オトガイ部に認められた筋肉内脂肪腫の1例

野澤 浩・渡邊伸也・高山智宏
羽田朱里・中島純子・佐藤泰則

A case of intramuscular lipoma of the mental region

NOZAWA Hiroshi · WATANABE Shinya · TAKAYAMA Tomohiro
HADA Syuri · NAKAJIMA Junko · SATO Yasunori

Abstract: In this paper, we describe our experience with a patient who had an intramuscular lipoma in the right side of the mental region. A man aged 81 years who had a history of a right-sided mental mass since 2002 was referred to our department by a dental clinic because of a gradual increase in lesion size. An elastic soft mass with a distinct boundary, measuring 18 × 15 mm, was palpable. In the oral cavity, it was also palpable within the premolar buccal mucosa. The color of the surface membrane was normal. Both T1 and T2-weighted magnetic resonance imaging showed high intensity. The mass was resected under local anesthesia for the diagnosis of a benign tumor, and the histopathological diagnosis was intramuscular lipoma. There have been no signs of recurrence during follow-up as of 1 year 8 months after surgery.

Key words: intramuscular lipoma (筋肉内脂肪腫), mental region (オトガイ部)

緒 言

筋肉内脂肪腫は、骨格筋内に異所性に生じる良性腫瘍で、脂肪腫のなかでもまれであり、脂肪腫全体の約2%との報告がある¹⁾。発生部位は体幹や四肢に多くみられ、顎口腔領域では非常にまれである^{2~4)}。その多くは被膜を有せず、成熟脂肪細胞が筋組織内に瀰漫性に侵入し、筋線維がさまざまな程度に萎縮する病理組織像を呈するため、浸潤性脂肪腫とも呼ばれ、また再発率が他の脂肪腫よりも高いとされる^{1,3~7)}。

今回われわれは、オトガイ部に認められた筋肉内脂肪腫の1例を経験したので、若干の考察を含めて報告する。

症 例

患 者：81歳、男性。
初 診：2010年12月。
主 訴：唇の下に腫れ物ができた。
家族歴：特記事項なし。

防衛医科大学校歯科口腔外科
(主任：佐藤泰則教授)
Department of Oral and Maxillofacial Surgery, National
Defense Medical College (Chief: Prof. SATO Yasunori)
受付日：2013年8月21日
採択日：2014年3月25日

現病歴：2002年頃より右側オトガイ部の腫瘤を自覚していたが放置していた。自覚時には腫瘤の大きさは小指頭大であったが、2007年頃より次第に増大傾向を認めたため近歯科を受診し、精査加療目的に当科を紹介され受診した。

既往歴：高血圧症、不整脈にて内服加療中。

現 症：

全身所見：体格は中等度、栄養状態は良好であった。

口腔外所見：顔貌は左右非対称で、右側オトガイ部に弾性軟で、比較的境界明瞭な18×15mm大の可動性の腫瘤を認めた(写真1)。圧痛はなく、被覆皮膚に発赤や腫脹等の異常はなく、知覚麻痺も認めなかった。

口腔内所見：口腔外より腫瘤部を口腔側へ圧迫すると、下顎右側犬歯から小臼歯相当頬側粘膜に弾性軟で可動性の腫瘤を触知した(写真2)。被覆周囲口腔粘膜の色調は正常であった。

MRI所見：T1およびT2強調像で右側オトガイ部の皮膚直下に高信号を呈する18×16×14mmの腫瘤を認めた(写真3A, B)。境界は概ね明瞭であった。脂肪抑制T2強調像では、腫瘤内部の信号強度は著明に低下していた。矢状断では、腫瘤内部に淡い構造物を認めた(写真3C)。

臨床診断：オトガイ部良性腫瘍(脂肪腫の疑い)。

処置および経過：2011年1月に入院、局所麻酔下に腫瘍

写真1 初診時口腔外写真

右側オトガイ部に弾性軟、可動性の腫瘍(矢印)を認める。

写真2 初診時口腔内写真

口腔外より腫瘍部を口腔内側へ圧迫すると、下顎右側犬歯より小臼歯相当頬側粘膜に弾性軟、可動性の腫瘍(矢印)を認める。

切除術を施行した。オトガイ部に14mmの皮膚切開を行い、皮下組織を鈍的に剥離して腫瘍周囲に到達した。肉眼的には明らかな被膜組織は認められず、腫瘍と周囲組織は境界不明瞭のため、腫瘍を露出しないように十分な安全域を設けて、周囲の筋組織とともに一塊にして切除したのち閉鎖創とした。術中、腫瘍近傍にオトガイ神経の走行を認めたが腫瘍とは接しておらず温存できた。術後オトガイ部の麻痺も出現せず治癒は良好であった。術後1年8か月間経過観察を行ったが再発は認めなかった。

