著明な下顎の偏位をきたした下顎頭骨内脂肪腫の1例

盛岡昌史^{1,2)}・草深佑児¹⁾・峯村俊一¹⁾
山崎正²⁾・栗田浩³⁾・西澤理史⁴⁾

A case of intraosseous lipoma in the mandibular condyle that caused marked mandibular deviation

MORIOKA Masafumi^{1,2)}・KUSAFUKA Yuji¹⁾・MINEMURA Toshikazu¹⁾
YAMAZAKI Tadashi²⁾・KURITA Hiroshi³⁾・NISHIZAWA Rishiho⁴⁾

Abstract: Lipoma is a common benign tumor of the soft tissue. It predominantly occurs in subcutaneous regions, but can also be found in intramuscular, retroperitoneal, and intraosseous locations. According to the literature, the incidence of intraosseous lipoma is less than 0.1% of all bone tumors. Intraosseous lipoma generally occurs in the metaphysis of long bones and the calcaneus, and is rarely seen in the jawbone. To our knowledge, only 25 cases of intraosseous lipoma of the jawbone were reported from 1948 to 2014. There have been no documented cases of intraosseous lipoma arising in the mandibular condyle. In this paper, we reported a rare case of intraosseous lipoma arising in the right mandibular condyle and causing marked mandibular deviation in an 86-year-old woman.

Key words: lipoma (脂肪腫), intraosseous lipoma (骨内脂肪腫), mandible (下顎骨), mandibular condyle (下顎頭)

緒 言

脂肪腫は軟組織に高頻度にみられる非上皮性良性腫瘍であるが、骨内の発生頻度は低く、骨に発生する腫瘍の0.1%以下といわれている¹⁻³⁾。なかでも顎骨発生の脂肪腫の報告は少なく、1948年から2014年までに自験例を含めて26例が報告されているにすぎない²⁻¹³⁾。

今回われわれは下顎頭に脂肪腫が生じた、きわめてまれな1例を経験したので報告する。

症 例

患 者: 86歳, 女性。

初 診: 2010年3月。

主 訴: 右側耳前部から頸部の痛み。

既往歴: 高血圧症, 骨粗鬆症。

2004年に頭部打撲にて当院救急外来受診。

現病歴: 5, 6年前より右側耳前部の腫脹に気付くが放置していた。2010年2月頃より同部から頸部にかけての自発痛を感じ近在医院を受診し、当院耳鼻咽喉科での精査を勧められた。耳鼻咽喉科では顔貌の変形による痛みと診断され、当科を紹介された。

現 症:

全身所見: 身長150cm, 体重35kg, 栄養状態良好。

口腔外所見: 顔貌は左右非対称, 口裂の傾斜, オトガイが左側前方へ偏位していた。最大開口量は歯槽頂間で45mmと開口障害はなく, 開口時には閉口時から下顎正中線がさらに10mmあまり左側へ偏位した。触診にて右側耳前部皮下に約35mm大の境界明瞭な骨様硬の膨隆が触知され, 同部に圧痛はなかったが, 右側耳前部から頸部の胸鎖乳突筋に沿った範囲で自発痛を訴えていた(写真1)。

口腔内所見: 上下無歯顎であり, 口腔粘膜に異常は認めなかった。10年あまり前に作製した義歯は, 右側では軽度

¹⁾ 飯田市立病院歯科口腔外科

(主任: 峯村俊一 部長)

²⁾ 長野県厚生連 小諸厚生総合病院歯科口腔外科

(主任: 盛岡昌史 医長)

³⁾ 信州大学医学部歯科口腔外科学講座

(主任: 栗田 浩 教授)

⁴⁾ 国立病院機構 信州上田医療センター歯科口腔外科

(主任: 西澤理史 医長)

¹⁾ Department of Dentistry and Oral Surgery, Iida Municipal Hospital (Chief: Dr. MINEMURA Toshikazu)

²⁾ Department of Dentistry and Oral Surgery, Komoro General Hospital (Chief: Dr. MORIOKA Masafumi)

³⁾ Department of Dentistry and Oral Surgery, Shinshu University School of Medicine (Chief: Prof. KURITA Hiroshi)

⁴⁾ Department of Dentistry and Oral Surgery, Shinshu Ueda Medical Center (Chief: Dr. NISHIZAWA Rishiho)

