胸鎖乳突筋に発生した増殖性筋炎例

谷光 徳晃・久行 敦士・永澤 昌

A Case of Proliferative Myositis Arising in the Sternocleidomastoid Muscle

Noriaki Tanimitsu, Atsushi Hisayuki and Akira Nagasawa

(Miyoshi General Hospital)

We report a rare case of proliferative myositis arising in the sternocleidomastoid muscle. An 80-year-old man noted a left upper neck swelling on 9 May 2000 and consulted us the same day. A 4×6 cm smooth, stony hard, and fixed mass was palpable on the left side of the upper neck. CT scans and MRI showed an unclear boundary between the mass and the sternocleidomastoid muscle and a malignant tumor was strongly suspected. An aspiration biopsy was performed on 16 May, and the findings suggested that the mass was proliferative myositis or nodular fasciitis. Only oral medication of cefotiam and tranexamic acid was administered for use for 7 days before the diagnosis. After diagnosis, the mass was observed without any medication and it completely disappeared 7 weeks after onset. The clinical course and the pathological features of this case indicated the diagnosis of proliferative myositis. Proliferative myositis is a benign tumorous lesion formed in the striped muscle, and it is important to distinguish it from malignant disease. We considered aspiration biopsy to be very useful in this case.

Key words : proliferative myositis, aspiration biopsy, benign tumorous lesion

はじめに

増殖性筋炎は、表在性の横紋筋内に腫瘤を形成する良性の線維性増殖で、頭頸部領域では比較的まれな疾患である。その発症は比較的急速で、腫瘤は進行性に増大するため、間葉系悪性腫瘍と診断されやすく、その鑑別が重要である。今回われわれは穿刺吸引細胞診にて診断し得た胸鎖乳突筋に発生した増殖性筋炎の1例を経験し、本邦にて報告された頭頸部領域の増殖性筋炎について検討したので、若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

症例：80歳、男性。

主訴：左頸部腫脹。

既往症：S状結腸癌に対し、平成12年4月27日に当院外科にてS状結腸切除術を受けた。

家族歴：特記すべきことなし。

現病歴：上記術後にて当院外科入院中の平成12年5月9日の朝に、左頸部腫脹に気づき同日当科受診となった。

初診時、左胸鎖乳突筋部に一致して、長径約6cm、短径約4cmの楕円形の表面平滑で石様硬の固定した軽度の圧痛を伴う腫瘤を触れた（図1）。発熱はなく、鼻腔、咽喉頭などに異常は認められなかった。

血液検査：CRPが0.8mg/dlとごく軽度上昇しているのみで、白血球数は4,400/mm³と正常であった。ほかの生化学検査、末梢血検査は正常範囲内であった。各種特殊感染症（サイトメガロウイルス、EBウイルス、ヒトT細胞白血病ウイルス、クラミジア、トキソプラズマ、および梅毒）の抗体価および膠原病検査（抗核抗体、抗DNA抗体、抗Sm抗体、および抗ミトコンドリア抗体）も正常範囲、S状結腸癌に対する手術後であるため腫瘍

図 1 局所所見

左胸鎖乳突筋部に橢円形の腫瘍 (6×4 cm, 表面平滑, 石様硬) を認める (矢印)。

マーカー CEA を測定したが正常範囲であった。

われわれは側頸嚢胞, 筋炎, 膿瘍を想定し, セフォチアムおよびトラネキサム酸の経口投与を開始すると同時に腫瘍性病変も念頭に入れて精査を開始した。

画像検査: 5月16日撮影の頸部 CT では左胸鎖乳突筋内に長径5 cm以上にわたり今回の病変部に一致すると思われる境界不明瞭, 内部不均一で辺縁のみ造影される低信号領域を認めた (図 2)。リンパ節腫脹その他の病変は認められなかった。同病変部は MRI でみると, T1 強調画像においては低信号を示し (図 3a), ガドリニウムにより辺縁部中心に不均一に造影された (図 3b)。T2 強調画像では辺縁部のリング状の高信号領域に囲まれた低信号領域として描出された (図 3c)。ガリウムシンチグラフィでは異常集積を認めなかった。

