胸鎖乳突筋に発生した増殖性筋炎例

三国 尚志・飯塚 桂司・川浪 貢
堂坂 善弘・吉田 豊*

Proliferative Myositis of Sternocleidomastoid Muscle ; A Case Report

Hisashi Mikuni, Keiji Iizuka, Mitsugu Kawanami,
Yoshihiro Dousaka and Yutaka Yoshida
(Kushiro City General Hospital)

A 40-year-old man had noted left upper neck swelling for 20 days. A 6×6 cm smooth, hard, fixed mass was palpable on the left side of the upper neck. CT scan did not show a clear boundary between the mass and the sternocleidomastoid muscle. Biopsy was performed, and the microscopic diagnosis was proliferative myositis. Therapy was conservative, and the mass disappeared completely two months after the start of the therapy. The patient is free of disease for more than one year after the therapy. Proliferative myositis is a benign self-limited lesion, so it is very important to distinguish it from malignant diseases.

Key words: proliferative myositis, benign fibrous lesions, sternocleidomastoid muscle

はじめに

増殖性筋炎 (proliferative myositis) は比較的急速に表在性の横紋筋組織に形成される腫瘍性病変である。良好な臨床経過をたどる病変ではあるが、その急速な発育と、稀な病変であるために、間葉系悪性腫瘍と初期診断される場合も多い。

本疾患は、1960年に Kern¹⁾ によって初めて提唱された疾患名称であり、1967年に Enzinger と Dulkey²⁾ によって、独立した疾患として概念が確立された。

今回我々は、胸鎖乳突筋に発生した増殖性筋炎を経験したので文献的考察を加えて報告する。

症 例

症例：40歳、男性。

主訴：左上頸部腫脹。

既往歴：特記すべきことなし。

家族歴：特記すべきことなし。

現病歴：1989年2月7日頃より軽度の圧痛を伴った左上頸部の腫脹と発熱が出現し、2月15日某病院外科を受診した。経口抗生剤にて様子をみられていたが、改善が認められなかったため、2月27日当科紹介された。外傷等の既往はなかった。

初診時、左上頸部に6×6 cmの、軽度の圧痛を伴う表面平滑な硬く固定した腫瘤を触れた。

(図1). 発熱はなく, 鼻腔, 咽喉頭などに異常所見は認められなかった.

血液検査では, WBC が $10.7 \times 10^3/\text{mm}^3$ と軽度上昇していた. CRP は 0.6 mg/dl であった. 生化学, 尿所見は正常範囲内であった. 腫瘍よりの細胞診では好中球などの多数の炎症性細胞が認められたが, 一部に間質由来と思われる細胞を認めたのみで悪性細胞はみられなかつ

た.

CT では左胸鎖乳突筋の軽度の肥厚と, それに接してほぼ isodensity の腫瘍を認めた. 境界は不明瞭であり, 内部には一部 low density

図1 顔写真

左頸部に発赤を伴う腫脹を認める.

図2 頸部 CT

胸鎖乳突筋の肥厚と境界不明瞭な腫瘍を認める.

図3 病理組織所見(HE 染色, 弱拡大)

横紋筋内に線維芽細胞や炎症細胞の浸潤を認める.

図4 病理組織所見(抗 Vimentin 抗体染色)

線維芽細胞が染色されている.

図5 病理組織所見(抗 Desmin 抗体染色)

横紋筋細胞が染色されている.

な部分が存在していた(図2)。

治療: 初期診断として, 炎症性の腫瘍を疑い, 抗生剤と消炎鎮痛剤の投与を開始した。1週間の治療を経過しても腫瘍の大きさにほとんど変化がみられず, また悪性腫瘍も完全に否定できないため3月10日生検を行なった。皮下組織から胸鎖乳突筋にかけてかなりびまん性に炎症が拡がっており境界は不明瞭であったが, 腫瘍部の中心と思われる部位より組織を一部採取した。

組織学的所見: 横紋筋内への線維芽細胞とリンパ球, 好酸球, 組織球などの炎症細胞の浸潤が認められ, 巻き込まれた横紋筋細胞は腫大しており, 多核化しているものも稀にみられた(図3)。悪性細胞は認められなかった。抗 Vimentin 抗体を用いた染色にて横紋筋周囲に増生を示す紡錘型細胞は Vimentin が陽性となり線維芽細胞であることが示された(図4)。抗 Desmin 抗体による免疫染色では変性ないし残存する横紋筋細胞が強陽性に染色されたが, 増殖線維芽細胞や炎症細胞は染色されなかった(図5)。

