が認められ、セメント質の辺縁にはセメント芽細胞の縁取りがみられたことから、セメント芽細胞腫と診断した。術後2年が経過した現在、明らかな再発を示す所見は認められていない。本腫瘍は若年者に好発することから、顎骨の形態を保存し再発を防ぐ治療法を選択することは、患者の生活の質の向上に重要である。今後も再発のリスクを考慮し、慎重な経過観察を継続する予定である。

キーワード：セメント芽細胞腫、顎骨保存療法、若年者

緒 言

セメント芽細胞腫は若年者の下顎大臼歯部に好発し、発生頻度は全歯原性腫瘍の約1～6%と比較的まれな腫瘍である^{1,2)}。2017年WHO分類では、歯根に連続するセメント質形成を主体とした間葉系歯原性腫瘍と定義されている³⁾。腫瘍の摘出が本疾患の標準的な治療法であるが、不完全な摘出は再発の原因となる。そのため、腫瘍径が大きく下顎骨下縁に達する場合などでは区域切除術が適応されることも多い^{4,5)}。しかし、本疾患は若年者に好発することから、顎骨の形態を保存し再発を防ぐ治療法を選択することは、患者の生活の質の向上に重要である。今回われわれは、若年者の下顎骨に生じた巨大なセメント芽細胞腫に対して顎骨保存外科療法を施

行した1例を経験したので、その概要を報告する。

症 例

患者：18歳、男性。

主訴：右側下顎大臼歯部X線不透過像の精査。

既往歴・家族歴：特記すべき事項なし。

現病歴：近在歯科医院にて右側第二小臼歯の齲蝕処置を施行する際にデンタルX線を撮影したところ、右側下顎第一大臼歯の根尖周囲にX線不透過像が認められた。病変の範囲を確認するため、パノラマX線写真を撮影したところ、右側下顎大臼歯部の根尖周囲から下顎下縁にかけてX線不透過像が認められたことから、精査・加療目的に当科を紹介され、受診した。

現症：

¹⁾ 昭和大学歯学部口腔外科学講座顎顔面口腔外科学部門

²⁾ 昭和大学歯学部口腔外科学講座口腔腫瘍外科学部門

*責任著者

〔受付：2020年10月9日、受理：2020年11月24日〕

全身所見；栄養状態は良好。

口腔外所見；顔貌は左右対称であり，右側顎下部の圧痛や発赤は認められなかった。

口腔内所見；右側下顎臼歯部の口底粘膜下に下顎骨と連続する骨様硬の腫瘍が認められた。周囲粘膜に炎症所見は認めず，自発痛や咬合痛などの自覚症状は認めなかった。

画像所見；パノラマ X 線写真では左側下顎大臼歯の根尖に連続して類円形の不透過像が認められた。不透過像の内部は不均一であり，下顎下縁の膨隆が認められた（写真 1）。CT では，右側下顎第二小臼歯と第一大臼歯の歯根に連続し，下顎下縁に達する $32 \times 30 \times 28$ mm の類円形高濃度の腫瘍性病変が認められた。不透過像の周囲には一層の帯状低濃度域が認められた（写真 2A-C）。

臨床診断：右側下顎セメント芽細胞腫。

処置および経過：患者本人および家族が顎骨形態



写真 1 初診時パノラマ X 線所見
右側下顎第一大臼歯の根尖と連続し，下顎下縁に達する X 線不透過像が認められる。

の保存を強く希望したため，全身麻酔下に腫瘍摘出・搔爬術および腸骨海綿骨細片移植術を施行した。術中に病的骨折が生じるリスクを考慮し，術前にサージカルブラケットの装着と，サージカルスプリントの作成を行った。腫瘍は一塊での摘出が困難であったため分割して摘出した。下歯槽神経血管側は腫瘍により下方に圧排されていたが，腫瘍とは容易に剥離可能であった。腫瘍周囲の骨を超音波骨メスにより搔爬した（写真 3A）。下顎下縁の皮質骨に断裂が認められたため，サージカルスプリントを装着し，金属製プレート（MatrixMANDIBLE™，ジョンソン・エンド・ジョンソン，東京）を用いて骨接合を行った。腫瘍摘出窩には，腸骨海綿骨細片 143 g を移植後，完全閉創とした（写真 3B）。摘出物は右側下顎第一大臼歯の歯根に連続する表面粗造な充実性腫瘍であった（写真 3C）。術後は創部感染や感覚異常，咬合異常などの合併症は認められなかった。術後 1 年の時点で撮影した CT では腫瘍摘出後の骨欠損腔に骨増生が認められた（写真 4A-C）。下顎骨の連続性も回復していたため，全身麻酔下にプレート除去術を施行した。現在，術後 2 年が経過しており，経過は良好で，パノラマ X 線写真において骨の吸収像や腫瘍の再発を示す所見は認められていない（写真 5）。

