舌に発生した脂肪肉腫の1例

原 彰・斎藤 健一*・横溝 尚子*・田代 三恵*

A case of liposarcoma of the tongue

HARA Akira・SAITO Ken'ichi*
YOKOMIZO Naoko*・TASHIRO Mie*

Abstract: Primary liposarcoma is extremely rare in the oral cavity and usually involves the thigh, retroperitoneum, or inguinal region. We describe a 45-year-old man who presented with a soft painless mass measuring 18×15×15 mm in the right margin of the tongue. MR images demonstrated a well-defined solitary mass in the right margin of the tongue. T1-weighted MR imaging showed low signal intensity. T2-weighted MR imaging and fat-suppressed T2-weighted MR imaging showed homogenous and high signal intensity. The pathological diagnosis of a frozen section specimen was myxoma or myxofibroma. The tumor was considered benign and resected with the patient under general anesthesia. However, the final pathological diagnosis of the tumor was liposarcoma, myxoid type, according to the WHO classification of 1969. One month later, we performed an additional glossectomy as recommended by our pathologist. There were no signs of recurrence at 3-year follow-up.

Key words: liposarcoma (脂肪肉腫), tongue (舌)

緒 言

脂肪肉腫は悪性軟部腫瘍のなかでは発生頻度は高く、中高年の大腿、臀部、後腹膜に好発する。しかし頭頸部領域、とくに口腔領域に発生するものはきわめてまれで、頬部、舌、口底、口唇などに発生するが、諸家の報告では頬部が多い^{1, 2)}。また組織像により亜分類され、その臨床像、転移形成能、予後が異なるという特徴をもつ³⁾。

今回われわれは、舌に発生した脂肪肉腫の1例を経験したのでその概要を報告する。

症 例

患 者：45歳、男性。

初 診：1999年10月

主 訴：右側舌縁の腫瘍。

家族歴、既往歴：特記事項なし。

現病歴：6か月前より右側舌縁部に大豆大の無痛性腫瘍

を自覚するも放置していた。その後増大傾向を自覚したため、総合病院耳鼻科を受診し穿刺処置を受けたが改善傾向がみられず、同院より紹介され川口市立医療センター歯科口腔外科を受診した。

現 症：

全身所見：体格中等度、栄養状態良好。

口腔外所見：頸部リンパ節に異常はなかった。

口腔内所見：右側舌縁部に直径15mm大の境界明瞭、弾性軟の腫瘍が認められた。周囲組織には明らかな硬結は触れず、被覆粘膜は軽度発赤し、その中央部は一部白色を呈していた。5) が舌側に転位傾斜していた(写真1)。

MRI 所見：右側舌縁部に大きさ18×15mmの腫瘍を認め、病変の境界は明瞭で内部はほぼ均一であった。T1強調画像で筋組織と同程度の低信号、T2強調画像では著明な高信号を呈し、Gd造影T1強調画像で中等度造影効果を認めた(写真2)。T2強調脂肪抑制像では高信号を呈していた(写真3)。以上より粘液成分に富んだ病変が疑われた。

血液検査所見：異常所見なし。

臨床診断：右側舌縁部良性腫瘍。

処置および経過：上記臨床診断のもと同年12月全身麻酔下に腫瘍摘出手術を施行した。最初に腫瘍直上の直径20mm円形の粘膜切除範囲の中央部より術中迅速病理検査をしたところ、病理組織学的に粘液腫あるいは粘液線維腫の疑い(写真4A)、細胞診ではclass IIとの回答を得た。

以上の結果から良性腫瘍に準じた摘出手術を施行した。

川口市立医療センター歯科口腔外科

(主任：河越正顕部長)

*NTT 東日本関東病院口腔外科

(主任：斎藤健一部長)

Department of Dentistry and Oral Surgery,
Kawaguchi Municipal Medical Center (Chief:
KAWAGOE Masaaki)

*Department of Oral and Maxillofacial Surgery,
Kanto Medical Center, NTT EC (Chief: SAITO
Ken'ichi)

