舌根部に発生した比較的大きな骨性分離腫の1例

古 田 功 彦¹ ・ 嶋 村 知 記¹ ・ 守 永 知 弘²
富 永 和 宏¹ ・ 福 田 仁 一¹ ・ 福 山 宏³

¹九州歯科大学口腔顎顔面外科学講座病態制御学分野

²守永歯科医院

³九州歯科大学生命科学講座口腔病態病理学分野

平成17年5月6日受付

平成17年6月22日受理

A Case of Large Osseous Choristoma on Radix of Tongue

Norihiko Furuta¹, Tomoki Shimamura¹, Tomohiro Morinaga²,
Kazuhiro Tominaga¹, Jin-ichi Fukuda¹ and Hiroshi Fukuyama³

¹Division of Maxillofacial Diagnostic and Surgical Science,
Department of Oral and Maxillofacial Surgery,
Kyushu Dental College, Kitakyushu, Japan

²Morinaga Dental Office

³Division of Oral Pathology, Department of Biosciences,
Kyushu Dental College, Kitakyushu, Japan

E-mail: n-furuta@kyu-dent.ac.jp

Abstract

Lingual osseous choristoma is a rare lesion. A case of lingual osseous choristoma was found in a 20-year-old female. The lesion was a hard pedunculated mass measuring about 14×13×8 mm in the right side posterior region of the tongue. The tumor was excised under general anesthesia. Histological finding showed a well circumscribed mass of dense lamellar bone with Haversian canals. It was covered with normal squamous epithelium.

Key words: Osseous choristoma/Osteoma/Tongue

抄 録

舌に発生する骨形成病変は、比較的にまれな疾患とされている。Monserrat (1913) により舌の骨腫として報告されたのが最初で、本邦では牟田ら (1938) の報告以来、現在まで 31 例が報告されている。今回舌根部に発生した比較的大きな骨性分離腫の1例を経験したので報告する。

患者は 20 歳女性で、10 数年前より舌根部の腫瘤を自覚していたが、最近同腫瘤が増大傾向を示したため当科を受診した。現症として右側舌根部に小指頭大弾性硬の有茎性腫瘤を認めた。舌根部良性腫瘍の臨床診断で、全身麻酔下

に腫瘍切除術を行った。腫瘍の大きさは $14 \times 13 \times 8$ mm 大の球形、有茎性で、表面は平滑な正常粘膜であった。病理診断は骨性分離腫であった。現在術後5年であるが再発を認めず経過良好である。

キーワード：骨性分離腫/骨腫/舌

緒 言

舌に発生する骨形成病変は、比較的まれな疾患とされている。本疾患は Monserrat (1913)¹⁾ により最初に報告されて以来、舌の骨腫として扱われてきたが、その後 Krolls ら (1971)²⁾ は、本疾患をその発生部位や組織学的特徴から骨性分離腫 osseous choristoma と呼称することを提唱した。本邦では牟田ら (1938)³⁾ の報告以来、現在までに 31 例が報告されている。

今回われわれは、20 歳女性の舌根部に発生した比較的大きな骨性分離腫の 1 例を経験したので若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

患者：20 歳、女性

初診：1999 年 11 月 2 日

主訴：舌根部の腫瘍

既往歴：特記事項なし。

家族歴：特記事項なし。

現病歴：10 数年前より舌根部の腫瘍を自覚していたが機能障害がないため放置していた。最近同腫瘍が増大傾向を示したため近歯科を受診した際に当科を紹介され来院した。

現症

全身所見：体格・栄養状態は中等度、顔貌左右対称で、異常所見は認められなかった。

局所所見：右側舌根部に表面は正常粘膜色で、直径約 10 mm 大の有茎性の腫瘍を認めた。絞扼反射のために正確な触診が困難であったが、弾性は硬、自発痛、圧痛等はなく、周囲粘膜に硬結などの異常所見も認められなかった。同腫瘍による発音、嚥下障害も認められなかった (図 1)。

臨床検査所見：特に異常値は認められなかった。

臨床診断名：舌根部良性腫瘍 (硬性線維腫の疑い)

処置および経過：1999 年 3 月 3 日、全身麻酔下に舌を前方に牽引した後、腫瘍頸部周囲の粘膜下組織を含めて一塊として切除した。術中所見では、腫瘍は表在性であり筋層に及ぶ所見は認められなかった。