以上より, 筋肉内の炎症性病変, 出血, 膿瘍などを疑ったが, 触診上非常に硬かったこと, 血液検査にて炎症反応がごくわずかであったことより, 腫瘍性病変も否定できないと判断し, 同年 5 月 16 日に穿刺吸引細胞診を施行した。

穿刺吸引細胞診所見: ギムザ染色では, 薄い線維とリンパ球がまわりついた筋細胞が散見され (図 4a), これらとともに紡錘形や星紡状の線維芽細胞と思われる細

図 2 造影 CT 所見

左胸鎖乳突筋内に境界不明瞭, 内部不均一で辺縁のみ造影される低信号領域 (矢印) を認めた。

胞が孤立散在性に認められた (図 4b)。この細胞は形や大きさが多彩で, またパパニコロウ染色にてクロマチン増量が軽微な (図 4c) ため悪性とは考えにくく, 増殖性筋炎または結節性筋膜炎が考えられるとの報告を得た。

以上の細胞診結果と画像上筋肉内に病変の主体があることより, われわれは増殖性筋炎と診断した。診断した 5 月 17 日以降セフォチアムおよびトラネキサム酸経口投与を中止し, 経過観察のみとした。腫瘍は 5 月末より縮小し始め 6 月末には完全に消失した。その後現在まで約 15 ヶ月間, 腫瘍の再発は認めていない。

考 察

増殖性筋炎は, 比較的急速に表在性の横紋筋組織内に腫瘍を形成する良性的増殖性疾患で, 臨床的に間葉系悪性腫瘍と紛らわしく, その鑑別が重要である。本疾患は, 病理組織学的には膠原線維を伴う異型性・多型性の著しい線維芽細胞様細胞の増殖, 神経節細胞様巨細胞の存在, 筋細胞の変性およびリンパ球の浸潤を特徴とする¹⁾²⁾。1960 年に Kern³⁾ が外傷により発症する偽肉腫性疾患として最初に報告し, 1967 年に Enzinger ら⁴⁾ が本疾患 33 例を集計して独立した疾患としての概念を確立した。

過去の文献より本疾患の臨床統計を検討する。Enzinger ら⁴⁾ によれば, 年齢は 22~82 歳にわたり 45 歳以上に多く, 男女比 4:3 で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, 僧帽筋に多いとなっている。国内では三国ら⁵⁾ が 22 例をまとめており, それによれば平均年齢は 53.7 歳, 性は男性 10 例, 女性 12

図3 MRI 所見（前額断．a：T1 強調画像，b：ガドリニウム造影，c：T2 強調画像）

T1 強調画像で低信号（a），ガドリニウムにより辺縁部中心に不均一に造影され（b），T2 強調画像で辺縁部のリング状の高信号領域に囲まれた低信号領域（矢印）として描出された（c）。

例，発生部位は胸鎖乳突筋が8例，大腿6例，咬筋2例，前腕，大胸筋，下腿，広背筋，肩甲部，不明がそれぞれ1例ずつであった．以上を総括すると，本疾患は国内外を問わず45歳以上の成人に多く，性差はほとんど認めない．好発部位は，大腿部，上腕，頸部，軀幹などの横紋筋である．今回われわれは，本症例を含め国内で報告された頭頸部領域の増殖性筋炎18例のうち，後に本疾患ではないと判明した1例を除いた17例の臨床統計の検討を行ったが，ここでは年齢は18～80歳の平均51.5歳で，男性8例，女性9例と性差を認めず，発生部位も胸鎖乳突筋が12例（71%）と大部分を占め（内側翼突筋2例，頬筋2例，咬筋1例），過去の報告と矛盾のない傾向を示した．