受付日：2001年8月20日

採択日：2003年9月19日

写真1 初診時口腔内写真
右側舌縁部に弾性軟の腫瘤をみとめる。

写真2 MRI像（水平断）

左：T1強調 筋肉と同程度の低信号を呈す。
中：Gd造影T1強調 造影剤効果をみとめる。
右：T2強調 著明な高信号を呈す。

写真3 MRI像（前額断）

左：T2強調
著明な高信号を呈す。
右：T2強調脂肪抑制（STIR）
著明な高信号を呈す。

写真4

A：術中迅速病理組織像（凍結標本を解凍後にH-E染色，×200）
B：摘出標本写真
腫瘤は充実性、弾性軟、淡黄色で、
菲薄な線維性被膜に覆われている。

写真5 病理組織像

左：大小の脂肪芽細胞の増殖を認める。
細胞間には粘液状基質が多くみられ、
幼弱な血管もみられる。（H-E染色，×100）
右：腫瘍は大小の脂肪芽細胞の増殖から
なり、核は大型でクロマチンに富み細胞
辺縁に偏在している。（H-E染色，×200）

腫瘍は一部で周囲筋組織と癒着が認められたが、剥離は容易であった。摘出標本を複数の病理医が検討したところ粘液型脂肪肉腫と病理診断され、切除断端陰性であるが、断端近傍まで腫瘍が及んでおり追加切除の必要ありとの意見であった。退院後、CT検査、 ^{67}Ga シンチグラムによる全身検索をしたところ、転移を疑わせる異常所見は認められなかった。患者の都合で初回摘出手術より1か月経過した翌年1月全身麻酔下で追加切除手術を施行した。前回の手術切除部を中心に $40 \times 25 \times 20\text{mm}$ の大ききで右側舌部分切除術を施行し、欠損部は人工真皮（テルダーミス®真皮欠損用グラフト）貼付、 $\overline{5}$ を抜歯して手術を終了した。切除標本の病理組織学診断では、腫瘍の残存は観察されなかった。手術より3年後の現在、腫瘍の再発、他臓器への転移は認められていない。

摘出標本所見：腫瘍は $18 \times 15 \times 15\text{mm}$ の大ききで、表面平滑、充実性、弾性軟、淡黄色で菲薄な線維性被膜に覆われていた（写真4B）。

病理組織学的所見：H-E染色にて腫瘍は大小の脂肪芽細胞の増殖からなり、核は大型でクロマチンに富み細胞辺縁に偏在していた。間質は粘液状で、スリット状の血管もみ

られた。周囲には菲薄な線維性被膜が連続して認められ、分葉形成や、粘膜、筋肉への浸潤像は認められなかった。またアルシアンブルー染色では間質は陽性を示した。以上より粘液型脂肪肉腫、切除断端陰性と診断された（写真5）。

病理組織診断：粘液型脂肪肉腫。

考 察

舌に発生する脂肪肉腫はきわめてまれで、自験例とわれわれの渉猟しえた舌の脂肪肉腫12例のうち初診時1例しか悪性腫瘍と臨床診断されず、他の11例は良性腫瘍、嚢胞と臨床診断されていた（表1）⁴⁻¹⁴⁾。その臨床像は被覆粘膜が健常な腫瘍が7例、ポリープ状の病変が3例であった。一般に、肉腫などいわゆる非上皮性悪性腫瘍は上皮下の病変のため、視診では多彩な臨床像を呈する癌腫に比べ特徴的な所見を欠き、臨床症状も無痛性を示す症例も多く、悪性疾患を示唆する所見に乏しい。自験例も画像所見を併せて考え臨床診断を良性腫瘍とした。しかし、自験例の臨床経

表1 舌の脂肪肉腫の報告例(1984~2001)

