舌背部にみられた骨性分離腫の1例

町野 守・山口裕之**・大澤孝一
音野敏和・増田 屯・内海順夫*

A case of lingual osseous choristoma

Mamoru MACHINO・Hiroyuki YAMAGUCHI**・Koichi OSAWA
Toshikazu OTONO・Tamuro MASUDA・Nobuo UTSUMI*

Abstract: Lingual osseous choristoma is a very rare lesion and was first described as osteoma of the tongue by Monsarrat in 1913. In the Japanese literatures only 13 cases were reported previously. An additional case of a 14-year-old girl is reported and discussed in this article. In most of the cases, lingual osseous choristoma arised in the posterior part of the tongue.

Key words: osseous choristoma (骨性分離腫), osteoma (骨腫), tongue (舌)

緒 言 症 例

口腔領域の軟組織中に発生する硬組織を伴う腫瘍はまれであり、1913年 Monsarrat¹⁾ が舌に生じた骨腫として報告したのが最初であるといわれる。1971年、Krolls²⁾がこの病変を骨性分離腫 (Osseous choristoma) と呼ぶことを提唱し、現在では、骨腫もしくは骨性分離腫のいずれかの呼称が用いられている。

本邦では1938年、牟田³⁾ が舌根部骨腫として発表したが、今日まで文献にみられる症例は多くはないようである。

今回われわれは、14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、その概要を報告し少ない文献に1例を加えたい。

患 者：14歳 女性。

初 診：昭和62年■月■日。

家族歴・既往歴：特記事項なし。

現病歴：9歳頃より舌根部に腫瘤を自覚するも、機能障害がないので放置していた。その間、腫瘤はわずかながら増大傾向を示し、最近同部の違和感を覚えるようになり、知人より本科を受診することを勧められ来院した。

現 症

全身所見：体格、栄養状態ともに中等度。全身疾患は認めない。

局所所見：口腔外所見としては、顔貌は左右対称性で、顎下リンパ節に異常は認められなかった。口腔内所見としては、舌背部後方、舌盲孔の左前方部に直径1cmの有茎性の球形腫瘤が認められた。硬度は骨様硬で、表面は滑沢な正常粘膜におおわれ、潰瘍形成、自発痛、圧痛、咀嚼障害などは認めなかった(写真1)。また歯、顎に特記すべき所見はなかった。

臨床検査所見：

血液一般、血清化学検査ともに、異常は認められなかった。

臨床診断：舌背部線維腫の疑い。

処 置：昭和62年■月■日、局所麻酔下で、基部基底に紡錘形の切開を加え、粘膜下組織を含めて一塊として切除した。経過は良好で、現在まで再発は認めていない。

摘出物所見：10×9×6mm 大で、類球形、有茎性

明海大学歯学部口腔診断学講座
(主任：増田 屯教授)

* 明海大学歯学部口腔病理学講座
(主任：内海順夫教授)

** 門倉病院歯科
(主任：山口裕之)

Department of Oral Diagnosis, School of Dentistry, Meikai University (Chief: Prof. Tamuro Masuda)

* Department of Oral Pathology, School of Dentistry, Meikai University (Chief: Prof. Nobuo Utsumi)

** Department of Dentistry Kadokura Hospital
(Chief: Hiroyuki Yamaguchi)

受付日：平成2年2月21日

写真 1 初診時口腔内写真

写真 4 摘出物X線像

写真 2 摘出物

写真 5 病理組織像

写真 3 摘出物剖面

写真 6 病理組織像

で、正常粘膜により被覆されていた(写真2)。摘出物の断面では、粘膜下に表面滑沢、黄白色の骨様組織が認められた(写真3)。摘出物のデンタルフィルムによるX線像の所見では境界明瞭、均一な不透過像が認められた(写真4)。

