側頸部に認められた石灰化上皮腫の2症例

小山 悟・角田 浩幸・加納 有二

Two Cases of Calcifying Epithelioma in the Lateral Cervical Area

Satoru Koyama, Hiroyuki Kakuta and Yuji Kano

(Teikyo University School of Medicine)

Calcifying epithelioma is a benign tumor arising from the hair matrix cells. Many patients with this disease are treated by dermatologists, but since it often affects the head and neck region, otorhinolaryngologists may also treat it. However, only 19 cases have been reported by otorhinolaryngologists in Japan.

Two cases of calcifying epithelioma in the lateral cervical region are reported here. It was necessary to differentiate these lesions from tuberculosis of the cervical lymph nodes, because the lateral cervical lesions were palpated as well-defined solitary subcutaneous nodules with calcifications. The lesions were removed surgically. Histopathological examinations showed typical findings of calcifying epithelioma with basophilic cells and shadow cells in the tissues.

Generally, it is easy to differentiate a well-defined solitary calcifying epithelioma from other lesions on the basis of its clinical features. Preoperative diagnosis is very important for adequate treatment and surgery. It is very important to use CT scans and ultrasonography for cases involving clinical features that are difficult to differentiate from other disease, such as granulation, cyst, or malignant disease.

Key words : calcifying epithelioma, lateral cervical area, hair matrix cell

はじめに

石灰化上皮腫は1880年, Malherbe ら¹⁾により初めて報告された, 毛母細胞由来の良性腫瘍である²⁾。その好発部位は, 頭頸部領域や上肢である。発生頻度の男女差はないと言われているが³⁾, やや女性に多いという報告もある⁴⁾⁵⁾。女性に多いという報告について美容上の問題より, 受診する患者がやや女性に多いためとする指摘がある⁶⁾。治療は主として皮膚科領域で扱われており, 耳鼻咽喉科領域での報告は少ないが, 好発部位は耳鼻咽喉科医の守備範囲である。

今回われわれは側頸部にでき, 頸部リンパ節結核と鑑別が必要であった2症例を経験したので文献による考察を加え報告する。

症 例

症例1. 21歳, 女性。

主訴: 右側頸部腫瘍。

現病歴: 5年前に右側頸部の腫瘍に気がついたが, 自覚症状がないために放置した。その後, 徐々に増大してきた。

既往, 家族歴: 特記すべきことなし。

現症: 右側頸部皮膚直下に30×15 mmの腫瘍を触知した。腫瘍は境界明瞭で, 表面粗状, 硬く, 皮下組織と癒着して, 可動性は不良であった(図1)。単純X線写真で右頸部に石灰化を認めた。10 MHzの超音波断層検査所見では皮膚直下に境界不明瞭な石灰化を伴う病変を認めた(図2)。血液, 全身検査所見では, とくに異常を認めなかった。ツベルクリン反応, 胸部X線写真, 胃液と

図1 症例1, 21歳女性, 右側頸部の石灰化上皮腫

図2 超音波断層検査所見

喀痰の結核菌培養より結核は否定された。

手術所見：全身麻酔下に摘出手術を施行した。手術時、

腫瘍裏面に大耳介神経が巻き込まれるように存在し、腫瘍は胸鎖乳突筋の筋膜と癒着していた。摘出標本は 31×27 mm の石灰状で軟骨様の硬さで灰白色であった(図3)。病理組織所見では陰影細胞 (shadow cell) の周囲に好塩基性細胞巣 (basophilic cell) の形成を認めた(図4, 5)なお、陰影細胞は光学顕微鏡所見では境界明瞭で核の不明な細胞として認められる。

症例2. 23歳, 女性。

主訴：左耳下部腫瘍。

現病歴：1年前に耳下部の腫瘍に気づいた。ときどき圧痛を認めたが放置していた。3カ月前より徐々に増大してきたため来院した。

既往歴：腎結石。

現症：左耳下部の皮膚直下に 17×15 mm の腫瘍を触

図3 症例1の摘出標本

図4 HE染色(弱拡大)

陰影細胞の周囲に好塩基性細胞巣の形成を認めた。

図5 HE染色(強拡大)

図7 症例2のCT所見
⇐石灰化上皮腫.

