

皮様脂肪腫の 2 例

木下 慎介¹⁾, 柿崎 裕彦¹⁾, 岩城 正佳¹⁾, 原 一夫²⁾¹⁾愛知医科大学眼科学講座, ²⁾愛知医科大学病院病理部

要 約

背 景：皮様脂肪腫はまれな先天良性結膜腫瘍であり，先天奇形に合併することがある。眼窩脂肪ヘルニアや輪部デルモイドとの鑑別を要し，術後合併症として，眼瞼下垂，複視や乾性角結膜炎が生じることがある。

症 例：症例 1：52 歳，女性。右眼窩脂肪ヘルニアの治療目的で紹介された。症例 2：8 歳，女児。左眼球結膜腫瘍の治療目的で紹介された。両症例ともに腫瘍は角膜輪部に存在せず，眼球の圧迫を行っても腫瘍の大きさに変化を認めないことから，皮様脂肪腫が疑われた。また，外耳の奇形，顔面の非対称や頸椎の異常を認めな

かった。手術の際は，結膜欠損を生じないように腫瘍切除を行った。両症例ともに術後合併症は認めなかった。

結 論：皮様脂肪腫の特徴を把握すれば他疾患との鑑別は容易である。術後合併症の多くは，結膜の過剰欠損による瞼球癒着で生じるため，結膜を温存することが重要である。(日眼会誌 111：965—969, 2007)

キーワード：皮様脂肪腫，眼窩脂肪ヘルニア，輪部デルモイド，瞼球癒着

Two Cases of Dermolipoma

Shinsuke Kinoshita¹⁾, Hirohiko Kakizaki¹⁾, Masayoshi Iwaki¹⁾ and Kazuo Hara²⁾¹⁾Department of Ophthalmology, Aichi Medical University²⁾Department of Pathology, Aichi Medical University Hospital

Abstract

Background : Dermolipoma is an uncommon benign tumor, congenitally occurring on the conjunctiva, and may be present at other sites. The appearance of dermolipoma closely resembles orbital fat prolapse and limbal dermoid, and therefore it is necessary to take this into account in diagnosis. Postoperative complications such as blepharoptosis, diplopia, or keratoconjunctivitis sicca can develop.

Case Report : The first case was a 52-year-old female patient referred for the treatment of an orbital fat prolapse in her right eye. Another case, an 8-year-old female patient, was referred for the treatment of a bulbar conjunctival tumor in her left eye. In both cases, dermolipoma was suspected because the tumor did not show in the limbus and it did not change in size even when the eyeball was pressed. There was no external ear anomaly, facial

dissymmetry, or cervical abnormality. The tumors were surgically removed without any conjunctival loss. Neither case had any postoperative complications.

Conclusions : If the special features of dermolipoma are understood, it is easy to distinguish this tumor from other disorders. Most of the post-surgical complications are caused by excessive conjunctival loss resulting in symblepharon. Avoiding harm to the conjunctiva is important to prevent such complications.

Nippon Ganka Gakkai Zasshi (J Jpn Ophthalmol Soc 111 : 965—969, 2007)

Key words : Dermolipoma, Orbital fat prolapse, Limbal dermoid, Symblepharon

I 緒 言

皮様脂肪腫は，分離腫に分類される先天良性結膜腫瘍

であり，oculo-auriculo-vertebral dysplasia に合併することがある^{1)~9)}。Oculo-auriculo-vertebral dysplasia とは，皮様脂肪腫または，輪部デルモイド，外耳の奇形，

別刷請求先：480-1195 愛知県愛知郡長久手町大字岩作字雁又 21 愛知医科大学眼科学講座 木下 慎介

(平成 19 年 3 月 26 日受付，平成 19 年 7 月 11 日改訂受理) E-mail : skg0121@yahoo.co.jp

Reprint requests to : Shinsuke Kinoshita, M. D. Ph. D. Department of Ophthalmology, Aichi Medical University, 21 Karimata-Yazako, Nagakute, Aichi 480-1195, Japan

(Received March 26, 2007 and accepted in revised form July 11, 2007)