病理組織学的所見：低倍率顕微鏡所見では、重層扁平上皮に被覆された粘膜下に、緻密な骨組織を認めた。骨組織は高倍率顕微鏡所見では、層板状構造を有する緻密骨であり(写真5,6)、走査型電子顕微鏡による観察では、緻密な層板状構造、ハーバース管を認めた(写真

写真 7 走査型電顕像 (低倍)

写真 8 走査型電顕像 (高倍)

7, 8).
病理組織学的診断：骨性分離腫 (Osseous choristoma)

考 察

本病変の名称については、Monsarrat¹⁾の報告以来、舌の骨腫として扱われていたが、その後1971年 Krolls ら²⁾が、従来の報告に自験例を加え、検討考察した結果、骨腫という名称は骨組織の一部に関係のある骨の過剰増殖したものを用いるべきものであって、元来の骨組織から離れた舌に発生し、しかも腫瘍様の増殖を示す本病変は、舌の骨性分離腫と呼ぶほうが妥当であると結論している。しかし、それ以上十分な説明はなされていない。その後も発表者によっていずれかの名称を用いていたようであるが、現在は骨性分離腫の名称が多く用いられているようである。今回われわれは、本病変の起源、発生部位、臨床像、病理組織像を考慮し、Krolls ら²⁾の提唱する、骨性分離腫の病名を用いるのが妥当であると結論した。

舌に生じた骨性病変は、前記 Monsarrat¹⁾が Osteome de la langue として報告して以来、現在までわれわれが渉猟しえたところ、諸外国において、43症例が報告されており、本邦では1938年、牟田ら³⁾が発表して以来13症例^{4)~14)}が報告されているようである (表1)。これら文献報告のうち詳細に書かれているものについて検討してみると、「発生部位」は諸外国ならびに本邦の発表において、頬粘膜²⁾、舌根部側縁に発生したもの⁴⁾もあるが、そのほとんどが舌盲孔部に集中している。報告され

表 1 本邦における骨性分離腫の発表

報 告 者	報告年	性	年齢	部 位	大きさ (mm)
牟 田	1938	男	23	舌盲孔	6 × 5 × 4
杉 田	1979	女	29	舌盲孔左側	8 × 5 × 5
佐 藤	1981	女	14	分界溝前方	直径 4
大 野	1981	男	44	舌分界溝前方	4 × 8 × 5
津 田	1983	女	14	有郭乳頭部	5 × 5 × 6
Shimano	1984	女	47	舌背部	16 × 15 × 10
Shimano	1984	女	37	舌背部	15 × 15 × 7
東	1984	男	27	舌根部	9 × 7 × 6
宮 和	1984	男	24	左舌背部後方	
宮 和	1984	女	20	左舌背部後方	
原	1986	男	8	舌根背部	直径 4
西 澤	1986	女	8	舌根部	10 × 8
五百歳	1986	女	15	左舌盲孔部	4 × 4 × 3
水 上	1988	女	28	舌側縁	3 × 3 × 5
自験例	1988	女	14	左舌盲孔部	10 × 9 × 6

図 1

ている「年齢」は8歳^{12,13)}から73歳²⁾までで、平均はおおよそ29歳であった。また「年代別」にみると、20歳代が19症例と他の年代と比較して圧倒的に多く、次いで30歳代、10歳代であるが、高年齢では少なかった(図1)。「性別」発生頻度では女性に多く、男女比はおおよそ1:3であり、われわれの例も10歳代女性の舌盲孔付近に生じたものであった。「形、大きさ」については類球形を呈しており、直径1 cm以下の大きさがほとんどを占めていたが、われわれの症例でも1 cm以下であった。

これら症例の「臨床診断」に関しては、有郭乳頭肥大¹¹⁾、線維腫¹⁵⁾と診断された例が多かったが、われわれの例は発生部位が舌背部であり、類球形有茎性を呈し、その他の臨床所見より舌背部線維腫と診断した。

これらの病理組織学的所見は、表面を扁平上皮に被覆された粘膜下の、層板状構造を有する緻密骨であり、内部にハーバース管、また何症例かには骨芽細胞も認められたが、われわれの例でも緻密骨の周囲に骨芽細胞を認め、走査電顕でもハーバース管を認めた。

