硬口蓋に生じた骨性分離腫の1例

富江華織・三浦千佳・大野康亮・齋藤浩人

A case of osseous choristoma of the hard palate

TOMIE Kaori・MIURA Chika・OHNO Kohsuke・SAITO Hiroto

Abstract: Choristoma is a tumor-like mass of normal cells in an irregular location. Osseous choristoma occurring in soft tissue in the oral cavity is rare. Herein we report a case of a 51-year-old male patient who was diagnosed with osseous choristoma of the hard palate. A painless mass measuring approximately 21 × 21 × 10 mm and covered by smooth, normal mucosa was observed on the left side of the posterolateral hard palate. Subsequent examination indicated a pedunculated mass with bone-like hardness. CT findings showed a bone-like radiopaque image that was clearly separate from the hard palate. The mass was surgically removed under general anesthesia. Histological examination of the excised specimen revealed that the tumor contained mainly osseous tissue, and no connection to the bone tissue of the hard palate was observed. According to these findings the mass was diagnosed as an osseous choristoma of the hard palate.

Key words: osseous choristoma (骨性分離腫), hard palate (硬口蓋)

緒 言

分離腫とは正常な細胞が正常な組織との連続性を失って分離し、異常な部位に増殖した腫瘍性病変である¹⁾。口腔軟組織に発生する骨性分離腫 (osseous choristoma 以下, OC) はまれであり²⁻⁷⁾、そのなかで口蓋に生じるものはきわめてまれとされている⁸⁻¹⁰⁾。今回われわれは、51歳男性の左側硬口蓋部に生じたOCの1例を経験したので報告する。

症 例

患 者：51歳、男性。

初 診：2019年2月。

主 訴：上顎にある腫瘍の精査希望。

現病歴：10年以上前から腫瘍を自覚していたが、他院口腔外科で良性腫瘍と言われ放置していた。その後、腫瘍は経時的に増大が認められたが、自覚症状はなかった。2019年1月、齶蝕治療のために他院歯科を受診し、義歯作成予定となった。しかし義歯作成の妨げになるため当院での精査、加療を勧められ、2019年2月、紹介され受診した。

既往歴：交通外傷による肩・足の骨折。

家族歴：特記事項なし。

生活歴：ブリンクマン指数 (15本×31年=465)。

現 症：

全身所見：身長171cm、体重70kg、体格は中等度、栄養状態良好で、特記すべき異常所見は認められなかった。

口腔外所見：顔貌は左右対称であり、所属リンパ節にも異常所見は認めなかった。

口腔内所見：左側上顎小臼歯から大臼歯相当の硬口蓋部に21×21×10mm大の有茎性腫瘍を認めた。腫瘍は骨様硬であり、表面は平滑で健常粘膜で被覆されていた (写真1)。

CT所見：硬口蓋の正中やや左側に境界明瞭な骨様病変が認められた。内部に骨梁構造を伴う硬化性の限局性病変で、上顎骨からは離れており、直下の骨構造とは分離した状態であった (写真2A, B)。

初診時臨床診断：口蓋腫瘍。

処置および経過：2019年2月、局所麻酔下で生検を施行し、病理組織学的診断は骨腫であった。同年3月、全身麻酔下で左口蓋腫瘍摘出術を施行した。腫瘍基部の約2mm外側に高周波ラジオ波メス (サージトロン EMC®) を使用して、硬口蓋骨面に達する切開を加えた。腫瘍基部周囲の骨膜を剥離し、腫瘍と硬口蓋の骨組織との関係を調べるために隣接する硬口蓋の一部を骨ノミを用いて一層削除し、これらを腫瘍とともに摘出した。また大口蓋孔は腫瘍の後方にあり、大口蓋動脈は腫瘍の基部を走行していたので、

公益財団法人東京都保健医療公社荏原病院歯科口腔外科
(主任：長谷川士朗部長)

Department of Dentistry & Oral Surgery, Ebara Hospital,
Tokyo Metropolitan Health and Hospitals Corporation (Chief:
Dr. HASEGAWA Shiro)

