副咽頭間隙に発生した Lipoblastoma の1例

堀 江 貴・鈴木 健 男
麻 木 宏 栄・神 崎 裕 士

A Case of Lipoblastoma of the Parapharyngeal Space

Takashi Horie, Takeo Suzuki,
Kouei Asaki and Hiroshi Kouzaki
(Tottori University)

A case of lipoblastoma of the parapharyngeal space in a 37-year-old male was reported.

The patient complained of a swelling in the left parotid region.

The tumor, existed in the parapharyngeal space, was removed using a cervical approach without angle mandibulotomy.

A histopathological examination revealed lipoblastoma. Parapharyngeal lipoblastoma is a rare finding. No report of such nature is found in the literature of this country, there is only a report of single instance in those of America.

緒 言

副咽頭間隙 (parapharyngeal space) は、副咽頭腔、側 (または傍) 咽頭腔とも呼ばれ、重要な血管や神経をその中に含み、解剖学的に複雑である。しかし、臨床上是疾患の発生頻度は少なく、発生する腫瘍は良性のものがほとんどである。最近、我々は副咽頭間隙に発生した巨大な lipoblastoma 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: 37歳男性, [REDACTED]

主訴: 左耳下部腫脹

既往歴および家族歴: 特記すべきものなし。

現病歴: 昭和58年9月, 左耳下部の腫脹を自覚したが、疼痛なく放置した。同年10月, 職場の健康診断時に左口蓋扁桃部と左耳下部の腫脹を指摘され, 10月18日当科を受診した。

初診時所見: 全身的には著変なし。局所的には, 左耳下部に 5 cm×10 cm の腫瘤を認め, 表面平滑で弾性軟, 皮膚との癒着なく, 自発痛,

圧痛, 顔面神経麻痺を認めない。

咽頭所見では, 左前口蓋弓と咽頭側壁の膨隆を認めた (図1)。触診で咽頭部腫瘤と耳下部腫瘤は連続するものと考えた。

鼻腔, 喉頭に異常を認めず, 脳神経はいずれも正常であった。

検査成績

血液, 生化学, 血清, 尿一般, 胸X線, 心電図: 異常なし。

CT sialogram: 耳下腺に造影剤を入れて,

図1 左前口蓋弓の偏位と咽頭側壁の膨隆がみられる

CT 撮影した CT sialogram では、上方は上咽頭、下方は喉頭蓋の高さまでの副咽頭間隙に low density area が広く存在し、左耳下腺は外側に圧排され、咽頭側壁も内側に圧排されていた。耳下腺に欠損像は見られなかった(図2)。

触診で波動を認めること、CT sialogram で均一な low density area を認めることから、嚢胞性疾患を疑い、口内法にて drainage を図った。

第1回手術所見(昭和58年11月7日)・経口挿管による全身麻酔下、懸垂頭位にて手術を施行した。左口蓋扁桃から約2 cm 外側の咽頭粘膜に切開を行ない、腫瘤被膜を剝離した。被膜の一部に切開を加えると黄白色の実質性腫瘍が存在した。腫瘍の大きさから、口内法による摘出は困難と判断し、生検のみにとどめ、手術を終えた。

病理診断は lipoblastoma であったため、全摘の方針で後日、再手術を施行した。

第2回手術所見(昭和58年11月21日): 全身麻酔下に気管切開を行なった後、外切開法にて腫瘍摘出術を施行した。皮膚切開は下顎骨下縁から約2 cm 下方で左耳介後部から舌骨上縁までおよんだ。広顎筋膜下で剝離を進めると薄い被膜に覆われた腫瘍が露出した。腫瘍は弾性軟で

図2 CT sialogram

左耳下腺の圧排像と副咽頭間隙に low density area がみられる

図3 摘出腫瘍

図4 腫瘍の組織所見 (H-E 染色×100)

図5 腫瘍の組織所見 (semi-thin, トルイジンブルー染色×200)