受付日: 2013年2月26日

採択日: 2016年1月26日

写真1 初診時顔貌写真

顔貌は左右非対称、右口角が下垂しオトガイが左側へ偏位している。

写真2 パノラマX線写真

右側下顎頭は腫大し、X線透過性の亢進を認める。下顎頭外形の骨皮質の連続性は保たれている。

写真3 CT画像

A: 辺縁明瞭であり、中心部に点状の不透過部位を認める。
B: 右側下顎頭が関節結節を超えて35×30mm大に肥大しており、下顎頭辺縁骨皮質骨面は不整である。

な咬合接触がみられ、左側では鉗状咬合と反対咬合を呈していた。

画像所見:

X線所見;パノラマ撮影では右側下顎頭が左側に比べて腫大し、X線透過性の亢進を認めたが、辺縁皮質骨の連続性は保たれていた(写真2)。2004年、当院救急外来受診時に撮影した頭部単純X線写真でも、右側下顎頭の腫大があり、下顎が左側へ偏位しており、今回までの間(6年間)に下顎頭がさらに増大し、偏位量が大きくなっていた。

CT所見;右側下顎頭は35×30mm大であり、前方が関節結節を超えて不正形に腫大していた。腫大部の表面は粗造で、凹凸がみられた。腫瘤の内部は骨梁状のX線不透過像と透過像が混在しており、皮質骨は菲薄化していた(写真3)。

骨シンチグラフィ所見;腫大した右側下顎頭にテクネチウム 99m (^{99m}Tc) の集積像を認めた(写真4)。

臨床診断;右側下顎頭良性骨腫瘍。

処置および経過;2010年4月、全身麻酔下に右側耳前

写真4 骨シンチグラフィー像
右側下顎頭にテクネチウム 99m (^{99m}Tc) の集積を認める。

写真5 摘出標本写真
皮質骨は菲薄化していたが保たれている。
下顎頭関節骨面は凹凸不整である。

部から側頭部に長さ約 10cm の弧状皮膚切開を加え、側頭筋膜に沿って剥離し、頬骨弓基部、関節包を明示した。関節包に切開を加えて腫瘍を明示し、下方は下顎切痕の高さまで剥離した。次に腫瘍の下端より 5 mm 下方にて下顎頭を骨切りし、前内側部の外側翼突筋付着部を丁寧に剥離して腫瘍を一塊として摘出した。関節円板は保存した。摘出標本のサイズは 40×35×30mm であり、表面は分葉形を呈していた。皮質骨の一部は黄色を示し、触診にて羊皮紙様感を認めた(写真5)。

写真6 術後6か月顔貌写真
下顎の偏位は改善し、顔貌は左右対称である。

写真7 術後6か月パノラマX線写真
下顎の偏位は改善し、右下顎頭には再発所見など認めない。

術後は、術前に使用していた総義歯を微調整するだけで使用可能となり、手術翌日より装着し経口摂取ならびに開口訓練を開始した。顔貌は左右対称となり、顎運動の際にみられた下顎の左側への偏位は消失した。顔面神経麻痺はなく、術前に訴えていた頬頸部の疼痛は消退した(写真6, 7)。

病理組織学的所見：既存の骨髓を置換しながら、骨梁間を埋めるように成熟脂肪細胞が増殖し、骨梁の密度低下がみられた。脂肪細胞はほぼ均一な形状を示し、異型を認め

写真8 病理組織学的写真

A：骨梁間を埋めるように脂肪細胞が増殖しており、骨梁の一部に骨硬化像（矢印）を認める（HE染色 ルーベ像）。

B：腫瘍はよく成熟した脂肪細胞から成り、異型は認めない（HE染色 ×100）。

なかった。また、骨梁の一部に骨硬化像がみられた（写真8）。

病理組織学的診断：顎骨内脂肪腫。

考 察

脂肪腫は腫瘍実質が成熟した脂肪細胞から成る非上皮性の良性腫瘍であり、脂肪細胞が存在する軟組織すべてに発生する。とくに頭頸部、背部、大腿部などに好発するが、頭頸部領域では頬粘膜、舌、口底などに発生する頻度が高い⁴⁾。病理組織学的には、種々の間葉系組織要素が混在することがあり、線維脂肪腫、血管脂肪腫、筋脂肪腫などの亜分類がある¹¹⁾。一方、骨内に脂肪腫が発生することはまれとされ、骨内脂肪腫の発生頻度は全骨腫瘍の0.1%以下といわれ、多くは大腿骨、脛骨、腓骨などの長管骨や踵骨、腸骨などに発生する^{1~3)}。骨内脂肪腫は発生部位にて、骨内（骨髓内・皮質骨内）と皮質骨表層（骨膜外層・骨膜下）に分けられている¹³⁾。

