

## Peripheral Odontogenic Myxoma from the Mandibular Molar Lingual Gingiva to the Retromolar Region: A Case Report

Yuriko DOTSU, Toshihiro KIKUTA, Taishi OHTANI

*Department of Oral Maxillofacial Surgery, Faculty of Medicine Fukuoka University*

### Abstract

In many cases, oral myxoma occurs in the maxilla and the central mandible. Myxoma of the oral soft tissue is relatively rare. We experienced an outside type of odontogenic myxoma from the mandibular molar lingual gingiva to the retromolar region.

A 29-year-old man noticed the extroversion of a mass from the left lower 7th lingual gingiva to the centrifugal gingiva at two years prior to his presentation. He has felt the increasing mass. A spindle cell tumor was diagnosed in a medical hospital. An examination in our hospital revealed that the mass had a healthy mucosal color with a slightly hard elasticity and it measured 30 mm size. The pathological diagnosis was myxoma. We resected the tumor under general anesthesia. According to the pathological findings, the proliferation of astrocytes and spindle-shaped cells was observed in part of the myxoid stroma; the biopsy specimen was negative for AE1 and AE3. The odontogenic epithelium was not clear in immunohistochemical staining.

The patient's tumor grew through extroversion, and there was no clear odontogenic epithelium. In addition, based on the bone resorption imaging of the lower second molar, the lack of the third molar and the strong adhesion of the periodontal ligament of the molar tooth, we diagnosed a rare case of odontogenic myxoma.

**Key words:** odontogenic myxoma, oral soft tissue, odontogenic epithelium, WHO histological classification, peripheral

## 下顎大白歯舌側歯肉から臼後部に至る周辺型歯原性粘液腫の1例

道津友里子      喜久田利弘      大谷 泰志

福岡大学医学部医学科歯科口腔外科学講座

**要旨:** 口腔領域に発生する粘液腫の多くは顎骨中心性に発生する。歯肉などの口腔軟組織での発生はまれである。今回、我々は下顎大白歯舌側歯肉から臼後部に発生した骨外型歯原性粘液腫を経験したので報告する。

症例は29歳男性。2年前より左下顎7番舌側歯肉から遠心歯肉の外向性腫瘍に気づくも放置。その後、腫瘍が増大したため某医科大学歯科口腔外科受診。生検でSpindle Cell Tumorの診断を得た。当科初診時、左下顎7番および臼後部に弾性やや硬の30mm大、表面色調が健康粘膜色の腫瘍があった。再生検にて粘液腫の診断を得た。全麻下で切除を施行した。摘出物の病理所見は、粘液様間質のなかに星状ないしは紡錘状の細胞の増殖がみられ、免疫組織化学染色でAE1/AE3陰性で歯原性上皮は明確ではなかった。

本症例は外向性発育、明確な歯原性上皮がなく、骨吸収像、第3大白歯の欠如、第2大白歯歯周靭帯との強い癒着などから歯原性粘液腫と診断された希な症例と考えた。

**キーワード:** 歯原性粘液腫, 口腔軟組織, 歯原性上皮, WHO組織分類, 周辺型

## 緒 言

口腔領域に発生する歯原性粘液腫の多くは顎骨中心性に発生し、歯肉などの口腔軟組織への発生はまれとされる<sup>1~4)</sup>。歯原性腫瘍のWHO組織分類(2005)において、歯原性粘液腫は「間葉あるいは歯原性外胚葉性間葉からなり、歯原性上皮を伴う、あるいは伴わない腫瘍」に分類される。

今回、我々は左下顎大臼歯舌側歯肉から臼後部に至る比較的大きな周辺型歯原性粘液腫を経験したので報告する。

## 症 例

患者：29歳，男性。

初診日：2014年7月

主訴：左下の奥歯の歯肉が腫れている。

現病歴：当科初診の2年前より左下顎大臼歯部歯肉の腫脹を自覚したが、疼痛無く放置。1年前頃より同

部腫脹増大傾向を自覚したため、2014年2月某医科大学歯科口腔外科受診。切り込み生検によりSpindle Cell Tumorの診断を得た。その後、入院下で切除予定であったが、同年4月より転勤にて当科紹介受診となった。

