舌に発生した過誤腫の1症例

峠 裕之・虎谷茂昭・吉賀浩二・高田和彰
伊集院直邦*

A case of hamartoma of the tongue

Hiroyuki TOHGE・Shigeaki TORATANI・Koji YOSHIGA
Kazuaki TAKADA・Naokuni IJUHIN*

Abstract: The hamartoma is a relatively rare tumor in the mouth. It has been reported in various organs, including the liver, spleen, kidney and lung. We recently experienced a case of hamartoma arising from the tongue.

A fifteen year old boy complained of the tumor of the tongue which had been present since two months after birth. The tumor was removed under general anesthesia, which was histopathologically leiomyomatous hamartoma of the tongue.

Neither recurrence nor metastasis was seen after the operation.

Key words: hamartoma, tongue, leiomyomatous hamartoma

緒 言

組織構成成分の先天的混合異常により腫瘍様小結節として現われる過誤腫 (Hamartoma) は1904年 Albrecht により命名された。過誤腫は肝、脾、腎、肺などの実質臓器にはしばしばみられるが、口腔領域における本症の発現はまれとされている。

最近われわれは、15歳の男性の舌に発生し、病理組織学的に検索した結果、平滑筋腫性過誤腫 (Leiomyomatous hamartoma) と診断された1症例を経験したので文献的考察を加え報告する。

症 例

患 者： 15歳 男性。

広島大学歯学部口腔外科学第1講座
(主任：高田和彰教授)

広島大学歯学部口腔病理学講座
(主任：二階宏昌教授)

Department of Oral and Maxillofacial Surgery
I, Hiroshima University School of Dentistry
(Chief: Prof. Kazuaki Takada)

* Department of Oral Pathology, Hiroshima University School of Dentistry (Chief: Hiromasa Nikai)

受付日：昭和62年5月26日

主 訴：舌背舌根部の腫瘍形成。

初 診：昭和60年4月■日。

既往歴・家族歴：特記事項は認められない。

現病歴：生後2か月頃より、舌背部有郭乳頭前方に小指頭大の腫瘍を認め、某医院を受診した。同医院で切除を勧められるも放置。4歳時当科初診し、腫瘍切除を勧められるも再び放置していた。その後わずかに増大傾向認めるため、精査および処置を希望して当科を再診した。

現 症

全身所見：栄養、体格ともに良好で全身的にも特に異常は認められなかった。

口腔外所見：顔貌は左右対称で、所属リンパ節の腫脹もなく、特に異常を思わせる所見は認められなかった (写真1)。

口腔内所見：有郭乳頭前方舌背中央部に約3×2cm大、円柱状の腫瘍形成を認めた。表面平滑で正常口腔粘膜で被覆され、弾性軟、周囲の硬結などは認めなかった (写真2)。

臨床検査所見：血液一般ならびに生化学的検査、尿検査、心電図所見などで、測定値や所見に異常は認められなかった。

臨床診断：舌線維腫。

処置および経過：昭和60年8月■日、GOF全身麻酔下にて、腫瘍基部に筋層におよぶ紡錘状の切開を行い、腫瘍の摘出を行った。切除部位において腫瘍の筋層への

写真 1 初診時顔貌

写真 2 初診時口腔内

写真 3 摘出時口腔内

浸潤などの所見はみられなかった(写真3)。

術後の経過は良好で現在まで再発その他の異常は認め

写真 4 摘出物

写真 5 病理組織像 (H-E 染色, ×40)

写真 6 病理組織像 (H-E 染色, ×40)

られない。

摘出物所見：腫瘍は、長楕円球形で弾性軟、表面は滑沢で、正常粘膜で被覆され、色調は正常口腔粘膜色を呈していた。断面は、充実性で、淡紅色を呈しており、被膜の存在は認められなかった(写真4)。

病理組織学的所見：腫瘍は、主に平滑筋の束状の増生からなり、表面は舌粘膜上皮で被われている。上皮下には小さな平滑筋線維束が認められるが(写真5)、深部

写真 7 病理組織像 (H-E 染色, ×100)