1948年から2014年までの67年間で、われわれが渉猟し得た顎骨における脂肪腫の報告は25例で、発生部位は上顎が3例、下顎前歯部4例、下顎臼歯部8例、下顎前歯～臼歯部5例、下顎枝4例、下顎頸1例であった^{2~13)}。自験例は過去に報告がない下顎頭に発生した顎骨内脂肪腫であった（表1）。

顎骨内脂肪腫の発症年齢は最低年齢15歳から最高年齢86歳で、平均年齢は47.4歳と中高年者に多い傾向があった。性差は男性12例、女性14例と女性に多くみられた。

臨床症状は圧痛、腫脹、オトガイ部知覚異常、三叉神経痛様疼痛、顎関節痛などがあるが、自覚症状がなくX線撮影により偶然発見された症例が9例みられた。

組織型は骨内脂肪腫が16例と最も多く、ついで骨内血

管脂肪腫が4例、骨膜外層脂肪腫が2例、骨膜外層軟骨脂肪腫が1例、骨内線維脂肪腫が1例、組織型不明が2例であった。組織型にて大きさ、臨床症状を比較してみると、骨内血管脂肪腫、骨膜外層脂肪腫、骨膜外層軟骨脂肪腫では、腫瘍が広範で大きな傾向があった。われわれが渉猟し得た範囲では、骨内脂肪腫においてはBasheerら¹²⁾の報告例が40×25mmと最も大きかったが、自験例はそれを上回る大きさであった。自験例では、受診6年前のX線写真でも右側下顎頭の腫大が確認できることから、自験例は長い時間をかけて腫大したものと考えられる。腫脹以外の症状（開口障害、疼痛、咀嚼障害など）が最近まで出現せず、患者が高齢で顔貌の変形を気にしなかったため、医療機関へのコンサルトが遅れ、このようなサイズに腫大したものと思われた。

顎骨内脂肪腫の臨床症状は、腫瘍の発生部位と大きさに依存しており、神経に近接せず、感染が生じにくい部位では無症候性に経過すると報告¹¹⁾されている。自験例では、下顎頭部の腫瘍の増大により下顎神経の関節枝が圧迫され、神経痛様の顎部に放散する痛みが引き起こされていたと考えられる。

骨内脂肪腫の成因については、Mullerら¹⁴⁾や、Hartら¹⁵⁾の報告による外傷を起因とする骨髓内仮骨の脂肪変性を成因とする外傷説、Bagnoudら¹⁶⁾の報告による陳旧性の骨梗塞を成因とする梗塞説があるが不明である。自験例は2004年に頭部打撲にて当院救急外来を受診しており、その際のX線所見でも右側下顎頭の腫大があり、下顎の左側への偏位を認めた。高齢のため、過去に数回の転倒既往があると家人の報告を受けているが、外傷が自験例の原因であるかどうかは不明である。Gonzalez-Perezら⁹⁾は顎関