病理組織学的所見：根尖より連続した不規則な梁状のセメント質が認められ，セメント質の辺縁にはセメント芽細胞の縁取りがみられた（写真 6）。

病理組織学的診断：右側下顎セメント芽細胞腫。



写真 2 CT 所見

A：水平断，B：矢状断，C：冠状断

右側下顎第二小臼歯と第一大臼歯の歯根に連続する $32 \times 30 \times 28$ mm の類円形不透過像が認められ，不透過像の周囲には一層の帯状透過像が認められる。

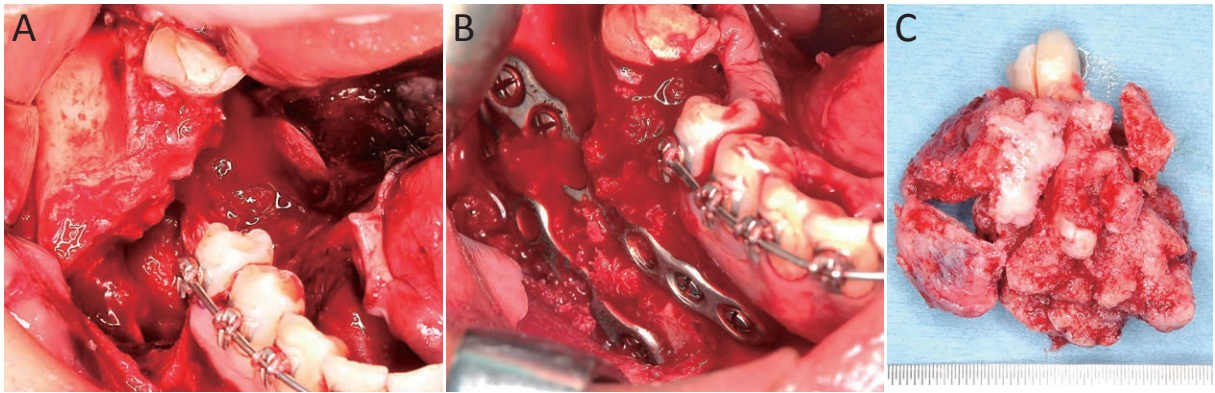


写真 3 術中所見
A：腫瘍摘出後，B：腸骨海綿骨細片移植後，C：摘出物



写真 4 術後2年CT所見
A：水平断，B：矢状断，C：冠状断
下顎骨の連続性が回復しており，腫瘍摘出部位に骨増生が認められる．

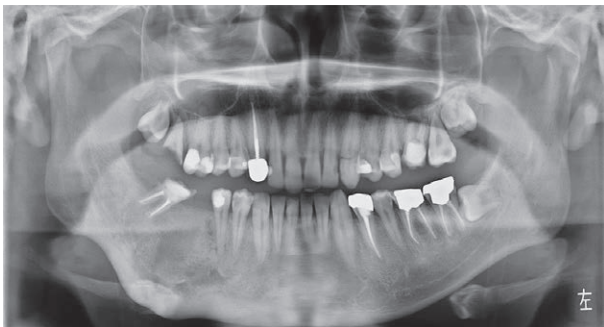


写真 5 術後2年パノラマX線所見
明らかな再発所見は認められず，新生骨の増生が認められる．

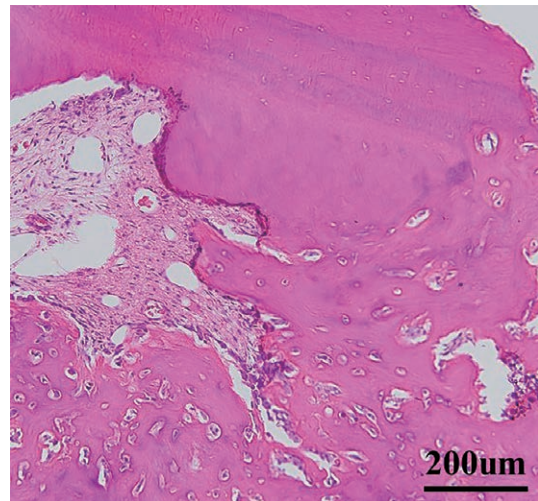


写真 6 H-E 染色病理組織像

考 察

セメント芽細胞腫の治療法には、一般的に腫瘍の摘出術、摘出・搔爬術、顎骨切除術などがある⁵⁾。Chrcanovic ら⁵⁾ はセメント芽細胞腫の 141 報告、258 症例のシステマティックレビューを行った結果、摘出術、辺縁切除術、区域切除術を行った 167 例中 20 例 (12.0%) に再発を認めたことを報告している。腫瘍による皮質骨の圧排や、皮質骨への穿孔、浸潤が認められる症例では高い再発リスクを示すとする報告もある⁶⁾。そのため、本腫瘍は良性腫瘍であっても再発防止のためには下顎骨区域切除術のような根治的切除術が選択されることも多い。しかしながら、本腫瘍の好発年齢は 10 代から 20 代の若年者であり、顎發育途上にある小児期に発生した本腫瘍に対して拡大切除を適応した場合には深刻な顎發育異常をきたす。また、永久歯列となった青年期であっても重度の咬合不全や審美障害を来すこととなる。そのため、治療方針の決定に際しては、審美面や精神面への影響を考慮し、患者本人やその家族への十分な説明を行い、同意を得る必要がある。

