咬筋内に生じた dystrophic calcification の 1 例

宮 寄 亮^{1,2)}・西口雄祐^{1,3)}・高橋 望^{1,4)}
辻 麻美¹⁾・木本奈津子¹⁾・大亦哲司¹⁾

A case of dystrophic calcification in the masseter muscle

MIYAZAKI Ryo^{1,2)}・NISHIGUCHI Yusuke^{1,3)}・TAKAHASHI Nozomu^{1,4)}
TSUJI Asami¹⁾・KIMOTO Natsuko¹⁾・OMATA Tetsuji¹⁾

Abstract: Dystrophic calcification is an ectopic calcification with fibrous connective tissue, without general mineral disorders, and is rarely found in the oral and maxillofacial region. We report a case of dystrophic calcification in the masseter muscle. A 57-year-old woman visited our department with the chief complaint of right cheek swelling. CT revealed two calcification lesions in the right masseter muscle. One lesion was intraorally excised under general anesthesia. Layered collagen fiber with calcification nodules was observed histopathologically, and there were no disorders in her blood and breast X-ray examinations, therefore a diagnosis of dystrophic calcification was made. Six months has passed since the operation and no evidence of recurrence or growth of the residual lesion was observed.

Key words: dystrophic calcification (異栄養性石灰化), masseter muscle (咬筋)

緒 言

Dystrophic calcification はミネラル代謝異常を伴わない線維性結合組織を伴う異所性石灰化物である¹⁾。顎口腔領域での報告はきわめて少なく、発症原因として、炎症、免疫異常、感染症、血管炎、循環不全、外傷などが考えられているが²⁾、その詳細なメカニズムについては未だ説明されていない。

今回われわれは、咬筋内に生じた dystrophic calcification の 1 例を経験したので、文献的考察を加えて報告する。

症 例

患 者：57 歳，女性。

初 診：2020 年 7 月。

主 訴：右側頬部の腫瘍形成。

既往歴：好酸球性肺炎。

家族歴：特記事項なし。

現病歴：2020 年 7 月初旬より右側頬粘膜に腫瘍を自覚し、当科を受診した。

現 症：

全身所見；身長 161 cm，体重 52 kg，栄養状態は良好であった。

口腔外所見；顔貌は左右対称であった。右側咬筋下端前縁部付近に 10mm 程度の弾性硬の腫瘍を触知した。腫瘍は可動性があり、圧痛は認めなかった。また、開口障害は認めなかった。

口腔内所見；右側頬粘膜に視診上異常は認めなかった。双指診にて右側頬粘膜下に 10mm 大の弾性硬の腫瘍を認めた。

¹⁾ 紀南病院歯科口腔外科

(主任：大亦哲司主任部長)

²⁾ 香川大学医学部歯科口腔外科学講座

(主任：三宅 実教授)

³⁾ 大阪歯科大学歯学研究科口腔外科学専攻

(主任：中嶋正博教授)

⁴⁾ 熊本大学大学院生命科学研究部歯科口腔外科学講座

(主任：中山秀樹教授)

¹⁾ Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Kinan Hospital (Chief: Dr. OMATA Tetsuji)

²⁾ Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Faculty of Medicine, Kagawa University (Chief: Prof. MIYAKE Minoru)

³⁾ Graduate School of Dentistry (Second Department of Oral and Maxillofacial Surgery), Osaka Dental University (Chief: Prof. NAKAJIMA Masahiro)

⁴⁾ Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Faculty of Life Sciences, Kumamoto University (Chief: Prof. NAKAYAMA Hideki)

受付日：2021 年 4 月 2 日

採掲日：2021 年 7 月 27 日

画像所見：

パノラマ X 線所見；右側下顎骨下方に 2 つの X 線不透過物を認めた (写真 1)。

CT 所見；右側咬筋前縁部に 11×11×8 mm 大の腫瘍性病変を認め、内部に 5×4×3 mm 大の石灰化物を認めた。また咬筋下端部に 3×3×3 mm 大の石灰化物を認めた (写真 2A, B)。

MRI 所見；右側咬筋前縁部に 11×11×8 mm 大の腫瘍性病変を認めた。腫瘍内部は T1 強調像で不均一な淡い高信号、T2 強調像で低信号と無信号域の混在を示した。また、右側咬筋下端部の病変については評価困難であった (写真 3A, B)。

胸部単純 X 線所見；異所性石灰化や肺結核の既往を疑わせる陰影は認めなかった。

血液検査所見；血清 Ca 値は 9.1mg/dL, P 値は 3.1mg/dL で、ともに正常範囲内であった。

臨床診断；右側咬筋部石灰化病変。

処置および経過；画像検査では腫瘍性病変である可能性を除外できなかったため、口腔内からの摘出が容易な咬筋前縁部の病変を摘出し病理組織学的診断を行う方針とし、2020 年 9 月に全身麻酔下に右側咬筋部腫瘍摘出術を施行した。腫瘍直上に 20mm 程度切開を加え鈍的に剥離を行ったところ、咬筋筋膜内に暗赤色の被膜に被覆された腫瘍を認め、一塊として摘出した (写真 4)。周囲組織との癒着は認めず、容易に剥離できた。耳下腺管からは離れた位置に存在しており、腫瘍周囲に静脈石を疑うような血管は認めなかった。病理組織学的診断は dystrophic calcification であった。咬筋下端部の病変は、患者希望もあり経過観察とした。術後半年が経過した現在、再発所見なく、また残存した石灰化物の増大は認めていない (写真 5)。

