乳児の舌に見られた先天性脂肪腫の1例

山城正司・吉増秀實・山田隆文
小林 裕・天笠光雄・岡田憲彦*

A case of congenital lipoma of the tongue

Masashi YAMASHIRO・Hidemi YOSHIMASU・Takahumi YAMADA
Yutaka KOBAYASHI・Teruo AMAGASA・Norihiko OKADA*

Abstract: Congenital lipomas are very rare in the oral cavity. A 6-month-old girl was referred with a history of multiple lingual lesions that had been noted initially in the early neonatal period. The patient's general condition and family history were non-contributory. On oral examination, two lesions were recognized on the lateral border and ventral surface of the tongue, respectively. Both lesions had clearly demarcated borders, a soft tenderness, and a milky white color. Follow-up examinations were done under the clinical diagnosis of a benign tumor. There was no evidence of growth. At the age of 14 months, the two lesions were removed with the patient under general anesthesia. Pathological examination revealed multilobular growth of adipose tissue, composed mainly of mature adipocytes in the submucosal connective tissue and muscular layer. The histopathological diagnoses were fibrolipomas. There has been no recurrence as of 3 years after operation.

Key words: congenital lipoma (先天性脂肪腫), lipoma (脂肪腫), multiple lipoma (多発性脂肪腫)

緒 言

口腔内の脂肪腫については、これまでに比較的多くの報告があるが、先天性のものは非常にまれである。今回、われわれは、乳児の舌に多発した先天性脂肪腫の1例を経験したので、その概要を報告する。

症 例

患 者：6か月 女児。

東京医科歯科大学歯学部口腔外科学第1講座
(主任：天笠光雄教授)

*東京医科歯科大学歯学部附属病院検査部
(主任：天笠光雄教授)

The First Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Faculty of Dentistry, Tokyo Medical and Dental University (Chief: Prof. Teruo Amagasa)

*Department of Clinical Laboratory, University Hospital, Faculty of Dentistry, Tokyo Medical and Dental University (Chief: Prof. Teruo Amagasa)

受付日：平成10年2月18日

初 診：1994年4月■。

主 訴：右舌の腫瘍。

家族歴：特記事項なし。

既往歴および現病歴：1993年10月■，出生時より右舌縁部と右舌下面部の2か所に乳白色の腫瘍を認めた。出生時には2,410gとやや低体重で，チアノーゼのため3日間，保育器を使用した。他に異常所見は認められなかった。生後，国立病院耳鼻科を受診したが，哺乳障害などないため経過観察を行っていた。1994年4月に6か月健診のため近保健所を受診した際，萌出てきた下顎乳切歯が刺激になる可能性があるとのことで紹介され当科を受診した。

現 症：初診時，生後6か月で体重は6,800g，発育は標準をやや下まわるも栄養状態は良好，全身的な異常所見は認められなかった。口腔内所見は，右舌縁部，右舌下面部の2か所に小指頭大，大豆大の乳白色，境界明瞭，弾性軟の腫瘍を認めた(写真1)。また，上顎両側の頬小帯に軽度の頬小帯高位付着を認めた。

臨床診断：右舌良性腫瘍(舌脂肪腫の疑い)。

処置および経過：乳児であり，哺乳障害，萌出歯に

写真1 口腔内写真

右舌縁部, 舌下面部に小指頭大, 大豆大の腫瘤を認める.

写真2 切除物写真

左側: 舌下面部より切除, 右側: 舌縁部より切除.

写真3 切除物の病理標本

A: 脂肪組織の多結節性増殖を認める。(弱拡大, H-E 染色)

B: 成熟脂肪細胞からなり, 細胞密度は低い。(強拡大, H-E 染色)

よる刺激など認められないため, 1か月に1度の経過観察を行った. 14か月時に家族の希望により, 手術目的にて入院した. なお, 経過観察期間中に, 腫瘤の増大は認められなかった. 1994年12月■日, 全身麻酔下に2個の右舌腫瘍切除術を施行した. 術後3年経過した現在, 再発の徴候は認められず経過良好である.

切除物所見: 前方舌下面部の腫瘤は $6 \times 5 \times 3$ mm 大, 後方舌縁部のものは $9 \times 6 \times 4$ mm 大で, 境界明瞭な球状を呈し, 表面は滑沢で乳白色, 硬さは弾性軟であった. 剖面は充実性で, 黄白色の脂肪様組織が充満していた(写真2).

病理組織学的所見: 舌粘膜上皮下の結合組織中ある

いは筋層中に脂肪組織の多結節性増殖を認め, 一部では線維脂肪腫様の像を呈し, 線維組織からなる隔壁形成がみられる. 隔壁内に主として成熟脂肪細胞があり, 核の多形性はみられるものの, きわめて軽度であり, 細胞異型, 核分裂像は認めず, 細胞密度は低い(写真3). 以上の所見より病理組織学的に線維性脂肪腫と診断し, 現病歴から先天性脂肪腫と診断した.

考 察

本邦における口腔領域の脂肪腫の発生頻度は全良性腫瘍の2~5%前後といわれている¹⁾. 発症年齢は40歳以上に多く, 先天性に発症するものはまれである²⁾.