写真 8 病理組織像 (H-E 染色, ×100)
(▲印は平滑筋線維束)

表 1 舌に発生した Hamartoma の報告

No.	報告者	報告年	性	年 齢	部 位	個数	大きさ (cm)	備 考
1	Stamm	1945	女	10日	左舌背舌根部	1	small pea	嚥下障害
2	Perri	1956	女	34歳	舌背舌根部	1	2.5×1.0	
3	Bolognesi	1962	女	2歳	舌下部	1		
4	Hinshow	1963	女	14歳	舌根部中央	1		嚥下障害, 呼吸困
5	飯 田	1965	女	40日	舌背舌根部	1	1.0×0.5	
6	野 村	1967	女	2歳7か月	舌根から舌縁	1		
7	Duncan	1968	女	1時間	舌背舌根部	1		呼吸困難 不完全口蓋裂
8	Ishii	1968	女	4か月	左右舌背部舌尖部	4		
9	山 下	1973	女	5歳	舌背中央	1	大豆大	
					舌背舌根部	1	小指頭大	
10	森 永	1974	女	19歳	左舌背舌根部	1	母指頭大	
11	翁	1975	女	19歳	舌背舌根部	1		
12	代 田	1976	男	7歳1か月	舌背舌縁部	2		
13	戸 塚	1977	女	4か月	舌尖部	1	0.4×0.4×0.5	
					左舌縁部	1	0.7×0.8×0.5	
					右舌縁部	2	0.5×0.5×0.4	
							0.5×0.4×0.4	
14	原	1981	男	22歳	舌縁部	1	3.0×3.0×4.0	
15	Takato	1985	女	7歳	舌背舌根部	1	2.0×2.0×1.0	
16	Takato	1985	女	2歳	舌背舌根部	1	2.0×1.0×1.0	
17	本症例	1985	男	15歳	舌背舌根部	1	1.0×2.0×3.0	

は太い平滑筋線維束によって占められている。これらの平滑筋線維束間には、小唾液腺組織が認められたり(写真6)、脂肪組織、神経線維束などもみられる(写真7)。本腫瘤を構成する平滑筋線維束と固有の舌横紋筋との境界は不明瞭で、平滑筋と横紋筋が不規則に相接してみられ、明瞭な線維性被膜による被包は認められない(写真8)。

以上の所見より病理組織学的には平滑筋腫性過誤腫(Leiomyomatous hamartoma)と診断された。

考 察

過誤腫(Hamartoma)は、組織奇形の一つで組織構成成分の混合異常が起こり小結節状になったものとされている。たとえば、子宮筋層における筋芽腫、腎臓髓質の線維性小結節(髓質線維腫)などはこの例であり、また、血管腫の大部分あるいは色素性母斑、神経線維腫症(von Recklinghausen's disease)なども過誤腫の一つで

表 2 症例の検討 (総症例数 17 例)

男 女 差	男 性	； 3 例
	女 性	； 14 例
切除年齢	最年少	； 生後 1 時間
	最年長	； 34 歳
腫瘤個数	4 個	； 2 例
	2 個	； 2 例
	1 個	； 13 例
発生部位	舌背舌根部	； 10 個
	舌縁部	； 7 個
	舌背中央部	； 5 個
	舌尖部	； 2 個
	舌下部	； 1 個
大 き さ	最 大	； 3×3×4 cm (舌縁部)

ある。

これに反して、ある組織が正常組織との連結性を失って分離し、他の組織中に入りこんで腫瘍様結節を形成したものを分離腫 (Choristoma)²⁻⁵⁾ という。Albrecht¹⁾ は、両者を区別して呼んでいるが、現在ではこの両者を一括して広義に過誤腫と呼ぶものが多い³⁾。過誤腫は、腎、肝などの実質臓器には発現頻度が比較的高い^{6,7)} が口腔領域ではまれとされている。口腔領域では舌^{8-21,24)}、歯肉^{25,26)}、下顎²⁷⁾ に数例の報告を認めている。