切除標本所見：切除標本の大きさは20×20×16mmで、明らかな被膜は認められなかった(写真4)。

病理組織学的所見：検体表層の被膜構造は観察されなかった。腫瘍は少量の膠原線維と血管から成る間質を含む成熟した脂肪組織から成っており、脂肪組織に取り込まれるように横紋筋線維が認められた。脂肪細胞は大きさがほぼ均等であり、核の異型や脂肪芽細胞は認められなかった。また切除断端に腫瘍の露出はみられなかった(写真5)。

病理組織学的診断：筋肉内脂肪腫。

考 察

いわゆる脂肪腫は軟部組織良性腫瘍では頻度の高い腫瘍であるが、顎口腔領域に発生することは比較的まれとされている^{1,8,9)}。筋肉内脂肪腫は良性の脂肪腫のなかでもまれで、Fletcherら¹⁾の報告によると、その発生率は脂肪腫全体の1.8%で、遠城寺ら⁸⁾は本邦における発生率を1.7%と報告している。発生部位は体幹や四肢の筋肉内に多く、とくに大腿、肩、上腕などが好発部位とされ、年齢は30～60歳台の中老年層に多くみられ、性別は男性に多い^{4,5)}。本腫瘍の顎口腔領域での発生は非常にまれであり、現在までわれわれが渉猟し得たかぎりでは、過去20年間

の本邦での症例は、自験例を含めて8例^{3,9～14)}が報告され、オトガイ部に関するものは自験例が2例目であった。自験例は、年齢が80歳台とこれまでの本邦における報告例のなかで最高齢であった。

骨格筋に異所性に生じる脂肪腫には組織学的に境界の明瞭な筋層間脂肪腫と、浸潤性を呈する本腫瘍とに分類される^{4,5,15,16)}。本腫瘍は筋組織内に発生し、成熟脂肪細胞が筋線維間に浸潤増殖するため、浸潤性脂肪腫とも呼ばれ、筋線維束が腫瘍実質内に認められる。一般に本腫瘍は被膜がなく境界は不明瞭である^{4,7,9)}。一方、筋層間脂肪腫は筋肉間あるいは筋膜と骨の間の脂肪組織より発生し、周囲組織を圧排して増大する^{3,17)}。通常は被膜を有しており、摘出は容易とされている。自験例においては、被膜を有せず境界部分では脂肪組織に取り込まれるように横紋筋線維が認められ、病理組織学的には筋肉内脂肪腫と診断された。しかし、四肢の大きな骨格筋にみられる典型的なものとは異なり、顎顔面領域では表情筋などの骨格筋が皮下浅層に分布することから、通常の皮下脂肪腫であっても横紋筋線維が混在し、一見筋肉内脂肪腫様を呈する場合がある。そのため顎顔面領域にみられる筋肉内脂肪腫様の脂肪性増生の多くは、本質的には通常の皮下脂肪腫の一型とする報告もある¹⁸⁾。自験例においても、画像所見では腫瘍は皮下脂肪組織に連続性を示す部分もあり、通常の皮下脂肪腫とみなせる所見を認めたが、病理組織学的所見では本腫瘍に特徴的な所見を呈していたことから筋肉内脂肪腫と診断された。

鑑別疾患としては、筋肉内の高分化型脂肪肉腫と瀰漫性脂肪腫症が挙げられる^{3,5)}。瀰漫性脂肪腫症は、病理組織学的に鑑別困難であるが、若年者の体幹や四肢に広範囲に発生するなど本腫瘍と臨床像が異なることから鑑別され、

写真3 MRI

- A: T1 強調像 (矢状断) ; 右側オトガイ部の皮膚直下に高信号部分 (矢印) を認める.
 B: T2 強調像 (左: 矢状断・右: 水平断); 右側オトガイ部の皮膚直下に高信号部分 (矢印) を認める.
 C: 脂肪抑制 T2 強調像 (左: 矢状断・右: 水平断); 腫瘍内部の信号強度は著明に低下 (矢印) している.