報告年	報告者	性別	年齢	病 悩 期 間	部位	臨 床 像	大 小 (mm)	臨床診断	術 前 病理診断	病理診断 亜型分類	処 置	経 過
1984	Wescott ら ⁴⁾	男	61	37年間4回再発繰り返す(その病理診断は腺粘液腫, 粘膜下脂肪腫, 線維脂肪肉腫)	舌根部	被覆粘膜健全な弾性軟の腫瘍	35×30×20	(良性腫瘍)	記載なし	分化型	切除	良好
1989	内田ら ⁵⁾	男	52	3年	舌背部	赤みをおびた一部肉腫様物が露出した凹凸不整弾性軟, 非可動性, 有痛性の半球状腫瘍	50×40×35	(悪性腫瘍)	粘液型脂肪肉腫	粘液型	切除	良好 (1年3か月)
1992	Guest ⁶⁾	男	71	5年	舌縁部	ポリープ様の無痛性腫瘍	10×10×10	(良性腫瘍)	記載なし	粘液型	切除	良好 (2年)
1995	Minić ⁷⁾	女	68	3か月	舌前部	ポリープ様の腫瘍	25×15×10	良性腫瘍	記載なし	粘液型	切除	良好 (3年)
1996	Saddik ら ⁸⁾	男	76	23年間5回再発繰り返す(その病理診断は脂肪腫, 神経線維腫, 間葉組織腫瘍, 血管線維脂肪腫)	舌根部	被覆粘膜健全なポリープ様の腫瘍	最大径25	(良性腫瘍)	記載なし	分化型	切除	良好 (1年)
1998	樺沢ら ⁹⁾	女	39	2週間	舌下面	被覆粘膜健全な半球状の弾性軟の無痛性腫瘍	40×25	良性腫瘍 (神経鞘腫)	記載なし	記載なし	切除 + 化療	良好 (1年6か月)
1998	野口ら ¹⁰⁾	男	70	2年 (1か月前より増大)	舌下面	被覆粘膜健全な半球状の弾性軟の無痛性腫瘍	20×10×8	脂肪腫	記載なし	分化型	切除	良好 (8か月)
1998	Nelson ら ¹¹⁾	男	37	10年 (3か月前より増大)	舌縁部	被覆粘膜健全な半球状の弾性軟の無痛性腫瘍	30×30×30	神経鞘腫	記載なし	分化型	切除	良好 (1年6か月)
2000	中尾ら ¹²⁾	男	60	2か月	舌縁部	被覆粘膜健全な半球状の弾性軟の無痛性腫瘍	35×15	良性腫瘍	記載なし	分化型	切除	良好 (4か月)
2000	Gagari ら ¹³⁾	男	73	2か月	舌背部	不定形の硬く隆起した腫瘍	20×10×10	嚢胞	記載なし	分化型	切除	良好 (8か月)
2001	栗田ら ¹⁴⁾	男	68	記載なし	両側舌縁部	被覆粘膜健全な半球形の弾性軟の無痛性腫瘍	最大径30と10の2個	良性腫瘍 (神経腫瘍)	線維腫 (術中迅速)	分化型	切除	良好 (1年9か月)
2001	自験例	男	45	6か月	舌縁部	被覆粘膜に発赤を伴った半球状の弾性軟の無痛性腫瘍	18×15×15	良性腫瘍	粘液腫 (術中迅速)	粘液型	切除	良好(3年)

過を振り返ると, 約6か月前に大豆大の無痛性腫瘍を自覚したが, その後, 増大傾向を示したという病歴があり, このような短期間の変化は良性腫瘍では考え難いと思われる。したがって, この時点でまず, 良性腫瘍の経過にしてはやや逸脱したものとの考えが必要であった。短期間で増大した経過をもつ同様の報告もみられ, これらの微細な所見も見落としてはならないと考えられた^{10, 11)}。

