小児の舌に発生した血管脂肪腫の1例

高橋 雅幸・黒川 英人・安藤 俊史
佐藤 泰則・埜口五十雄

A case of angiolipoma of the tongue in a child

Masayuki TAKAHASHI・Hideto KUROKAWA・Toshifumi ANDO
Yasunori SATO・Isao NOGUCHI

Abstract: A rare case of angiolipoma of the tongue is described. A 1-year-old girl was referred to our department by her family doctor. One month previously, when the same doctor had examined the patient's pharyngeal region, she found no lesions on the tongue. Clinical examination revealed a firm, fixed mass, measuring 5×5 mm, on the left side of the dorsum. The lesion was treated by surgical excision under general anesthesia, and there have been no signs of recurrence in the approximately 2 years since the operation.

Key words: angiolipoma (血管脂肪腫), child (小児), tongue (舌)

緒 言

血管脂肪腫は組織学的には成熟した血管腫組織と脂肪腫組織の混在からなる腫瘍で¹⁾, 四肢, とくに前腕部に好発し, 顎口腔領域での発生はきわめてまれである²⁾. 今回われわれは, 舌に発生した血管脂肪腫の1例を経験したので報告する.

症 例

患 者: 1歳9か月, 女児.

初 診: 平成7年12月.

主 訴: 舌背左側後方部の腫瘍.

既往歴, 家族歴: 特記事項なし.

現病歴: 平成7年12月, 母親が食事介助中に患者の舌背左側後方部の小腫瘍の存在に気がついた. 12月, 近医を受診したところ当科を紹介された. なお, 12月, 風邪にて同医を受診し咽頭部を診察された時には舌の異常は指摘されなかった.

現 症:

全身所見: 身長80cm, 体重10.5kg, 四肢体幹には腫瘤などの異常を認めなかった.

口腔外所見: 顔貌は左右対称, 顔色良好で, とくに異常を認めなかった. 所属リンパ節にも異常所見は認めなかった.

口腔内所見: 舌背左側後方部に直径5mmの無痛性の腫瘍を認めた. 腫瘍は境界明瞭, 弾性硬で, 被覆粘膜は正常であった.

臨床診断: 舌良性腫瘍.

処置および経過: 初診後, 腫瘍の増大傾向は認めなかったが(写真1), 家族の希望により, 平成8年4月, GOS全身麻酔下に腫瘍切除術を施行した. 腫瘍は, 周囲組織を含め一塊として切除した(写真2). その後の経過は良好で, 術後2年を経過した現在, 再発を疑わせる所見はない.

病理組織学的所見: 弱拡大像では, ポリープ状の突出部分は, 錯角化を示す重層扁平上皮に被覆され, 内部に脂肪細胞の増殖と血管の増生を認めた(写真3). 強拡大像では, 間質には, 中心部に成熟脂肪細胞の増殖がみられ, 脂肪細胞間には末梢神経線維を伴った血管および膠原線維の増生が認められた. また, 血管壁は肥厚し内腔には血栓像も認められた(写真4). 病理組織学的には血管脂肪腫と診断された.

考 察

血管脂肪腫は, 1912年, Bowen¹⁾による四肢の皮下に発生した症例が最初の報告とされる²⁾. 顎口腔領域

防衛医科大学校歯科口腔外科

(主任: 埜口五十雄教授)

Oral and Maxillofacial Surgery, National Defense Medical College (Chief: Prof. Isao Noguchi)

受付日: 平成10年1月19日

写真1 口腔内写真（手術時）

写真4 病理組織像（H-E染色，強拡大）

写真2 切除物写真

写真3 病理組織像（H-E染色，弱拡大）

では、1976年に、Polte ら³⁾の下顎骨内発生例と Davis ら⁴⁾の硬口蓋発生例が同年に報告されたのが最初と考えられる。顎口腔領域では、それ以降1991年までに10例⁵⁾，さらに1992年以降現在までわれわれが渉猟しえた限りでは4例^{5~8)}の報告をみるにすぎずきわめてまれな疾患といえる。

病理組織学的には成熟した脂肪腫組織と血管腫組織から構成される良性腫瘍で、一種の過誤腫と考えられている。血管脂肪腫の発生率は脂肪腫の5%から17%であると報告されている²⁾が、血管腫組織の比率はさまざまで脂肪腫に近いものから血管や間質成分が密に増生したものまでである。Davis ら⁴⁾は、血管腫成分が結合組織全体の15%から50%を占めるものを真の血管脂肪腫としている。

今回渉猟した限りでは、本邦では顎口腔領域において3例の報告例^{5~7)}を認めるにすぎないが、これらはすべて頬粘膜または頬部に発生した症例であり、舌における症例は自験例が最初と思われた。海外の文献を合わせても、舌ではBrahney ら⁹⁾、Lin ら¹⁰⁾および自験例の3例の報告をみるにすぎない。その3例について検討を行うと（表1）、年齢についてはそれぞれ81歳、49歳、1歳9か月と症例数は少ないながらすべての年齢層にみられ自験例は最年少であった。性別は、男性1例、女性2例で、部位別では舌側縁部1例、舌背部2例だった。大きさは、自験例が5×5mmと最小であったが、他の2例は比較的大きなものであった。臨床診断は、不明の1例を除き2例が脂肪腫および良性腫瘍と診断され、処置は全例に切除術が行われ予後は良好だった。