既往歴：全身的な既往に関して特記事項なし。また、左下顎第3大臼歯の抜歯を受けた既往も無いとのことであった。

現症：顔貌は対称で顎下リンパ節に腫脹はなかった。開閉口運動は可能であった。左下顎第2大臼歯遠心舌側から臼後部に至る弾性やや硬の充実性腫瘍性病変を認めた。腫瘍は30×24×14mm大で表面色調は健康粘膜色、圧迫による退色や疼痛の訴えはなかった。左下顎第2大臼歯の動揺度は2度であった(図1)。

画像所見：パノラマX線写真で左下顎第2大臼歯近心に垂直性歯槽骨吸収がみられた(図2)。X線CT検査で第2大臼歯部頬舌側および舌側皮質骨の欠損がみられた(図3)。MRI検査の脂肪抑制T2強調画像では、左下顎臼後部に高信号がみられた(図4A, B, C)。

臨床診断：左下顎歯肉良性腫瘍

紹介元某医科大学生検病理所見：粘膜上皮は軽度の角化亢進を伴い、一部で肥厚を認める。上皮細胞は異型に乏しく、上皮直下結合組織には、リンパ球を主体としたごく軽度の炎症性細胞の集積がみられる。検体深部には、楕円形から卵円形の核を有する紡錘形細胞が束状、または錯綜して増殖しているが、核分裂像は目立たず、細胞異型は乏しい。免疫組織化学染色にて、腫瘍細胞はALK-1, Desmin, AE1/AE3, S-100, CD34とCD68は陰性で、SMAおよびcalponin弱陽性細胞が少数みられる。Ki-67の標識率は約1%未満で、p53陽性細胞はほとんどみられない。以上より、Spindle cell



図1 口腔内写真 左下顎第2大臼歯遠心の舌側から臼後部に至る充実性腫瘍性病変



図2 パノラマX線写真 左下顎第2大臼歯近心の垂直性歯槽骨吸収(黒矢印)

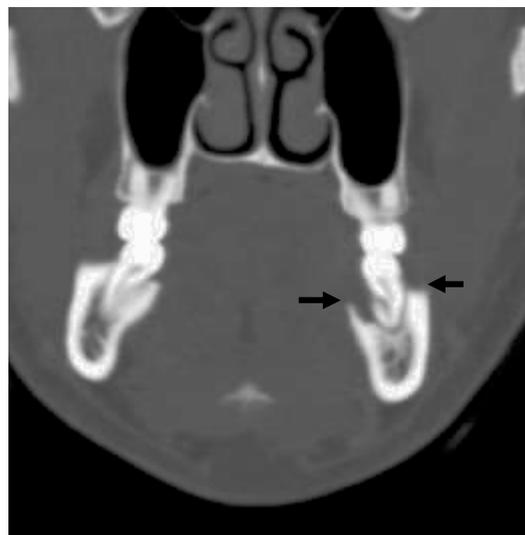


図3 X線CT冠状断写真 左下顎第2大臼歯部頬舌側皮質骨欠損(黒矢印)