顔面の非対称や頸椎の異常を2つ以上認める先天奇形症候群である⁹⁾。これらすべての所見を認めた場合、Gold-enhar 症候群と呼称される⁹⁾。本腫瘍は、耳側眼球結膜に発生する黄～ピンク色の腫瘍で、女性に多く、また、眼窩側では外直筋と上直筋の間に認められることが多い^{1)3)~5)10)11)}。腫瘍表面は異所性上皮で覆われているが、角化傾向はない¹⁾³⁾。異所性上皮は周囲の眼球結膜と強固に癒着しており、外眥部へ進展した場合、変形を生じることがある¹⁾⁴⁾。病理組織学的には、異所性上皮は粘液分泌細胞を欠く重層扁平上皮であり、異所性上皮下に間質結合組織と脂肪組織が認められるが、眼窩脂肪との連続はない^{1)3)5)10)~12)}。

手術適応は、第一眼位または眼球運動時に腫瘍が瞼裂より露出する場合や自覚症状を認める場合である^{1)~4)}。自覚症状は少ないが、まれに刺激感や異物感を伴うことがある¹⁾³⁾。手術は瞼裂より露出している腫瘍の部分切除を行う¹⁾³⁾⁴⁾。腫瘍表面に毛を認める場合、自覚症状の原因となるため毛根の除去も同時に行う⁴⁾。皮様囊腫のような角化物を含む嚢胞性腫瘍の場合、内容物の漏出が生じると周囲組織に炎症が生じるため、一塊に摘出する必要があるが、本腫瘍は嚢胞性腫瘍ではないため全摘出を行う必要はない¹⁾³⁾⁴⁾。皮様脂肪腫を切除することによって、眼瞼下垂、複視や乾性角結膜炎を生じることがあるため、手術では合併症を生じないように配慮する必要がある。

今回、我々は術前に的確な臨床診断を行い、合併症を生じることなく摘出できた皮様脂肪腫の2例を経験したので報告する。

II 症 例

症例1：52歳，女性。

主訴：右耳側結膜腫瘍。

既往歴，家族歴：特記すべきことなし。

現病歴：詳細な時期は不明であるが、右眼耳側結膜の腫瘍を自覚していた。平成18年8月に近医を受診したところ、眼窩脂肪ヘルニアと診断された。患者が切除を希望したため、平成18年10月に愛知医科大学病院眼科へ紹介受診となった。

初診時所見：視力右0.2(1.0)，左0.4(1.0)，眼圧右15 mmHg，左16 mmHg。

両眼ともに前眼部，中間透光体，眼底に異常はなく，眼球の刺激感や痛みなどの自覚症状もなかった。

眼球結膜所見：右眼耳側結膜に黄色の腫瘍が認められた。腫瘍は角膜輪部には認められなかった。腫瘍表面は平滑であり，毛を認めた(図1)。眼球の圧迫によって腫瘍の大きさに変化はなく，また，綿棒を用いて腫瘍の圧迫を行ったが，眼窩内への移動は認められなかった。

顔面部所見：外耳の奇形，顔面の非対称，頸椎の異常は認められなかった。



図1 症例1の眼球結膜所見。

右眼耳側結膜に腫瘍を認める。腫瘍表面(○)に毛を認める。

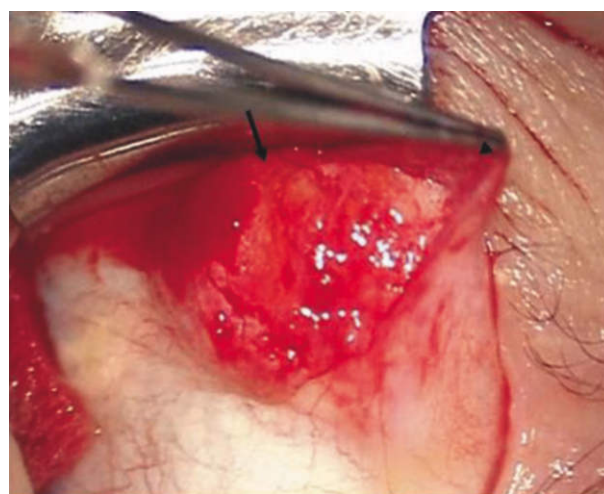


図2 症例1の術中所見。

剝離は結膜下ではなく，異所性上皮下で行った。異所性上皮が除かれた腫瘍の表面(矢印)と異所性上皮(矢頭)が観察される。

臨床検査所見：血液検査で異常は認められなかった。

治療経過：臨床所見より眼窩脂肪ヘルニアではなく，皮様脂肪腫が疑われた。病理組織学的診断，また，腫瘍減量目的のため，局所麻酔下で部分切除を行った。毛根除去のため，毛を認めた部分のみ異所性上皮の全層切除を行い，その他の部分は腫瘍のみ切除した(図2)。結膜切除部は縫合し，閉鎖した。