経過: 生検後, 短期間抗生剤を用いたのみでその後は消炎酵素剤(プロナーゼ)のみにて経過観察していたが, 3週間経た頃より腫瘍が消退し始め, 2カ月を経過した時には腫瘍はほとんど触れなかった。1年以上経過した現在でも再発等は認められていない。

考 察

増殖性筋炎は1960年に Kern¹⁾により最初に提唱された疾患であり, 筋肉に急速に発生する偽肉芽腫性病変である。臨床的には間葉系の悪性腫瘍との鑑別が難しく, しばしば必要以上の根治手術となる²⁾。

Kern 以前では, 1958年に Ackerman³⁾が同様の病変を“Extra-osseous localized non-neoplastic bone and cartilage formation”で紹介し, この病変を化骨性筋炎の初期と考え, また Bullock はこの病変を化骨性筋炎の発達過程の‘green stage’と解釈した¹⁾。

Enzinger と Dulkey²⁾は33症例をまとめ増殖

性筋炎を独立した疾患として確立した。その特徴として, 年齢は22歳から82歳にわたり45歳以上に多い。性差は男女比4:3とほとんど差はない。急速に発育する腫瘍を主症状とし圧痛, 疼痛は少ない。好発部位は肩甲部や上肢であり, 頭頸部領域においては胸鎖乳突筋, 僧帽筋に多い。

本邦の文献による増殖性筋炎の報告例をまとめたものが表1であり, 検索し得た限りでは自験例を含めて22例であった。その特徴は Enzinger と Dulkey²⁾の報告と大きな違いはなく, 平均年齢53.7歳で, 男性10例, 女性12例とほとんど性差もなかった。好発部位は胸鎖乳突筋が8例, 大腿6例となっていた。

増殖性筋炎の発生原因は未だに明らかではない。Kern¹⁾や Chung と Enzinger⁴⁾らは局所的な外傷をその原因としてあげているが, Enzinger と Dulkey²⁾は33例中外傷の既往のあった症例が10例しかないため, その他の何らかの原因の可能性も示唆している。今回の我々の症例も外傷の既往はなく, また本邦報告例においても外傷の既往があったのは1例のみであった。

肉眼的には, 病変は筋肉の瘢痕様の肥厚として出現し, 蒼白な灰色を呈し, 境界はやや不明瞭である。組織学的特徴は, 筋外膜・筋周膜・筋内膜への境界不明瞭な線維芽細胞の増殖と神経節細胞様の好塩基性巨細胞の出現である。筋束は線維芽細胞の増殖によって断裂し, 一部には変性している部もみられる。増殖している線維芽細胞は紡錘型あるいは卵円型をしていて高染色質な細胞である。最も典型的病変が認められるのは病変の周辺部であり, 増殖した細胞と残存している筋組織が“checkerboard-like pattern”を形成することもある²⁾。肉腫ではこのような規則的なパターンを示すことは少なく鑑別に役立つこともある。次に神経節様巨細胞であるが, 豊富な好塩基性の細胞質と顕著な核小体をもった大きな円形あるいは卵円形の小水泡からなる核をもった細胞であるが, その起源について Kern¹⁾は筋芽細胞を考えたが, Enz-

inger と Dulkey²⁾ は線維芽細胞を想定した。Brooks⁵⁾ は antimyoglobin と anti-factor VIII を用いて免疫組織学的検索を行った結果、筋原性の可能性は低いとしている。また高木ら⁶⁾ も免疫組織学的に観察し、巨細胞の起源として線維芽細胞を強く支持しているが、Rose⁷⁾ は筋原性由来であることを主張しており、未だに細胞由来については、その意見の一致はみられていない。

類似疾患として、結節性筋膜炎 (nodular fasciitis) と増殖性筋膜炎 (proliferative fasciitis) が

あげられる。結節性筋膜炎は筋膜より発生する限局性の結節性病変で、周囲組織とは比較的に境界がなされていて筋肉内には浸潤しない。また増殖性筋炎に特徴的な巨細胞は出現せず、増殖性筋炎に比べ若い年齢層に好発する。増殖性筋膜炎については、組織学的には増殖性筋炎と鑑別することは困難であり、発生部位が筋膜であるか筋肉内であるかの違いであると思われる。Dahl ら⁸⁾ はこれら三種の類似した病変をまとめて“pseudosarcomatous proliferative lesion of soft tissue” とすることを提唱している。