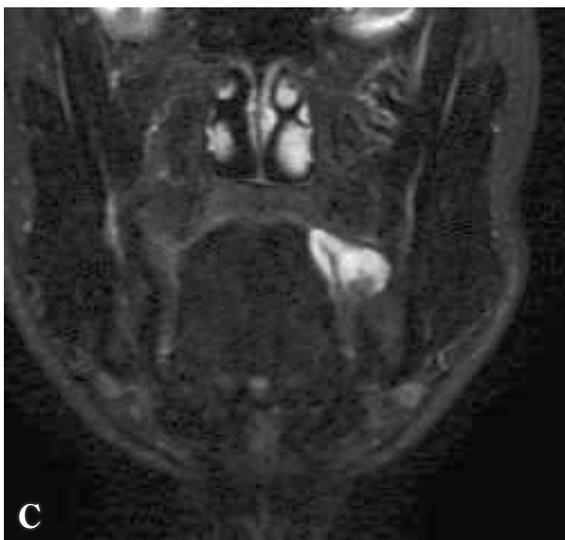
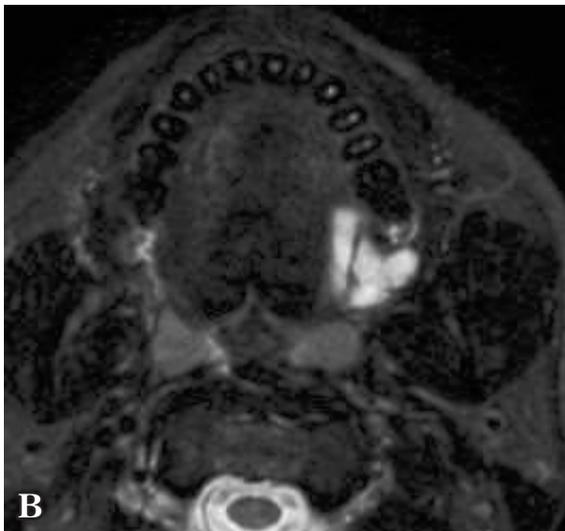
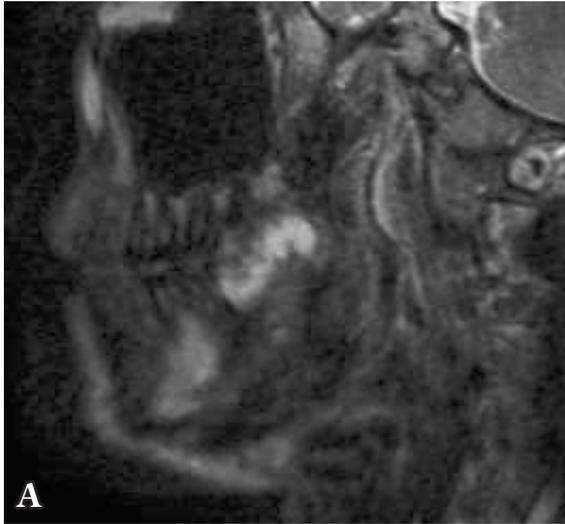


図4 MRI 脂肪抑制 T2 強調画像  
 A 左下顎第2大白歯から臼後部の高信号  
 B 左下顎第2大白歯から臼後部および舌側の高信号  
 C 左下顎臼後部の高信号

tumor と診断された。また、直後に免疫組織化学染色で腫瘍細胞に特定の形質発現がないことから、本検体での組織型の診断は困難との追加の結果であった。良性あるいは低悪性度腫瘍が想定され、切除検体での検索を推奨された。

以上の病理報告から、当院においても外来で切り込み生検を施行した。生検時、上皮と腫瘍実質との癒着はみられず、実質は白色から半透明状、易出血性はなかった。

当科生検病理所見：歯肉扁平上皮下間質に豊富な線維粘液状基質を背景にして紡錘形細胞が疎に増生している。内部には小血管が介在し、当該紡錘形細胞は卵円形から紡錘形の核を有し、細胞異型は目立たない。細胞壊死や核分裂像はなく、扁平上皮を含め、切片内に悪性を示唆する所見はない(図5A, B)。免疫組織化学染色では、AB-PAS 染色にて酸性粘液多糖類を含む多量の粘液様物質の存在を示した。サイトケラチン (AE 1/AE 3) 抗体陰性、腫瘍実質内に上皮成分はなかった。当院における生検病理診断は歯原性粘液腫であった。

