下唇粘膜にみられた黄色腫の1例

星野隆弘・田中俊一・亀山忠光
朱雀直道・谷村 晃*

A case of xanthoma of lower lip mucosa

Takahiro HOSHINO・Shunichi TANAKA・Tadamitsu KAMEYAMA
Chokudo SUJAKU・Akira TANIMURA

Abstract: A case of solitary xanthoma without hyperlipoproteinemia arising from the lower lip mucosa in a 14 year-old was described.

Xanthoma is a tumor-like lesion made up chiefly of xanthoma cells, occasional Touton-type giant cells, and varying amounts of fibrous connective tissue.

This lesion is multiple and occurs in association with hyperlipoproteinemia.

Occasionally a solitary lesion occurs in the skin without hyperlipoproteinemia, but is very rare in the oral mucosa.

Key words: xanthoma, solitary xanthoma, oral mucosa

緒 言

黄色腫は、石川¹⁾によると多量の脂質を含有する黄色腫細胞を特徴とする腫瘍状病変で、組織球性疾患の一例としている。それは、皮膚に単発性あるいは多発性に発現し、また、脂質代謝障害に関連して発現する 경우가多く²⁾、口腔粘膜に発現することはまれとされている^{1,3)}。

しかも、脂質代謝障害を伴わず、口腔粘膜に単独で発現することはきわめてまれようである。

今回、われわれは口腔内に脂質代謝障害を伴わず、単発性にみられた黄色腫の1例を経験したので、その概要を報告する。

症 例

患 者： 14歳 女性。

久留米大学医学部口腔外科学教室
(主任：朱雀直道教授)

* 久留米大学医学部第2病理学教室*
(主任：中島輝之教授)

Department of Oral Surgery, Kurume University School of Medicine (Chief: Prof. Chokudo Sujaku)

* The Second Pathology, Kurume University School of Medicine (Chief: Prof. Teruyuki Nakashima)

受付日：昭和59年2月23日

初 診：昭和58年4月

主 訴：右側下唇粘膜部の無痛性の腫瘍形成。
家族歴および既往歴：特記すべき事項なし。

現病歴：初診より約2年前に、たまたま鏡をみたところ、右側下唇粘膜の腫瘍に気づくも自覚症状がないため放置した。初診より1週間ほど前、会話時に腫瘍がみえることを友人より指摘され、気になり当科へ来院した。

現 症：全身所見：体格中等度、栄養状態は良好で全身の皮膚等に腫脹あるいは黄色斑はなく、その他に異常は認められない。

局所所見：顔貌は左右対称で、顔色正常。口腔内所見は2I相当の下唇粘膜に、10×8mmの半球状の限局性腫瘍を認め、健康粘膜色、表面は平滑であった。触診により周囲組織とは可動性で境界明瞭な弾性軟の腫瘍を認めた。圧痛は認められなかった。

臨床検査所見：表1、2のとおり、脂質代謝異常もなく、その他特記すべき異常は認められない。

臨床診断：下唇粘膜の良性腫瘍の疑い。

処置および経過：上記診断にて昭和58年4月外来にて、局所麻酔下に腫瘍の摘出術を行った。腫瘍は、周囲組織との癒着もなく一塊として容易に摘出できた。

術後の経過は良好で、半年経過した現在再発傾向は認められない。

摘出物所見：腫瘍は8×4×4mmの楕円形、全体的に黄色調を呈し、弾性軟で薄い被膜に被われていた(写真1)。

剖面は黄色の充実性で、一部に赤褐色の小斑点を認め

写真1 摘出物所見

写真3 病理組織所見 (H-E, ×10)

写真2 摘出物所見 (剖面)

写真4 病理組織所見 (H-E, ×200)

表 1 血液一般ならびに尿検査成績

血液一般検査	
白血球数	$43 \times 10^3 / \text{mm}^3$
赤血球数	$412 \times 10^4 / \text{mm}^3$
血色素量	12.9 g/dl
ヘマトクリット値	38.7%
血小板数	$21 \times 10^4 / \text{mm}^3$
尿検査	
色	淡黄色
pH	6.0
蛋白	(-)
糖	(-)
ケトン体	(-)
ビリルビン	(-)
潜血	(-)
ウロビリノーゲン	Normal
混濁 (塩)	(-)

