稀有なる舌の骨軟骨腫の一症例

佐藤 幸雄・小川 克二・大内 仁

A Case of Osteochondroma of the Tongue

Yukio Satoh, Yoshitsugu Ogawa and Jin Ouchi

(Fukushima Medical College)

A case of osteochondroma of the tongue was reported with a review of the literature.

A 27-year-old woman was seen on August 19, 1975, with the complaint of "something growing on the tongue". The lesion had increased in size in 23 years. A mass about the size of a walnut was found on the left side of the middle third of the tongue.

The lesion was removed under general anesthesia on October 17, 1975.

Benign bony and cartilaginous tumors of the tongue are quite rare. In the world-wide literature on the subject, 13 cases of osteoma, 17 cases of chondroma and 3 cases of osteochondroma were reported.

The exact etiology of those lesions is not known, but two theories have generally been advanced to account for the formation of bony and cartilaginous tumors of the tongue: the congenital theory and the metaplastic theory.

The lesion in this case appeared to be metaplastic in origin.

緒 言

舌における良性腫瘍には乳頭腫、線維腫、脈管腫、神経腫瘍、舌根甲状腺腫などがあるが、骨性又は軟骨性腫瘍は極めて稀有なものとされている³²⁾。

最近我々は27才の女性の舌に生じた骨軟骨腫の一症例を経験したので報告すると共に、これと密接な関係にある骨腫や軟骨腫と併せて文献的考察を行なった。

症 例

患者：■■■■ 27才，女性。

初診：昭和50年8月19日。

主訴：舌の腫瘍形成。

家族歴：特記すべき事なし。

現病歴：4才の頃某医にて舌の腫瘍形成を指摘された。腫瘍はその後ごく緩慢に増大したが、軽度の発語障害を認めるのみであり、放置していた。昭和50年7月頃（26才）より左舌縁

に軽度の疼痛が認められるようになった為、当科外来を受診した。

入院：昭和50年10月8日。

現症：入院時所見としては全身的に特に異常を認めなかった。胸部X線写真，心電図にも異常なく，一般検査成績も第1表に示すごとく特に異常を認めなかった。

局所所見：第1図のごとく舌中1/3の左側部が

第1図 局所所見

第2図 舌腫瘍のX線写真 腫瘍に一致し、濃厚な陰影を認める。

第1表 入院時検査成績

血液検査

RBC 402×10^4 Hb 13.2g/dl Hct 38.9%WBC 5100 Blood Plat, 19.4×10^4

尿検査

Prot, (-) Urobil (N)

肝機能検査

GOT 39 RFU GPT 23 RFU

血清電解質

Na 138 K 4.1 Cl 104 Ca 4.8 mEq/dl

ワ氏反応 陰性

赤沈値 12~31mm

第3図 摘出した舌腫瘍

第4図 組織所見 (×60)

軟骨組織 (CH) は硝子軟骨。骨組織 (B) には Harvers 管, 層板構造, 骨梁構造を認める。骨髓 (BM) は脂肪髄より成る。腫瘍周囲には萎縮した横紋筋束 (M) 疎結合組織を認める。

腫脹しており、その粘膜下にクルミ大で、表面が凹凸不平で、非常に硬く骨性硬の腫瘍が触知された。舌左縁の粘膜に歯牙による刺激の為と思われる軽度のびらんを認めた。発語の際所謂 *kloßige Sprache* が認められたが、鼻腔咽喉頭には特に異常を認めなかった。又、局所の単純 X 線写真で腫瘍に一致して濃厚な陰影を認めた (第 2 図)。

手術所見：10月17日全身麻酔下に舌腫瘍摘出術を施行した。舌背中央よりやや左側の粘膜に切開を加えた所、腫瘍は筋層内に存在し、周囲の組織との癒着はなく摘出は容易であった。腫瘍摘出後筋層をクロミックカットグートで縫い合わせ、粘膜を絹糸で縫合し手術を終えた。

術後経過は良好で、11月1日退院した。昭和54年10月現在再発を認めていない。

病理学的所見：摘出標本は骨腫様で非常に硬

く数個の突起を有し、略球形でその大きさは長径 3.5cm、重量は29gであり、断面は黄白色を呈していた (第3図)。

病理組織学的診断は骨軟骨腫であった (第4図)。軟骨組織は硝子軟骨であり、軟骨細胞は大型、類円形で、数個あるいは2～3個迄の細胞が密接し、軟骨小囊につつまれていた。骨組織は軟骨細胞層の肥大、増大、次に軟骨基質への石灰沈着がおこり軟骨細胞の萎縮、骨組織への移行と言う典型的な軟骨性化骨化によるものであった。骨組織は Harvers 管、層板構造、骨梁構造を備えており、骨髓は主として脂肪髓より成り拡張した毛細管が散在していた。腫瘍の周囲には萎縮した横紋筋束や疎結合組織が認められるが、これらの組織には炎症像は全く認められず、本腫瘍との間には移行像は認められなかった。