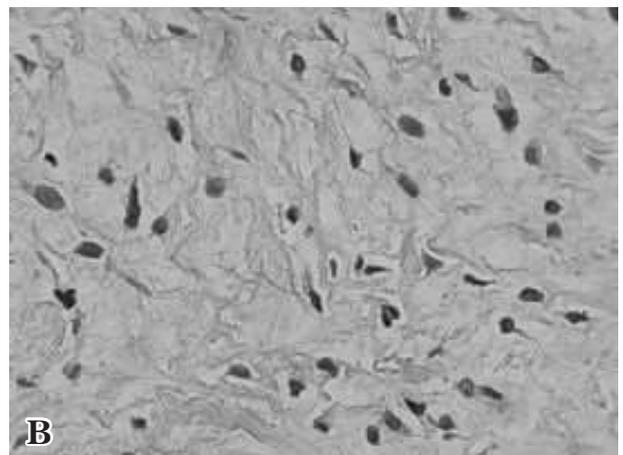
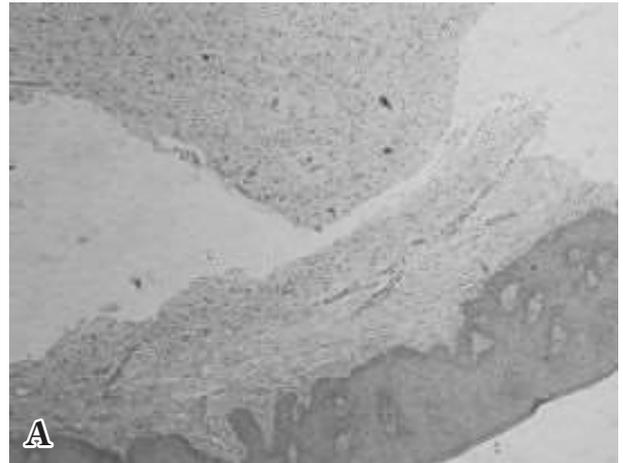


図5A 10倍拡大 (HE 染色)  
 歯肉扁平上皮下間質の豊富な線維粘液状基質  
 図5B 40倍拡大 (HE 染色)  
 豊富な線維粘液状基質を背景に紡錘形細胞が疎に増生

処置および経過：左下顎歯原性粘液腫の診断の下、2014年8月に全身麻酔下で腫瘍切除術および左下7番の抜歯を施行した。腫瘍切除は安全域3mmを設定し、腫瘍と歯牙を一塊として切除した。舌側歯周靭帯部は腫瘍と強く癒着し、第2大臼歯は浮遊歯の状態まで根尖部まで腫瘍がみられた。腫瘍切除後、露出骨創面はラウンドバーで一層削除し、開放創とした。

切除検体病理組織学的検査所見：腫瘍周囲に線維性結合組織がみられ、腫瘍の間質は粘液様の成分が主体である。強拡大像にて粘液間質の中に星状ないしは異型性に乏しい紡錘形細胞の増殖を認め、有糸分裂像等の悪性所見はない(図6)。また、腫瘍は線維性被膜を欠くが、境界は明瞭で、明確な上皮もなかった。また、免疫組織化学染色にて歯原性上皮はなかった。病理診断は歯原性粘液腫であった。

術後経過：現在、術後1年10か月経過しているが、再発所見はない。

## 考 察

粘液腫は身体各部に発生する間葉系の腫瘍で、皮膚、大腿や上腕の筋肉内等の軟組織、口腔領域では主に顎骨中心性に発生する比較的まれな疾患と言われている<sup>1~4)</sup>。2001年に相馬らは歯原性腫瘍のうち歯原性粘液腫の割合は110例中3例(2.7%)と低い割合を報告している<sup>5)</sup>。1999年に矢島ら<sup>2)</sup>は過去10年間に発表された口腔領域の粘液性腫瘍46例中、軟組織に発生したものは4例と報告している。口腔領域発生の歯原性粘液腫の大多数は顎骨中心性であり、軟組織に発生するのは極めて稀との報告もある<sup>4)</sup>。

