舌下面正中に発生した軟骨性分離腫

安井康順・木村哲雄・太田之博

Cartilaginous choristoma occurring at the midline of the inferior surface of the tongue

YASUI Yasunobu · KIMURA Tetsuo · OHTA Yukihiro

Abstract: We report a case of cartilaginous choristoma of the tongue with a review of the literature. A 76-year old woman had been aware of a soft tumor present at the midline of the inferior surface of the tongue for several years. At presentation, the tumor was approximately 8mm in diameter and situated in the middle of the inferior surface of the tongue. The tumor was excised under local anesthesia. Histological examination revealed that the tumor had cartilaginous characteristics. The histological diagnosis was cartilaginous choristoma of the tongue. To our knowledge, this tumor has not yet been reported previously in this region. The etiology of this tumor remains unclear. The most plausible theory is that the tumor originates from traces of ectopic embryonic tissue or mesenchymal metaplasia.

Key words: cartilaginous choristoma (軟骨性分離腫), tongue (舌), review of literature (文献的検索)

緒 言

舌の軟骨性分離腫は舌の発生途中で軟骨組織が迷入し、生存増殖して腫瘤状となる比較的まれな良性腫瘍でこれまで10例が報告されているに過ぎずその発生部位は半数が舌背正中であり、舌下面正中の報告はみられない。今回我々は同部に発生した軟骨性分離腫を経験したので報告する。

症 例

患 者: 76歳, 女性.

初 診: 平成16年10月 。

主 訴: 舌の違和感.

既往歴: 本院乳腺外科にて左乳房切除術(平成15年9月)後, 本院形成外科にて再建・植皮術を受け経過観察中.

家族歴: 特記事項なし.

現病歴: 数年前から舌下正中に弾性軟の腫瘤を認めるも痛みがないため放置していた。最近同腫瘍が次第に大きくなってきたため、精査を希望し、乳房再建を受けた形成外科主治医から紹介され、平成16年10月 , 本科を受診

した。

現 症:

全身所見: 体格中等度.

口腔外所見: 特記すべき事はなし.

口腔内所見: 舌下面正中部に弾性軟、有茎性の直径8mmの腫瘤を認めた。同部には圧痛・自発痛ともになく、表面粘膜も健常であり、可動性はなく周囲組織との境界は明瞭であった(写真1)。

初診時臨床診断: 舌下面正中部良性腫瘍.

処 置: 平成16年11月 , 上診断のもと、局所麻酔下に切除生検術を行った。術中出血はほとんどなく、通常の舌良性腫瘍切除の手順に準じて基底部の健常表面粘膜の一部を腫瘍に付け一塊として切除を行い、これを病理組織学的に精査した。

病理組織学的所見: 異型の目立たない重層扁平上皮下に、境界明瞭な結節状病変が認められる(写真2)。異型の目立たない成熟脂肪細胞のやや密な増生がみられ、その内部では多結節状の軟骨組織が認められる(写真3a, b)。

以上の病理組織学的所見より軟骨性分離腫(cartilaginous choristoma)と診断した。

術後経過: 術後7日目に抜糸を行い、以後経過観察をしていたが、術後9か月目の現在特に再発など異常は認めない。

考 察

舌に発生する腫瘍は良性に限っても乳頭腫、奇形腫、脂

大阪警察病院歯科口腔外科

(主任: 木村哲雄部長)

Osaka Police Hospital, Department of Dentistry and Oral Surgery (Chief: KIMURA Tetsuo)

受付日: 2005年9月5日

採択日: 2006年1月31日

写真1 初診時口腔内写真
a 正面観 b 側面観
舌下面正中に直径8mmの弾性軟の腫瘤を認めた。

肪腫，血管腫など多岐にわたる．なかでも分離腫は比較的まれな良性腫瘍である．軟骨分離腫は「個体発生の途中において軟骨組織が正常な連続性を失って分離し別の組織内に入り込んで生存増殖して腫瘤状を呈するもの」¹⁾と定義されているが，「腫瘍としての自主性はあるが過剰な発育はみられない」²⁾といわれている．舌の骨性あるいは軟骨