病理組織診断：皮様脂肪腫と診断された。腫瘍内組織は脂肪組織と間質結合組織が認められた(図3A)。全層切除を行った部分は，粘液分泌細胞を欠く重層扁平上皮と毛が認められた(図3B)。

術後所見：術後6か月で再発を認めない。なお，眼瞼下垂，複視や乾性角結膜炎などの合併症は生じていない。

症例2：8歳，女兒。

主訴：左眼球結膜腫瘍。

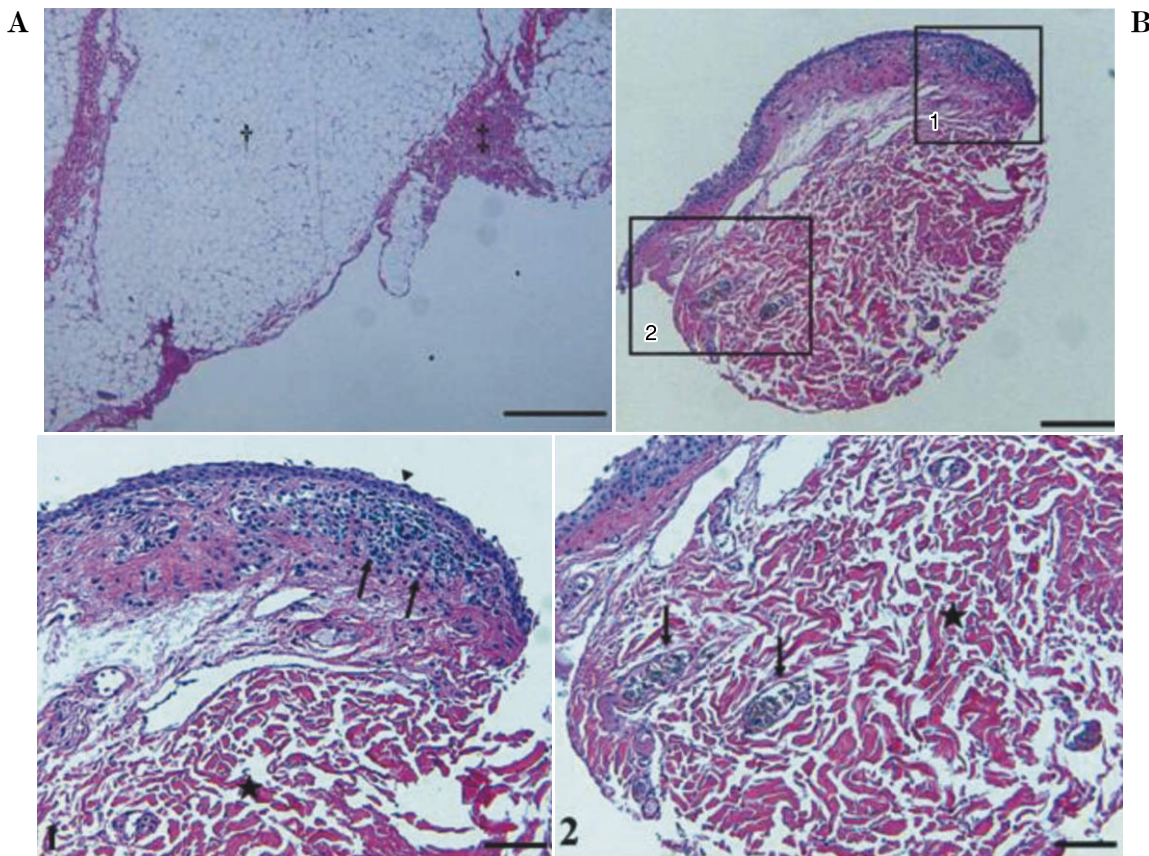


図 3 症例 1 の病理組織学的所見(ヘマトキシリン・エオジン染色)。

A：脂肪組織(†)と間質結合組織(‡)を認める。bar=300 μm。

B：異所性上皮が全層で切除されている。bar=300 μm。

1：粘液分泌細胞を欠く重層扁平上皮(矢頭)とリンパ球浸潤(矢印)を認める。深部には膠原線維(★)を認める。bar=100 μm。

2：毛の断面と膠原線維(★)を認める(矢印)。bar=100 μm。

既往歴，家族歴：特記すべきことなし。

現病歴：平成 14 年 1 月に母親が左眼耳側眼球結膜の腫瘍を発見した。近医を受診したところ，脂肪腫と診断され経過観察されていた。腫瘍が徐々に増大してきたため，平成 17 年 5 月に愛知医科大学病院眼科へ紹介受診となった。