著者らは、1945～1985年の過去40年間に舌に発生した過誤腫の報告例を自験例も含めて17例^{8-21,24)} 集計することができた (表 1)。その結果、男女差は 17 例中、男性 3 例 (17.6%)、女性 14 例 (82.4%) で圧倒的に女性の方に多く認められた。切除時の年齢は、生後 1 時間の例¹⁴⁾ から 34 歳の例⁹⁾ までさまざまであったが、生後まもなく呼吸困難や嚥下障害を併発するケースが多く、1 歳未満の乳児期の切除例が 5 例^{8,12,14,15,19)} (29.4%) 認められた。腫瘤の個数は、複数認められる症例が 4 例^{15,18,19,24)} (23.4%) で、あとはすべて 1 個の症例 (76.5%) であった。発生部位に関しては、舌背舌根部に認められたものが 10 例 (58.8%) で、そのうちの 1 例 (10%) は舌背中央部にも併発²¹⁾ していた。大きさは記載されていないものなどがあり、比較は困難であるが、報告例の中では舌縁部に発生した 3×3×4 cm の例²⁰⁾ が最大であった (表 2)。

過誤腫の切除時期であるが、本疾患が出生時あるいは乳幼児期の比較的早期に発見される腫瘍様結節で、急激な増大傾向を示すこともなく、発育はきわめて緩慢で、そのまま停止することが多いとされていることなどから、呼吸困難や嚥下障害などの障害を併発していない限り切除時期を急ぐ必要はないものと思われる。自験例でも、生後 2 か月頃に母親が腫瘤の存在に気づき、以後約 15 年間放置していた後に切除をうけている。その間の大きさの増大は身体の成長に伴うわずかなものであ

た。また、切除範囲については、通常の良性腫瘍摘出術に従い行われてよいものと考ええる。自験例においても腫瘤は一部筋層を含むように切除されているが、その後の経過においても再発などは認められていない。

次に過誤腫との鑑別診断を要する疾患として Takato²¹⁾ は文献中で、良性間葉腫 (benign mesenchymoma) との比較を述べている。良性間葉腫^{22,23)} は、線維性結合組織の中に 2 種またはそれ以上の間葉性要素を含む腫瘍として、1962 年 Le Ber and Stout により定義されたものである。Takato は文献中で、angiomyolipoma, lipomyohemangioma, mesenchymal hamartoma, angioliipoma などは良性間葉腫の同義語と考えたと述べており、組織学的には、唾液腺組織の存在が、過誤腫と診断する決め手となるとしている。しかし、臨床的には、得られる情報は不十分で、両者の相違に関しては結論づけられないとしている。

過誤腫は、構成する組織成分の中で比較的多くを占める組織に従って、病理組織学的に診断がなされている^{24,25)}。自験例では、病理組織学的に腫瘤内は、主に平滑筋組織の束状の増生からなっていることから平滑筋腫性過誤腫と診断された。

予後であるが、過誤腫の悪性化については、過誤腫は組織の奇形ではあっても分化した組織であって本来の場所にある正常の組織と同様の生物学的性状を示し悪性化することは少ない³⁾ とされている。悪性化するのは別の因子が必要と考えられているようである³⁾。自験例は、現在まで術後の経過は良好で特に異常は認められていないが、今後も定期的な観察を行う予定である。

結 語

今回われわれは、15 歳男性の舌に発生した平滑筋腫性過誤腫の 1 例を経験したので文献的考察を加え報告した。

なお、本論文の要旨は、第 40 回日本口腔科学会総会 (昭和 61 年 5 月 16 日福岡市) において発表した。

引 用 文 献

- 1) Albrecht, H.: Uber Hamartoma. Verh Deutsche Ges Path 7: 153-157 1904.
- 2) 緒方知三郎, 三田村篤志郎編: 病理学総論. 中巻. 第 1 版, 南山堂, 東京, 1931, 171-177 頁.
- 3) 菅野春男, 小林 博編: 腫瘍病理学. 第 6 刷, 朝倉書店, 東京, 1970, 30-31 頁.
- 4) 武田勝男: 新病理学総論. 第 7 版, 南山堂, 東京, 1964, 281-283 頁.
- 5) Anderson, W.A.D. and Kissane, J.M.: Pathology ed 7, Mosby Co, St Louis, 1977,