摘出標本所見；表面暗褐色の 11×11×7 mm 大の楕円形で、内部は黄白色の年輪状を呈していた (写真 6)。

病理組織学的所見；H-E 染色にて石灰化を伴った結節が認められ、層板状の硝子化構造を呈した。結節内には変性した筋肉組織が存在し、周囲に毛細血管の増生、凝血塊、筋肉組織を認めた (写真 7A, B)。また、マッソントリクローム染色にて濃染される膠原線維の層板状の増生が認められた (写真 7C)。加えて、摘出材料内には拡張した血管構造は確認されず、器質化を伴った血栓 (静脈石) の可能性は低いものと考えられた。

病理組織学的診断；dystrophic calcification.

考 察

異所性石灰化は、コラーゲン複合体にカルシウム塩が沈着することで生じる疾患とされている。そのなかでも、全身的な電解質異常を伴う石灰沈着は metastatic calcifica-

tion, 全身的な電解質異常を伴わない石灰沈着は dystrophic calcification に分類される³⁾。Dystrophic calcification は、局所の組織損傷を受けた部位の壊死組織や炎症性組織周囲に生じ、ミネラル沈着の核にコラーゲン変性やエラスチン変性を生じるとされている¹⁾。鑑別を要する疾患として、陳旧性結核結節、静脈石、唾石、石灰化上皮腫、外傷性化骨性筋炎などが挙げられる。

本症例では、胸部 X 線写真にて、結核を疑うような所見は認めず、病理組織学的所見でも結核性リンパ節炎の所見は認めなかったため陳旧性結核結節は否定された。また、病理組織学的所見にて血管壁を認めず、静脈石も否定的であった。本症例の発生部位は耳下腺管から離れており、唾石は否定的であった。また唾石の病理組織学的特徴である、腺房の変性・萎縮、導管の不規則な拡張や、その周囲への炎症性細胞浸潤や間質の広範な線維化および導管上皮化生⁴⁾も認めなかった。

石灰化上皮腫は Malherbe ら⁵⁾ が 1880 年に初めて報告した良性腫瘍である。毛母細胞由来であり、顔面や頸部の皮下に触知される⁶⁾ ため鑑別は容易である。また、外傷性化骨性筋炎は、外力によって生じる筋組織内に異所性の骨形成を生じる疾患である⁷⁾。病理組織学的所見として、未分化細胞、出血および壊死筋肉細胞より成る中心層、骨芽細胞と類骨組織より成る中間層、成熟した骨組織より成る周辺層の 3 層構造が特徴であり⁸⁾、本症例では否定された。

本症例では、全身検索として胸部 X 線撮影と血液検査を施行したが、異常は認めなかった。また、術後当院内科にて撮影した胸部 CT でも異所性石灰化は認めなかった。以上より全身的な電解質異常を認めなかったため、本症例では dystrophic calcification と診断した。

本邦での頬部の dystrophic calcification の報告例を表 1 に示す (表 1)⁹⁻¹⁴⁾。近年では、線維組織を伴った石灰化物を、田邊ら¹³⁾ が結石様石灰化物として、Yokoi ら¹⁴⁾ は calcified nodule として報告している。また、顎下部の dystrophic calcification を山本ら¹⁵⁾ は異所性石灰化物として、Barros ら²⁾ は主に骨格筋内に発生する線維性結合組織を伴う異所性石灰化物を calcified fibrous nodule と報告している。外傷、自己免疫疾患、囊虫症、結核などによる炎症が原因と考えられているが²⁾、その成り立ちについては未だ不明な点が多い。田邊ら¹³⁾ は明らかな静脈や細静脈の存在は認めなかったが、被覆している線維組織が静脈外壁の残存したものと考え、筋部の細静脈に由来した静脈石に類似したものと推察している。また、Yokoi ら¹⁴⁾ は原因については不明と報告している。本症例では、病理組織学的所見にてマッソントリクローム染色で青色に染色される線維性結合組織を伴う石灰化物を認めたため、Barros ら²⁾ の報告した calcified fibrous nodule が最も近い病態を示す

写真 1 パノラマ X 線写真
右側下顎骨下縁の下方に点状する石灰化物 (矢印) を認める。

写真 4 術中写真
咬筋内に境界明瞭な赤色の腫瘍を認める。

写真 2 CT 画像 (水平断)
A: 右側咬筋前縁部に石灰化物を伴う腫瘍 (矢印) を認める。
B: 右側咬筋下端部に石灰化物 (矢印) を認める。

写真 5 術後 6 か月 CT 画像 (水平断)
右側咬筋内に残存した石灰化物を認める。

写真 3 MR 画像 (水平断)
A: T1 強調像で内部が不均一な淡い高信号と、辺縁に被膜様の低信号の腫瘍を認める。
B: T2 画像で低信号と無信号と混在した腫瘍を認める。