初診時所見：視力右 1.2(矯正不能)，左 1.2(矯正不能)。

両眼ともに前眼部，中間透光体，眼底に異常はなく，眼球の刺激感や痛みなどの自覚症状もなかった。

眼球結膜所見：左眼耳側眼球結膜に黄色の腫瘍が認められた。腫瘍は角膜輪部には認められなかった。腫瘍表面は平滑で，やや隆起が認められ，外眦下へ進展していた(図 4)。眼球の圧迫によって腫瘍の大きさに変化はなく，また，綿棒を用いて腫瘍の圧迫を行ったが，眼窩内への移動は認められなかった。

画像所見：Magnetic resonance imaging T1 強調像，T2 強調像ではともに大脳白質と比べ高信号であった。眼窩脂肪との連続性は認められなかった(図 5)。

顔面部所見：外耳の奇形，顔面の非対称，頸椎の異常

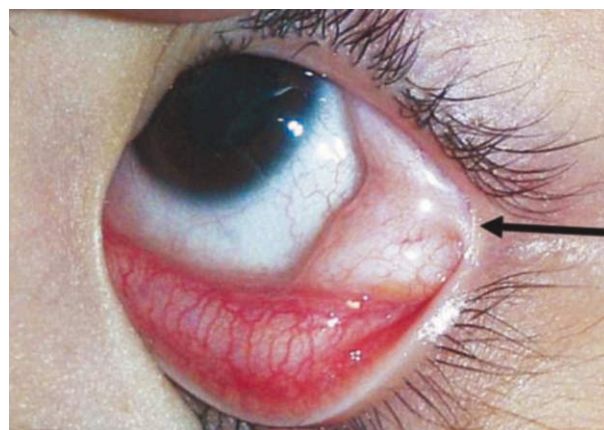


図 4 症例 2 の初診時前眼部写真。

左眼耳側眼球結膜に腫瘍を認める。異所性上皮が外眦下へ進展している所見が認められる(矢印)。角膜輪部には腫瘍は認められない。

は認められなかった。

臨床検査所見：血液検査で異常は認められなかった。

治療経過：臨床所見より皮様脂肪腫が疑われた。病理組織学的診断，また，腫瘍減量目的のため，全身麻酔下

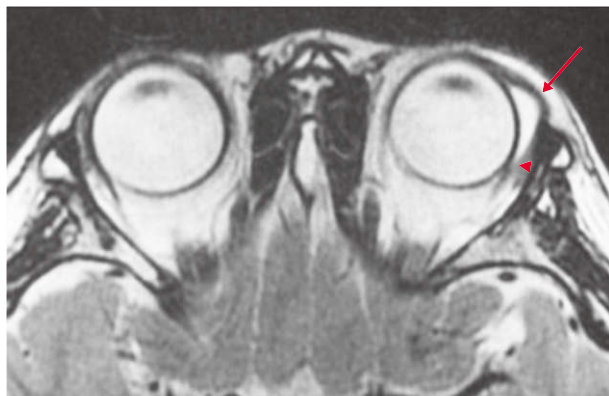


図5 症例2のmagnetic resonance imaging所見(T2強調像). 腫瘍(矢印)と眼窩脂肪との連続性は認められない(矢頭).

で部分切除を行った。結膜は切除せず、腫瘍のみ切除した。

病理組織診断：脂肪組織と間質結合組織が認められたが、上皮組織は認められなかった(図6)。皮様脂肪腫と診断された。

術後所見：術後8か月で再発を認めない。なお、眼瞼下垂、複視や乾性角結膜炎などの合併症は生じていない。

IV 考 按

皮様脂肪腫は、先天腫瘍であるため、幼少時より存在する³⁾。発生部位は耳側眼球結膜であり、腫瘍表面に毛が観察されることがある^{1)~4)8)}。腫瘍は、眼球を圧迫しても大きさに変化はなく、綿棒で押し込んでも眼窩内へ移動することはない⁵⁾¹³⁾。病理組織学的には、粘液分泌細胞を欠く重層扁平上皮(異所性上皮)、間質結合組織と脂肪組織が認められる¹³⁾。症例1は、臨床所見、病理組織学的所見ともに皮様脂肪腫であった。一方、症例2は、異所性上皮を切除しなかったため、異所性上皮が存在せず、病理組織学的所見で皮様脂肪腫と診断するには不十分であった。このような場合は、臨床所見と異所性上皮下の病理組織学的所見から判断して診断を行う³⁾。症例2の臨床所見は、典型的な皮様脂肪腫であり、異所性上皮下の病理組織学的所見で間質結合組織と脂肪組織を認めたため、皮様脂肪腫と診断した。