表 2 血液生化学検査成績

T. Bill	0.74 mg/dl	T. Cho	159.23 mg/dl
D. Bill	0.25 mg/dl	HDL-Cho	71.5 mg/dl
GOT	13.34 K.U.	TG	71 mg/dl
GPT	5.41 K.U.	PL	207 mg/dl
LDH	192.32 W.U.	LP-Fraction	
Al.P	9.08 K.A.U.	α	41.2 %
γ -GTP	3.99 m/U	pre β	15.2 %
T. Prot.	6.72 g/dl	mid-band	0 %
ZTT	11.87 Ku.U	broad β	0 %
TTT	2.78 Ku.U	β	43.7 %
Ch-E	1.15 Δ pH	chylo	(-)
Uric Acid	3.6 mg/dl	FFA	(-)
Glucose	96 mg/dl		

芽細胞は、わずかに摘出物の周囲に認めるだけであった (写真3)。

拡大像では、細胞は比較的大きく、泡沫状の胞体を持ち、中心部に比較的小型の核を有した細胞が敷石状に配列していた。また、ところどころに異物型巨細胞はみられたが、典型的な、Touton 型巨細胞はみられなかった (写真4)。

た (写真2)。
病理組織学的所見：薄い線維性結合織で境界され、好酸性の細胞は充実性の増殖像を示していた。間質はわずかで、その中にごく少数の毛細血管を認めた。線維

写真 5 病理組織所見 (PAS, ×400)

写真 6 病理組織所見 (Oil-red, ×100)

PAS 染色では陰性, Oil-red 染色は陽性を示した (写真 5, 6)。

以上の臨床ならびに病理組織学的所見より, 右下唇粘膜部に発現した単発性の黄色腫と診断した。

考 察

黄色腫は, 多量の脂質を含有して泡沫状外観を呈する黄色腫細胞の増殖からなる病変で, 黄色腫細胞のほかには, 異物型巨細胞や Touton 型巨細胞などがみられ, 線維組織の増殖は弱いとされている²⁾。この病変は腫瘍状を呈するが, 多くは全身のあるいは局所的な脂質代謝障害と関連した変化で, 真の腫瘍でなく, 組織球由来の疑腫瘍性病変とされている^{1,3,4)}。

しかし, 本疾患の発現度の高い皮膚科では, 本疾患は, 細胞の全身のあるいは局所的な脂質代謝障害性病変として, 一括して lipidoses として取り扱われている⁴⁾。

すなわち, lipidoses を大きく 4 群に分けており, lipidoses を伴うものとして,

1. Systemic lipidoses with altered serum lipoprotein values
2. Tissue storage lipidoses

の 2 型を, さらに lipidoses を伴わないものとして,

3. Histiocytosis X
4. Predominantly cutaneous lipidoses

の 2 型を分類し, 特に 4 型に属するものとして, 次の 8 つをあげている。

- Diffuse normolipemic plane xanthoma
- Verruciform xanthoma
- Juvenile xanthogranuloma
- Necrobiotic xanthogranuloma with paraproteinemia
- Reticulohistiocytosis
- Congenital self-healing reticulohistiocytosis
- Progressive nodular histiocytoma
- Generalized eruptive histiocytoma

この分類に当てはめると, 本症例は lipidoses を伴わず, しかも, 好酸球細胞の増殖を認めず, 4 型の diffuse normolipemic plane xanthoma に類するものと思われる。

それによると, 本疾患は皮膚でもきわめてまれとされ, 単発性で, 境界明瞭な黄色のびまん性病変としてみられ, 主に, 顔面, 眼窩周囲の皮膚に好発するとされている。

組織学的には, 多量の脂質を含有する泡沫細胞が, シート状あるいは群をなして存在し, 間質は乏しく, 泡沫細胞周囲に血管がみられ, まれに Touton 型巨細胞がみられ, Sudan IV 染色陽性とされている。

われわれの症例も, 口腔粘膜にみられた以外は lipidoses を伴わず, 下唇粘膜の黄色の小腫瘍として発現し, 組織学的にも同様の所見を呈した。

このように, lipidoses を伴わないで, 口腔粘膜に単発性の病変がみられたという報告は, 今回われわれが調べたところでは, Chaudhry & Gorlin⁵⁾ (1960) の歯肉単発例の 1 例だけであった。