表 1 増殖性筋炎の本邦文献報告例

報告者	報告年	年齢	性	部 位	大 き さ	方 法	日 数	備 考
西村ら	1976	60	女	大腿	5×4	摘出	2 カ月	
小林ら	1981	57	女	胸鎖乳突筋	4×3	摘出	3 日	外傷(+)
		62	女	胸鎖乳突筋	3×3	生検	7 日	
		61	男	大腿	3.5×2.5	生検	10日	
矢島ら	1983	46	女	大腿	4×3	摘出		
浜田ら	1983	66	男	肩甲部	3×3	摘出		
入 ら	1983	35	男	胸鎖乳突筋				
		52	男	胸鎖乳突筋				
		62	男	広背筋				
金沢ら	1983	42	男	大腿		摘出	2 カ月	
水谷ら	1983	46	女	下腿	2×1	摘出		
徳岡ら	1984	77	女	大腿	7×7	摘出		
竹内ら	1985	67	女	大胸筋	5×3.5	生検		
有輪ら	1986	47	女	前腕	5.5×3.5	摘出		→ MFH
高木ら	1986	45	女	胸鎖乳突筋				
		66	女	大腿				
		72	女	胸鎖乳突筋				
小出ら	1988	33	男	咬筋				
		35	女	胸鎖乳突筋				
大沼ら	1988	49	男	咬筋	4×4	針生検		
大慈ら	1989	62	男	不明				
筆者ら	1991	40	男	胸鎖乳突筋	6×6	生検	20日	

MFH : malignant fibrous histiocytoma

組織学的には非常に侵襲的な様相を呈するが、増殖性筋炎の予後は良好である。手術的に完全切除された場合のみならず、抗生剤、消炎鎮痛剤などの保存的治療でほとんど治癒に至る⁹⁾。したがって肉腫などの悪性疾患との鑑別が非常に重要であるため、早期診断のためには生検が必要と思われる。なお、本邦報告例のうち1例であるが悪性線維性組織球腫に進展したという例が報告されている。

まとめ

胸鎖乳突筋に発生した増殖性筋炎について報告した。診断は生検によって得られ、抗生剤、消炎鎮痛剤を用いた保存的治療により腫瘍はほぼ消失し、約1年を経過して再発はみられていない。さらに本邦における文献報告例についても合わせて考察を行い報告した。

文 献

- 1) Kern WH : Proliferative myositis ; a pseudosarcomatous reaction to injury ; report of seven cases. Arch Pathol Lab Med **69** : 209~216, 1960.
- 2) Enzinger FM and Dulkey F : Proliferative myositis ; report of thirty-three cases. Cancer **20** : 2213~2223, 1967.
- 3) Ackerman LV : Extra-osseous localized non-neoplastic bone and cartilage formation (so-called myositis ossificans) ; clinical and pathological confusion with malignant neoplasm. J Bone Joint Surg **40** : 279~298, 1958.
- 4) Chung EB and Enzinger FM : Proliferative fasciitis. Cancer **36** : 1450~1458, 1975.
- 5) Brooks J : Immunohistochemistry of proliferative myositis. Arch Path Lab Med **105** : 682, 1981.
- 6) 高木正之, 石川英彦, 高桑俊文, 他 : 増殖性筋炎及び筋膜炎5例の免疫組織学的並びに電顕的観察. 日癌治療会誌 **21** : 10 ; 2487, 1986.
- 7) Rose AG : An electron microscopic cells in proliferative myositis. Cancer **33** : 1543~1547, 1974.
- 8) Dahl I and Angervall L : Pseudosarcomatous proliferative lesions of soft tissue with or without bone formation. Acta Pathol Microbiol Immunol Scand [A] **85** : 577~589, 1977.
- 9) Gokel JM : Proliferative myositis ; a case report with fine structural analysis. Virchows Arch [A] **367** : 345~352, 1975.

(原稿受付: 平成3年2月13日)
(原稿採択: 平成3年4月3日)
別刷請求先: 三国尚志
〒085 釧路市春湖台1-12
市立釧路総合病院耳鼻咽喉科)