写真4 切除標本写真

切除標本の大きさは20×20×16mmで、明らかな被膜は認められない。

高分化型脂肪肉腫は本腫瘍と似た臨床像を呈するが、病理組織学的に脂肪芽細胞や核の異型性を認めることから鑑別される^{1,3,19)}。画像所見では、CTおよびMRIにおいて、脂肪腫は皮下脂肪と同様の均一な信号強度を示す^{20,21)}。一方、脂肪肉腫では基本的にCTおよびMRIで内部不均一な像を呈し、CTでは脂肪腫より高信号を呈し、MRIではとくに低分化な部位において、T1強調像で低信号、T2強調像で高信号を呈すると報告されている^{22~24)}。したがって、脂肪腫と脂肪肉腫の画像での鑑別はある程度可能であるが、確定診断は病理組織学的診断に委ねられることが一般的である。自験例においては、MRIではT1およびT2強調像とも高信号を呈し、脂肪抑制T2強調像では腫瘍内部の信号強度は著明に低下していたので、画像所見からは脂肪腫を疑った。

治療は外科的に行われ、筋層間脂肪腫では被膜が存在し摘出は比較的容易であるが、本腫瘍では被膜がないため、腫瘍周囲組織を含めて切除することが必要である^{3,9,17)}。自験例においては、手術時に腫瘍の境界が不明で被膜の存在を認めなかったため、周囲組織より切除を行った。周囲筋組織を切除した際の断端に腫瘍組織はみられず、またオートガイ神経に近接していたが腫瘍との連続性は認めなかった。腫瘍周囲組織の切除が不十分な場合には、腫瘍の残存が懸念され再発につながる。したがって術前の画像診断はもち

写真5 病理組織像 (H-E 染色, A: ×40, B: ×200)

被膜構造は観察されず、少量の膠原線維と血管から成る間質を含む成熟した脂肪組織から成り、脂肪組織に取り込まれるように横紋筋線維が認められる。脂肪細胞は大きさがほぼ均等であり、核の異型や脂肪芽細胞は認められない。

ろん、術中に被膜の有無や腫瘍の浸潤の程度などを把握し、周囲健常組織を含めた切除を行うことが重要である⁹⁾。腫瘍の発生部位によっては機能保存の見地から切除が困難となる場合も考えられるが、本腫瘍が疑われる場合は、腫瘍細胞である成熟脂肪細胞が筋線維間に浸潤性に増殖するという本腫瘍の生物学的な特徴を考慮し、浸潤部位では周囲組織を含めた切除を行うことが望ましい。

本腫瘍の臨床症状として、多くは無痛性の腫脹や腫瘤形成の報告がみられる^{4,5)}が、骨格筋の弛緩時には扁平で柔らかく、収縮時には硬く類円形の腫瘤として触知されることも報告されている¹⁹⁾。本腫瘍は浅在性脂肪腫より深層に位置し、発育が緩慢で症状が出にくいいため、比較的大きくなってから発見される例が多く^{14,25)}、また疼痛を伴わないことも多く^{4,5)}、軽度の腫脹や腫瘤形成では比較的早

期の受診にはつながらないものと思われる。自験例では、咀嚼や会話などによる口や顔面動作時にオトガイ部の腫瘍の硬さや形態が変化することはない、病変を自覚してから8年を経過していた。