知した。腫瘍は境界明瞭で、粗状、硬く、皮下組織との癒着を認めなかった(図6)。CT検査上、左側頸部に石灰化所見を認めた(図7)。また10 MHzの超音波断層検査所見では、皮膚直下に境界の不明瞭な石灰化を伴う病変を認めた。血液、全身検査所見ではとくに異常を認めなかった。ツベルクリン反応、胸部X線写真、胃液と

喀痰の結核菌培養などで結核は否定された。

手術所見：全身麻酔下に手術を施行した。腫瘍は、その裏面で周囲の結合組織と癒着していた。摘出標本は27×25 mmで軟骨様硬、灰白色であった(図8)。病理組織所見は、症例1と同様であった。

術後の経過観察では症例1は約4年間、また症例2は約3年間再発を認めていない。

図6 症例2, 23歳女性, 左耳下部の石灰化上皮腫

図8 症例2の摘出標本

考 察

石灰化上皮腫は毛母細胞由来の良性腫瘍として、1880年 Malherbe ら¹⁾の報告以来、主として皮膚科領域での検討がなされてきた。現在までに、わが国における耳鼻咽喉科領域での石灰化上皮腫の報告例は19例あり、これ

ら19例にわれわれの2症例を加え表1に示した^{7)~20)}。

石灰化上皮腫の発生母地は皮脂腺由来説, 脂腺上皮由来説, 毛包上皮由来説, 毛母細胞由来説, 毛随細胞由来説, 表皮様囊腫由来説などさまざまな方向から論議されてきているが, まだ画一した結論に達していない。中山ら¹⁷⁾はそれまでの報告より⁴⁾²¹⁾, 組織起源を外的刺激の関与による表皮の真皮への迷入説と, 毛嚢細胞の増生による発生説に大きく分類している。外的刺激が関係する説では, ハリ, キュウの後にできたという報告がある⁶⁾。

疫学的には, 本疾患の発生頻度は20歳代未満に多い。発生部位として頭頸部領域がもっとも多く, 全体の約6割を占め, 次に上肢が多いと報告されている⁴⁾²²⁾。頭頸部領域ではとくに耳介周囲, 中でも耳介下部に多く認められている²³⁾。通常正常な皮膚に被われていることが多

いが²⁴⁾, 肉芽様を呈するもの²⁴⁾²⁵⁾, 囊腫状²⁶⁾, 血腫を伴うもの²⁷⁾, 水泡²⁸⁾や潰瘍²⁹⁾を作るもの, 巨大なもの³⁰⁾³¹⁾など多様である。また単発であるが多発する場合もあるという⁶⁾。このほか, 少数ではあるが, 筋ジストロフィーの合併が報告され, この場合家族性となることが知られている³²⁾。臨床経過では通常ごく緩徐に増大するが, 悪性腫瘍と間違ふほどに急速に増大するものもあり, 鑑別を難しくしている。

治療としては摘出術がなされるが, 術前診断にあたり石灰化上皮腫と鑑別診断の必要な疾患は, 頸部の石灰沈着を伴う疾患である。すなわち甲状腺腫瘍, 耳下腺腫瘍, 血管腫, 唾石症, 頸部リンパ節結核と鑑別する必要がある。多くの場合, 石灰化上皮腫は皮膚直下の腫瘤であり, 共通した鑑別点である。

表1 わが国における耳鼻咽喉科領域における石灰化上皮腫報告例

報告者	報告年	性 別	年 齢	発生部位	大 き さ
長倉 ⁷⁾	1968	女	17	頸部	母指頭大
三宅ら ⁸⁾	1971	女	3	耳介前部	10 mm
荒木ら ⁹⁾	1973	男	1	耳介前輪部	小指頭大
東ら ¹⁰⁾	1975	女	13	耳下部	胡桃大
		男	10ヵ月	耳後部	10 mm
朝隅ら ¹¹⁾	1976	女	16	耳前部	鶏卵大
河合ら ¹²⁾	1977	男	30	側頸部	母指頭大
榎本ら ¹³⁾	1978	女	8	耳下腺部	35×35 mm
土田ら ¹⁴⁾	1985	女	14	耳下部	15×15 mm
後藤ら ¹⁵⁾	1985	女	12	耳前部	50×30 mm
西川ら ¹⁶⁾	1986	女	8	耳前部	40×30 mm
中山ら ¹⁷⁾	1988	男	7ヵ月	耳垂	8 mm
		女	5	顎下部	10 mm
		女	5	耳前部	4 mm
		男	23	耳下部	20×25 mm
西郡ら ¹⁸⁾	1989	男	10	耳下部	20×25 mm
		女	19	耳下部	20×10 mm
成田ら ¹⁹⁾	1990	女	8	耳下部	20×20 mm
				上腕	17×15 mm
石丸ら ²⁰⁾	1993	男	6	頬部	10×20 mm
自験例	1994	女	21	側頸部	31×27 mm
		女	23	耳下部	27×25 mm

