左側下顎下縁部に生じた結節性筋膜炎の1例と文献的考察

桐田 忠昭・中川 徹・吉田 育弘・望月光 治
岡田 征夫・石田 武*・杉村 正仁

Nodular fasciitis of the left inferior border of mandible:
Report of a case and review of the literatures

Tadaaki KIRITA・Toru NAKAGAWA・Ikuhiro YOSHIDA
Koji MOCHIZUKI・Yukio OKADA・Takeshi ISHIDA*
Masahito SUGIMURA

Abstract: Nodular fasciitis is a benign pseudosarcomatous proliferative lesion of the soft tissue, found in the subcutaneous fascia, usually of the upper extremity or trunk. It is frequently found to be a rapidly growing mass, and so it should be cautioned not to misdiagnose to be a malignant neoplasm.

Accumulation of a large series of nodular fasciitis in the orofacial region indicates that this anatomic site is perhaps uncommonly but certainly not rarely affected. This report deals with the detailed description of a case of nodular fasciitis in the mandible and made a review of the literatures.

The patient, a 3-year-old girl referred to the clinic with the chief complaint of a tumor mass in the left inferior border of mandible.

The rentgenologic examination revealed a periosteal reaction at the cortical bone adjacent to the tumorous lesion. A consequence of the histopathological study on the biopsy material showed nodular fasciitis.

Follow-up information is favorable and proves the benign nature of the lesion. Differential diagnosis in relation to the other benign and malignant tumors in the region is also discussed.

Key words: nodular fasciitis, fibrosarcoma, periosteal reaction

緒 言

Nodular fasciitis は、皮下筋膜に生ずる反応性の良性

病変であるが、時に発育が迅速で組織像が線維肉腫に似るため、肉芽腫様筋膜炎あるいは皮下肉腫様線維腫症などとも呼ばれてきた。

本症は、Konwaler らりが初めて1つの疾病として確立して以来、数々の報告がみられるが、本邦においては報告例は少なく、特に口腔外科領域での報告はきわめて少ない。

症 例

患 者：3歳 女児。
初 診：昭和58年（1983年）2月■日。
主 訴：左側下顎無痛性腫脹。
既往歴・家族歴：特記事項なし。
現病歴：昭和57年11月上旬、左側下顎下縁の腫脹に家

奈良県立医科大学口腔外科学教室
（主任：杉村正仁教授）
* 大阪大学歯学部附属病院検査部
（部長：作田正義教授）
Department of Oral and Maxillofacial Surgery,
Nara Medical University (Chief: Prof. Masahito Sugimura)
* Clinical Laboratory, Hospital attached to the
Osaka University Faculty of Dentistry (Chief:
Prof. Masayoshi Sakuta)
受付日：昭和60年6月17日

写真 1 a, b: 初診時顔貌所見

写真 2 初診時X線写真

写真 3 病理組織像 (H-E 染色, ×100)

人が気付く、以後初診に至るまで大きさに変化はなかったが、2月上旬より腫脹が増大の傾向を示したと思われるため、某内科を受診、当科へ紹介来院となった。なお、当該部における外傷の既往については、ないとのことであった。

表 1 臨床検査成績

赤血球数	472×10 ⁴ /mm ³	総ビリルビン	0.3 mg/dl
白血球数	65×10 ² /mm ³	直接ビリルビン	0.2 mg/dl
ヘモグロビン	12.4 g/dl	TTT	2.0 MU
ヘマトクリット	40%	ZTT	5.0 KU
血小板数	278×10 ³ /mm ³	GOT	36 IU/l
総タン白	6.7 g/dl	GPT	16 IU/l
アルブミン	4.5 g/dl	コリンエステラーゼ	0.87 ΔPH
A/G	2.0	アルカリフォスファターゼ	13.5 KAU
PT	12.3秒	LDH	460 IU/l
出血時間	2.0分	尿素窒素	9 mg/dl
Ca 再加試験	2.5分	クレアチニン	0.8 mg/dl
全血溶解時間	(-)	総コレステロール	143 mg/dl
Na	140 mEq/l	空腹時血糖	74 mg/dl
K	4.3 mEq/l	尿: 糖	(-)
Cl	103 mEq/l	タン白	(-)
Ca	8.9 mEq/l	ウロビリノーゲン	(-)
P	4.0 mg/dl	ビリルビン	(-)
Mg	2.4 mg/dl	ケトン体	(-)
		pH	6.0