Sato ら⁷⁾ は歯源性粘液腫のような強い局所浸潤性を示し再発のリスクが高い良性の歯源性腫瘍であっても、腫瘍の完全除去と顎骨の形態温存を目的とした摘出・搔爬術が有用であることを報告している。また本腫瘍と同様に若年者の女性に好発する骨形成線維腫に対して、下顎骨の連続性を温存することを目的とした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症例も報告されている⁸⁾。セメント芽細胞腫はこれらの疾患と比較しても局所侵襲性が強いとは言えず、画像上でも病巣周囲に X 線透過帯を伴う特徴的な所見がみられることから、ある程度の術前診断が可能である⁹⁾。そのため、本症例に対してわれわれは患者本人およびその家族に慎重かつ十分な説明を行ったうえで、顎骨形態の保存を目的とした腫瘍摘出・搔爬術および自家腸骨海綿骨骨髓細片移植術を選択した。

下顎骨下縁の連続性を保持することは、顎骨形態の保存という審美面のみならず、咬合力の負担という力学的観点からも重要である。自験例では腫瘍に対しては摘出・搔爬術を施行し、骨欠損腔に対しては、自家腸骨海綿骨骨髓細片を移植し、金属製プレートを用いて顎骨の再建を行った。術前に撮影し

た CT により、腫瘍摘出時には皮質骨が菲薄となり病的骨折を生じる可能性が考えられたことから、術前にサージカルシーネを作製した。術中、下顎骨の皮質骨には断裂が認められたため、サージカルシーネを装着した状態で金属製プレートによる骨接合を行った。また、下歯槽神経血管側は腫瘍により下方に圧排されていたが、腫瘍との剥離は容易であった。術後は創部感染や感覚異常、咬合異常などの合併症は認められなかった。現在、摘出・搔爬術から術後 2 年経過し、再発なく良好に経過している。本腫瘍が再発するまでの期間は 4 ~ 24 か月と報告されており⁶⁾、本症例はすでに再発が認められた過去の報告例における経過観察期間を超えている。今後は欠損部へのインプラント埋入術を検討するとともに、引き続き慎重な経過観察を行う予定である。

結 語

今回われわれは下顎下縁に達する巨大なセメント芽細胞腫に対して、腫瘍の摘出・搔爬術および自家腸骨海綿骨骨髓細片移植術による顎骨保存外科療法を施行した 1 例を経験したのでその概要を報告した。