血管脂肪腫は、皮下組織に好発する非浸潤型と、比較的深部の軟組織に発生する浸潤型とに分類されている。血管脂肪腫の多くは非浸潤型で、被膜を有し、単純切除が適応とされ、再発率はほぼ0%である。一方、浸潤型の頻度は低く、被膜を有さず、拡大切除が適応とされ、再発率は30~50%である。3例中 Lin ら¹⁰⁾の

表1 舌に発生した血管脂肪腫の報告例

報告年	報告者	年齢	性別	部位	大きさ (cm)	臨床診断	処置	経過
1981	Brahney ら ⁹⁾	81歳	女	左側縁部	4×3	脂肪腫	切除	18M 良好
1989	Lin ら ¹⁰⁾	49歳	男	右背部	3×2×2.5	不明	切除	3Y 良好
1996	自験例	1歳9か月	女	左背部	0.5×0.5	良性腫瘍	切除	2Y 良好

症例は浸潤型で被膜を有さず周囲の舌筋に浸潤していた。Brahney ら⁹⁾の症例および自験例は非浸潤型であったが、Brahney ら⁹⁾の症例は比較的深在性で被膜を有し臨床的には腫瘍性と思われる病変であるのに対し、自験例は表在性のポリープ状病変で過誤腫的病変と考えられた。

脂肪腫の診断にはその特異なCT値よりCT検査が有用とされ、単純性脂肪腫ではCT値は-100Hu前後を示すとされている¹¹⁾。Reilly ら¹²⁾は、耳下腺に発生した血管脂肪腫においてCT検査を行い、単純CTでは、-50Hu以下であったとしているが、これは混在する血管成分によりCT値が高値を示したものと考えられる。また、造影CTでは血管腫を思わせる造影効果が認められたとも報告しており、2つの異なる組織成分の描出が本腫瘍におけるCT検査の特長と考えられる。自験例は小さな病変であったことからCT検査は施行していないが、ある程度以上の大きさを有する病変では、CT検査から本腫瘍の推測も可能と考えられる。

本腫瘍の発生原因について、Howard ら²⁾は血管原性、外傷等による反応性、神経原性、先天性の4つをあげているが、真の原因は未だ明らかではない。自験例は母乳で育成したことから哺乳瓶による外傷等は考えがたく、また、その発生部位から歯の接触による外傷も考え難い。病理組織像などからも発生原因を示唆するものは認められなかった。自験例は非浸潤型であることから再発の可能性はほとんどないと考えられるが、事実、現在まで再発傾向なく経過は良好である。

結 語

1歳9か月女児の舌に発生したきわめてまれな血管脂肪腫の1例を経験したので若干の考察を加え報告した。

本論文の要旨は第30回日本口腔科学会関東地方部会(1996年10月5日、栃木県)において発表した。

引用文献

1) Bowen, J.T.: Multiple subcutaneous hemangiomas, together with multiple lipomas, occurring in enormous numbers in an otherwise healthy, muscular subject. *Am J M Sc* 144: 189-192 1912.

2) Howard, W.R. and Helwig, E.B.: Angiolipoma. *Arch Dermatol* 82: 924-931 1960.

3) Polte, H.W., Kolodny, S.C., et al.: Intraosseous angiolipoma of the mandible. *Oral Surg* 41: 637-642 1976.

4) Davis, G.B., Stoelinga, P.J., et al.: Angiolipoma of the hard plate: a case report and review of the literature. *J Maxillofac surg* 4: 242-244 1976.

5) 小泉英彦, 白砂兼光, 他: 頬に発生した血管脂肪腫. *日口外誌* 38: 1224-1225 1992.

6) 河野憲司, 松島りん太郎, 他: 頬部の悪性腫瘍を思わせた血管脂肪腫の1例(抄). *口腔腫瘍* 4: 173-174 1992.

7) 山田裕美, 角 保徳, 他: 小児に生じた血管脂肪腫の1例(抄). *日口外誌* 39: 1582 1993.

8) Ali, M.H. and el-Zrebi, F.: Angiolipoma of the cheek: report of a case. *J Oral Maxillofac Surg* 54: 213-215 1996.

9) Brahney, C.P., Aria, A.A., et. al.: Angiolipoma of the tongue: report of case and review of literature. *J Oral Surg* 39: 451-543 1981.

10) Lin, S.-C., Wang, T.-Y., et al.: Angiolipoma of the tongue: Report of a case. *Ann Dent* 48: 37-38 1989.

11) 久保田弘孝, 長田道哉, 他: 顎下部脂肪腫の2例. *日口外誌* 30: 1032-1038 1984.

12) Reilly, J.S., Kelly, D.R., et. al.: Angiolipoma of the parotid: case report and review. *Laryngoscope* 98: 818-821 1988.