現 症

全身所見: 身長 98.5 cm, 体重 15 kg, 顔色, 栄養状態は良好である。

口腔外所見: 顔貌は左右非対称で、左側下顎下縁部に 24×27 mm の腫瘍がみられる。腫瘍の境界は比較的明

写真4 病理組織像 (H-E 染色, $\times 400$) 写真5 病理組織像 (Azan Mallory 染色, $\times 100$) 写真6 病理組織像 (Masson trichrome 染色, $\times 400$)

腺で弾性軟, 圧痛はない。

また, 皮膚との癒着はなく, 腫瘍表面に近い部分は可動性であるが, 深部は下顎下縁に癒着している。波動は認められない。所属リンパ節は左側顎下部に, 小指頭大, 弾性軟のリンパ節を2個触知するも圧痛は認められず, 可動性である (写真1)。

口腔内所見: 乳歯はすべて正常に萌出し, 齶蝕は認め

写真7 a: 初診時X線写真
b: 初診より3か月後
c: 初診より8か月後

られない。歯肉口腔粘膜にも異常はない。咽頭扁桃は両側に肥大を認める。

臨床検査所見: 血液, 尿検査所見に異常はない (表1)。 ^{67}Ga -citrate によるシンチグラフィーにおいても異常取り込み像はみられない。

X線所見: 初診時所見として, 左側下顎下縁部に辺縁不整の境界不明瞭な骨吸収像と, 外方に向かう一部骨増生像がみられる (写真2)。

臨床診断: 左側下顎部悪性腫瘍。

処置および経過: 上記精査のため同年2月28日, 局麻下にて組織生検を行った。下顎下縁に切開を加え, 鈍的に剝離すると, 腫瘍は咬筋付着部前縁にみられ筋組織お

よび骨膜に一部癒着していた。腫瘤の硬さは弾性硬で、同部より 1×2×0.5 cm 大の組織と隣接顎下リンパ節の 1 部をとり病理組織検査を行った。

病理組織学的所見：紡錘型の線維芽細胞が束状、不規則に増殖し、血管成分に富んだ部分では、赤血球、リンパ球の管外遊出が多数認められた。線維芽細胞は通常よりもやや大きく、核は丸みを帯び、紡錘型、類円型であった。周囲組織との境界は不明瞭で、浸潤性の増殖を示した。Azan Mallory, Masson trichrome 染色によって膠原線維の著しい増殖が確認された。また、リンパ節は正常像を示しており異形細胞の存在、浸潤等は認められなかった（写真 3～6）。

病理組織診断：結節性筋膜炎（線維型）。

予 後：上記診断のもとに以後経過を追跡した。臨床

的には生検後、腫瘍自体の増大傾向はなく、顎機能は正常であり神経障害もみられない。左側下顎下縁部表面は正常健康皮膚に被われ、同部リンパ節に大きな変化はみられなかった。写真 7 は、初診時よりのパノラマ X 線写真の経過を追ったものである。初診時の X 線写真では、左側下顎下縁部に辺縁不整の骨吸収像と、一部骨増生像がみられたのであるが、3 か月後の X 線写真では骨増生が明確にみられるようになり、骨吸収に進展はみられなかった。8 か月後には同症状がより著明となった。手術は施行せず、現在引き続き予後を観察中である。

考 察

結節性筋膜炎は反応性の血管・線維芽細胞性増殖と考えられ、病変は主として浅在筋膜を侵し、周囲皮下組織に浸潤性に発育して、孤在性結節を形成するが、ときには深在筋膜に生じて骨格筋に浸潤することもある²⁾。しかし本態は良性の非腫瘍性疾患であり、線維腫症の 1 型として分類されている^{3,4)}。

本疾患は、1955 年 Konwaler ら¹⁾が四肢、特に上肢の皮下組織に発生した腫瘤で、組織的に分化度の高い線維性肉腫と、鑑別の困難な良性腫瘍を、Subcutaneous pseudosarcomatous fibromatosis (Fasciitis) と発表して以来、主として欧米を中心に数々の報告がみられるが、1961 年、Price ら⁵⁾は本症の 65 例を報告し、その臨床病理的分析から nodular fasciitis と名付け、最近では一般にこの言葉がよく用いられている。