一方, 血清コレステロールやリン脂質などの脂質代謝障害の部分症として, 口腔内においても同様の病変が出現したという報告が散見される⁶⁻¹³⁾。また, 脂質代謝障害を伴わず皮膚に多発性黄色腫を生ずる播種性黄色腫では, 口腔粘膜に病変をみることがまれではないとされている¹⁴⁾。さらに, lipidoses を伴わず泡沫細胞を有する黄色腫病変として, Lever が 8 つのものを上げているの中に, 口腔領域に出現するものとして verruciform xanthoma があるが, 事実, 坂下ら¹⁵⁾によると多くの報告例がある。

その他としては, juvenile xanthogranuloma に類する疾患として Kjaerheim & Stokke¹⁶⁾, Christensen ら¹⁷⁾の報告もある。

胞体内への脂質貯留の機序については, 組織球の貪食によるものとする考えが多いが, 脂質の産生, 分解, 転化, 浸潤など種々の考えがあり, いまだ明確ではない³⁾。

なお、本疾患の皮膚での単発例では、続発性に白血病、紅皮症および多発性骨髄腫がみられたという報告があるので、本症例においても今後慎重に経過観察していきたいと考えている。

結 語

われわれは、14歳女性の右側下唇粘膜に単発性に発現した黄色腫の1例を経験したので報告した。

本論文の要旨は昭和58年9月10日第43回日本口腔外科学会九州地方部会において発表した。

引 用 文 献

- 1) 石川梧朗監修・口腔病理学Ⅱ. 改訂版, 永末書店, 京都, 東京, 1982, 544-546頁.
- 2) Lever, W.F. and Schumburg-Lever, G.: *Histopathology of the Skin*, 6th Ed, JB Lippincott Co, Philadelphia, Others, 1983, p 383-402.
- 3) 高木 実, 渋谷由起子, 他: 口腔領域の組織球性疾患. 口病誌 46: 43-58 1979.
- 4) WHO: *International histological classification of tumours*. No. 3 *Histological typing of soft tissue tumours*, Geneva, 1969, p 42-43.
- 5) Chaudhry, A.P. and Gorlin, R. J.: A solitary xanthoma of the attached gingiva-Report of a case. *Oral Surg* 13: 449-451 1960.
- 6) Bürger, M. and Grutz, O.: Über hepatosplenomegale Lipidose mit xanthomatosen Veränderungen in Haut und Schleimhaut. *Arch Derm Syph* 166: 542-575 1932.
- 7) Goodman, M., Schuman, H., et al.: Idiopathic lipemia with secondary xanthomas hepatosplenomegaly and lipemia retinalis. *J Pediatr* 16: 596-606, 1940.
- 8) Chapman, F.D. and Kinny, T.D.: Hyperlipemia "Idiopathic lipemia". *Am J Dis Child* 62: 1014-1024 1941.
- 9) Raffle E.J. and Hall, D.C.: Xanthomatosis presenting with oral lesions. *Br Dent J* 125: 62-66 1968.
- 10) Montgomery, H. and Havens, F.Z.: Xanthomatosis-IV. Lipid proteinosis (phosphatide lipoidosis). *Arch Otolaryngol* 29: 650-661 1939.
- 11) Braun-Falco, O. and Braun-Falco, F.: Zum syndrom Diabetes insipidus und disseminierte xanthome. *Z Laryngol Rhinol Otol* 36: 378-387 1957.
- 12) Schirren, C.: Hyperlipidämische Xanthomatosen. *Hantautz* 8: 119-124 1957.
- 13) Svendsen, H.M.: Icterus and xanthomatosis. *Acta Paediatr Scand* 50: 171-176 1961.
- 14) Altman, J. and Winkelmann, R.K.: Xanthoma disseminatum. *Arch Dermatol* 86: 582-596 1962.
- 15) 坂下英明, 玉井健三: Verruciform xanthomaの1例とその文献的考察. 日口外誌 29: 1047-1051 1983.
- 16) Kjaerheim, A. and Stokke, T.: Juvenile xanthogranuloma of the oral cavity-An electron microscopic study. *Oral Surg* 38: 414-425 1974.
- 17) Christensen, R.E., Hertz, R.S., et al.: Intraoral juvenile xanthogranuloma. *Oral Surg* 45: 586-590 1978.