各疾患の鑑別として中山ら³³⁾の報告によると、甲状腺腫瘍では比較的前頸部に限られるという存在部位と、特徴的砂状の石灰沈着所見より鑑別する。耳下腺腫瘍とくに悪性の疑われるときは、比較的最長い臨床経過と急速な増大、かつ腫瘍の微細点状石灰化所見により鑑別する。血管腫では石灰化は多発性でX線写真上円形、層状構造を呈していること、唾石症では食事時の有痛性腫脹の症状より鑑別する。頸部リンパ節結核では頸部リンパ節領域に沿って念珠状に多発あるいは単発し、微細点状の石灰化所見を呈することより鑑別するとしている。

今回われわれの2症例では、境界明瞭な腫瘍が皮膚直下にあるという所見と腫瘍の存在部位より、診断は比較的容易であった。ただ石灰化を伴う頸部リンパ節結核との鑑別が必要であった。2症例ともツベルクリン反応、胸部レントゲン、胃液と喀痰の結核菌培養より、結核が否定された。加えてCT検査ならびに10 MHzの超音波断層検査により、皮膚直下の表在性疾患であり、被膜を有するリンパ節の所見がなく、頸部リンパ節結核を否定し、摘出術を施行した。

石灰化上皮腫は本報告のように、単発で皮膚直下の境界明瞭な腫瘍の場合には、診断は比較的容易である。ところが、肉芽様、嚢胞状、水泡や潰瘍を作るもの、巨大なものまで臨床像は多様であり、急速に増大して悪性腫瘍と鑑別を要する症例もある。鑑別診断が必要な多様な像を示す例では、手軽で皮膚直下の性状の診断に有用な10 MHzの超音波断層検査や、CT検査が必要となる。さらに、術中のオーバーサージェリーをさけるうえでも確実に鑑別診断する事が重要と考えられた。