考 按

舌の骨性又は軟骨性腫瘍は甚だ稀なものであり、我々が内外の文献を渉猟した範囲では現在まで第2, 3, 4表のごとく骨腫が Monsarrat¹⁾ (1913) 以来13例、軟骨腫が Berry¹⁵⁾ (1892) 以来17例、骨軟骨腫が Neumark ら³⁰⁾ (1930) 以来本例を入れて4例の報告があるのみである。

これらの骨性又は軟骨性腫瘍の報告例を統計的にまとめてみると、性別において、骨腫は女性が11例、男性が2例とそのほとんどの症例が女性であった。これに対して軟骨腫は女性が9例、男性が8例と性別に差はなかった。骨軟骨腫は症例数が少ないが、不明の一例をのぞいて、本例を含めて3例全例が女性であった。

年令では、骨腫は20才～30才台がほとんどで平均年令は30.0才であった。軟骨腫は10才～40才台に略均等に分布しており、不明の3例をのぞいた14例の平均年令は31.6才であった。骨軟骨腫は20才台2例、50才台1例、不明1例で、3例の平均年令は35.0才であった。これらの3種類の腫瘍は既して比較的若い年令層に多いよ

うである。

発生部位では、骨腫はほとんどが舌後 $\frac{1}{3}$ の部と略一定しており、その多くが舌盲孔に近接して認められた。これに比して軟骨腫では発生部位は様々であり、舌前 $\frac{1}{3}$ の部又は舌縁が、不明の3例をのぞいた14例中8例と半数を占めていた。骨軟骨腫は不明の1例をのぞいた2例共舌後 $\frac{1}{3}$ の部であったが、本例は舌中 $\frac{1}{3}$ の部であった。

症状では骨腫、軟骨腫共に無症状が最も多いが、なかには嚥下困難、舌の腫瘍、嘔気、舌痛等が認められるものも僅かながらあるようであった。

腫瘍の大きさでは、骨腫は豌豆大から直径1cmまで、軟骨腫は直径0.3cmのものから13×10cmのものまで、骨軟骨腫は直径1.2cmのものとクルミ大のもので、本例では直径が略3.5cmであった。

最後に治療であるが、骨腫、軟骨腫、骨軟骨腫のいずれもほとんどの症例で摘出手術をおこなっている。本例においても摘出手術により治

第2表 骨 腫

著 者	年代	性	年令	発生部位	症 状	<大きさ>	治療
Monsarrat ¹⁾	1913	F	32	舌後部中央	無症状	桜桃大	摘出
Hirsch ²⁾	1925	F	26	舌根部	嚥下困難	桜桃大	摘出
Zuckermann ³⁾	1929	F	30	有郭乳頭部中央	無症状	豌豆大	摘出
Jung ⁴⁾	1931	F	22	舌盲孔部	咽頭過敏	1×0.5cm	摘出
Magnien et al ⁶⁾	1933	F	37	舌後 $\frac{1}{3}$ ～中 $\frac{1}{3}$ 境界部	咽頭異常感	0.6×0.5×0.4cm	摘出
牟田 ⁷⁾	1938	M	23	有郭乳頭部中央	嚥下困難, 舌腫瘍形成	豌豆大	摘出
Witchell ⁸⁾	1949	F	30	有郭乳頭部	嘔気, 嘔吐	1 cm	摘出
Breckenrige et al ⁹⁾	1950	F	23	有郭乳頭部中央	無症状	1 cm	摘出
Peimer et al ¹⁰⁾	1956	F	27	郭乳頭部中央	嘔 気	0.7×0.6×0.3cm	摘出
Church ¹¹⁾	1964	F	11	舌盲孔部	腫瘍形成	0.5cm	摘出
Cataldo et al ¹²⁾	1967	F	39	有郭乳頭部中央	無 症 状	1 cm	摘出
Begel et al ¹³⁾	1968	F	22	有郭乳頭部	嚥下困難	1×0.5cm	摘出
Goldberg et al ¹⁴⁾	1970	M	65	有郭乳頭部	無症状	0.8×0.5×0.3cm	摘出