皮様脂肪腫は、臨床的に眼窩脂肪ヘルニアと外観が酷似しており、鑑別が必要となる¹⁾²⁾⁴⁾⁵⁾¹³⁾。眼窩脂肪ヘルニアは65歳以上の肥満男性に多く、加齢によるテノン囊の脆弱によって生じる⁵⁾¹³⁾。そのため、眼球を圧迫することで増大し、綿棒で押し込むことで眼窩内に還納することができる⁴⁾⁵⁾¹³⁾。本症例では、眼球の圧迫を行っても大きさに変化を認めず、綿棒で押し込んでも移動しなかったため、眼窩脂肪ヘルニアとの鑑別は容易であった。

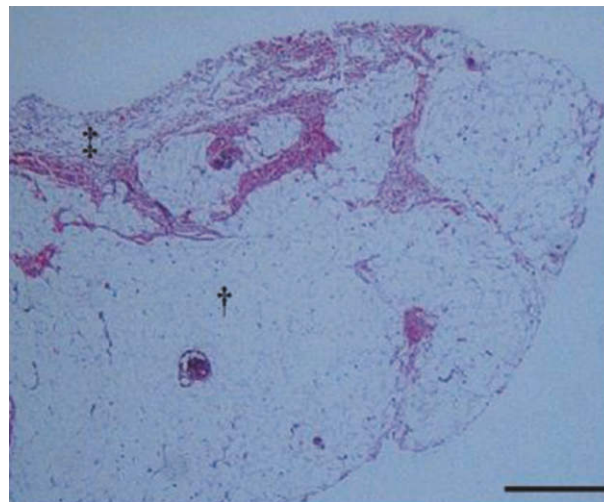


図6 症例2の病理組織学的所見(ヘマトキシリン・エオジン染色). 脂肪組織(†)と間質結合組織(‡)を認める. bar=300 μm.

輪部デルモイドは、結膜から角膜輪部にかけて存在する腫瘍である^{6)~8)}。病理組織学的には、脂肪組織を含まないため、皮様脂肪腫とは異なる腫瘍である^{6)~8)}。皮様脂肪腫は角膜輪部には発生しないため、発生部位を観察することで両疾患の鑑別は容易である^{6)~8)}。本症例においても、角膜輪部に腫瘍が存在しなかったため、輪部デルモイドとの鑑別は容易であった。一方で、皮様脂肪腫や輪部デルモイドを認めた場合、oculo-auriculo-vertebral dysplasiaを考慮して、眼部のみではなく他部位の観察を行う必要がある^{1)3)~9)}。本症例では、外耳の変形、顔面の非対称や頸椎の異常がなかったため、oculo-auriculo-vertebral dysplasiaと関係なく発生した皮様脂肪腫と考えられた。

皮様脂肪腫切除後に、眼瞼下垂、複視を生じることがある^{1)~4)10)~12)}。これは瞼球癒着によって生じることが多く¹⁾²⁾⁴⁾¹⁰⁾¹¹⁾、眼瞼挙筋、Müller筋や外眼筋に対する侵襲によって生じることが少ない²⁾⁴⁾。瞼球癒着の原因は、腫瘍表面の異所性上皮と結膜を一塊に切除することで生じる眼球結膜の過剰欠損とされる¹⁾²⁾⁴⁾¹⁰⁾¹¹⁾。そのため、摘出の際は異所性上皮と周囲の結膜を丁寧に剝離し、結膜を温存することが重要である⁴⁾。しかし、異所性上皮と結膜は強固に結合しているため⁴⁾、剝離の際に結膜穿孔や結膜欠損が生じる可能性がある。結膜欠損が生じた場合、欠損部を縫縮する際に、牽引によって眼瞼や円蓋部が変形するようであれば、過剰欠損が生じていると判断する²⁾。なお、過剰欠損に対しては、瞼球癒着を避けるために結膜移植や口腔粘膜移植を行う²⁾⁴⁾。