まとめ

今回われわれは、頸部にできた石灰化上皮腫の2症例を経験したので報告し、臨床的特徴について検討した。

参考文献

- 1) Malherbe A and Chenantais J : Note sur l'epitheliome calcifié des glandes sebacees. Progr Med de Paris 8 : 826~828, 1880.
- 2) Thurhan B and Krainer L : Bemerkungen uber die sogenannten verkalkenden Epitheliome der Haut und ihre Genese. Dermatologica 85 : 73~91, 1942.
- 3) Moehlenbeck FW : Pilomatrixoma (Calcifying Epithelioma). Arch Dermatol 108 : 532~534, 1973.
- 4) 山際祐史 : 石灰化上皮腫の病理 —三重大大学の経験—。臨床病理 28 : 928~936, 1980.
- 5) 木下茂美, 鈴木久美子 : 石灰化上皮腫の臨床的検討。東大医大誌 56 : 268~271, 1986.
- 6) 大塚 寿, 塩谷信幸 : Calcifying Epithelioma の臨床像について。形成外科 16 : 447~452, 1973.
- 7) 長倉政行 : 頸部腫瘍2例。日耳鼻 71 : 1805, 1968.
- 8) 三宅 弘, 伊藤明和, 丹波英人, 他 : 耳前部に発生をみた calcifying epithelioma の症例について。日耳鼻 74 : 808~809, 1971.
- 9) 荒木昭夫, 川嶋達雄 : 乳児の耳介より発生した石灰化上皮腫 (Malherbe's Tumor) の1例。耳喉 45 : 523~525, 1973.
- 10) 東紘一郎, 伊藤永子, 今野昭義, 他 : 石灰化上皮腫 (calcifying epithelioma) —その臨床と病理—。耳喉 47 : 385~388, 1975.
- 11) 朝隅真一郎, 松元一郎, 武井 修, 他 : 耳前部に発生した大きな石灰化上皮腫。耳鼻 22 : 399~404, 1976.
- 12) 河合清隆, 竹山 勇, 大竹英夫, 他 : 頸部に発生した石灰化上皮腫の一例。耳展 20 : 837~840, 1977.
- 13) 榎本雅夫, 松井和夫, 浜田 実, 他 : 耳下腺部に発生した石灰化上皮腫の一例。耳鼻臨床 71 : 1275~1279, 1978.
- 14) 土田みね子, 鳥山 稔, 石土谷淳一 : 耳下腺およびその周囲の石灰化を伴う病変について。耳喉 57 : 159~162, 1985.
- 15) 後藤治典, 武田哲男, 馬場廣太郎, 他 : 頬部に発生した石灰化上皮腫 Calcifying Epithelioma。耳喉 57 : 268~269, 1985.
- 16) 西川恵子, 西川益利, 石黒公雄 : 耳前部皮下に生じた石灰化上皮腫の一例。耳鼻臨床 79 : 1113~1115, 1986.
- 17) 中山明仁, 西端慎一, 靱山安弘, 他 : 石灰化上皮腫の4症例。耳展 31 : 37~43, 1988.
- 18) 西郡 聡, 大角隆男, 豊田 務, 他 : 耳下部に発生した石灰化上皮腫の2症例。耳展 32 : 571~575, 1989.
- 19) 成田慎一郎, 志籾文明, 松田史明, 他 : 耳下部と上腕に発生した石灰化上皮腫の一例。耳鼻 36 : 1185~1188, 1990.
- 20) 石丸 正, 滝元 徹, 井本浩二 : 右耳前部に発生した石灰化上皮腫の1例。耳展 36 : 318~323, 1993.
- 21) 西村正幸 : Pilomatrixoma (研究)。西日本皮膚 40 : 299~313, 1978.
- 22) 新妻 寛 : 石灰化上皮腫。皮膚臨床 8 : 206~212, 1966.
- 23) 石丸 正, 瀧本 徹, 井本浩二 : 右耳前部に発生した石灰化上皮腫の1症例。耳展 36 : 318~323, 1993.
- 24) 水嶋淳一, 乃木田俊辰 : 肉芽様外観を呈した石灰化上皮腫一例。皮膚臨床 34 : 78~79, 1992.
- 25) 稲垣安紀, 荒井雅美, 武井洋二, 他 : 化膿性肉芽腫様外観を呈した石灰化上皮腫。西日本皮膚 48 : 635~636, 1986.
- 26) 赤坂俊秀, 今村優子, 鎌田 満, 他 : 嚢腫状を呈した Pilomatrixoma の2例。皮膚臨床 34 : 1453~1456, 1992.
- 27) 朝比奈昭彦, 安部正瑞, 竹原和彦, 他 : 血腫を形成し嚢腫壁に表皮嚢腫様変化を認めた石灰化上皮腫。皮膚臨床 34 :

- 1446~1447, 1992.
- 28) 畑清一郎, 伊藤武彦: つねられた後水疱様外観を呈した石灰化上皮腫. 皮膚 32 : 631~632, 1990.
- 29) 上野和子, 徳橋 至, 森田昌士, 他: Perforating Pilo-matricoma の 1 例. 皮膚臨床 34 : 1441~1444, 1992.
- 30) 藤村真美, 高橋法子, 田村由比, 他: 巨大な石灰上皮腫の 1 例. 皮膚臨床 32 : 886~887, 1990.
- 31) Sasaki CT, Yui A and Enriques R: Giant calcifying epithelioma. Arch Otolaryngol 102 : 753~755, 1976.
- 32) 金久禎秀, 小野哲也: 多発性石灰化上皮腫を合併した筋緊張性ジストロフィーの 1 症例 —症例報告と文献的考察—. 広島医学 43 : 1795~1798, 1990.
- 33) 中山明仁, 靱山安弘, 原田宏一: 頸部領域における石灰沈着を来す疾患の鑑別診断. 北里医学 19 : 1~5, 1989.

原稿受付: 平成 7 年 4 月 24 日
原稿採択: 平成 7 年 9 月 25 日
別刷請求先: 小山 悟
〒173 東京都板橋区加賀2-11-1
帝京大学医学部耳鼻咽喉科学講座