脂肪肉腫の画像所見の特徴は, 脂肪を画像上認めないことが多く, また組織型により画像所見も違うということである。Einarsdottir ら¹⁵⁾ は, 18症例の脂肪肉腫全症例において, T1強調像にて低信号を示し, MR画像上で脂肪は認められなかったとしている。脂肪成分が画像上確認されなくても脂肪肉腫や脂肪性腫瘍を除外してはならないとしている。口腔領域に多い組織型である粘液型, 分化型脂肪肉腫の画像所見はそれぞれに特徴がある。粘液型脂肪肉腫は, MR上T1強調像で脂肪の信号がわずかに認められることもあるが, 全く認められないこともある。T2強調像では一

般に均一に高信号で, 単純CTでは筋肉よりも通常低濃度である。CT, MRとも造影像において早期から均一に造影を受けるとされている。また分化型は画像所見上, 脂肪組織を認め, 内部に造影を受ける隔壁様の部分を伴うとされている¹⁶⁾。これまでの舌脂肪肉腫のうち画像所見の記載があるものは5例のみであった。3例は脂肪を認めず, 分化型¹⁴⁾と粘液型(自験例)と組織型の記載がない症例⁹⁾であった。脂肪を認めた残りの2例^{11, 12)}は分化型であった。

自験例においては脂肪を含む軟部腫瘍における画像診断のアルゴリズム¹⁶⁾などを参考に慎重に画像診断をすすめる必要があったと反省された。画像診断の際, 脂肪肉腫は画像上, 脂肪成分を認めないことが多いことを念頭におき, 血管腫ほどではないが信号増強効果を認め, T2強調像で高信号を呈する粘液型脂肪肉腫や脂肪成分のなかに, ときに隔壁が認められる分化型脂肪肉腫を鑑別診断に入れることを忘れてはならない。

非上皮系悪性腫瘍の病理診断は, 経験症例が少ないこと

などから一般に困難である。しかし、これらの問題は病理医だけではなく同時に臨床医の問題でもある。臨床医は臨床上的問題点を病理医に伝え、鑑別診断と大きく外れるものや、きわめて稀有な診断などでは病理医との直接対話が必要と思われる。今回の症例で、術中迅速病理の結果が粘液腫あるいは粘液線維腫との回答であったが、舌の粘液腫自体がきわめてまれで、この点を病理医と検討すべきであった。

脂肪肉腫の病理組織学的診断では中性脂肪の蓄積が明らかな脂肪芽細胞がみられ、細胞密度が高く、細胞の多形性が認められることなどがあげられ、さらに特徴的な腫瘍細胞の優勢像によって分化型、粘液型、円形細胞型、多形型および脱分化型の5型に分類される。舌脂肪肉腫報告例のうち組織型が判明したものは12例中11例で、分化型7例、粘液型4例であった。これら2つの型は予後が良好とされている。自験例では間質が特徴的な粘液腫状を呈し、相互に吻合した毛細血管網などがみられ、最終的に粘液型脂肪肉腫と診断された。

粘液型は脂肪肉腫のなかでもっとも多い組織型で、局所再発は起こしやすいが転移はまれで、5年生存率は70%以上、鑑別診断として病理組織学的には局所の脂肪組織や脂肪腫の外傷による粘液性変化、粘液腫などとの鑑別がまず必要とされている¹⁷⁾。

脂肪肉腫の治療は安全域を含め、完全切除することである。整形外科領域では軟部肉腫に対する切除縁の評価を、腫瘍内切除術、腫瘍辺縁切除術、広範囲切除術および根治的広範囲切除術と定め、根治的広範囲切除術は腫瘍の反応層から5 cm以上の距離またはそれに相当する組織の外で通過する切除縁で切除された場合と規定している¹⁸⁾。分化型脂肪肉腫の初回手術の際には①腫瘍辺縁の線維性部分には異型細胞が多く認められることから、これらの部分ではなるべく広範囲切除術を心がける、②周囲正常組織と癒着している辺縁部の広範囲切除術の確保は必要である、③脂肪肉腫の疑いで試験切除を行っても他の良性腫瘍と鑑別の困難な場合は、腫瘍と隣接している神経や血管は初回手術では温存すること、という意見がある¹⁹⁾。

