

下顎下縁部に発生した結節性筋膜炎の1例

瀧田正亮¹ 木下昌毅^{1*} 西川典良¹ 京本博行¹
高橋真也¹ 宮城佳美² 仙崎英人²

大阪府済生会中津病院 歯科口腔外科¹ 病理診断科² 現在大阪大学歯学部口腔治療学講座*

抄録

18歳・女性の右側下顎下縁部軟組織に発生した小腫瘤を切除生検したところ、病巣は広頸筋の下層で周囲組織との境界不明瞭な小結節状（直径1 cm）を呈しており可及的に摘出した。病理組織学的には α -SMA陽性を示す異型性に乏しい紡錘型細胞が密在・錯走する増殖像から結節性筋膜炎と診断され、広頸筋に由来する筋線維芽細胞と考えられた。結節性筋膜炎の報告は種々の領域からのものがあり、時に肉腫を疑われる例がある。

Key words : 筋線維芽細胞, 良性腫瘍, 結節状病変

緒言

結節性筋膜炎は現在筋線維芽細胞の反応性増殖から成る腫瘍状病変と考えられ¹, その特徴は病理組織学的に異型性に乏しい紡錘型細胞の密在性増殖が主であり肉腫等悪性腫瘍との鑑別に注目されてきた。その組織学的特徴はpsudosarcomatous fibromtosisという名称が付記されていた時期があることから伺えよう²。また、一方では自然消退する性質も一般に知られており³その実態は現在でも不明瞭である。今回われわれは下顎下縁部に発生した比較的小さな結節性筋膜炎の1例を経験したので報告する。

症例

患者：18歳・女性

初診：X年Y月

主訴：右側オトガイ部相当下顎下縁部の腫瘤の精査と治療

現病歴：患者は3週間前より右側オトガイ部相当下顎下縁部の腫瘤形成を自覚したため耳鼻咽喉科に受診し抗菌剤を投与されたが変化なく、歯性炎症との関連も疑われ当科に紹介された。なお、患者には同部の外傷歴の記憶はない。

家族歴・既往歴：特記事項なし。

現症：右側オトガイ部相当下顎下縁部に1 cm程度

の弾性軟で可動性にやや乏しい腫瘤を触知した。同側下顎埋伏智歯が見られたが同部には炎症所見は認められなかった。

画像所見：下顎骨下縁に接し、径1 cm弱の辺縁明瞭で内部の均一な組織濃度の腫瘤が描出されていた（図1）。

治療経過：AZM 2g/日1日+pronase 3錠/日5日を投与したところ5日後にはやや縮小傾向がみられが確定診断のため局所麻酔下で切除生検を行った（X+1年Y+1月）。生検時の所見としては、皮切後広頸筋下層を鈍的に剥離するも明瞭な腫瘤は見られず触診上病巣と思われる箇所（結節状）を明示して可及的に切除した（図2）。病巣部はあたかも「糸くずの塊」のような様相を呈していた。1週間後に抜糸を行ったが、軽度の術後腫脹がみられたのでpronase 3錠/日とloxoprofen 3錠/日を3日間投与した。以後患者は多忙のため来院されず、術後約3週間の時点では局所は落ち着いており、異常があれば連絡するとのことであったが、切除生検後6ヶ月以上経過するも連絡はない。なお、本人と母親には、発生頻度が低く原因不明の反応性腫瘤形成性病変であり、充分な観察と経過に応じた追加治療が必要なことを説明した。