本疾患の臨床的な特徴は、腫瘤が全く偶然に気づかれ、圧痛や自発痛を伴うことは少なく、認めても極く軽度で、明らかな誘因と思われるものは不明である。腫瘤の増大速度は急速で、一部緩徐なもの、あるいは不変である場合もあるとされている。

表 2 発現年齢

	Kleinstiver (1968)	Bernstein (1982)
0 ～ 9	12	8
10 ～ 19	34	19
20 ～ 29	57	22
30 ～ 39	79	24
40 ～ 49	56	18
50 以上	60	17
不 明	16	

表 3 性 別

	Brenstein (1982)	Shimizu (1984)
男	54	126
女	54	122

表 4 発現部位

Kleinstiver (1968)		Bernstein (1982)		Shimizu (1984)	
手	7	前 腕	29	肩	8
前 腕	102	肘	6	胸 壁	7
上 腕	44	上 腕	13	背	8
肩、腋窩	11			腹	3
頭 頸	23	顔	10		
体 幹	64	耳下腺	3	腋 窩	1
足	3	頸	4	乳 房	1
下 腿	15			後 頭	3
大 腿	38	大 腿	7	臀	1
気 管	2	下 腿	6		
不 明	5	膝	4	不 明	2
314				116	

本疾患の原因について、Konwaler ら¹⁾、Soule ら⁸⁾は刺激説を主張し、特に Soule ら⁸⁾は腫瘍が創治癒時の像によく似ていることや、上肢に多いことなどから外傷刺激をあげ、それによる結合組織の反応性増殖とみている。Rachmaninoff ら⁷⁾は放射線照射後、本疾患と同様の病変が出現したとし、放射線による原因を考えている。しかし、明確な原因は不明である。

本症の年齢別発生頻度、発症より来院までの期間、発生部位などに関して、Kleinstiver ら⁹⁾の集計した314例、Bernstein ら⁹⁾の116例、Shimizu ら¹⁰⁾の250例の報告によると、年齢別では30歳代に好発し、発症より治療までの期間は1か月以内が大部分を占め、Shimizu ら¹⁰⁾の報告では2週以内がその72%を占める。すなわち結節の多くは気付かれてから短期間に増大するわけである。発生部位では四肢、特に前腕部に最も多く、男女差はほとんど認められない(表2～4)。腫瘍の大きさは、直径2 cm 前後のものが多く、通常単発性の皮下腫瘍として認められる。

次に頭頸部領域における本疾患についてみると、発生頻度は全体の約7%と報告されている¹¹⁾。しかし、多症例を詳細に報告しているのは少なく、Majumdar¹²⁾が集計した254例、Werning¹¹⁾の41例、Dahl ら¹³⁾の18例の解析によると、発生年齢、大きさ、臨床経過等、どの文献においても大きな違いはないが、Werning¹¹⁾によれば、やや男性に多いと報告している。発生部位については顔面皮膚が最も多く(表5)、なかでも下顎部と頬骨部に最も多い。これはこの部が、すなわち咀嚼筋ことに咬筋の起始部もしくは停止部であり、外傷に対して易損性でしかもあらゆる刺激を最も受けやすい部分であるため、と考えられるからである。

本疾患の小児における発生例について、Stout¹⁴⁾は16歳未満の若年者の発生例は全体の約12%であり、なかでも10歳以下は4.9%であったといっている。また、Kleinstiver ら⁹⁾は314例中、10歳未満には12例認められ、Bernstein ら⁹⁾は108例中8例とそれぞれ少数を占めるにすぎず、頭頸部においては、Werning¹¹⁾によると41例中2例といずれにしても小児にはまれなものであることが言えよう。

病理組織学的所見の特徴について、Price ら⁵⁾は(1)正常より大きい傾向のある紡錘形の線維芽細胞が結節状に増殖している。(2)細胞突起や細胞線維が漿液性ないし、粘液性の種々の量の細胞基質や線維間基質とネットワークをつくる。(3)組織間隙に存在する血管成分や、よく発達した毛細血管がしばしば放射状、平行に配列し、修復機転のように思われる。(4)リンパ球や他の円形細胞の浸潤があり、約半数に多核巨細胞が存在する。(5)表層もしくは深部筋膜が侵される、としている。また、特にEnzinger⁴⁾は、線維芽細胞の増殖様式について羽毛状態、Soule⁸⁾、Konwaler ら¹⁾は、組織培養状態と称し、