受付日：2020年11月22日

採択日：2021年5月25日

写真2 初診時のCT画像

- A: CT 水平断像 ; 矢頭は硬口蓋部の腫瘤を示す。
 B: CT 連続顎骨縦断像; 硬口蓋の左側に境界明瞭な骨様病変がみられる。
 内部は骨梁構造を有する硬化性限局性病変で、直下の硬口蓋と分離している。

表1 口蓋に生じた骨性分離腫の報告例

症例	報告者	報告年	年齢	性別	部位	大きさ (mm)	病悩期間	X線・CT 所見	治療法	再発の 有無	観察 期間
1	Feenstra et al ⁸⁾	1977	14	男	硬口蓋	10×9	6か月	異常所見なし	局麻下で摘出	(一)	(一)
2	Wada et al ⁹⁾	2010	16	女	硬軟口蓋	9×6.5×6	(一)	(一)	局麻下で摘出	なし	4年 1か月
3	Sasaki et al ¹⁰⁾	2016	37	男	硬口蓋	7×5×5	7年	X線不透過像 の腫瘤	局麻下で摘出	なし	(一)
4	富江ら(自験例)	2021	51	男	硬口蓋	21×21×10	10年以上	CTで骨様病変, 口蓋と分離	全麻下で摘出	なし	1年

(一): 論文中に記載なし

これを結紮、切離した。露出した硬口蓋の骨表面は骨ヤスリで平滑にし、止血後、創部をテトラサイクリン塩酸塩軟膏を塗布したガーゼで覆い、セルロイド床を装着して、手術を終了した(写真3)。創部の治癒は良好で、現在術後1年であるが、再発などの異常所見は認められず、経過は順調である。

摘出標本の所見: 21×21×10mmの類球状で生検部位以外の腫瘍の表面は粘膜により被覆されていた。

摘出標本の病理組織学的所見: 腫瘍は有茎性で、重層扁平上皮で被覆され、上皮下には骨の形成を伴っていた。腫瘍は部分的にやや厚みのある層板構造を有する緻密骨から成り、多くはやや細く、すう疎な層板骨から成る骨梁から成っていた。骨梁間は脂肪細胞を含む疎な結合組織で、異型細胞は認められなかった。腫瘍の摘出断端部には、細動脈や脂肪組織を含む血管結合組織が存在し、硬口蓋の骨

組織との連続性はなかった(写真4A~C)。

摘出標本の病理組織学的診断: 硬口蓋骨性分離腫。

考 察

口腔領域のOCは、1913年にMonsarratら²⁾が舌に発生した骨腫として最初に報告しており、また本邦では1938年に牟田ら³⁾が舌根部骨腫として最初に報告している。

発生部位別にみると、舌に発生することが最も多い^{1, 4, 7, 11~18)}。舌以外ではまれではあるが、頬粘膜部^{1, 19, 20)}、下顎骨周囲^{11, 21~27)}、上顎の歯槽突起部²⁸⁾ならびに口蓋(表1)^{8~10)}などにも発生することが報告されている。なお、口蓋では硬口蓋3例、硬軟口蓋に及ぶもの1例であった(表1)^{8~10)}。年齢については過去の症例では14~37歳であったのに対し、自験例は最も高く51歳であった。大きさは7×5×5mm~10×9mmに対し、自験例は21×21×10mmと最も大き

写真1 初診時口腔内写真

左側上顎小白歯から大臼歯相当の硬口蓋部に21×21×10mm大の有茎性の腫瘍が認められる。腫瘍の表面は平滑で、健常粘膜で被覆されている。

写真3 術中口腔内写真

腫瘍摘出後、腫瘍基部を走行する大口蓋動脈を結紮、切離している。

かった。病悩期間は6か月～7年に対し、自験例は10年以上と最も長かった。画像所見では異常なしあるいはX線不透過性の腫瘍との報告に対し、自験例ではCT所見で病変が硬口蓋の骨組織と分離していることを初めて報告した。また、自験例が最も病悩期間が長かった要因としては、①最初に受診した医院で良性腫瘍との診断を受けていたにもかかわらず、10年以上の長期にわたって治療せずに放置していたこと。②無痛性で、発育が緩徐な病変でほとんど自覚症状がなかったこと。③摂食や構音などの機能障害がなかったこと、などが考えられた。