粘液腫は一般に緩慢、無痛性の発育を示す。顎骨の膨

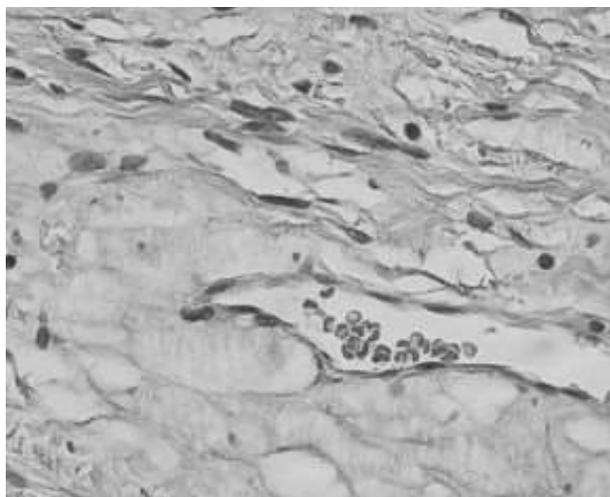


図6 40倍拡大(HE染色) 粘液間質の中に星状ないしは異型性に乏しい紡錘形細胞の増殖

隆、顔貌の変形等によって発見されることが多い。病変部に歯牙が存在する場合は、同歯牙の動揺や転位が起こる<sup>1)</sup>。本症例も下顎大臼歯部舌側歯肉から臼後部に至る病変部に含まれる左下顎第2大臼歯は動揺し、術時に歯周靭帯との強い癒着を認めた。また、第3大臼歯は本腫瘍病変の発生によるかは不明であるが、欠如していた。

Adbelwhabら<sup>6)</sup>は筋肉内粘液腫6例のMRIを検討した結果、T1強調像で周囲の筋組織より低信号、T2強調像で脂肪より高信号を示し、診断的価値は高いと報告している<sup>2)</sup>。自験例では、腫瘍は脂肪抑制T2強調画像にて病変部は高信号であった。また、粘液腫の確定診断には組織学的診断が必要となる。自験例の腫瘍は下顎臼後部歯肉に外向性に増大しており、比較的容易に生検材料を得られ、術前病理診断を得ることができた。

歯原性腫瘍のWHO組織分類<sup>7)</sup>では、歯原性粘液腫は良性腫瘍で、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と定義、分類されている。歯原性粘液腫はさらに上皮成分に富むものと乏しいものに分類される。上皮成分に富むもの(複合型と呼ばれる)は歯根膜由来、上皮成分に乏しいもの(単純型と呼ばれる)はさらに骨内型と周辺型に分類され、これらはともに歯小囊由来とされている<sup>8)</sup>。自験例は上皮成分に乏しい単純型で骨外型、歯小囊由来であると考えられた。歯乳頭、歯小囊および歯根膜由来の歯原性粘液腫は、欠損および未萌出歯に関連して発生する。最も一般的なものは埋伏歯に関連して発生するものと言われている<sup>9)</sup>。しかし、本症例の左第3大臼歯欠損は抜歯の既往がない事から先天性欠損と思われ、埋伏歯との関連性は否定的と考えられた。

本邦において顎骨内に発生した粘液腫は多く報告されているが、口腔軟組織に発生する粘液腫はまれとされている<sup>2~4)</sup>。渉猟しえた22症例中、歯原性上皮を認めたのは3例であった(表1)。自験例では、歯原性上皮はなかった。口腔軟組織に発生する場合は、歯原性上皮は少ないものと考えられた。

一般に歯原性粘液腫は明確な被膜を欠き、病変と周囲組織の境界が不明瞭であることから、その摘出には一般の良性腫瘍より注意が必要とされる<sup>2,4)</sup>。また、同様の理由により、再発にも注意が必要で、周囲組織を含めた切除が適切であるとされている<sup>3)</sup>。口腔軟組織に発生した本腫瘍では、現在までに再発の報告は伊藤ら<sup>4)</sup>の1例のみである。粘液腫の悪性型は非常に少ないと言われている。Pahl(2000)ら<sup>7)</sup>による上顎に発生した悪性歯原性粘液腫の報告もある。Zimmermanらは26例中6例に組織学的に悪性像がみられ、そのうち5例に再発を認め、1例は線維粘液肉腫にて死の転帰をとったと報告している<sup>10)</sup>。歯原性粘液腫については、切除後も再発と悪性化を念頭に慎重な経過観察が必要と言える。自験例は第