第3表 軟骨腫

著 者	年代	性	年令	発生部位	症 状	大 き さ	治 療
Berry ¹⁵⁾	1892	M	49	舌 縁	不 明	不 明	不 明
Lang ¹⁵⁾	1892	F	22	不 明	不 明	不 明	不 明
Routier ¹⁶⁾	1905	F	不明	不 明	不 明	不 明	摘 出
Camns et al ¹⁷⁾	1905	F	21	舌前部舌縁	不 明	不 明	不 明
Huie ¹⁸⁾	1927	F	不明	不 明	嚥下困難	13×10cm	腫瘍基部結紮自然脱落
Pless ¹⁹⁾	1936	M	39	舌 尖	無症状	クルミ大	摘 出
秋山 ²⁰⁾	1941	M	12	舌 尖	無症状	3.0×2.7×2.0cm	摘 出
Johns ²¹⁾	1942	M	不明	舌尖前 $\frac{1}{3}$, 右舌縁	無症状	不 明	摘 出
種村 ²²⁾	1944	F	38	舌中 $\frac{1}{3}$, 舌背	舌異常感	豌豆大	摘 出
Bruce et al ²³⁾	1953	M	52	舌前部, 右舌縁	無症状	0.5cm	摘 出
Bruce et al ²³⁾	1953	F	43	舌中 $\frac{1}{3}$, 舌背	無症状	0.3cm	摘 出
Rosen ²⁴⁾	1961	M	36	舌 尖	舌 痛	0.3cm	摘 出
Yoel et al ²⁵⁾	1965	M	36	舌後 $\frac{1}{3}$, 右舌縁	無症状	4.5×1 cm	摘 出
Ramachandran et al ²⁶⁾	1968	F	10	舌中 $\frac{1}{3}$, 右側	舌腫瘍形成	1 cm	摘 出
Viglioglia et al ²⁷⁾	1970	F	26	舌中 $\frac{1}{3}$ ～後 $\frac{1}{3}$ 舌背	舌腫瘍形成	3 cm	摘 出
Samant et al ²⁸⁾	1971	M	16	舌後 $\frac{1}{3}$, 右舌背	嚥下異常感	不明	摘 出
Gutmann et al ²⁹⁾	1974	F	42	舌中 $\frac{1}{3}$, 中央	無症状	1.3×0.7cm	摘 出

第4表 骨軟骨腫

著 者	年代	性	年令	発生部位	症 状	大 き さ	治 療
Neumark et al ³⁰⁾	1930	F	58	舌根部	嚥下困難	クルミ大	摘 出
Noil et al ³¹⁾	1956	不明	不明	不 明	不 明	不 明	不 明
Roy et al ³²⁾	1970	F	20	舌盲孔部	舌 痛	1.2cm	摘 出
著者ら	1980	F	27	舌中 $\frac{1}{3}$, 左側	舌腫瘍形成	4×3.5×3.5cm	摘 出

癒せしめた。

次に骨性又は軟骨性腫瘍の発生原因であるが、舌等の軟部組織には骨性又は軟骨性組織が存在しないのが普通である。従ってこれらの軟部組織に生じた骨性又は軟骨性腫瘍の発生原因に関しては、胎生期における骨性又は軟骨性原基の遺残又は迷入等の先天性説及び外傷又は慢性炎症等により間葉組織が後天性に骨又は軟骨への化生がおこるとする化生説が主たるものである。

骨腫の成因については、13例の報告例の殆んどが比較的若年層の女性で、発生部位においてもその多くが舌後 $\frac{1}{3}$ の部、特に舌盲孔に近接して認められる事より、胎生期における鰓弓での化骨化の際の骨芽細胞の遺残又は迷入より生じたものではないかとする先天性説が主である³⁾⁴⁾¹⁰⁾。

舌盲孔は甲状腺発生に先立ち出現する甲状舌管が閉鎖した時の舌における開口部であるとされている。従って Roy ら³²⁾は甲状舌管がその発達途中で舌骨を貫くか又は舌骨に密着している事より、舌骨の骨軟骨性間葉組織が舌盲孔部への移動又は遊走をおこす可能性があるとしている。又、Caraldo ら¹²⁾は先天異常である舌根甲状腺腫の大半が女性にみられる事より、甲状腺の原基の遺残が骨腫の発生に関与しているのではないかと述べている。

一方、Greig⁵⁾は後天的にも骨腫が生じる可能性があるとし、舌後部は動きが少なく、この部に生じた線維組織はその代謝を保つのに必要な血流が得られず、変性に落ち入り骨への化生をおこす事があるのではないかと推定している。