OCの発生原因は、鰓弓由来説^{2, 17)}、上顎体説¹²⁾、先天性奇形説¹³⁾、線維腫化骨説¹⁴⁾、リンパ組織の化骨説¹⁵⁾、舌甲状腺の化骨説¹⁶⁾、炎症由来説²⁹⁾など諸説あるが、統一した見解は得られていない。発生原因は部位によって

写真4 摘出標本の病理組織像

- A: 腫瘍の全体像 (H-E 染色, 対物×2)
周辺部は緻密骨で、中心部はやや疎な骨梁から成る。
(a) 生検潰瘍部
(b) 腫瘍の摘出断端部
- B: 腫瘍の中心部 (H-E 染色, 対物×10)
骨梁は層板構造を有する緻密骨から成り、骨梁間は脂肪細胞を含む疎な結合組織で、異型細胞は認められない。
- C: 腫瘍の摘出断端部 (H-E 染色, 対物×2)
(a) 腫瘍の摘出断端部
摘出断端部には血管結合組織が存在し、腫瘍と硬口蓋の骨組織との連続性は認められない。

異なるとされ、口蓋では、発生過程の異常による異所性の骨形成⁸⁾、外傷後の間葉組織の化生、あるいは線維腫の変性部に生じた骨化⁹⁾などが報告されている。自験例の発生原因については、①胎生期の左側上顎原基由来の迷芽の分離、迷入、②何らかの原因による硬口蓋粘膜内の間葉組織の化生、③何らかの原因による硬口蓋骨膜由来の骨組織の分離、増殖などの可能性が推測されたが、明らかではなかった。

口腔領域のOCは、文献的には年齢は5～73歳で、20歳代に最も多くみられる^{1, 5～7, 22, 30)}。性別では女性に多く、本邦での男女比は約1:2で、国外では約1:4であり⁵⁾、初診までの期間は4か月～20年、平均で5.4年と報告されている¹⁷⁾。

臨床症状では無症状のことが多く^{1, 5～7, 17)}、症状は発生部位によって異なり、舌では異物感、嚥下障害、嘔気、あるいは疼痛などが報告されている^{1, 5, 7, 16)}。臨床所見では、無痛性の腫瘍、広基性ないしは有茎性、硬度は骨様硬が多く、表面は正常粘膜に被われている^{5～7)}。大きさは約3～50mmで、通常は10mm程度のものが多い^{5～7, 17)}。

X線所見では、境界明瞭な、円形、類円形のX線不透過像である^{6, 12, 20, 21, 23, 24, 27)}。CT所見では境界明瞭な小結節状、類円形のbone density, high density、あるいはdensely ossified massなどと報告されている^{6, 20, 24, 26, 27)}。自験例ではCT検査の結果から、骨様病変の内部に骨梁がみられること、また病変は直下の骨構造とは分離していることなどの画像所見が得られた(表1)^{8～10)}。

OCの特徴的な病理組織学的所見としては、①良性の骨組織の腫瘍様の増殖であること^{1, 16, 24, 25)}。また、細胞異型あるいは細胞分裂像などの悪性を疑わせる所見は認められないこと^{10, 26)}、②腫瘍内の球状、結節状の骨組織は線維性結合組織によって囲まれていること、③骨組織は境界明瞭で、規則的な層板構造およびハバース管を有する成熟した緻密骨であることが多く、また海綿骨梁がみられることもあること、④骨組織内の骨細胞、あるいは骨芽細胞などの細胞活性は低いことが多いこと、⑤腫瘍表面は正常な重層扁平上皮細胞によって被われていること^{1, 4, 7, 8～10, 15～18, 21, 23, 24, 27, 28)}、などが報告されている。自験例では、以上の①～⑤の病理組織学的所見がすべて認められた。