表1 本邦における先天性脂肪腫の多発例

報告者（報告年）	初診時年齢	性	発生部位	発見時期	大きさ（mm）	病理組織診断	合併所見
元山 ³⁾ （1941）	9か月	男	両側頬粘膜	1か月	雀卵大	Lipoma	
梶山 ¹³⁾ （1981）	5か月	女	舌尖、舌下面	出生時	小豆大、大豆大	Fibrolipoma	舌強直症
立石 ¹⁵⁾ （1993）	7か月	女	舌尖、舌縁	出生時	9×6、5×5	Fibrolipoma	OFD症候群
山城 ¹⁴⁾ （自験例）	6か月	女	舌縁、舌下面	出生時	9×6×4、6×5×3	Fibrolipoma	頬小帯高位付着

本邦における乳幼児の脂肪腫は、1941年からこれまでに本報告例を含め20例^{1, 3~16)}がある。これら報告例で、明らかに出生時より認められたと記載のあったものは本例を含め7例であったが、無症状のため出生時には発見されにくいと考えられる。発生部位は成人の脂肪腫同様、頬粘膜、舌に多く、多発例は本症例を含め4例のみであった（表1）。また4例の多発例のうち本症例、および梶山¹³⁾、立石¹⁵⁾の報告している3例は、いずれも舌に多発しており、梶山らの報告例は、舌強直症を伴っているという点では本症例（頬小帯高位付着を合併）に類似していた。舌に多発した先天性脂肪腫の中にはOFD症候群（口腔顔面指趾症候群）を伴った報告例^{15, 17)}もあるが、本例ではそのような所見は認められなかった。乳幼児の脂肪腫の大きさについては、径1cm以下のものから12cmに及ぶものまで報告されている。一般に脂肪腫の発育は緩慢であるが、乳幼児では急速な増大をみた例^{3, 14)}も報告されており、哺乳時の機械的刺激などが要因として考えられている。本症例では、初診から手術までの6か月の経過観察中に腫瘤の増大は認められなかった。先天性の脂肪腫性病変は、真の腫瘍ではなく、脂肪組織の先天的な発育異常、ないし過誤腫的なものと考えられている^{2, 18)}。診断については、良性腫瘍とされることが多いが、時として、急速な増大や、誤咬による潰瘍形成^{5, 9, 10)}などの所見から悪性腫瘍が疑われる¹¹⁾こともあり、そのような際には注意深い経過観察が必要である。治療法は、文献的にも切除が行われ、術後の再発の報告例はなく、適切に処理されれば予後良好な疾患と考えられる。

結 語

乳児の舌に多発した先天性脂肪腫の1例について臨床的に検討し報告した。

本論文の要旨は第159回日本口腔外科学会関東地方会（1995年5月13日、横浜市）において発表した。

引 用 文 献

1) 辻野元博, 由井俊平, 他: 過去24年間の頭頸部領域脂肪腫30症例の臨床統計的観察. 日口外誌

35: 1307-1311 1989.
2) 石川梧朗: 口腔病理学 II: 570 永末書店.
3) 元山 徹: 対側性頬粘膜下脂肪腫の1例. 耳鼻臨床 36: 509-511 1941.
4) 加藤純彦, 田村直民, 他: 口蓋脂肪腫の1例. 耳鼻臨床 56: 375 1963.
5) 間仁田恭一, 貼佐勝造: 口腔の線維性脂肪腫について. 日口外誌 10: 231-233 1964.
6) 高橋忠彦: 舌脂肪腫の2例(会). 日耳鼻 68: 1063 1965.
7) 宮竹 昭, 末広 実, 他: 幼児口腔底脂肪腫の1例(会). 日耳鼻 72: 2016 1969.
8) Yoshimura, Y., Miyagi, K, et al.: Lipoma in the infant and child: report of cases. J Oral Surg 30: 690 1972.
9) 武田一雄, 安藤千里: 耳下腺腫瘍をうたがわせた巨大な頬部 Myxoma-Lipoma の1例. 耳鼻臨床 66: 535 1973.
10) 飯塚芳夫, 藤 秀敏, 他: 口腔領域に見られた脂肪腫(会). みちのく歯学誌 8: 25 1977.
11) 川原秀樹, 竹中将純, 他: 幼児の頬部に発生した脂肪腫の1例. 日口外誌 25: 886-889 1979.
12) 三科正見, 柴崎上二, 他: 幼児の頬粘膜に発生した脂肪腫の1例(会). 口科誌 28: 580 1979.
13) 梶山 稔, 銅城将紘, 他: 乳児の舌に多発した線維性脂肪腫の1例. 口科誌 30: 313-317 1981.
14) 伊藤信明, 岡村 悟, 他: 乳児の頬部に発生した脂肪腫の1例. 日口外誌 28: 739-744 1982.
15) 立石 晃, 三瀬恒太郎, 他: 口腔内脂肪腫の臨床病理学的観察—当科における20症例を中心に—. 日口外誌 39: 276-280 1993.
16) 岡本和己, 領家和男, 他: 上顎正中部に生じた先天性線維脂肪腫の1例. 日口外誌 40: 1169-1171 1994.
17) Richmond, I. and Mene, A.: Intra-oral lipomata in association with congenital anomalies: A variant of Mohr's syndrome? Br J Oral and Maxillofac Surg 29: 353-354 1991.
18) Batsakis, J. G.: Tumors of the head and neck. clinical and pathological considerations. The Williams & Wilkins Company 360-361 1979.