自験例は、腫瘍切除後1年8か月まで経過観察し再発の徴候はなかったが、術後2年経過時に脳梗塞に罹患し来院できず、その後の直接経過観察は困難となっている。

結 語

今回われわれは、81歳男性のオトガイ部に発生した筋肉内脂肪腫の1例を経験したので、その概要に若干の文献的考察を加えて報告した。

本論文の要旨は第56回（社）日本口腔外科学会総会・学術大会（2011年10月、大阪市）において発表した。

本論文に関して、開示すべき利益相反状態はない。

引用文献

- 1) Fletcher CD and Martin-Bates E : Intramuscular and intermuscular lipoma: neglected diagnoses. *Histopathology* 12: 275-287, 1988.
- 2) Hashitani S, Toyohara Y, et al : Intramuscular lipoma of the cheek: report of two cases. *Oral Sci Int* 5: 69-71, 2008.
- 3) 成之坊昌功, 寺井功一, 他 : 小児の口底部に発生した筋肉内脂肪腫の1例. *日口外誌* 49: 198-201, 2003.
- 4) Nielsen GP and Mandahl N : Lipoma. In Fletcher CDM, Bridge JA, et al, eds; *WHO Classification of Tumours, WHO Classification of Tumours of Soft Tissue and Bone*, 4th Ed. IARC Press, Lyon, 2013, p20-21.
- 5) Weiss SW and Goldblum JR : *Enzinger and Weiss's Soft Tissue Tumors*. 5th Ed. Mosby-Year Book Inc, St Louis, MO, 2008, p456-458.
- 6) 石川浩之, 長谷川誠紀, 他 : 胸壁発生型筋肉内脂肪腫の一例. *日呼外会誌* 16: 813-815, 2002.
- 7) Greenberg SD, Isensee C, et al : Infiltrating lipomas of the thigh. *Am J Clin Pathol* 39: 66-72, 1963.
- 8) 遠城寺宗知, 岩崎 宏, 他 : わが国における良性軟

部組織腫瘍 —8086例の統計的観察—. *癌の臨床* 20: 594-609, 1974.

- 9) 大石建三, 黒田 卓, 他 : 頬粘膜下に発生した筋肉内脂肪腫の1例. *日口外誌* 52: 716-719, 2006.
- 10) 中山康弘, 西嶋克巳, 他 : 舌両側性に発生した浸潤性脂肪腫の1例. *日口外誌* 32: 1068-1073, 1986.
- 11) 坂 宗尚, 白砂兼光, 他 : 舌に発生した筋肉内脂肪腫. *日口外誌* 34: 1433-1436, 1988.
- 12) Ayasaka N, Chino T Jr, et al : Infiltrating lipoma of the mental region: report of a case. *Br J Oral Maxillofac Surg* 31: 388-390, 1993.
- 13) 中野友明, 愛場庸雅, 他 : 舌に発生した筋肉内脂肪腫の1例. *耳鼻咽喉科・頭頸部外科* 74: 953-955, 2002.
- 14) 田鍋志保, 長谷川 誠, 他 : 舌片側を占める筋肉内脂肪腫症例. *口腔・咽喉科* 18: 453-457, 2006.
- 15) 岩崎 宏 : 脂肪性腫瘍. 特に異型脂肪腫様腫瘍と脱分化脂肪肉腫の多様性について. *病理と臨床* 22: 120-126, 2004.
- 16) 宇井啓人, 栗原邦弘, 他 : 筋肉内脂肪腫の3症例. *日形会誌* 20: 423-426, 2000.
- 17) 青池和彦, 赤堀 治, 他 : 筋肉内脂肪腫と筋層間脂肪腫について. *臨整外* 21: 559-563, 1986.
- 18) Manor E, Sion-Vardy N, et al : Oral lipoma: analysis of 58 new cases and review of the literature. *Ann Diagn Pathol* 15: 257-261, 2011.
- 19) Kindblom LG, Angervall L, et al : Intermuscular and intramuscular lipomas and hibernomas. a clinical, rentgenologic, histologic, and prognostic study of 46 cases. *Cancer* 33: 754-762, 1974.
- 20) 早坂和正, 斎藤泰博, 他 : 脂肪肉腫のCT. *日本医放会誌* 45: 1517-1520, 1985.
- 21) 干谷安彦, 平山裕次, 他 : 頸部筋肉内脂肪腫の1例. *耳鼻咽喉科・頭頸部外科* 75: 992-995, 2003.
- 22) 伊藤隆安, 中西啓介, 他 : 脂肪系腫瘍に対するMRI, CTの有用性. *中部整災誌* 35: 1677-1678, 1992.
- 23) 玉川光春 : 軟部腫瘍 脂肪を含む腫瘍. *画像診断* 29: 48-51, 2009.
- 24) Matsumoto K, Hukuda S Jr, et al : MRI findings in intramuscular lipomas. *Skeletal Radiol* 28: 145-152, 1999.
- 25) Piattelli A, Fioroni M, et al : Intermuscular lipoma of the cheek: a case report. *J Oral Maxillofac Surg* 58: 817-819, 2000.