分葉状を呈していたが、耳下腺、顎下腺をはじめ、周囲組織との癒着はあまりなく、剥離は比較的容易であった。副咽頭間隙に入ると、腫瘍が広い範囲を占めたため、一部被膜を損傷したが、手動的に摘出し得た。出血はほとんどなく、神経、血管の損傷もなかった。ドレーンを挿入して手術を終えた。

術後経過：手術後、一過性に下口唇のしびれ感を訴えたが、数週間で軽快し、左右口蓋弓はほぼ対称となり、その他の合併症も認めなかった。

病理所見：摘出腫瘍は9 cm×8 cm×7.5 cm

の大きさで、重さ69 g、薄い被膜で覆われ、黄色または淡赤色、ゼラチン様で弾性軟、波動性を認め全体に分葉状を呈した(図3)。

組織学的には、全体が薄い線維性の被膜で覆われ、血管に富み、様々な成熟段階にある脂肪細胞と豊富な粘液様間質から成り立っている。即ち、脂肪細胞には大小不同があり、脂肪滴で標本作成の過程で溶出したため空胞化した細胞質は単空胞化しているものの他に多空胞化した細胞質も認められる。核が偏位し、“signet-ring”像を呈するものもあるが核には liposarcoma に見られる分裂像や異型像は認めら

れない(図4). 今回我々は, アルデヒド-オスミウム酸二重固定法を用い固定した試料をプロピレンオキサイドに置換し, エポン 812 樹脂に包埋し, semi-thin 法にて観察した. 様々な大きさの lipoblast の脂肪滴が鮮明に染色され,

考

1926年, Jaffe⁴⁾ が未熟脂肪細胞からなる腫瘍を lipoblastoma と命名し, 1958年, Vellios ら⁷⁾ が出生時に 見られる 良性脂肪芽細胞からなる腫瘍を lipoblastomatosis と表現して以来, lipoblastoma についての報告がみられるようになった. 1967年, Shear⁶⁾ は 7 例を報告し, その中には口腔(頬部)に発生した 1 例も含まれている. 1973年, Chung ら¹⁾ は 35 例におよぶ lipoblastoma の中で, 下肢 15 例, 上肢 10 例, 頸部 4 例, 軀幹 3 例, 後腹膜 2 例および縦隔 1 例であったと報告し, その後 1980 年, Greco ら²⁾ がはじめて副咽頭間隙発生例を, 1983 年には Hugo ら³⁾ が上顎骨発生例を報告している. 本邦では宮原ら⁵⁾ が副咽頭間隙に発生した腫瘍 77 例を検討した結果, 4 例の lipoma と 1 例の liposarcoma を認めているが lipoblastoma は報告されておらず, その後我々が検索したところ報告はなく, 本症例が本邦初の副咽頭間隙に発生した lipoblastoma と考えられる.

lipoblastoma は圧倒的に乳幼児や小児に多く Chung ら¹⁾ の生後 5 日目から 7 才までの 35 例中, 88% が満 3 才以前に発症し, 平均 12 カ月, 性別では男性 21 例, 女性 14 例で男性にやや多い傾向を認めている. 口腔に関する文献では Shear⁶⁾ (頬部) 15 カ月, Greco ら²⁾ (副咽頭間隙) 4 才, Hugo³⁾ (上顎骨) 4 才にそれぞれ発症し, 全て男性であった.

肉眼的には, 多くは被膜に包まれ分葉状を呈し, ときに被膜が不完全もしくは欠損し, lipomatosis の如く周囲筋層内に浸潤しているものもある. 形状は様々で, 結節状, 卵状, グローブ状ときにゴム様, 脳様でさえある. 剖面

prelipoblast と考えられる細胞も間質の中に認められた(図5).

以上より lipoblast と粘液様間質に富むことから lipoblastoma と診断された.

按

は黄色, 黄かっ色またはクリーム様白色で通常薄いピンクの均一なゼラチン様または粘液様部分と共に斑紋状を呈している. 本症例も黄色部分とゼラチン様部分とが混在していた.