表1 顎骨内脂肪腫報告例

症例 報告者	報告年	年齢	性別	存在部位および大きさ	臨床症状	組織型
1 Oringer	1948	37	女	下顎第二大臼歯根尖部	圧痛	lipoma
2 Newman	1957	65	男	下顎第三大白歯部	無症状	fibrolipoma
3 Salzer et al	1965	44	女	上顎（詳細部位不明）	腫脹	不明
4 Johnson	1969	21	男	下顎第二～三大臼歯部嚢胞	腫脹、疼痛	lipoma
5 Polte et al	1976	39	男	下顎第二、第三大白歯間	オトガイ部知覚異常	angiolipoma
6 Lewis et al	1980	56	女	下顎犬歯～第二大臼歯	オトガイ部知覚異常	angiolipoma
7 Steiner et al	1981	50	男	下顎顎堤後方～下顎枝前縁	無症状	parosteal lipoma
8 Miller et al	1982	51	男	下顎第三大白歯部	無症状	lipoma
9 Heir et al	1983	43	女	下顎枝前方	三叉神経痛様疼痛	lipoma
10 Barker et al	1986	53	女	下顎第三大白歯残根根尖	無症状	lipoma
11 To et al	1991	66	女	上顎結節部	疼痛	不明
12 Manganaro et al	1994	51	男	下顎枝部	無症状	angiolipoma
13 小網ら	1995	59	男	下顎中切歯根尖部	歯肉腫脹	lipoma
14 Sakashita et al	1998	17	男	上顎第二乳臼歯根尖部	無症状	lipoma
15 Nikola et al	2001	62	女	下顎右犬歯～左犬歯部	腫脹	lipoma
16 鏡内ら	2003	35	男	下顎第一小臼歯～第一大臼歯 (25×15×10mm)	疼痛	lipoma
17 Tsuji et al	2003	64	女	下顎第三大白歯～下顎枝部	圧痛	lipoma
18 Keogh et al	2004	56	女	下顎第三大白歯部	無症状	lipoma
19 橋口ら	2008	24	女	下顎側切歯～第二小臼歯部	無症状	lipoma
20 Cakarar et al	2009	45	女	下顎右切歯～左犬歯部	無症状	lipoma
21 Gonzalez-Perez et al	2010	61	女	下顎頸部 (20mm)	顎関節痛	lipoma
22 Gultekin et al	2012	64	男	下顎中切歯～犬歯部 (27×18×14mm)	腫脹	parosteal chondrolipoma
23 Hemavathy et al	2012	21	女	下顎右切歯～左下顎枝	腫脹	angiolipoma
24 Sun et al	2013	48	男	下顎左犬歯部～右大白歯部 (70×50×50mm)	腫脹	parosteal lipoma
25 Basheer et al	2013	15	男	下顎中切歯～第二大臼歯部 (40×25mm)	腫脹	lipoma
26 自験例	2010	86	女	下顎頭部 (40×35×30mm)	頸部痛	lipoma

節部における骨内脂肪腫について、顎関節への長期的な負荷に起因して生じる可能性を指摘している。

Milgram¹⁷⁾は、骨内脂肪腫を病理組織学的所見より、病期を3 stageに分類している。Stage Iは、充実した脂肪細胞で構成され、骨融解病変を認める脂肪腫で、Stage IIは腫瘍の一部に脂肪壊死による石灰化を認める脂肪腫、Stage IIIは脂肪壊死が著明であり、石灰化沈着や嚢胞性変化を認める脂肪腫である。自験例は成熟した脂肪細胞により構成されており、一部に石灰化を認めたが、壊死部はなく、Stage Iに相当すると考えられた。また、骨内脂肪腫が悪性転化した報告¹⁸⁾もある。

骨内脂肪腫の画像診断において、Milgram¹⁷⁾は単純X線写真にて、辺縁に白線を伴う単房性X線透過像を呈し、

しばしば内部に骨化を認める場合、病変は良性の可能性が高いと報告している。また、単純X線写真にて境界が不明瞭で、溶骨性所見があり軟組織との連続性を認める場合、悪性の脂肪腫を疑う必要があると報告している。自験例は下顎頭が肥大し、辺縁骨皮質骨面は凹凸不整であった。また、骨シンチグラフィーにて集積を認めており、悪性病変も疑ったが、表面骨皮質は保たれており、辺縁に白線を伴う単房性X線透過像を呈し、中心部に骨化を認める所見があり、術前の臨床経過、画像診断から良性と診断した。顎骨内脂肪腫は腫脹を主訴とした症例も認めるが、自験例ほど骨が凹凸を伴って腫大していた症例はなかった。自験例では脂肪腫は徐々に増大しており、それに応じる形で骨の新生、腫大が生じ、骨シンチグラフィーにて集積を認め

ていたものと考えられる。本腫瘍は脂肪組織と類似するため、CT撮影を行い、Hounsfield unit (Hu) から診断が可能とする報告もある。MRI撮影ではT1強調像にて脂肪と同程度の高信号を示し、T1強調脂肪抑制像で病変部も抑制像として描出され、診断に有用であるといわれるが、良性の多形性脂肪腫などではMR画像では診断できない場合もある^{19, 20)}。

