先天性舌披裂症 (congenital bifid tongue) の一例

原田 壽利・三苫藤吉郎・藤村 成人

本庄 巖*・山村 政夫**

A Case of Bifid Tongue

Hisatoshi Harada, Tokichiro Mitoma, Shigeto Fujimura
and Iwao Honjo

(Kansai Medical University)

Masao Yamamura

(Kakogawa City, Hyogo Prefecture)

A rare case of a bifid tongue in a 8-month-old boy was reported. The condition was characterized by a bifid apex of the tongue and an attached pedicled mass. Embryologically the apex of the tongue is formed by two lateral lingual prominences. Failure in fusion of any portion of the lateral halves during the 6th embryonal week results in bifurcation of the tongue. Cosmetic operation for the cleft should be considered even in cases of mild grade.

はじめに

顔面奇型の中でも先天性舌披裂症は極めて稀な疾患であり、その報告も少ない。我々は、この舌披裂症を経験したので症例の報告とともに発生機序についても若干の検討を加えてみたい。

症 例

患者：8ヶ月，男児。

主訴：舌尖部変形

既往歴：妊娠経過，生産に異常なく，家系にも特記すべきことなし。

現病歴：生下時から母親が患児の舌尖部変形に気付いていたが，哺乳障害などの症状を認めない為放置。しかし，この舌変形を放置したまままでよいかどうかを尋ねて生後8ヶ月目に当科

受診。

局所々見：図1の如く，舌尖部に軽度の披裂があり，更にこの右披裂縁後端と連なる軟らかい索状組織を認める。舌小帯は，披裂後端よりも後部で存在しており，その附着部位，形態等には異常は認められない。又，舌の出し入れに際しても，舌披裂部の形態に変化を認めず，この披裂が舌小帯短縮症とは無関係であると判断

*関西医科大学耳鼻咽喉科学教室（主任：熊沢忠躬教授）

**加古川市

図1 局所々見：舌尖部の披裂と右披裂縁と連なる索状物を認める。

図2 術後所見

図3 索状物の組織所見 (×20), H & E 染色

図4 索状物の組織所見 (×200), H & E 染色,
A 重層扁平上皮, B 筋組織, C 血管および
D 結合組織より構成される。

された。

全身所見及び検査所見：身体他部に奇型を認めず，胸レ線，心電図，血液および尿検査でも異常所見を認めない．又，染色体にも異常を認めない．

治療：今回は披裂に対しては全く侵襲を加えず，索状組織だけの切除に留めた．しかし，整容的な立場からは，将来形成外科的処置が必要と考えている（図2）．

索状組織の所見：切除標本の外観は淡桃色を呈し，長さ7mm程度のオタマジャクシ状で，軟らかく充実性ポリープ様であった．その組織学的所見は，図3，4に示す如くであり，表面は角化傾向を示す重層扁平上皮(A)で被われており全周に渡って細かい波状を呈し一見乳頭組織を疑わせる．間質は，筋組織(B)，血管(C)および結

合組織(D)から構成されていた。

考 按

1. 文献的考察

舌分裂症は、過去30年間の内外文献の範囲では、Hubinger (1952)²⁾ の報告をみるにすぎず本邦での報告はみられなかった。

Hubinger の症例は、舌尖部の軽度分裂とこの右分裂下縁に連なるポリープ様組織をもつ3才の女児で、ポリープ様組織の切除と分裂部のV字切開縫合術により完治をみた症例である。ポリープ様組織の組織学的検索では、重層扁平上皮の被膜と筋組織、線維組織および豊富な血管を含む間質とからなる事が判り、このポリープ様組織を迷入舌組織由来の乳頭腫と診断している。彼の報告例は、舌分裂の程度、附属ポリープ様組織およびその組織所見などの点で本症例との類似点が多い事が判った。

2. 本症の発生機序について

正常の舌の発生は¹⁾³⁾、胎生4週頃に口腔底に一对の外側舌隆起と中央部の無対結節との計3つの隆起が生ずる事で始まる(図5)。これら隆起は第1鰓弓の下顎突起に由来し、将来の舌前2/3を形成する。この後方に第2の隆起、即ち底鰓節が形成されるが、これは第2～4鰓弓

に由来し、舌後1/3を形成する。舌前半部の外側舌隆起は大きさを増してゆき、胎生6週目頃に正中線で互いに癒合し、舌尖から舌分界溝までの舌前2/3の部分形成する。最初にあった中央部の無対結節は実質的には舌の形成に直接関与せず、この部は甲状腺の発生部位として舌盲孔として残る。

このような舌発生過程から本症例の発生機序を考えると、外側舌隆起が正中で互いに癒合する胎生6週頃に何らかの原因で癒合不全が起ったものと推測される。

更に本症例では、分裂に附随して索状組織が認められたが、その附着部位および組織学的所見から本来分裂部位に相当すべき舌組織が萎縮し索状となったものと推測された。

3. 治療

分裂の程度により異なる。即ち、本症例の如き分裂が軽度で無症状に経過する例では、機能的手術は必要でないが、整容的な立場からは形成外科的処置も考慮すべきと考えられる。分裂の程度が大で哺乳障害、構音障害などを伴うものでは早期に形成外科的手術が必要であろう。

図5 舌の発生 (Langman より)

ま と め

8ヶ月の男児にみられた舌尖部の正中披裂と披裂縁に連なる索状組織を有する極めて稀な舌披裂症を報告した.

本疾患の発生機序は, 左右の外側舌隆起が正中で癒合する胎生6週頃に何らかの原因で癒合不全が起った事によると推測された.

治療は, 裂の程度によるが無症状に経過する例でも整容的な立場から形成外科的処置が必要な場合があると考えられた.

本稿の要旨は, 第34回日本形成外科学会関西地分会(神戸)で口演された. 熊沢教授の御校閲に深謝いたします.

参 考 文 献

- 1) Hamilton, W. J. and Mossman, H. W. : Human Embryology (4th Edition) p. 302~306, Williams & Wilkins Company, Baltimore, 1972.
- 2) Hubinger, H. L. : Bifid tongue, J. of Oral Surg. 10: 64~66, 1952.
- 3) Langman, J. : Medical Embryology (2nd Edition), p. 247~249, Williams & Wilkins Company, Baltimore, 1969.

原稿到着: 昭和55年8月14日
別刷請求先: 原田寿利
〒570 大阪府守口市文園町1番地
関西医科大学耳鼻咽喉科学教室