表1 本邦における口腔軟組織粘液腫の報告

報告者	報告年	性	年齢	部位	臨床診断	歯原性上皮の有無	再発	(観察期間)
吉本	1941	女	25	舌	不明	(-)	不明	
中山	1968	男	34	上顎歯肉	粘液線維腫	(-)	なし	(1年)
小川	1971	女	45	右下顎78部歯肉	エプーリス	(-)	なし	(3ヶ月)
竹藍	1974	男	49	下顎正中舌側歯肉	不明	(-)	不明	
磯野	1975	男	1	上顎前歯歯槽堤部	不明	(-)	不明	
長谷川	1976	男	32	下顎臼歯舌側歯肉	不明	(-)	なし	(8ヶ月)
酒井	1976	男	37	口蓋軟組織	不明	(+)	不明	
Matsumura	1977	男	2W	歯槽部	先天性エプーリス	(-)	なし	(1年)
尾崎	1978	男	5	頬部	良性腫瘍	(-)	なし	(6ヶ月)
武田	1982	男	54	右下顎臼歯部歯肉	線維性エプーリス	(-)	なし	(2年)
原田	1982	男	52	舌背部	良性腫瘍	(-)	なし	(7ヶ月)
黒川	1982	女	28	右上顎歯肉	妊娠性エプーリス	(+)	なし	(1年)
伊藤	1983	男	15	左下顎45部歯肉	エプーリス	(-)	あり	(1年)
岩目	1985	女	41	左上顎歯肉	不明	不明	不明	
Nakano	1985	女	71	左上顎歯肉	悪性腫瘍	不明	なし	(8ヶ月)
堀	1987	男	59	左上顎歯肉	エプーリス	(-)	なし	(2年)
堀	1987	女	97	右下顎45部歯槽部	エプーリス	(-)	なし	(2年)
仁木	1991	女	87	口底	多形性腺腫	(-)	なし	(2年10ヶ月)
河野	1996	男	51	軟口蓋	良性腫瘍	不明	なし	(10年)
矢島	1999	男	72	舌	舌腫瘍	(-)	なし	
Shimoyama	2000	男	51	下顎前歯部歯肉	骨形成性線維腫	(+)	不明	
竹川	2010	男	75	上顎歯肉	歯肉腫瘍	(-)	なし	(4年)
自験例	2014	男	29	左下顎臼後部歯肉	良性腫瘍	(-)	なし	(1年10ヶ月)

2 大白歯の舌側歯肉周帯部と腫瘍は強い癒着がみられ、第2 大白歯は浮遊歯の状態で根尖まで腫瘍がみられた。再発予防のために腫瘍切除時、周囲露出骨面をラウンドバーで一層削除した。術後の病理組織学的検査では、腫瘍周囲は境界明瞭であったが、線維性被膜は欠いていた。長期的な経過観察を行う必要性が示唆される症例であった。

#### 引用文献

- 1) 柳田 恵, 梅田正博, 他: 上顎洞に進展しセメント質様石灰化物を伴った歯原性粘液腫の1例. 日本口腔外科学会雑誌 51(12): 610-613, 2005.
- 2) 矢島哲弥, 倉内惇: 舌に発生した粘液腫の1例. 日本口腔科学会雑誌 48(3): 220-223, 1999.
- 3) 堀 滋, 倉地洋一, 他: 歯肉部に発生した粘液腫の2例. 日本口腔外科学会雑誌 33(7): 1436-1441, 1987.
- 4) 伊藤伸也, 倉地洋一, 他: 下顎歯肉に生じた粘液腫の1例. 日口外誌 29: 2090-2095, 1983.
- 5) 相馬 陽, 高木律男, 他: 歯原性腫瘍の臨床統計的検討: 23年間110例について. 日本口腔外科学会雑誌 47(2): 109-112, 2001.
- 6) Adbelwahab AF, Kenan S. et al: Intramuscular myxoma, magnetic resonance feature. Skeletal radiol 65: 485-489, 1992.
- 7) Pahl S., Henn W.: Malignant odontogenic myxoma of the maxilla: Case with cytogenetic confirmation. J Larygol Otol 114: 533-535, 2000.
- 8) 武田泰典, 高田 隆, 他: 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. 日本口腔外科学会雑誌 52(2): 54-61, 2006.
- 9) Limdiwala P, Shah J.: Odontogenic myxoma of maxilla: A review discussion with two case reports. Contemp Clin Dent. 6(1): 131-136, 2015.
- 10) Zimmerman, D.C. and Dahlin D.C.: Myxomatous tumors of the jaws. Oral Surg 11: 1069-1080, 1958.  
(平成28. 4. 9受付, 平成28. 7. 1受理)  
「本論文内容に関する開示すべき著者の利益相反状態: なし」