本病変の組織発生は、現在に至っても不明であるが諸説が存在し、鰓弓残遺説¹¹⁾、先天性奇形説¹⁶⁾、線維腫の化骨説¹⁷⁾、リンパ組織化骨説¹⁸⁾、舌の外傷や慢性炎症に基づく化生説¹⁹⁾、舌甲状腺化骨説²⁰⁾などがあるが、本病変がまれなため現在にいたっても実証されていない。しかしながら、五百歳¹¹⁾も述べているように舌盲孔部は第1鰓弓、第2鰓弓、第3鰓弓が集まり、舌の発生上重要な位置であって、舌の発生中に、舌盲孔部に何らかの障害が生じ、化骨が生じる原因を作った可能性は十分に考えられる。また、発表例の多くが、舌盲孔または舌盲孔付近に近接した部位に発生していることも、舌の発生と何らかの関係があるのではないかとすることも示唆される。本症例の切除後の再発例はみられず、われわれの症例も、切除後約2年を経過するも再発はみえていない。

結 語

われわれは、14歳女性の舌盲孔付近にみられた腫瘤を臨床的に線維腫と診断したが、種々検討の結果、骨性分離腫と確定診断した1例を経験したので、文献的考察、とくに病名の由来について検討を加え報告した。

本論文の要旨は第140回口腔外科学会関東地方会にて発表した。

引 用 文 献

- 1) Monsarrat, M.: Ostéome de la langue. Bull Soc Anat 88: 282-283 1913.
- 2) Krolls, S.O., Jacoway, J.R., et al.: Osseous choristomas(Osteomas)of intraoral soft tissues. Oral Surg 32: 588-595 1971.
- 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) 水上良二, 浅田洗一, 他: 舌根部に発生した骨性分離腫の1例. 日口外誌 34: 2009-2011 1988.
- 5) 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.
- 6) 佐藤泰則, 小沢重雄, 他: 舌背部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.
- 7) 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.
- 8) 津田善造, 川崎博男, 他: 舌背にみられた osseous choristoma の1症例 (抄). 日口外誌 29: 2544-2545 1983.
- 9) 東 富雄, 小池正夫, 他: 舌背に発生した骨性分離腫の1例. 日口外誌 30: 156-159 1984.
- 10) 宮和貴夫, 石川 滋, 他: 舌骨腫症例 (抄). 日耳鼻 87: 1133 1984.
- 11) 五百歳一男, 松本めぐみ, 他: 舌盲孔付近に発生した骨性分離腫の1例. 日口外誌 32: 1057-1060 1984.
- 12) 原 芳雄: 舌根部骨腫の1症例. 耳喉 58: 449-451 1986.
- 13) 西澤伸志, 藤岡正勝, 他: 舌骨種の1例 (抄). 日耳鼻 89: 806 1986.
- 14) Shimano, M., Tsuji, T., et al.: Lingual osseous choristoma. Int J Oral Surg 13: 355-359 1984.
- 15) Weitzner, S., Stimson, P.G., et al.: Cartilaginous choristoma of the tongue. J Oral Maxillofac Surg 45: 185-187 1987.
- 16) Zuckerman, M.: Ein Fall von Osteom der Zunge. Z Hals-Nas-u Ohrenheilkd 25: 118-

- 120 1929.
- 17) Grieg, D.M.: Osteoma of the tongue. Critical Review Edinburgh Med J 39: 93-104 1932.
- 18) Magnien, P.M.: Un cas d'osteome de la langue. Ann Anat Pathol 10: 331 1933.
- 19) Roy, J.J., and Klein, H.Z.: Osteochondroma of the tongue. Arch Pathol 89: 565-568 1970.
- 20) McClendon, E.H.: Lingual osseous choristoma. J oral Surg 30: 39-44 1975.
-