病理組織所見：軽度の核異型と核腫大の見られる紡錘形細胞が不規則に錯走して増殖し、一部で粘液を基

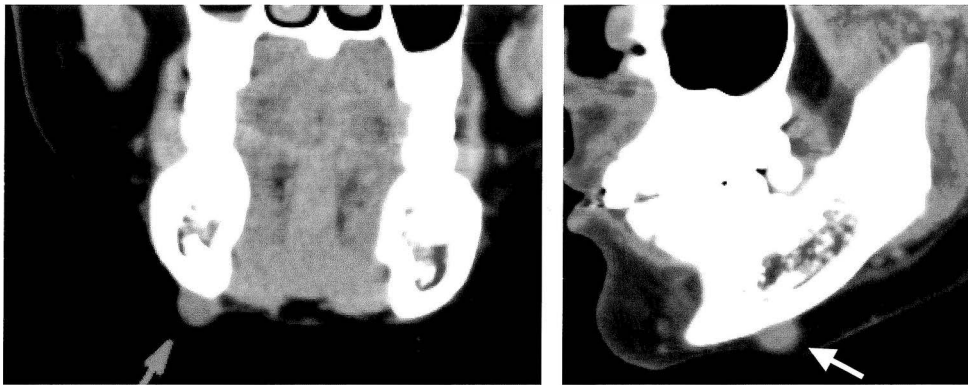


図1 術前CT所見
オトガイ部下顎下縁に径1 cmの境界明瞭な腫瘤を認める

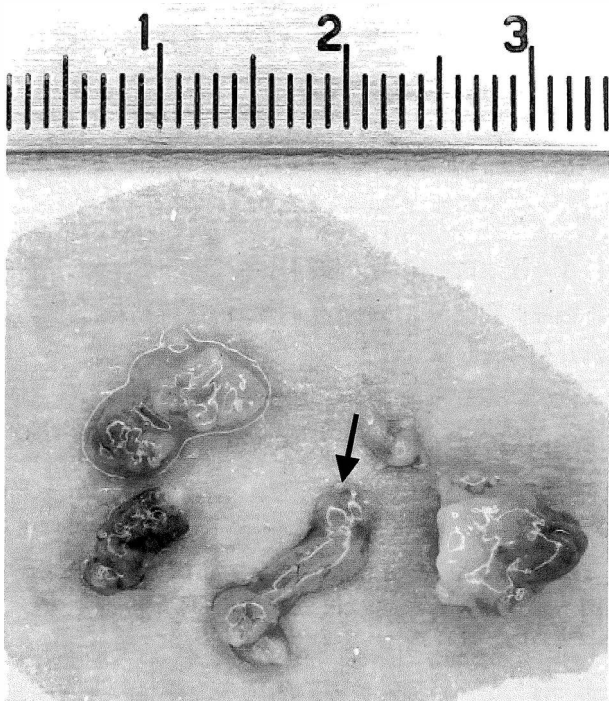


図2 切除組織 右側が主たる結節状組織、左側は追加切除組織、中央は周辺の脂肪組織 (→で示す)。

質とした tissue-culture appearance を呈していた (図3 : A~D)。この紡錘形細胞は周辺の脂肪組織にも散見され、免疫染色の結果は α -SMA陽性、S-100陰性、CD34陰性、desmin陰性、EMA陰性であった。他方ではCD68陽性の組織球やリンパ球・形質細胞主体の炎症細胞浸潤や赤血球の血管外漏出が認められた。

病理組織診断：結節性筋膜炎

考 察

結節性筋膜炎は約半世紀前にKonwalerら²により American Journal of Pathology に記載されて以来、

最近でも乳腺外科⁴、呼吸器外科⁵、整形外科⁶、耳鼻咽喉科⁷、皮膚科⁸、病理学の領域⁹に加えて口腔外科からの臨床報告が見られる¹⁰⁻¹³。これらの報告例では共通して病理組織学的に紡錘形細胞が不規則かつ密在性に錯走増殖する所見から悪性、特に線維肉腫等との鑑別が論じられてきた。しかし、いずれも臨床的には良性疾患として扱われ、境界明瞭な結節を呈する症例では外科的切除により再発は少ない。また自然消退する性質についても多くの報告者が容認している⁴⁻¹³ことから、炎症や外傷に対する反応性増殖病変の性質も否定はできないと考えられる。一方、遺伝子解析からは良性腫瘍 (真性腫瘍) とする報告¹⁴、self limitな疾患とする報告¹⁵等、相反する報告も見られていることは興味深い。解析対象の例数が限られていることもあり、本疾患の実態は未だ鮮明ではないことが伺われる。

本疾患の由来は筋線維芽細胞と考えられているが、本例の診断もHE所見に加えて α -SMA陽性所見に基いてなされた。本例は術前の画像所見からは下顎骨下縁直下に位置していると考えられたが、実際には広頸筋下層・脂肪組織中に画像所見とは異なり明瞭な腫瘤形成ではなく、触診で分かる程度の弾性硬の結節様組織であった。これらの生検所見と病理組織所見とを総合して広頸筋に関連した筋線維芽細胞が本例の由来として推察された。また、境界不明瞭な小結節として発症していたことは、同一組織像を呈しながらも境界明瞭なものとは性質を異にするのか、あるいは時間的経過により被膜様の組織が形成され境界明瞭となる可能性をもつのか、症例を重ねて検討の余地があるものと思われる。たとえ、病理組織学的には類似した組織像であっても生物学的性質や臨床病態が大きさや発生部

位により異なる可能性についても症例ごとに十分な検討が必要と思われた。耳鼻咽喉科領域のMajidiらの報告⁷や頬粘膜に生じたImaiらの報告例¹¹では、本例と同一組織像を呈しながらも臨床所見においても悪性を否定し得なかった点は本例の臨床像とは大きく異なる点である。その相違が何に基づくものなのかは、今後の症例の蓄積による検討が必要とされる。