写真 6 摘出標本断面写真
腫瘍は弾性硬で、内部は黄白色の年輪状の構造を呈し、中心に白色の病変を認める。

写真 7 病理組織像 (A: HE 染色 $\times 10$ B: HE 染色 $\times 100$ C: マッソントリクローム染色 $\times 10$)
石灰化を伴った結節と層板状の硝子化構造を認める。またマッソントリクローム染色にて染色される膠原線維の層板状の増生を認める。

表1 本邦における頬部の dystrophic calcification の報告例

報告者	報告年	年齢	性別	部位	大きさ	病理組織学所見	診断名
吉澤ら ⁹⁾	1985	23	女	咬筋内	直径 10 mm	一部に石灰化を伴う myxomatous な組織	結石様石灰沈着
本田ら ¹⁰⁾	1987	24	女	下頬部	15×10×10 mm	石灰化物の外側に横紋筋と一部平滑筋を含む組織	結石様石灰化物
黒川ら ¹¹⁾	1989	18	男	咬筋内	直径 10 mm	同心円状の硝子様結合組織の肥厚に著明な石灰化物沈着のみられる結節	石灰化した結節
林ら ¹²⁾	2000	16	女	咬筋内	20×20×16mm	同心円状の癭痕化した結合組織と部分的な石灰化	結石様石灰化物
田邊ら ¹³⁾	2009	26	男	咬筋内	12×11×9 mm	線維組織に包まれた石灰化物	結石様石灰化物
Yokoi ら ¹⁴⁾	2011	34	男	咬筋前部軟組織	25×20×20 mm	線維化と石灰化を伴った結石と、その周囲に出血と石灰沈着伴った炎症性細胞浸潤	calcified nodule
本症例		57	女	咬筋内	11×11×7 mm	石灰化結節と層板状の硝子化構造	dystrophic calcification

と考えられる。また、発生原因に関しては、外傷、自己免疫疾患、結核等の既往はなく、特定するのは困難であった。

同様の病変の治療法に関しては、全例で摘出術が行われており、再発の報告はない。本症例では咬筋下端部の病変は残存しており、今後長期の経過観察を予定している。

謝辞

稿を終えるにあたり、本症例の病理組織学的診断に関してご協力賜りました、紀南病院中央臨床検査部 尾崎 敬先生、徳島大学大学院医歯薬学部口腔分子病態学分野 石丸直澄先生に深謝いたします。

本論文に関して、開示すべき利益相反状態はない。

引用文献

- 1) Franzen M, Moré E, et al : Mineral depositions of calcifying skin disorders are predominantly composed of carbonate apatite. *Acta Derm Venereol* 97: 1178-1181, 2017.
- 2) Barros RC, Gonçalves GM, et al : Calcified fibrous nodules in masseter muscle-A case report and possible etiologies. *J Oral Diag* 1: 82-86, 2016.
- 3) 福本誠二：バイオミネラリゼーション～結晶学から臨床まで～異所性石灰化. *Clin Calcium* 24: 185-189, 2014.
- 4) 下野正基, 高田 隆：新口腔病理学. 第1版, 医歯薬出版, 東京, 2013, 291 頁.

- 5) Malherbe A and Chenantais J : Note sur l'épithélioma calcifié des glandes sebacees. *Progr Med de Paris* 8: 826-828, 1880.
- 6) Thurhan B and Krainer L : Bemerkungen uber die sogenannten verkalkenden Epitheliome der Haut und ihre Genese. *Dermatologica* 85: 73-91, 1942.
- 7) O' Riordan B : Phleboliths and salivary calculi. *Br J Oral Surg* 12: 119-131 1974.
- 8) Ackerman LV : Extra-osseous localized non-neoplastic bone and cartilage formation (so-called myositis ossificans) : clinical and pathological confusion with malignant neoplasms. *J Bone Joint Surg Am* 40-a: 279-298, 1958.
- 9) 吉澤信夫, 公平善啓, 他：咬筋内に生じた結石様石灰沈着の1例. *口科誌* 34: 416-420, 1985.
- 10) 本田雅彦, 滝川富雄, 他：下頬部に生じた結石様石灰化物の1例(抄). *日口外誌* 33: 2305, 1987.
- 11) 黒川正人, 平本道昭：咬筋内に石灰化した結節を伴った1例. *形成外科* 32: 859-861, 1989.
- 12) 林 峰佳, 木下靖朗, 他：咬筋内に生じた結石様石灰化物の1例. *日口外誌* 13: 55-58, 2000.
- 13) 田邊陽子, 市ノ川義美, 他：咬筋前縁に生じた結石様石灰化物の1例. *日口外誌* 55: 260-263, 2009.
- 14) Yokoi H, Yoshikawa H, et al : Calcified nodule in the buccal submucosa: a case report. *B-ent* 7: 215-218, 2011.
- 15) 山本 翼, 竹本 隆, 他：外傷を契機に発見された顎下部異所性石灰化物の1例. *日口外誌* 65: 797-800, 2019.