症状は数日から数週間の間に急速に増大する²⁾ 腫瘍であり，自発痛，圧痛は少ない⁴⁾．その腫瘍は境界不明瞭で固さは石様硬⁶⁾，大きさは1～8cm²⁾とさまざまであ

る．先に述べた国内の頭頸部領域の増殖性筋炎17例のうち，文献または調査により詳細を知り得た11例の臨床所見を表1に示した．これらの大きさは，不明のもの2例を除くと長径1.5～10cmで，自発痛，圧痛については全く認めないものから激しいものまでさまざまであった．ちなみに炎症所見（白血球数上昇，CRP値上昇または赤沈亢進）については陽性が7例，陰性が2例，不明2例であった．CT，MRI，エコーなどの画像所見は症例によってまちまちで特徴的な所見はなかった．この理由としては，細胞浸潤の優位な時期，線維成分の優位な時期というような炎症の段階や出血の状態によって左右されるためと思われる．これらの臨床所見は，本疾患の診断においては有力な手がかりにはなり得ないと考えられる．

発生原因については，Kern³⁾やChungら⁷⁾は，局所的な外傷を挙げ，紫垣ら⁸⁾は，好発部位が比較的外的刺激

図 4 穿刺吸引細胞診所見 (a : ギムザ染色 ×100, b : ギムザ染色 ×400, c : パパニコロウ染色 ×400)
ギムザ染色では薄い線維とリンパ球がまとわりついた筋細胞 (a, 矢印) が散見され, 紡錘形や星紡状の線維芽細胞様の細胞 (b, 矢印) が孤立散在性に認められた. この線維芽細胞様細胞はパパニコロウ染色においてクロマチン増量が軽微であった (c, 矢印).

表 1 国内の頭頸部領域の増殖性筋炎 11 例

	性・年齢	発生部位	大きさ	圧痛または 自発痛	炎症所見	誘因	診断法	治療	予後
症例 1	57・女	胸鎖乳突筋	2×2 cm	－	－	なし	摘出生検	手術	再発なし
2	62・女	胸鎖乳突筋	4×3 cm	－	不明	外傷	摘出生検	手術	再発なし
3	40・男	胸鎖乳突筋	3×3 cm	－	不明	なし	摘出生検	手術	再発なし
4	61・女	胸鎖乳突筋	6×6 cm	＋	＋	なし	摘出生検	手術	再発なし
5	18・女	頬筋	1.5×1 cm	－	－	なし	摘出生検	手術	再発なし
6	35・女	胸鎖乳突筋	不明	－	＋	なし	切開生検	経過観察のみ	治癒
7	33・男	内側翼突筋	不明	＋	＋	なし	臨床所見	ステロイド	治癒
8	49・男	咬筋	4×4 cm	＋	＋	なし	穿刺吸引細胞診	抗生剤＋NSAID	治癒
9	58・男	胸鎖乳突筋	6×5 cm	＋	＋	過運動	切開生検	NSAID	治癒
10	64・女	胸鎖乳突筋	10×5 cm	+++	＋	なし	切開生検	抗生剤＋ステロイド	治癒
11	80・男	胸鎖乳突筋	6×4 cm	－	＋	なし	穿刺吸引細胞診	抗生剤＋NSAID	治癒

(自験例)

(NSAID : 非ステロイド性消炎鎮痛剤)

表2 軟部組織における偽肉腫性増殖性病変
(紫垣直孝, 他: 臨床 45: 655 ~ 659, 1991⁸⁾ をもとに作成)

	結節性筋膜炎	増殖性筋膜炎	増殖性筋炎
1. 臨床的 ・好発年齢 ・境界	特になし 比較的明瞭	45歳以上 不明瞭	同左 同左
2. 組織学的 ・病変部 ・増殖細胞 a) 線維芽細胞様細胞 b) 巨大細胞	筋膜(真皮下層) + 組織球様	筋膜 + 神経節細胞様	筋周膜, 筋内膜 + 同左

を受けやすい部位であり, 組織学的に創傷治癒の過程に類似していることから, 機械的刺激を重要な因子として挙げている. その一方で三国ら⁵⁾ や墨ら⁹⁾ は, 国内の症例では外傷の既往のある症例はごく一部のみで, 発生原因は不明と述べている. 検討した11例のなかでは, 外傷の既往があるもの1例, 発症前に過運動をしたもの1例, 誘因のはっきりしなかったもの9例であった. 今回のわれわれの症例では外傷, 外的刺激などの既往は認めなかった.