軟骨腫の成因については先天性説、化生説が略折半してあるようである。その理由は我々の統計でみられるようにその発生部位では舌前 $\frac{1}{3}$ の部又は舌縁が半数を占めているものの、骨腫のごとくかならずしも一定しておらず、又性別でも男女差が認められない為であろうと思われる。例えば Gutman²⁹⁾らのメッケルの軟骨の

痕跡的遺残より発生する軟骨組織の異所性増殖であるとする説、秋山ら²⁰⁾は Gentscheff の成熟児及び新生児の舌中隔の下に約30%存在すると言われる軟骨組織が成人においても認められたのだとする説を重視している。又、Bruce ら²³⁾は、結合組織の軟骨又は骨への化生は主として外傷、慢性炎症等でおこるとした Anderson³³⁾の説をもとに、くりかえされる外傷により未分化の中胚葉由来細胞が軟骨に変化するとする説を上げているが、いずれも定説とはなっていない。

いずれにせよ骨腫又は軟骨腫の成因については主として腫瘍の発生部位により推定されているようである。このような観点から Roy ら³²⁾は骨性又は軟骨性腫瘍を発生部位によって2つのグループに分け、その1つのグループは舌盲孔付近に認められる骨腫が主体のもの、もう1つのグループは外傷を頻回に受けやすい舌前部又は舌縁に認められる軟骨腫が主体のものに2分している。前者のグループは迷入した多潜能能力の中胚葉性胚芽遺残によるもの、後者のグループは外傷後の中胚葉性の化生によるものと推定しているが、著者は現時点ではこの説が最も妥当なものであると考える。

骨軟骨腫は前述のごとく Neumark ら³⁰⁾以来本例を含めて4例の報告がある。その成因としては Noli³¹⁾らの1例は詳細が不明であるが、Neumark ら³⁰⁾は間質の慢性炎症によるもの、もしくは先天性の散在した胚芽の増殖によるものと考えられる骨又は軟骨組織が扁桃に認められる事が一般に知られている事より、同様の骨又は軟骨組織が舌根扁桃に認められても不思議ではないとしている。Roy ら³²⁾はすでに述べたごとく腫瘍発生部位が舌盲孔に接している事より先天性説を推定している。これらの諸説は骨腫又は軟骨腫の成因についての考えと略同様のものに立脚したものであるが、Bruce ら²³⁾は Ewing が軟骨はたやすく骨へ化生しやすいと述べている事より、骨腫のあるものは軟骨腫の変化したものであろうと推定しており、骨