本腫瘍に対する治療は、多くの症例で搔爬術または摘出術が行われている。顎関節部に生じた腫瘍の治療法に関しては、Gonzalez-Perez ら⁹⁾は腫瘍摘出による手術リスクを考慮すると、術前の腫瘍良悪性鑑別診断が重要だと述べている。しかし、正確な鑑別診断は困難な場合も多く、患者が機能障害や苦痛を訴える場合には、良悪性に関わらず、摘出術が必要だとしている。また、骨内脂肪腫が悪性転化した報告もあり¹⁸⁾、外科的切除が第一選択と考えられる。自験例でも右側下顎頭切除による腫瘍摘出を施行し、術後経過は良好である。しかし、術後に開口障害を生じる可能性が高いため、術後早期の開口練習や咬合改善が必要である。自験例では、手術翌日より義歯を使用し咬合改善を行うとともに、開口訓練を行ったため経過良好であったと考えられる。本腫瘍の悪性転化の可能性、機能障害を考慮し、今後も十分な経過観察が必要と考えられる。

結 語

86歳女性に生じ、下顎頭骨内脂肪腫にて著明な咬合不全をきたした1例を経験したので報告した。

謝辞

稿を終えるにあたり、病理組織学的診断に関してご教授いただきました飯田市立病院臨床病理科 伊藤信夫先生に深謝致します。

本論文要旨は第55回(社)日本口腔外科学会総会・学術大会(2010年10月、千葉)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) 五嶋孝博, 十字琢夫, 他: 坐骨結節に発生した骨内脂肪腫の1例. 整・災外 41: 1303-1306, 1998.
- 2) 橋口範弘, 島原政司, 他: 下顎骨内に発生した脂肪腫の1例. 日口外誌 54: 12-15, 2008.
- 3) 鏡内 肇, 平沼 勉, 他: 下顎骨に発生した脂肪腫

の1例. 日口外誌 49: 394-396, 2003.

- 4) Keogh PV, McDonnell D, et al: Intraosseous mandibular lipoma (IML): a case report and review of the literature. J Ir Dent Assoc 50: 132-134, 2004.
- 5) 小網達也, 西嶋 寛, 他: 下顎骨に発生した脂肪腫の1例. 日口外誌 41: 875-877, 1995.
- 6) Nikola B, Krasic D, et al: Intraosseous mandibular lipoma: a case report and review of the literature. J Oral maxillofac Surg 59: 1367-1371, 2001.
- 7) Tsuji T, Kida M, et al: Intraosseous lipoma of the mandible: a case report. Hosp Dent Oral Maxillofac Surg 15: 135-137, 2003.
- 8) Cakarar S, Selvi F, et al: Intraosseous lipoma of the mandible: a case report and review of the literature. J Oral Maxillofac Surg 38: 900-902, 2009.
- 9) Gonzalez-Perez LM, Perez-Ceballos JL, et al: Mandibular intraosseous lipoma: clinical features of a condylar location. Int J Oral Maxillofac Surg 39: 617-620, 2010.
- 10) Gultekin SE, Kahraman A, et al: Parosteal osteochondrolipoma of the mandible. J Oral Maxillofac Pathol 16: 280-282, 2012.
- 11) Hemavathy S, Roy S, et al: Intraosseous angiolipoma of the mandible. J Oral Maxillofac Pathol 16: 283-287, 2012.
- 12) Sun Z, Sun L, et al: Ossifying parosteal lipoma of the mandible: a case report and review of the literature. Dentomaxillofac radiol 42: 57852073, 2013.
- 13) Basheer S, Abraham J, et al: Intraosseous lipoma of mandible presenting as a swelling. J Oral maxillofac Pathol 12: 126-128, 2013.
- 14) Muller MC, Robbins JL, et al: Intramedullary lipoma of bone; report of a case. J Bone Joint Surg Am 42-A: 517-520, 1960.
- 15) Hart JA: Intraosseous Lipoma. J Bone Joint Surg Br 55: 624-632, 1973.
- 16) Bagnoud F, Thevoz F, et al: Intraosseous lipoma, manifestation of a chronic infarct. Apropos of a case. J Chir 94: 165-176, 1967.
- 17) Milgram JW: Intraosseous lipomas; a clinicopathologic study of 66 cases. Clin Orthop Relat Res 231: 277-302, 1988.
- 18) Milgram JW: Malignant transformation in bone lipomas. Skeletal Radiol 19: 347-352, 1990.
- 19) Milgram JW: Intraosseous lipomas; Radiologic and pathologic manifestations. Radiol 167: 155-160, 1988.
- 20) Darling MR and Daley TD: Radiolucent lesion of the anterior mandible. Oral Surg Oral Med Oral pathol Oral Radiol Endod 99: 529-531, 2005.