本疾患の類縁疾患としては, 結節性筋膜炎 (nodular fasciitis), 増殖性筋膜炎 (proliferative fasciitis) が挙げられ, Dahlら¹⁰⁾ は, これら3疾患をまとめて“軟部組織における偽肉腫性増殖性疾患”と命名することを提唱した. 紫垣ら⁸⁾ は, 3疾患とも何らかの刺激により生じる線維芽細胞性の良性反応性増殖として, 同一スペクトラム上に存在するものとしてとらえた方がよいと述べ, それぞれの特徴を表2のようにまとめている. 今回の症例では, 穿刺吸引細胞診にて特徴的な巨大細胞を認めず, 「増殖性筋炎または結節性筋膜炎」との報告を得たが, 画像上病変の主座が筋肉内にあったことと, 境界が不明瞭であったことより, 増殖性筋炎と診断した.

本疾患の鑑別診断で最も重要な疾患は, 間葉系悪性腫瘍, 特に線維性細胞の悪性線維性組織球腫, 隆起性皮膚線維肉腫, 紡錘形細胞の平滑筋肉腫, 神経鞘腫である. これらとの鑑別を含めた確定診断には, 生検が必須であるという意見がほとんどで, 穿刺吸引細胞診のみで診断できた症例は, 本症例を除けば猟捕したなかでは2例のみ¹¹⁾¹²⁾ であった. 免疫組織化学的検査が上記の間葉系悪性腫瘍の除外の一助になり得るという報告¹²⁾¹³⁾ が最近みられるが, はっきりとは確立されていない.

治療であるが, 本疾患は治療の必要はなく, 痛みの強い場合は消炎鎮痛剤ないし副腎皮質ステロイドの投与が行われる. いずれにせよ外科的処置は不要である⁹⁾¹¹⁾¹⁴⁾. しかし, 診断のつかないまま外科的処置が行われ, その後の病理組織検査により初めて診断される症例も多く, 切開生検のみでは不十分で, 摘出術にならざるを得ないという意見もある⁶⁾. 先述の11例(表1)の診断, 治療, 経過をみると, 手術施行例は5例でこれらはすべて術前には診断がついておらず, 手術後の病理検査により, 初めて診断された. 5例とも腫瘍に若干の正常組織をつけて摘出する術式であった. 手術を施行しなかった6例のうち, 3例は切開生検にて, 2例は穿刺吸引細胞診にて, 残り1例は臨床所見のみから診断された. これら, 手術を施行しなかった6例の治療の内容としては副腎皮質ステロイド, 非ステロイド性消炎鎮痛剤, 抗生剤のいずれかの単独投与, またはこれらを組み合わせた投与が行われていた. 治療を行わず経過観察のみ行った症例は1例であった. 治療別の経過を検討してみると, 手術施行群は全例再発を認めなかった. 保存的治療群については全例治癒しているが, これらが縮小傾向を示し始めたのは発症後平均3.5週で, 消失したのは発症後平均6週であった.

表3 穿刺吸引細胞診における増殖性筋炎の細胞構成

- ・線維芽細胞様紡錘形細胞
- ・神経節細胞様巨細胞
- ・再生筋細胞
- ・炎症性細胞
- ・膠原線維

図 5 細胞診による増殖性筋炎の診断の流れ

われわれは今回の症例を穿刺吸引細胞診のみで診断し得たが、一般的な増殖性筋炎の穿刺吸引細胞診の所見は増殖の主体である線維芽細胞様細胞、本疾患に特徴的な神経節細胞由来の巨細胞をはじめとし、再生筋細胞、リンパ球主体の炎症性細胞、膠原線維がみられる(表 3)²⁾¹²⁾¹³⁾。垣花ら¹³⁾によれば、穿刺吸引細胞診において線維芽細胞様細胞に伴い、本疾患に特徴的な神経節細胞様巨細胞を認めれば、増殖性筋炎と診断できるが、今回の症例のように巨細胞が認められない場合でも、増殖する線維芽細胞様細胞の核の異型性が軽度またはみられないこと、およびクロマチンの濃染がみられないことより、悪性腫瘍ではないと判断した上で、臨床所見、経過と考え合わせて本疾患と診断することができる。しかし、穿刺吸引細胞診で観察された細胞は腫瘤のごく一部であることを念頭に入れて、嚴重に経過観察する必要がある。先に述べたように、今回検討した 11 症例中の保存的治療群は、約 3～4 週間で縮小し始めていることから、この期間を過ぎても縮小傾向を示さない場合は、生検を兼ねた外科的治療を考慮せねばならず、このような場合に備えた準備、家族への説明が必要と思われる(図 5)。