別の術後合併症として、乾性角結膜炎を生じることがある^{1)~4)10)~12)}。乾性角結膜炎の主な原因は、涙腺導管開口部の損傷によるものである^{1)~4)12)}。また、涙液は涙腺の導管を介して結膜円蓋部に排出されるため¹⁴⁾、結膜円

蓋部の炎症や瘢痕による、涙腺導管開口部の閉塞によっても生じる可能性がある¹⁵⁾。手術の際、涙腺部近傍の腫瘍は、瞼裂から露出しないため、涙腺部近傍の腫瘍切除を行う必要はない¹⁾。したがって、涙腺導管の損傷や涙腺導管開口部の閉塞を避けるため、結膜円蓋部より遠位で切開を行い、瞼裂から露出している腫瘍の部分切除にとどめることが重要である^{1)~4)10)~12)}。

本症例では、結膜を確実に温存するために、異所性上皮と結膜を剝離するのではなく、異所性上皮まで切開を加え、異所性上皮で剝離を行った。本術式では、ほぼすべての異所性上皮が残存するが、異所性上皮は術前から眼球表面に存在していること、また、本術式は結膜を確実に温存できるため、腫瘍容積以外は眼球表面の状態が変化しないことから、異所性上皮が術後の問題になることは少ないと考えられる。ただし、腫瘍表面の毛は刺激感や異物感などの原因になるため、異所性上皮を切除し、毛根の除去を行う必要がある⁴⁾。

今回、我々は皮様脂肪腫の症例報告を行った。皮様脂肪腫は、その臨床所見から眼窩脂肪ヘルニアや輪部デルモイドとの鑑別は容易であった。皮様脂肪腫切除の合併症は、結膜の過剰欠損による瞼球癒着で生じることが多いため、結膜を確実に温存することが術後合併症を回避する最善の方法である。

文 献

- 1) **McNab AA, Wright JE, Caswell AG** : Clinical features and surgical management of dermolipomas. *Aust N Z J Ophthalmol* 18 : 159—162, 1990.
- 2) **Beard C** : Dermolipoma surgery, or, 'an ounce of prevention is worth a pound of cure'. *Ophthalm Plast Reconstr Surg* 6 : 153—157, 1990.
- 3) **Eijip AA, Koornneef L, Bars J** : Dermolipoma : Characteristic CT appearance. *Doc Ophthalmologica* 74 : 321—328, 1990.
- 4) **Fry CL, Leone CR** : Safe management of dermolipomas. *Arch Ophthalmol* 112 : 1114—1116, 1994.
- 5) **Kim YD, Goldberg RA** : Orbital fat prolapse and dermolipoma : Two distinct entities. *Korean J Ophthalmol* 8 : 42—43, 1994.
- 6) **Nevaes RL, Mulliken JB, Robb RM** : Ocular dermoids. *Plast Reconstr Surg* 78 : 959—964, 1988.
- 7) **Baum JL, Feingold M** : Ocular aspects of Goldenhar's syndrome. *Am J Ophthalmol* 75 : 250—257, 1973.
- 8) **Shields JA, Shields CL** : Dermoid and dermolipoma. *Atlas of Eyelid and Conjunctival Tumors*. Lippincott Williams & Wilkins, Philadelphia, 200—205, 1999.
- 9) **Cohen MM Jr, Rollnick BR, Kaye CI** : Oculoauriculovertebral spectrum ; An updated critique. *Cleft Palate J* 26 : 276—286, 1989.
- 10) **Paris GL, Beard C** : Blepharoptosis following dermolipoma surgery. *Ann Ophthalmol* 5 : 697—699, 1973.
- 11) **Lui D, Bachynski BN** : Complete ptosis as a result of removal of epibulbar lipodermoid. *Ophthalm Plast Reconstr Surg* 8 : 134—136, 1992.
- 12) **Economidis I, Tragakis M, Mangouritsas N** : Keratoconjunctivitis sicca following excision of A dermolipoma of the lacrimal gland. *Ann Ophthalmol* 10 : 1273—1278, 1978.
- 13) **McNab AA** : Subconjunctival fat prolapse. *Aust N Z J Ophthalmol* 27 : 33—36, 1999.
- 14) **Olver J** : *Colour Atlas of Lacrimal Surgery*. Butterworth Heinemann, Oxford, 2—3, 2002.
- 15) **Kanski JJ** : *Clinical Ophthalmology : A systematic Approach*. Butterworth Heinemann, Oxford, 77—79, 2003.