診断に際しては、後述のような鑑別すべき疾患があることから摘出標本の病理組織的診断は最も重要である。今回は、臨床経過、臨床所見、画像所見、手術所見に加え、摘出標本の病理組織学的所見(腫瘍の摘出断端部には血管結合組織が存在し、硬口蓋の骨組織との連続性はない)とCT所見(腫瘍内の骨様病変が直下の硬口蓋と分離)などを総合的に判断し、OCであるとの最終診断が得られた。

口蓋に生じたOCの鑑別すべき疾患としては、口蓋隆起、

線維性異形成症、progressive ossifying fibro-dysplasia、多形腺腫などの良性唾液腺腫瘍、線維腫、hard fibroma、周辺性骨形成線維腫、神経線維腫、周辺性骨腫、軟骨腫、骨軟骨腫、周辺性あるいは傍骨性骨肉腫などが報告されている^{9, 10, 28)}。自験例では初診時臨床診断は口蓋腫瘍で、臨床所見から良性の唾液腺腫瘍(多形腺腫など)、周辺性骨腫、周辺性骨形成線維腫などの疾患が疑われた。生検による病理組織学的検査では、唾液腺組織および良性唾液腺腫瘍と思われる組織像がみられなかったことから良性唾液腺腫瘍は否定され、また線維性結合組織の腫瘍性の増生、セメント質様または未熟な骨様硬組織などがみられなかったことから、周辺性骨形成線維腫が否定された。周辺性骨腫は骨組織の外側に連続性に骨面から突出し、結節状あるいは塊状に膨隆することが特徴とされている。これに対して自験例では、写真2BのCT連続顎骨縦断像および写真4Cの腫瘍の摘出断端部の病理組織学的所見で示したように、腫瘍と隣接する硬口蓋の骨組織とは分離しており、両者の連続性は認められず、周辺性骨腫は除外された。さらに術後の摘出標本の病理組織学的検査で骨性分離腫と診断された。

OCの治療法としては、局所麻酔あるいは全身麻酔下での外科的摘出が行われている^{4, 5, 8～10, 18, 28)}。自験例では、病変の部位、大きさ、性状、手術術式などを考慮して、全身麻酔下での摘出手術を行った(表1)^{8～10)}。

予後は文献的には良好とされている。しかし、わずかではあるが頬粘膜部や下顎頬前庭部に発生した症例で、3例の再発が報告されている^{19, 20, 26)}。なお、再発の原因については、術後のsurgical trauma^{19, 26)}や術後に形成された線維性組織部の骨化、あるいは非石灰化部の二次的な骨化^{20, 26)}、また再発創部に認められたsubmillimeter satellite noduleの存在²⁶⁾、OCが多発性に発生していること¹⁰⁾などが挙げられている。しかし、再発の原因については十分に明らかにされていないのが現状と考えられる。

自験例の術後1年の現在の経過は、再発は認められず順調である。OCにはわずかであるが再発の報告もあること、また再発の場合には発育が緩徐であることなどから今後も注意深い経過観察が必要であると考えている。

本論文の要旨は第64回(公社)日本口腔外科学会総会・學術大会(2019年10月、札幌市)にて発表した。

本論文に関して、開示すべき利益相反状態はない。

引用文献

- 1) Krolls SO, Jacoway JR, et al: Osseous choristomas (osteomas) of intraoral soft tissues. Oral Surg 32: 588-595, 1971.
- 2) Monsarrat M: Ostéome de la langue. Bull Soc Anat 88: 282-283, 1913.