まとめ

1. 穿刺吸引細胞診にて診断し得た胸鎖乳突筋に発症した増殖性筋炎の 1 例を経験したので自験例を含めた本邦報告例のうち詳細を知り得た 11 例について検討した。
2. 間葉系悪性腫瘍との鑑別が重要な増殖性筋炎の診断には穿刺吸引細胞診が有用であると思われた。ただし、腫瘤のごく一部しか観察できないという限界があるため

嚴重に経過観察を行う必要があり、3～4 週間経過しても縮小しない場合は生検を兼ねた外科的治療を行う必要があると考えた。

参考文献

- 1) 小林省二, 大森正樹, 大月出祐治: 間葉系悪性腫瘍とまぎらわしい増殖性筋炎 (proliferative myositis). 癌の臨床 27: 1243～1246, 1981.
- 2) 藤原正之, 飯塚好伯, 山田佐和子, 他: 増殖性筋炎の 2 例. J Jpn Soc Clin Cytol 30: 100～107, 1991.
- 3) Kern WH: Proliferative myositis, a pseudosarcomatous reaction to injury; report of seven cases. Arch Pathol Lab Med 69: 209～216, 1960.
- 4) Enzinger FM and Dulcey F: Proliferative myositis; report of thirty-three cases. Cancer 20: 2213～2223, 1967.
- 5) 三国尚志, 飯塚桂司, 川浪 貢, 他: 胸鎖乳突筋に発症した増殖性筋炎例. 耳鼻臨床 84: 1593～1597, 1991.
- 6) 岡 亮, 小川佳伸, 生方雪子, 他: 胸鎖乳突筋に発症した増殖性筋炎の 1 症例. 日生医誌 19: 201～203, 1991.
- 7) Chung EB and Enzinger FM: Proliferative fasciitis. Cancer 36: 1450～1458, 1975.
- 8) 紫垣直孝, 大竹直人, 窪田泰夫, 他: 増殖性筋炎の 1 例. 臨皮 45: 655～659, 1991.
- 9) 墨 一郎, 川端五十鈴, 渡邊一夫, 他: 両側胸鎖乳突筋に発症した増殖性筋炎例. 耳鼻臨床 91: 851～856, 1998.
- 10) Dahl I and Angervall L: Pseudosarcomatous proliferative lesions of soft tissue with or without bone formations. Acta Pathol Microbiol Scand [A] 85: 577～589, 1977.
- 11) 大沼英行, 幸山吉彦, 坂井 昇, 他: 咬筋に発症した増殖性筋炎の一症例. 耳鼻 34: 693～698, 1988.
- 12) 梶岡みゆき, 安原真由美, 万代須美, 他: 増殖性筋炎の一

- 例. 日本臨床細胞学会広島県支部会報 16 : 69 ~ 71, 1995.
- 13) 垣花昌彦, 大久保誠, 浦崎政治, 他 : 悪性線維性組織球腫 (malignant fibrous-histiocytoma) とその周辺の疾患の穿刺吸引細胞診上の問題点について. J Jpn Soc Clin Cytol 24 : 426 ~ 439, 1985.
- 14) Gokkel JM : Proliferative myositis; a case report with fine structural analysis. Virchows Arch [A] 367 : 345 ~ 352, 1975.

原稿受付 : 平成13年 9 月21日
原稿採択 : 平成13年10月31日
別刷請求先 : 谷光徳晃
〒728-8502 三次市東酒屋町字敦盛531
公立三次中央病院耳鼻咽喉科