結 語

下顎骨下縁に発生した比較的小さな、かつ周囲組織との境界不明瞭な結節性筋膜炎の1例を報告し、同一

組織像を呈していても発生部位や大きさにより病態が異なる可能性については今後の検討課題とした。

参 考 文 献

1. Kayaselçuk F, Demirhan B, Kayaselçuk U, et al.: Vimentin, smooth muscle actin, desmin, S-100 protein, p53, and estrogen receptor expression in elastofibroma and nodular fasciitis. *Ann Diagn Pathol*, 2002. 6: 94-99.
2. Konwaler BE, Keasbey L, Kaplan L Subcutaneous pseudosarcomatous fibromatosis (fasciitis). *Am J Pathol*, 1955. 25: 241-252

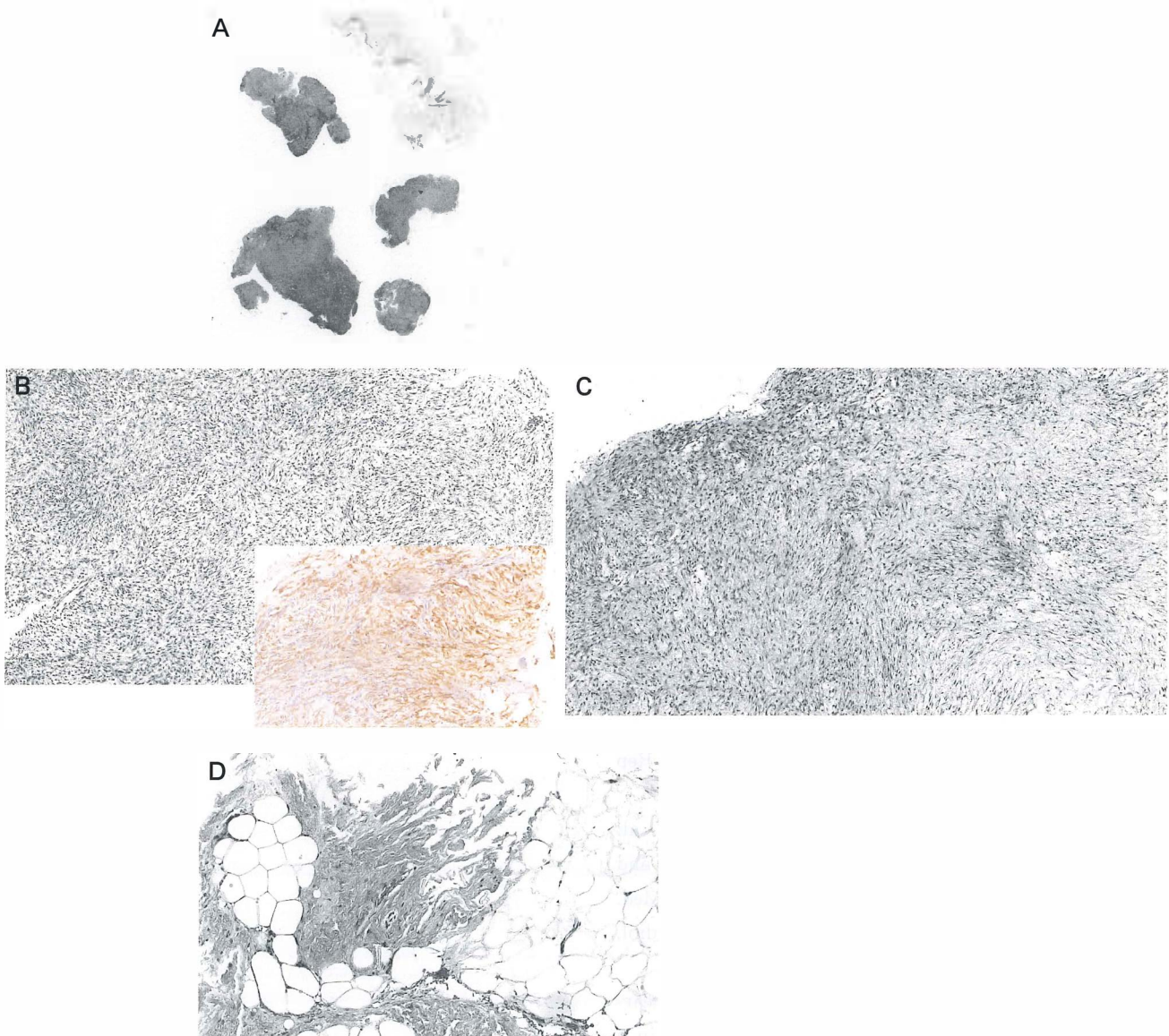


図3 摘出組織の病理組織像

A：摘出組織の弱拡大像 周囲脂肪組織との境界不明瞭な被膜のない結節様軟組織を可及的に摘出。

右上は周辺の脂肪組織。

B：紡錘型細胞が密在性に錯走し増殖する箇所。右下に α -SMA陽性所見を示す。

C：強拡大像紡錘型細胞の増殖像と粘液基質様所見（右下方）が混在する箇所。

D：周辺の脂肪組織 癒痕化した箇所を示す。本症の病因との関連性も否定できないと思われる所見。

3. Nishi SP, Brey NV, Sanchez RL: Dermal nodular fasciitis: three case reports of the head and neck and literature review. *J Cutan Pathol*, 2006. 33: 378-383
4. Falco G, Ragazzi M, Cenini E et al: Intramuscular Nodular Fasciitis of the Pectoralis Major. *Breast J*, 2016. 22: 122-123. doi: 10. 1111/tbj. 12532. Epub 2015 Nov 4.
5. 畑地 豪, 佐野 功, 原 信介, 他: Superiorsul-custumorと鑑別を要した結節性筋膜炎の1例. *日呼外会誌*, 2010. 24: 65-69
6. Gans I, Morrison MJ 3rd, Chikwava KR, et al: Intra-articular nodular fasciitis of the knee in a pediatric patient. *Orthopedics*, 2014.37(3): e313-316
7. Majidi, MR Jafarian AH, Irani S, et al: Nodular Fasciitis of the Auricle: a case report. *Iran J Otorhinolaryngol*, 2013. 25(71): 115-118
8. Loyd AA, Witheiler D, Menter A: Nodular fasciitis of the lip mucosa: a rare but clinically important entity. *Clin Exp Dermatol*, 2015 40(4): 408-412
9. Goldstein JA, Cates JM: Differential diagnostic considerations of desmoid-type fibromatosis. *Adv Anat Pathol*, 2015. 22(4): 260-266
10. Chaithanyaa N, Somannavar P, Annajal NA.: Nodular fasciitis over the anterior wall of the maxillary sinus: a case report and review of the literature. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol*, 2013. 115: 10-15
