舌盲孔付近に発生した骨性分離腫の1例

五百蔵一男・松本めぐみ・小林ちづ子・前川一彦
福崎博生・福武公雄・立川哲彦*

A case of osseous choristoma near the foramen caecum of the tongue

Kazuo IOROI・Megumi MATSUMOTO・Chizuko KOBAYASHI
Kazuhiko MAEKAWA・Hiroki FUKUZAKI・Kimio FUKUTAKE
Tetsuhiko TACHIKAWA*

Abstract: Osseous choristomas (Osteomas) of the tongue are rare. Since the initial report of the lesion by Monserrat in 1913, about 40 additional cases have been reported in world medical literature. We are now reporting an additional case of the lesion. A case of osseous choristoma near the foramen caecum of the tongue in a 14-year-old female was presented and this lesion was easily removed under local anesthesia. Histologically this lesion was composed of dense lamellar bone with Haversian canals but no bonemarrow.

Key words: osseous choristoma of the tongue, osteoma of the tongue

緒 言

舌には、種々の病変が出現するが、舌に発生する骨様病変は、まれとされている。1913年 Monserrat¹⁾により、舌の骨腫 (Osteoma de la langue) が初めて報告されたが、本邦において、われわれの渉猟したかぎりでは、牟田ら (1938年)²⁾ の報告以来、計6例が報告されており、自験例は7例目である。Krollsら (1971年)³⁾はこの病変を、骨性分離腫 (Osseous choristoma) と呼ぶことを提唱し、現在骨腫および骨性分離腫の2つの呼称が用いられている。今回わたくしたちは、15歳女性の舌盲孔付近に発生した骨性分離腫を経験したので、報告する。

症 例

患 者：T.N. 15歳 女性。

国立東京第2病院口腔外科
(主任：福武公雄医長)

* 昭和大学歯学部口腔病理学教室
(主任：吉木周作教授)

The Second Tokyo National Hospital (Chief:
Kimio Fukutake)

* Department of Oral Pathology, School of Dentistry, Showa University (Chief: Prof. Shusaku Yoshiki)

受付日：昭和61年1月24日

初 診：昭和57年10月

主 訴：舌根部違和感。

家族歴：特記事項なし。

既往歴：特記事項なし。

現病歴：12歳時、舌根部に腫瘤を自覚し、某内科を受診した。増大傾向があるなら、切除するように勧められたが、増大傾向なく放置した。以後あまり変化は認められなかったが、やはり気になり、昭和57年10月5日、当科を受診した。

現 症

全身所見：体格は中等度、栄養状態良好、他に特記事項は認められなかった。

局所所見：舌盲孔より約5mm左方で、有郭乳頭付近

写真1 術前口腔内所見

表 1 本邦における舌の骨性分離腫の報告例

報告者	報告年	年齢	性	部 位	形 態	大きさ (mm)
1. 牟田ら ²⁾	1938	23	男	舌盲孔	有茎性	6×5×4
2. 杉田ら ⁴⁾	1979	29	女	舌盲孔	有茎性	8×5×5
3. 佐藤ら ⁵⁾	1981	14	女	舌分界溝前方	有茎性	4
4. 大野ら ⁶⁾	1981	44	男	舌分界溝前方	有茎性	4×8×5
5. 津田ら ⁷⁾	1983	14	女	有郭乳頭部	有茎性	5×5×6
6. 東ら ⁸⁾	1984	27	男	舌根付近	有茎性	9×7×6
7. 本症例	1986	15	女	舌盲孔	有茎性	4×4×3

写真 2 病理組織所見 (H-E 染色, ×26)

写真 3 病理組織所見 (H-E 染色, ×165)

に、直径約 4 mm の腫瘍が存在した。腫瘍は、有茎性、弾性硬、表面は平滑で白桃色を呈していた。周囲粘膜は正常で、自発痛、圧痛等は認められなかった (写真 1)。

臨床検査所見：軽度貧血が認められる他は、異常は認められなかった。

臨床診断：有郭乳頭の肥大。

処 置：昭和 57 年 10 月、局所麻酔下、舌尖部を 5 号絹糸にて牽引し、腫瘍の茎部を 3 号絹糸にて結紮保持した。茎部から数 mm 距離をとり、紡錘形に切開し、茎部を含めて腫瘍を切除した。腫瘍は粘膜に被われ、筋層には及んでいなかった。

摘出物所見：4×4×3 mm 大の腫瘍で、有茎性、粘膜下に硬固物を触知した。

病理組織所見：正常な粘膜下に、結節状の骨組織を認めた。骨組織はほぼ規則的な層板状構造を有する緻密骨で、層板状構造はほぼ同心円状であった。ハバース管は認められるが骨の改造機転はほとんど認められなかった (写真 2～4)。