摘出物所見：腫瘍の大きさは $14 \times 13 \times 8$ mm 大の球

図 1 初診時口腔内写真。

右側舌根部に 10 mm 大の腫瘍を認めるも、発音、嚥下障害などは認めなかった。A：弱拡大像。B：強拡大像。

形、有茎性で、表面は平滑な正常粘膜であった。腫瘍内部には骨様硬の硬固物が触知され、これを分割すると、粘膜下に表面滑沢、黄白色の骨様組織が認められた (図 2)。軟エックス線写真では、薄い軟組織に被覆された不規則な層板構造の骨様不透過像を認めた (図 3)。

病理組織学的所見：腫瘍を被覆する粘膜は重層扁平上皮であり、上皮下の線維組織内に、大豆形の骨組織が認められた。この骨組織はハバース管を有しており、ほぼ規則的な層状構造を持つ緻密骨として認められた。周囲の内骨膜側には、一層の骨芽細胞が配列していた (図 4)。

病理組織学的診断：骨性分離腫

図2 摘出物所見.
腫瘍は $14 \times 13 \times 8$ mm 大の球形で、正常粘膜に覆われており (A)、分割すると内部に骨様組織を認めた (B)。

図3 摘出物の軟X線写真.
層板構造の骨様不透過像を認めた。

図4 摘出物の病理組織学的所見.
A: 全体像. 腫瘍は重層扁平上皮に被覆されており、上皮下の線維組織内に、骨組織が認められた.
B: 上皮下部拡大像. 外骨膜側には扁平な骨芽細胞が配列しており、積極的な骨改造の所見は認められなかった.
C: 腫瘍内部拡大像. 内部はハバース管を有する骨組織であり、規則的な層状構造を持つ緻密骨として認められた. 内骨膜側には、一層の円形骨芽細胞が認められた。

考 察

舌に発生する骨形成性病変は、Montserrat (1913)¹⁾ による報告が最初とされている。Krolls ら (1971 年)²⁾ は、骨腫という名称は骨組織の一部が過剰増殖したのに用いるべきであり、本疾患のように、骨組織が本来存在すべき組織から連続性を失って分離し、他の組織中に発生し腫瘍性に増殖を示す疾患においては骨性分離腫 osseous choristoma と呼ぶことを提唱され、現在ではこの名称が定着している。全身的には、脈絡膜骨性分離腫、食道壁の軟骨分離腫、神経下垂体分離腫などの報告がある⁴⁾。

本邦においては、牟田ら (1938)³⁾ が本疾患を最初に報告しており、自験例を含めるとこれまでに 32 例を数える。男女比は約 2 : 1 で女性に多く、年齢は 7 ~ 54 歳で平均 25.4 歳であり、20 ~ 30 歳代に比較的多く発症していた⁵⁾ (図 5)。発生部位は舌根部、特に舌盲孔付近が最も多く報告されているが、他に右舌縁部⁶⁾、頬部⁷⁾ に生じ

図5 年代別症例数と男女比。

男女比は約2:1で女性に多く、平均25.4歳であり、20歳代に最も多く発症していた。

図6 発生部位。

発生部位は舌盲孔部が最も多く、次いで舌根部、有郭乳頭部、分界溝部であり、舌後方に多く発症していた。

た報告もある(図6)。

これまでに報告された口腔内骨性分離腫の大きさは3 mmから16 mmでその大半は10 mm以下である。自覚症状を認めない症例がほとんどであるが、時には違和感、嘔吐、嚥下困難を認めた症例もある。自験例では大きさが14 mm大で比較的大きな骨性分離腫であったが自覚する機能障害は認めなかった。本疾患と鑑別すべき疾患としては線維腫、脂肪腫、乳頭腫、血管腫⁸⁾、リンパ管腫、舌癌⁹⁾、異所性甲状腺、有郭乳頭肥大などが挙げられているが、自験例は、その臨床所見から、脂肪腫、乳頭腫、血管腫は否定的であった。しかし、腫瘤が舌盲

孔付近に存在しており正確な触診が困難であったため、術前に骨性病変を疑うまでには至らなかった。

病理組織学的には、被覆上皮に囲まれた層板状構造を呈する骨組織であったとの報告がほとんどである。自験例も健常重層扁平上皮下の線維組織内に、ハバース管を有し、ほぼ規則的な層状構造を持つ緻密骨が認められ、周囲の内骨膜側には、一層の骨芽細胞が配列していた。外骨膜側には扁平化した骨芽細胞が認められており、外向性に骨改造を行っている所見は認められなかった。