組織学的には, 特徴的な分葉状構造を示し線維性結合組織で区切られ, 隔壁はしばしば血管に富み, 網状構造を呈す. 脂肪細胞は様々な成熟段階にあり, 成熟脂肪細胞が様々な形の lipoblast や, 紡錘型または星型の間葉細胞の中に散在している. 通常, 個々の腫瘍においては末梢よりも中枢でより脂肪細胞の成熟段階が進んでいる. lipoblast は分化の段階によって, 単空胞形("signet-ring"), 多空胞形, 粒状, 紡錘状そして星状などの形態をとる. 中には褐色脂肪細胞や粘液腫細胞に類似した細胞も認められる.

liposarcoma との違いは, 核に異型像や濃染像がみられず, 分裂像は間質細胞段階には認められても lipoblast には認められない点である.

副咽頭間隙は解剖学的に複雑で, 上方は頭蓋底, 後方は頸椎(椎前筋膜), 前方は内側翼突筋, 側方は耳下腺深葉被膜であり, 下方は舌骨大角の高さ, 内側は咽頭側壁(咽頭収縮筋)であり, 腫瘍は組織抵抗の少ない内方または下方に拡大する傾向をもつ. 一般に症状は軽微で咽頭の異物感, 腫脹感, 嚥下障害, 構音障害などを訴えることが多い. Greco ら²⁾ の症例は無症状で偶然発見され, 本症例は耳下部の腫脹と軟口蓋の偏位を認めるのみであった.

術前診断は困難なことが多く, 本症例も臨床的に嚢胞性疾患, 特に cystic hygroma を疑い 1 回目の手術では咽頭からの drainage を試みた. 他の文献にても, 何度も組織生検を繰り返

した例が多い。

補助的診断法として sialogram の後に CT を行なう CT sialogram が腫瘍の位置、特に耳下腺との関係を示し有用であるとされている。本症例においても CT sialogram を施行し副咽頭間隙に充満する low density area が描出され耳下腺との関係、腫瘍の広がりに関し重要な情報が得られた。その他非侵襲的なエコーグラムも今後多くの利用が期待できる。

手術法には、口内法と外切開法および両者の

併用があるが、腫瘍の硬さ、大きさにより選択されるべきであり、下顎骨離断や出血防止のため外頸動脈結紮もときに考慮されなければならない。本症例の全身麻酔下、気管切開を行ない、外切開法で摘出し得た。

lipoblastoma は臨床的には良性で、一般に被膜ごと摘出されれば、再発は少なく、本症例も術後1年3カ月を経過して再発をみていないが、長期間の follow up が必要であることは言うまでもない。

結 語

著者らは37才男性の副咽頭間隙に発生した lipoblastoma を経験したので、若干の文献的考察を加えて報告した。

本症例の概要は第8回日本頭頸部腫瘍学会で発表した。

稿を終えるに臨み、終始懇切な御指導を戴き御校閲を賜った恩師生駒尚秋教授に深甚なる謝意を捧げます。

参 考 文 献

- 1) Chung EB and Enzinger FM: Benign lipoblastomatosis. An analysis of 35 cases. *Cancer* **32**: 482~492, 1973.
- 2) Greco MA, Garcia RL and Vuletin JC: Benign lipoblastomatosis. Ultrastructure and histogenesis. *Cancer* **45**: 511~515, 1980.
- 3) Hugo LO and Miro SM: Benign lipoblastoma in the mandible. *Head Neck Surg* **5**: 3; 251~256, 1983.
- 4) Jaffe RH: Recurrent lipomatous tumors of the groin; Liposarcoma and lipoma pseudomyxomatodes. *AMA Arch Pathol* **1**: 381~387, 1926.
- 5) 宮原 裕: 副咽頭間隙に発生する腫瘍一症例報告および文献的考察一。耳喉 **56**: 35~43, 1978.
- 6) Shear M: Lipoblastomatosis of the cheek. *Br J Oral Surg* **5**: 173~179, 1967.
- 7) Vellios F, Baez JM and Shumacker HB: Lipoblastomatosis: A tumor of fetal different from hibernoma. Report of a case, with observations of the embryogenesis of human adipose tissue. *Am J Pathol* **34**: 1149~1159, 1959.

(別刷請求先: 堀江 貴
〒683 米子市西町86
鳥取大学医学部耳鼻咽喉科学教室)