本論文の要旨は、2019 年 12 月 14 日に開催された第 208 回公益社団法人日本口腔外科学会・関東支部学術集会において発表した。

利益相反

本論文に関して、開示すべき利益相反状態はない。

文 献

- 1) Lu Y, Xuan M, Takata T, *et al.* Odontogenic tumors. A demographic study of 759 cases in a Chinese population. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod.* 1998;**86**:707-714.
- 2) Mosqueda-Taylor A, Ledesma-Montes C, Caballero-Sandoval S, *et al.* Odontogenic tumors in Mexico: a collaborative retrospective study of 349 cases. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod.* 1997;**84**:672-675.
- 3) El-Mofty SK. Cementoblastoma. In *El-Naggar AK, Chan JKC, Grandis JR, eds. WHO classification of head and neck tumours*. Lyon: IARC Press; 2017. pp230-231.
- 4) Jelic JS, Loftus MJ, Miller AS, *et al.* Benign cementoblastoma: report of an unusual case and analysis of 14 additional cases. *J Oral Maxillofac Surg.* 1993;**51**:1033-1037.

- 5) Chrcanovic BR, Gomez RS. Cementoblastoma: an updated analysis of 258 cases reported in the literature. *J Craniomaxillofac Surg*. 2017;45:1759-1766.
- 6) Brannon RB, Fowler CB, William M. Carpenter WM, *et al*. Cementoblastoma: an innocuous neoplasm? A clinicopathologic study of 44 cases and review of the literature with special emphasis on recurrence. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod*. 2002;93:311-320.
- 7) Sato H, Kurihara Y, Shiogama S, *et al*. Long-term follow-up after conservative surgical treatment of odontogenic myxoma: a case report and literature review. *Case Rep Dent*. 2019;2019:1634842. (accessed 2021 May 30) <https://www.ncbi.nlm.nih.gov/pmc/articles/PMC6388332/pdf/CRID2019-1634842.pdf>
- 8) 中畑健太郎, 阿部亮輔, 齋藤大嗣, ほか. 自家腸骨海綿骨骨髓細胞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. 岩手医大歯誌. 2017;41:39-45.
- 9) 古跡孝和, 板垣恵輔, 青木秀哲, ほか. 良性セメント芽細胞腫のエックス線写真学的研究. 歯放線. 1995;35:158-166.

A case report of a large cementoblastoma treated using conservative surgery

Karen Yamaguchi¹⁾, Hitoshi Sato^{*2)}, Yuriko Sato¹⁾,
Saki Suzuki¹⁾, Taiki Nagai²⁾, Asami Hori¹⁾,
Toshikazu Shimane²⁾ and Tatsuo Shiota¹⁾

Abstract — Cementoblastomas are rare, benign, odontogenic tumors that are intimately associated with tooth roots. Since incomplete removal often leads to recurrence, radical surgeries, such as segmental resection, are often used for the treatment of large cementoblastomas that extend to the inferior border of the mandible. Herein, we describe a case of a giant mandibular cementoblastoma treated conservatively using excision and curettage. An 18-year-old Japanese man with a radiopaque lesion apparent on a panoramic X-ray was referred to our hospital by a nearby dental clinic. Initial examination revealed a bone-like hard mass continuous with the mandibular bone under the mucosa of the floor of the mouth. Panoramic X-ray and computed tomography examination showed a radiopaque circular mass measuring 32 × 30 × 28 mm associated with the root of the right mandibular first molar. A clinical diagnosis of cementoblastoma was made and removal and curettage of the tumor and placement of an iliac cancellous bone graft was performed under general anesthesia. Histopathological examination showed calcified cementum-like tissue deposited in thick trabeculae on the intact root, and these were rimmed by cementoblasts present in the fibrovascular stroma. Thus, a final diagnosis of cementoblastoma was made. No evidence of recurrence was seen two years after the operation. As these tumors frequently affect young people, treatment strategies should aim to prevent recurrence and also preserve the morphology of the mandible to maintain the quality of life of the patient. Careful follow-up will be continued in consideration of the risk of recurrence in this case.

Key words: cementoblastoma, conservative surgery, youth

[Received October 9, 2020 : Accepted November 24, 2020]

¹⁾Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Division of Oral and Maxillofacial Surgery, Showa University School of Dentistry

²⁾Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Division of Oral Oncology, Showa University School of Dentistry

* To whom corresponding should be addressed