11. Imai T, Michizawa M, Nakazawa M: Nodular fasciitis in the buccal region with rapid growth after incisional biopsy mimicking sarcoma. *J Craniofac Surg*, 2013. 24(6): 615-617
12. Souza AA, Cariri Neto EG, de Araujo VC et al: Description of a rare case of nodular fasciitis of the apical aspect of the upper buccal sulcus. *Case Rep Dent*, 2016; 2016: 4231683
13. Kuklani R, Robbins JL, Chalk EC, et al: Intravascular fasciitis: report of two cases and review of the literature: *Oral Surg Oral Med. Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol*, 2016. 121: 19-25.
14. Donner L. R., Silva T., Dobin S. M. Clonal rearrangement of 15p11.2, 16p11.2, and 16p13.3 in a case of nodular fasciitis: additional evidence favoring nodular fasciitis as a benign neoplasm and not a reactive tumefaction. *Cancer Genetics and Cytogenetics*, 2002. 139(2): 138-140
15. Erickson-Johnson M. R., Chou M. M., Evers B. R., et al. Nodular fasciitis: a novel model of transient neoplasia induced by MYH9-USP6 gene fusion. *Laboratory Investigation*, 2011; 91(10): 1427-1433

Nodular fasciitis on the right submandibular region: A case report

Masaaki Takita¹, Masaki Kinoshita^{1*}, Noriyoshi Nishikawa¹
Hiroyuki Kyomoto¹, Sinya Takahashi¹
Yoshimi Miyagi² and Hideto Senzaki²

Department of Oral Surgery¹ and Pathology, Saiseikai Nakatsu Hospital, Osaka
Osaka University Graduate School of Medicine, Department of Periodontology

We presented a 18-year-old woman with nodular fasciitis on the right submandibular region. With a clinical diagnosis benign tumor exsiccional biopsy was undertaken. Nodular lesion (size: 1 cm in diameter) was seen under layer of platysma without capsule. Then was made diagnosis as nodular fasciitis histopathological, that immunohisto-chemical α -SMA positive spindle-shaped cells are seen growing in a haphazard to a storiform arrangement. Origin in this case considered myofibril cells from platysma. Nodular fasciitis have been reported numerous in various region and in some case mimicking sarcoma.

Key words: Myofibril cells, Benign tumor, Nodular lesion