病理組織診断：舌の骨性分離腫。

考 察

舌背舌盲孔付近に発生する骨性分離腫は、1913 年 Monserrat¹⁾により Osteoma de la langue (舌骨腫)と

写真 4 病理組織所見 (H-E 染色, ×260)

して発表されて以来、わたくしたちが渉猟したところでは、内外合わせて約 40 症例^{1)~10)}の報告がなされており、本邦では 1938 年牟田ら²⁾により初めて報告され、次いで杉田ら⁴⁾ (1979)、佐藤ら⁵⁾ (1981)、大野ら⁶⁾ (1981)、津田ら⁷⁾ (1983)、東ら⁸⁾ (1984)、につづき自験例で 7 例目である (表 1)。内外の報告についてみると、年齢は 8¹⁾ 歳から 73³⁾ 歳で、20 歳台、30 歳台に多くみられ、性別は男性対女性 = 1 : 2 の割で女性に多くみられる³⁾。発生部位は、舌盲孔付近に集中しており、大きさは 5~10 mm 大である。本邦の症例^{2,4-8)}は表 1 に示すごとくで、男性対女性 = 3 : 4 とやや女性が多い程度で男女差はあ

まり認められない。年齢は14⁵⁾歳から44⁶⁾歳で、大きさは4~9 mmである。発生部位は全例舌盲孔付近に発生している。わたくしたちの症例は15歳女性で大きさは4×4×3 mm大で、舌盲孔より5 mm左方に存在した。口腔領域の舌盲孔付近以外における骨腫はEsguepら¹⁰⁾(1982)の右側舌縁、矢追ら¹²⁾(1961)の顎下部、Krollsら³⁾(1971)の頬粘膜、Mesaら¹³⁾(1982)頬粘膜等が報告されている。これらの症例における骨組織は緻密骨であるが、内部には骨髓を有している。しかし舌盲孔周囲に発生する骨性分離腫は、ほぼ均一な緻密骨が多く、本邦の症例^{2,4~8)}は全例緻密骨で骨髓は認められない。これに対し軟骨腫¹⁴⁾は舌縁部に多く、骨軟骨腫¹⁵⁾は舌盲孔付近や舌縁部でもその発生が報告されている。Zegarelli¹⁴⁾(1977)によれば、“軟骨腫は化生により発生し、舌盲孔付近に発生する骨腫は、その発生部位が一定していることもあり、鰓弓残遺に由来する”。としている。舌盲孔付近以外の軟組織内に発生する骨組織は、化骨性筋炎、口蓋扁桃の骨化、エプーリスや多形性腺腫に伴う骨組織、前述した骨腫等である。これらの原因は種々であり、舌盲孔付近に発生する骨性分離腫とは切り離して考える方が良いと思われる。舌盲孔付近に発生する骨性分離腫は、WHO(1969 Geneva)の分類¹⁶⁾においても、組織発生不明の項に分類されるが、その発生については、鰓弓残遺説¹⁾、舌甲状腺の化骨説¹⁷⁾、線維腫の化骨説¹⁸⁾、外傷や慢性炎症に基づく化生説¹⁵⁾、先天性奇形説¹⁹⁾、リンパ組織の化骨説²⁰⁾等の諸説が存在している。ここで舌盲孔部について考察してみると、この部位は発生学的に興味深いところである。発生学的²¹⁾には、発生第24日頃、甲状腺憩室は下方へ発達し、甲状舌管を形成するようになり、これが舌盲孔となる。第4週末頃、この頭方にある咽頭床部の正中線上に、無対舌結節が隆起し、さらに頭側に2つの外側舌結節が発生する。発生が進行すると、この2つの外側舌隆起が発育癒合し、無対舌結節は覆われ消失し、舌前方2/3を形成する。舌後方1/3は、舌盲孔より後方に発生する2つの隆起によって始まる。この隆起は、底鰓弓(コブラ)および第3、第4鰓弓からなる鰓下隆起である。発生が進むにつれ、鰓下隆起の発育によりコブラは覆われ消失する。無対舌結節および外側舌隆起は第1鰓弓、底鰓弓(コブラ)は第2鰓弓、鰓下隆起は、第3、第4鰓弓である。おのおのの鰓弓からは種々の骨が発生するが、第1鰓弓からはツチ骨、キヌタ骨および下顎骨、第2鰓弓からはアブミ骨、茎状突起、舌骨小角、舌骨体部上部、第3鰓弓からは、舌骨大角、舌骨体部下がが発生する。結局舌の発生には第1鰓弓から第4鰓弓までが関与し、特に舌盲孔部は、第1、第2、第3鰓弓が交差する場所である。この部位の病変は、無対舌結節の残遺による正中菱形舌炎、甲状腺の下降不全による舌甲状腺や顎甲状腺、甲状舌管嚢胞が発生する。Roy¹⁵⁾により指摘されているように、甲状