本病変の発生機序は、古くから鰓弓残遺説¹⁾、軟骨腫の骨化説¹⁰⁾、線維腫の骨化説¹¹⁾、リンパ組織の骨化説¹²⁾、舌甲状腺の骨化説¹³⁾、慢性炎症や外傷による骨化説¹⁴⁾、胎生期に舌盲孔に迷入した未分化間葉系細胞の分化による骨化説¹⁵⁾などが述べられている。舌盲孔は胎生約24日頃より形成される甲状舌管の近位端である。舌の原基は第1、第2、第3鰓弓より形成され、舌盲孔より前方2/3は第1鰓弓由来、後方1/3は第2、第3鰓弓由来である。第1鰓弓からは、ツチ骨、キヌタ骨、下顎骨、第2鰓弓からは、アブミ骨、茎状突起、舌骨上部、第3鰓弓からは、舌骨下部が発生する。つまり舌盲孔は、第1、第2、第3鰓弓の交差点であり、骨形成能を持った未分化間葉系細胞が迷入する可能性は十分にあると考えられる。自験例は右側舌根部の舌盲孔付近に発生しており、また病理組織像においてもハバース管を有する成熟した層板状骨を呈していることから、野添ら¹⁵⁾の提唱する、舌盲孔に迷入した未分化間葉系細胞の分化による骨化説を支持するものであると考えられる。

治療法としては、腫瘤の周囲粘膜組織を含めて一塊とした切除術が行われている。自験例でも術中の嘔吐反射や術後の嚥下障害の発生なども考慮して、入院、全身麻酔下に切除術を行った。現在、術後5年を経過しているが、再発等の異常所見は認められていない。

結 語

20歳女性の舌根部に発生した比較的大きな骨性分離腫の1例を経験したので、若干の文献的考察を加えて報告した。

引用文献

- 1) Monserrat, M.: Osteome de la langue. Bull. Soc. Anat. 88: 282-283, 1913.
- 2) Krolls, S. O., Jacoway, J. R. and Alexander, W. N.: Osseous choristoma (Osteoma) 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) 石川栄世, 福田芳郎, 高木 実, 大塚 久, 下里幸雄, 檜澤一夫, 牛島 宥, 廣田映五, 下田忠和, 渡辺英伸他: 外科病理学. 第1版, 文光堂, 東京. 1173-1220, 1984.
- 5) 中西康裕, 大亦哲司, 森田展雄, 和田 健, 井辺弘樹, 坂本忠幸: 舌盲孔付近に発生した骨性分離腫の1例. 日口外誌 42: 705-707, 1996.
- 6) Esquep, A., Espinoza, E. and Diaz, G.: Lingual osteoma. J. Oral. Med. 37: 27-29, 1982.
- 7) 松本光彦, 松永広子: 頬部に生じた骨腫の一例. 日口外誌 40: 1091-1093, 1994.
- 8) Takato, T., Fukuda, O., Ohhara, Y., Yanai, A., Hirabayashi, S. and Nakatsuka, T.: Hamartoma of the tongue: Two case reports. Plast. Reconstr. Surg. 75: 258-262, 1985.
- 9) 高山真一, 橋本 温, 上野純子, 伊藤千鶴, 谷岡博昭: 舌に発生した骨性分離腫の一例. 日口外誌 38: 1017-1018, 1992.
- 10) Landini, G., Kitano, M., Urago, A., Sugihara, K. and Yamashita, S.: Chondroma and osteochondroma of the tongue. Oral. Surg. Oral. Med. Oral. Pathol. 68: 206-209, 1989.
- 11) Grieg, D. M.: Osteoma of the tongue. Critical. Review. Edinburgh. Med. J. 39: 93-104, 1932.
- 12) Magnien, Perrot. M.: Un cas d'ostéome de la Langue. Ann. Anat. Pathol. 10: 331-334, 1932.
- 13) McClendon E. H.: Lingual osseous choristoma. J. Oral. Surg. 30: 39-44, 1975.
- 14) Roy, J. J. and Klein, H. Z.: Osteochondroma of the tongue. Arch. Pathol. 89: 565-568, 1971.
- 15) 野添悦郎, 三村 保, 園田 悟, 宮脇昭彦, 仙波伊知郎, 北野元生: 舌背後方に発生した骨性分離腫の1例. 日口外誌 39: 940-942, 1993.