- p 641-642.
- 6) Bogden, R., Tailor, D.E.M., et al.: Leiomyomatous hamartoma of kidney. A clinical and pathologic analysis of 2 cases from the Kidney tumor registry. *Cancer* 31: 462-467 1973.
 - 7) 園部 宏, 円山英昭, 他: 充実性肝過誤腫 (bile ductal fibroadenomatous type) の1例. *肝臓* 25: 1318-1325 1984.
 - 8) Stamm, C. and Tauber, R.: Hamartoma of tongue. *Laryngoscope* 55: 140-146 1945.
 - 9) Perri, F.A.: Myoepithelial hamartoma of tongue. *Arch Otolaryngol* 64: 289-290 1956.
 - 10) Bolognesi, C. and Baravelli, P.: Su di hamartoma fibro-muscolare della lingua. *Minerava Otolinolaring* 12: 166-170 1962.
 - 11) Hinshaw, C.T.: Unusual lesion of the tongue, Hamartoma. *J Kans Med Soc* 64: 154-157 1963.
 - 12) 飯田信長, 田中 順, 他: 舌 Hamartoma の1例. *日大医誌* 24: 1086-1089 1965.
 - 13) 野村 和, 小池祐一: 珍らしい舌平滑筋腫の一症例. *耳鼻* 13: 105-108 1967.
 - 14) Dancan, H.: Tumor of the tongue. *J Tenn Med Assoc* 61: 48-49 1968.
 - 15) Ishii, T., Takemori, S., et al.: Hamartoma of tongue. Report of a case. *Arch Otolaryngol* 88: 171-173 1968.
 - 16) 森永 太, 朱雀直道, 他: 舌に発生した leiomyomatous hamartoma の1例 (抄). *日口外誌* 20: 771-772 1974.
 - 17) 翁 玉香, 森永 太, 他: 舌に発生した間葉性過誤腫の走査並びに透過電子顕微鏡観察. *日口外誌* 23: 757-760 1975.
 - 18) 代田正道, 高橋広臣, 他: 舌に発生した平滑筋腫の1例. *耳鼻* 22: 410-413 1976.
 - 19) 戸塚盛雄, 結城勝彦, 他: 舌に生じた cartilaginous hamartoma の1例. *日口外誌* 23: 418-421 1977.
 - 20) 原 徹, 林 洋紀, 他: 舌に胃粘膜様組織がみられた過誤腫の1例. *日口外誌* 27: 258-262 1981.
 - 21) Takato, T., Fukada, O., et al.: Hamartoma of the tongue: Two case reports. *Plast Reconstr Surg* 75: 258-262 1985.
 - 22) Freedman, P.D., Chau, M.D., et al.: Benign mesenchymoma of the oral soft tissue. *J Oral surg* 53: 603-610 1982.
 - 23) Le Ber, M.S. and Stout, A.P.: Benign mesenchymoma in children. *Cancer* 15: 598-605 1962.
 - 24) 山下佐英, 増田敏雄, 他: 舌に発生した Hamartoma の1例. *日口外誌* 19: 69-71 1973.
 - 25) 虫本浩三, 覚道健治, 他: 歯肉にみられた leiomyomatous hamartoma の1例. *日口外誌* 28: 493-496 1982.
 - 26) 梶山 稔, 飯野悦朗, 他: 幼児の上顎正中中部歯肉に発現した leiomyomatous hamartoma の1例. *日口外誌* 29: 1520-1524 1983.
 - 27) Stuteville, O.H. and Horbal, J.B.: Hamartoma of mandible: report of case. *J Oral Surg* 28: 295-298 1970.