舌管嚢胞は時として、舌骨を含んでいる。また、鰓弓残遺による軟骨腫または骨腫が、側頸部の胸鎖乳突筋の下部1/3の部分の前方に出現する報告^{21,22)}がある。以上のことを考え合わせると、骨原基が、舌盲孔付近に迷入し、骨性分離腫を形成する可能性は十分考えられると思われる。本病変の呼称は、Montserrat¹⁾(1913)の報告以来、舌の骨腫と呼ばれていたが、Krollsら(1971)が8症例の報告を行い、その発生や増殖から考えて、舌の骨腫と呼ぶより骨性分離腫と呼ぶことを提唱した。この主張は本病変の発生や増殖から考えると妥当であると考えられるが、骨腫自体が非腫瘍性の骨増殖と鑑別が困難なことから、慣用的に骨腫という呼称が用いられているので、どちらを用いても良いと考えられたが、本邦における最近の報告に従い、骨性分離腫という呼称を用いた。軟骨腫には悪性の報告^{23,24)}が認められるが、舌盲孔付近に発生する骨性分離腫では、単純な切除でも再発の報告は認められず、わたくしたちの症例も術後3年以上経過したが再発は認められない。

結 語

わたくしたちは、15歳女性の舌盲孔付近に発生した骨性分離腫を経験したので、文献的考察を加えて報告した。

本論文の要旨は、第128回日本口腔外科学会関東地方会にて発表した。

引 用 文 献

- 1) Monserrat, M.: Osteome de la langue. Bull Soc Anat 88: 282-283 1913.
- 2) 牟田哲三郎, 緒方 健: 舌根部骨腫症例追加. 耳喉 11: 1016-1018 1938.
- 3) Krolls, S.O., Jacoway J.R., et al.: Osseous choristomas (osteomas) of intra-oral soft tissue. Oral surg 32: 588-595 1971.
- 4) 杉田 仁, 山本悦秀, 他: 舌根部に発生した Lingual osseous choristoma と思われる1例. 日口外誌 25: 1417-1421 1979.
- 5) 佐藤泰則, 小沢重雄, 他: 舌背に発生した骨性分離腫と思われる1例. 日口外誌 27: 93-95 1981.
- 6) 大野朝也, 山家 仁, 他: 舌根部に発生した骨性分離腫 (Osseous choristoma) と思われる1例. 日口外誌 27: 1106-1109 1981.
- 7) 津田善造, 川崎傳男, 他: 舌背にみられた Osseous choristoma の1例 (抄). 日口外誌 29: 2544 1983.
- 8) 東 富雄, 小池正夫, 他: 舌背部に発生した骨性分離腫の1例. 日口外誌 30: 156-159 1984.

- 9) Engel, P. and Cherrick, H.M.: Extraosseous osteomas of the tongue. *J Oral Med* 31: 99-103 1976.
 - 10) Esguep, A., Espinosa, E., et al.: Lingual osteoma. *J Oral Med* 37: 27-29 1982.
 - 11) Busuttil, A.: An osteoma of the tongue. *J Laryngol Otol* 91: 259-261 1977.
 - 12) 矢追秀彦, 伊藤 実: 顎下部に発生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.
 - 13) Mesa, M.L.: Osteoma of the buccal mucosa. *J Oral Maxillofac Surg* 40: 684-686 1982.
 - 14) Zegarelli, D.J.: Chondroma of the tongue. *J Oral Surg* 43: 738-745 1977.
 - 15) Roy, J.J., Klein H.Z.: Osteochondroma of the tongue. *Arch Pathol* 89: 565-568 1970.
 - 16) Enzinger, F.M., Lattes, R., et al.: International histological classification of tumors, Histological typing of soft tissue tumors. No. 3, WHO, Geneva, 1969, p 39-42.
 - 17) Mc Clendon, E.H.: Lingual osseous choristoma. *J Oral Surg* 30: 39-44 1975.
 - 18) Grieg, D.M.: Osteoma of the tongue. *Critical Review Edinburgh Med J* 39: 93-104 1932.
 - 19) Zuckerman, M.: Ein Fall von Osteom der Zunge, *Z. Hals-, Nas.-u. Ohrenheilkd.* 25: 118-120 1929.
 - 20) Magnien, Perrot, M.: Un cas d'ostéome de la langue. *Ann Anat Pathol* 10: 331-334 1933.
 - 21) Moore, K.L., 星野一正訳: Moore 人体発生学, 医歯薬出版, 東京, 1974, 155-187頁.
 - 22) Swenson, O.: *Pediatric Surgery*, New York, Appleton-Century-Crofts, Inc., 1958, p 196-201
 - 23) Vassar, P.S.: Chondrosarcoma of the tongue. *Arch Path* 65: 261-262 1958.
 - 24) Forman, G.: Chondrosarcoma of the tongue. *Brit J Oral Surg* 4: 218-221 1967.
-