軟骨腫は何等かの原因で舌に生じた軟骨腫の一部が骨腫への化生をみたものとも考えられる。

本例においては女性で、4才の幼少時より腫瘍が認められるが、その発生部位は舌中1/3左側で舌盲孔とは関連を認めないこと、組織学的に

明らかな軟骨性化骨変化を呈していたことより、本例は本来は化生によって生じた軟骨腫であり、その一部が化骨変化を受けたものと推定される。

結 語

27才女性の舌に発生した骨軟骨腫の一症例について報告し、あわせてその発生原因などについて若干の文献的考察をおこなった。

文 献

- 1) Monsarrat, M.: Ostéomae de la langue, Bull. et mén. Soc. Anat. Paris. 88: 282~283, 1913.
- 2) Hirsch, O.: Knochentumor am Zungengrund, Monatsschr. Ohrenh. 59: 496~497, 1925.
- 3) Zuckerman, M.: Ein Fall von Osteom der Zunge, Ztschr. Hals-Nasen-u. Ohrenh. 25: 118~120, 1929.
- 4) Jung, G.: Über ein Osteom der Zunge, Beitr. Klin. Chir. 154: 167~168, 1931.
- 5) Greig, D. M.: Osteoma of Tongue, Critical Review, Edinburgh M. J. 39: 93~104, 1932.
- 6) Magnien and Perrot, M.: Umcase d'osteome de la langue, Ann. Anat. Path. 10: 331~334, 1933.
- 7) 牟田哲三郎, 緒方健: 舌根部骨腫症例追加. 耳喉科 11: 1016~1017, 1938.
- 8) Witchell, I.: Osteoma of the Tongue, Arch. Otolaryng. 50: 453~456, 1949.
- 9) Breckenridge, R. L., and Lukens, R. M.: Osteoma of the Tongue, Arch. Otolaryng. 52: 19~24, 1950.
- 10) Peimer, R., Dreizin, D. H., and Masugi, Y.: Osteoma of the Tongue, Arch. Otolaryng. 64: 148~150, 1956.
- 11) Church, L. E.: Osteoma of the Tongue, Report of a Case, J. Oral Surg. 17: 768~770, 1964.
- 12) Catataldo, E., Shklar, G., and Meyer, I.: Osteoma of the Tanguue, Arch. Otolaryng. 85: 202~206, 1967.
- 13) Begel, H., Wilson, H., Stratigos, G., and Zambito, R. F.: Osteoma of the Tongue; Report of Case, J. Oral Surg. 26: 662~664, 1968.
- 14) Goldberg, A. F., Skuble, D. F., and Latronica, R. J.: Osteoma of the Tongue; Report of case, J. Oral Surg. 28: 457~458, 1970.
- 15) Butlin, H. T., and Spencer, W. G.: Disease of the Tongue, London, 1900, Cassell & Co., Ltd., P. 285. Yoel, J., and Pundyk, C.: Chondroma of the Tongue, Oral Surg., Oral Med. & Oral Path. 20: 578~582, 1965, より引用.
- 16) Routier, M.: Enchondrome de la langue, Bull. et men. Soc. d. chirurgiens de Paris, 31: 369~370, 1905.
- 17) Camus, M., and Ertzbeschoff, B.: Chondroma de la langue chez une jeune femme, Bull. et men. Soc. anat. de Paris. 30: 301~302, 1905.
- 18) Fitzwilliams, D. C. L.: The Tongue and Its Disases, London, 1927, Oxford University Press, P. 327. Yoel, J., and Pundyk, C.: Chondroma of the Tongue, Oral Surg., Oral Med. Oral Path. 20: 578~582, 1965.
- 19) Pless, B.: Der Fall eines Chondroms der Zungenspitze, Zahnärzth. Pundsch. 45: 514~515, 1936.
- 20) 秋山卓三: 稀有なる舌の内軟骨腫の一例. 日本外科学会誌 18: 1067, 1941.
- 21) Johns, J.: Chondroma of the Tongue, J. Mi-

- chigan M Soc. 41: 471~472, 1942.
- 22) 種村竜夫, 山岸久夫: 舌に於ける良性腫瘍に就て
; 舌軟骨腫の一例. 大日耳鼻 50 : 30~33, 1944.
- 23) Bruce, K. W., and McDonald, J. R. : Chondroma of the Tongue, Oral Surg., Oral Med & Oral Path. 6 : 1281~1283, 1953.
- 24) Rosen, M. D. : Chondroma of the Tongue ; Report of a Case, J. Oral Surg., Anesth. & Hosp. D. Serv. 19 : 157~159, 1961.
- 25) Yoel, J., and Pundyk, C. : Chondroma of the Tongue, Oral Surg., Oral Med. & Oral Path. 20 : 578~582, 1965.
- 26) Ramachandran, K., and Viswanathan, R. : Chondroma of a case' Oral Surg Med. & Oral Surg., Oral Surg., Oral Med. & Oral Path. 25 : 487~490, 1968.
- 27) Viglioglia, P. A., and Stirparo, M. A. : Chondroma of the Tongue, Oral Surg. 29 : 820~826, 1970.
- 28) Samant, H. C., and Gupta, O. P. : Chondroma of the Tongue, Oral Surg. 32 : 450~452, 1971.
- 29) Gutmann, J., Cifuentes, C., Balzarini, M. A., Sobarzo, V., and Vicuna, R. : Chondroma of the Tongue, Oral Surg. 37 : 75~77, 1974.
- 30) Neumark, K. und Herzog, A. : Osteochondrom der zungengrundes, Monats. f. Ohrenheilk., Berlin, 64 : 1000~1003, 1930.
- 31) Noli, G., and Tusini, G. : Su di un caso di osteocondroma della lingua, Boill lat 9 : 272~280, 1956. Roy, J. J., Klein, H. Z., and Tipton, D. L. : Osteocondroma of the the Tongue, Arch Path 89 : 565~568, 1970, より引用.
- 32) Roy, J. J., Klein, H. Z., and Tipton, D. L. : Osteochondroma of the Tongue, Arch Path 89 : 565~568, 1970.
- 33) Anderson, W. A. D. : Pathology, ed. 6, St. Louis, 1971, The C.V. Mosby Company, PP. 582~583, 1734~1736.

（ 原稿到着：昭和55年9月30日
別刷請求先：佐藤幸雄
〒960福島市杉妻町5-75
福島県立医科大学耳鼻咽喉科学教室 ）