写真2 病理組織像 (H-E 染色, $\times 1$)
異型の目立たない重層扁平上皮下に境界明瞭な結節状病変がみられる。

写真3 病理組織像 (H-E 染色, a $\times 10$ b $\times 40$)
異型の目立たない成熟脂肪細胞のやや密な増生がみられ，その内部には多結節状の軟骨組織が認められる。

性分離腫は1913年のMosarrat³⁾の報告が最初とされ、本邦では牟田ら⁴⁾が1938年に舌盲孔部に発生した1例を報告して以来21例が報告されているのみでまれな疾患といえる。X線検査に際し偶然発見されることが多く、舌の側方に存在する場合はパノラマX線写真でも明瞭に描出されることがあるという。それゆえ部位によってはさまざまな石灰化を伴う病変と誤診される。発生部位としては頬粘膜の報告もあるが、ほとんどは舌根部に発生し、なかでも盲孔部が多い。本邦では舌分離腫の報告はわれわれが渉猟し得た範囲ではこれまで21例(軟骨性7例、骨性11例、骨性軟骨性混在3例)が報告されており、その内で軟骨性分離腫は10例(舌背5例、舌腹2例、舌根2例、舌尖1例)あるが本症例と同じ部位の報告はない⁵⁾。

さまざまな疾患に伴って粘膜下や皮下に石灰化や骨化がみられる。副甲状腺ホルモン過剰症やビタミンD過剰症、ミルクアルカリ症候群、アルブライト症候群など血中カルシウムや無機リン酸イオン濃度の増加を伴う疾患で石灰化の起こることがある。あるいは鞏皮症や皮膚筋炎、SLE、サルコイドーシスなど血中カルシウムや無機リン酸イオン濃度の変動のない疾患にも石灰化はおこる。皮膚には他にもさまざまな角化性の新生物に伴い転移性の角化がおこると報告されている。しかし、舌における軟骨性または骨性病変は極めて珍しく、従来は軟骨腫(chondroma)または骨腫(osteoma)などとよばれてきた。しかし本疾患は本来存在すべき組織や器官と異なった部位に存在する原始細胞群から腫瘍状に増大したもので、分離腫と呼ばれる所以である。軟骨性分離腫の発生に関しては、鰓弓由来、奇形線維腫の化骨など諸説ある。文献的にはこの軟骨性分離腫の発生要因として考えられているものは鰓弓の遺残⁶⁾、鰓弓の軟骨芽の迷入⁷⁾、舌甲状腺化骨⁸⁾などさまざまである。しかし真の発生原因は未だに不明である。本症例についても明ら

かな発生原因といえる既往はなかった。

治療法は切除であり、再発症例はないと報告²⁾されているが、まれに軟骨肉腫が発生したとの報告¹⁾もあるので長期間の経過観察が望ましいとされている。本症例については術後9か月経過するが再発は認められない。

結 語

舌下面正中部に発生したまれな軟骨性分離腫の一例を報告した。切除後9か月経過するが再発もなく良好な経過をたどっている。

謝辞

病理組織学的検討にあたり大阪警察病院検査部長 辻本正彦博士に多大な援助と尽力を頂いた。ここに深謝の意を表したい。

引 用 文 献

- 1) 半田祐二郎：軟骨性分離腫。内田安信、河合 幹他編集；顎口腔外科診断治療体系。第1版、講談社、東京、1991、355頁。
- 2) 高橋喜浩、河野憲司、他：舌背後方に発生した骨性分離腫の1例。日口外誌41: 428-429 1995。
- 3) Mosarrat, M.: Ostéome de langue. Bull Soc Anat 88: 282-283 1913。
- 4) 牟田哲三郎、緒方 健：舌根部骨腫症例追加。耳喉11: 1016-1018 1938。
- 5) 古野 均、梅野博仁、他：舌に発生した軟骨性分離腫。耳鼻臨床94: 155-158 2001。
- 6) 五百蔵一男、松本めぐみ：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。
- 7) 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。
- 8) McClendon, E.H.: Lingual osseous choristoma. J Oral Surg 30: 39-44 1975。