- 3) 牟田哲三郎, 緒方 健: 舌根部骨腫症例追加. 耳喉 11: 1016-1018, 1938.
- 4) 五百蔵一男, 松本めぐみ, 他: 舌盲孔部付近に発生した骨性分離腫の1例. 日口外誌 32: 1057-1060, 1986.
- 5) 新谷葉子, 吉川勝美, 他: 舌に発生した骨性分離腫の1例. 日口外誌 36: 1343-1347, 1990.
- 6) 内山順誠, 青柳直子, 他: 舌根部に発生した骨性分離腫の1例. 日口診誌 19: 332-335, 2006.
- 7) Gorini E, Mullace M, et al : Osseous choristoma of the Tongue : A review of Etiopathogenesis. Hidawi Publishing Corporation Case Reports un Otolaryngology. : 2014. Article ID 373104 | <https://doi.org/10.1155/2014/373104>. Accessed November 10, 2020.
- 8) Feenstra K, Hadders H, et al : Een benign choristoom (osteoom) in de weke delen van het palatum. Ned Tijdschr Tandheelkd 84: 200-202, 1977.
- 9) Wada T, Makino S, et al : Osseous choristoma of the palate - a case report and review of the literature. Asian J Oral Maxillofac Surg 22: 164-167, 2010.
- 10) Sasaki R, Yamamoto T, et al : Palatal osseous choristoma. J Craniofac Surg 27: e2-3, 2016.
- 11) 石川梧朗: 口腔病理学 II, 改訂版. 永末書店, 京都, 1982, 553-555 頁.
- 12) Hirsh O : Knochentumor am Zungengrund. Monatsschr Ohrenheilkd Latyngorhinol 59: 496-497, 1925.
- 13) Zuckermann M : Ein Fall von Osteom der Zunge. Z Hals-, Nas-, u Ohrenheilkd 25: 118-120, 1929.
- 14) Greig DM : Osteoma of the tongue. Edinburgh Med J 39: 93-104, 1932.
- 15) Magnien and Perrot M : Un cas d'osteome de la langue. Ann Anat Pathol (Paris) 10: 331-334, 1933.
- 16) McClendon EH : Lingual osseous choristoma report of two cases. Oral Surg 39:39-44, 1975.
- 17) 梅村 仁, 尾崎正義, 他: 舌に生じた軟骨性および骨性分離腫. 耳鼻臨床 83: 1403-1407, 1990.
- 18) 市川雄二, 塚越完子, 他: 舌根部に発生した骨性分離腫の1例 (抄). 日口外誌 44: 1030, 1998.
- 19) Long DE and Koutnik AW : Recurrent intraoral osseous choristoma report of a case. Oral Surg Oral Med Oral Pathol 72: 337-339, 1991.
- 20) Dalkiz M, Yurdakul RH, et al : Recurrent osseous choristoma of the masseter muscle: case report. J Oral Maxillofac Surg 59: 836-839, 2001.
- 21) 矢追秀彦, 伊藤 実: 顎下部に発現した稀有な孤立性骨腫の1症例について. 口科誌 10: 347-350 1961.
- 22) Sookasam M and Philipsen HP : The intra-oral soft tissue osteoma : report of two cases. J Dent Assoc : Thai 36: 229-234, 1986.
- 23) Johann ACBR, Garcia BG, et al : Case report submandibular osseous choristoma. J Cranio-Maxillofac Surg 34: 57-59, 2006.
- 24) Shimada K, Hanazawa Y, et al : Submandibular osseous choristoma: a case report. J Oral Maxillofac Surg Med Pathol 26: 249-251, 2014.
- 25) Goswamy M, Tabasum S, et al : Osseous choristoma of the periodontium. J Indian Soc Periodontol 16: 120-122, 2012.
- 26) Gregoire C, Davis C, et al : Recurrent osseous choristoma involving the mandibular buccal vestibule: a case report. Int J Oral Dent Health 1: 1-3, 2015.
- 27) Kamburoğlu K, Özen T, et al : Osseous choristoma of the submandibular region: case report. Dentomaxillofac Radiol 38: 489-492, 2009.
- 28) Thoma KH : Oral Pathology, 5th ed. Mosby Co. st Louis, 1960, p1247-1254.
- 29) Roy JJ, Klein HZ, et al : Osteochondroma of the tongue. Arch Pathol 89: 565-568, 1970.
- 30) Cabbabe EB, Sotelo-Avila C, et al : Osseous choristoma of the tongue. Ann Plast Surg 16: 150-152, 1986.