解剖学的に大きく異なる四肢と口腔ではこれらをそのまま当てはめることは困難であるが、腫瘍の性格を知る上では参考となろう。また口腔では術前に脂肪肉腫と診断がつかず、良性腫瘍の診断のもと摘出手術となる可能性が多いと考えられる。自験例では迅速病理の結果から良性腫瘍に準じた摘出をしたため、腫瘍の残存などが考えられ、病理組織が脂肪肉腫の粘液型ということが判明後、追加切除術を施行した。自験例のように良性腫瘍の診断の下に切除を施行し、その後、悪性腫瘍と判明した症例に対する処置法についてはいまだ論議は少ない。しかし、初回の摘出の状

況や腫瘍の性格などから再切除の必要があると考えられた。

謝辞

稿を終えるにあたり、御指導いただきました当院臨床検査科 山本雅博先生に深謝いたします。

なお本論文の要旨は第171回(社)日本口腔外科学会関東地方会(2001年6月、松戸市)において発表した。

引用文献

- 1) 宮本博一, 坂下英明, 他: 脂肪肉腫の1例と文献的考察. 日口外誌 28: 1149-1159 1982.
- 2) 上海道範昭, 桐田忠昭, 他: 頬部に発生した脂肪肉腫の1例. 日口外誌 42: 914-916 1996.
- 3) Enzinger, F.M. and Weiss, S.W.: SOFT TISSUE TUMORS. 4th Ed, Mosby Co, St Louis, 2001, p641-693.
- 4) Wescott, W.B. and Correll, R.W.: Multiple recurrences of a lesion at the base of the tongue. J Am Dent Assoc 108: 231-232 1984.
- 5) 内田育広, 小宮善昭, 他: 口底および舌に発生した脂肪肉腫の2例. 日口外誌 35: 1273-1279 1989.
- 6) Guest, P.G.: Liposarcoma of tongue: a case report and review of the literature. Br J Oral Maxillofac Surg 30: 268-269 1992.
- 7) Minić, A.J.: Liposarcomas of the oral tissues: a clinicopathologic study of four tumors. J Oral Pathol Med 24: 180-184 1995.
- 8) Saddik, M., Oldring, D.J., et al.: Liposarcoma of the base of tongue and tonsillar fossa. Arch Pathol Lab Med 120: 292-295 1996.
- 9) 樺沢勇司, 森 正次, 他: 舌に生じた脂肪肉腫の1例(抄). 日口外誌 44: 1132-1133 1998.
- 10) 野口一馬, 櫻井一成, 他: 舌に発生した脂肪肉腫の1例: 癌の臨床 44: 943-946 1998.
- 11) Nelson, W., Chuprevich, T., et al.: Enlarging tongue mass. J Oral Maxillofac Surg 56: 224-227 1998.
- 12) 中尾治郎, 窪田善之: 舌に生じた脂肪肉腫の1例(抄). 日口外誌 46: 1047 2000.
- 13) Gagari, E., Kabani, S., et al.: Intraoral liposarcoma: case report and review of the literature. Oral Surg Oral Med Oral Pathol 89: 66-72 2000.
- 14) 栗田昭宏, 佐藤靖夫, 他: 舌に生じた脂肪肉腫の1例(抄). 耳鼻臨床 106(補): 60 2001.
- 15) Einarsdottir, H., Söderlund, V., et al.: MR imaging of lipoma and liposarcoma. Acta Radiol 40: 64-68 1998.
- 16) 小林久隆: 脂肪性腫瘍の鑑別診断. 臨床画像 16: 405-412 2000.
- 17) 石川栄世, 遠城寺宗知: 外科病理学. 第3版, 文光堂, 東京, 1999, 1219-1222頁.
- 18) 日本整形外科学会 骨・軟部腫瘍編集委員会(編): 悪性軟部腫瘍取り扱い規約. 第3版, 金原出版, 東京, 2002, 82頁.
- 19) 佐々木広介, 横山庫一郎, 他: 高分化型脂肪肉腫の初回手術時における切除縁の検討. 臨整外 35: 979-982 2000.