表 5 頭頸部領域における発生部位

Werning (1979)		Majumdar (1983)	
顔面皮膚	27	顔面皮膚	90
頬骨弓部	6	耳下腺鞘	9
下顎角部	7	口腔粘膜	8
下顎下縁部	6	頸 部	55
下顎前方部	1	前頭部	21
下顎骨	1	頭 皮	14
顔面(部位不詳)	6	眼 窩	14
耳下腺鞘	9	結 膜	9
実質が侵されたもの	2	眼 瞼	15
口腔粘膜	5	食 道	1
頬粘膜	3	気 管	2
舌	1	頭頸部(部位不詳)	16
オトガイ孔部	1		254
	41		

(Werning の症例を含む)

その不規則な増殖状態を示している。本症においては、紡錘形線維芽細胞が束状、不規則に配列し、毛細血管がよく発達しており、線維芽細胞自体も正常のものよりやや大きく、核も大小種々で、Price ら⁵⁾、岩崎ら²⁾の所見とほぼ一致するものであった。

また、Price ら⁵⁾は本症を組織的に、myxomatous type, fibrous type, intermediate type の3型に、Bernstein ら⁹⁾は reactive type, densely cellular type, それに骨性もしくは軟骨性異形成を伴うものと、いわゆる proliferative fasciitis の4つの subtype に分類した。最近、Shimizu ら¹⁰⁾は Price らの分類を発展させ、myxoid type, cellular type, fibrous type と分類しそれぞれについて臨床像との関連を述べている。これによると、最も多いのが myxoid type で250例中130例を占め、次に cellular type の95例で、fibrous type は25例であった。発症より手術までの期間については、myxoid type が最も短かく8日以内がほとんどで、cellular type は7～10日以内と30日ごろという2つのピークがある。fibrous type には特に有意な時期はみられないが、1か月ぐらいが一応のピークとなっている。これについて Shimizu ら¹⁰⁾は、時間とともに myxoid type, cellular type と組織像が変化し、ついには成熟 fibrous type となるのではないかと考えた。本症例においては発症より4か月を経過し、組織的にも fibrous type に属することからも Shimizu ら¹⁰⁾の仮説がある意味では妥当性を持っていると言えよう。

周囲骨に対しては、Stokke¹⁵⁾、Rakwoer¹⁶⁾の歯槽骨歯根側に透過像を呈した症例の他、工藤ら¹⁷⁾のように本症例とほぼ同部位に、比較的境界明瞭な骨吸収がみられた

症例が散見されるがその報告例は少なく、本症例のように periosteal reaction による骨新生像を呈した症例は、他に高野ら¹⁸⁾の症例との2例にすぎない。また、本症例は口腔内に炎症巣もなく、歯牙病変もないため骨および骨髄疾患に由来する骨反応ではなく、明らかに nodular fasciitis に依存する periosteal reaction と思われる。

本疾患は、他の線維性病変、非特異性炎症病変、ある種の肉腫と鑑別されなければならない。特に本症は初診時の臨床像、X線像より当初悪性病変を疑わせるものであった。しかし、個々の細胞に異型性はなく、その組織像に fibrosarcoma に特徴的な herring-bone pattern や、liposarcoma にみられる spider-web cell がみられず、壊死巣も存在しなかったこと、内皮細胞の増殖程度も angiosarcoma に比べるかに低いことなどから、否定されるものであった。また、良性病変として proliferative fasciitis, proliferative myositis, myositis ossificans 等があげられるが、最も問題となるのは非特異性炎症病変である。しかし、これも nodular fasciitis に比べ膠原線維量が多く、線維芽細胞の増殖程度が低いことなどから鑑別し得るものであった²⁾。なお、本症例は若年者であり、積極的な periosteal reaction が認められたことから、Hutter¹⁹⁾、Batsakis²⁰⁾のいう periosteal fasciitis の範疇に入るかも知れない。

治療および予後について、多くの著者^{2,8,10,13,20)}が通常腫瘍の周囲組織を含めて切除することで十分で、再発はないと述べているが、少数ではあるが再発例も報告されている。また、自然消退をしたという報告も少ないながら認められ^{6,8,12)}、いずれにしても予後良好なものとえよう。

本症例は若年者であり、正常なる顎发育をも考慮し積極的な切除は行わず経過を追っているが、良好な結果を得ている。

結 語

3歳、女兒の左側下顎下縁に発生した、結節性筋膜炎の1例を経験したので、臨床的概要を報告するとともに若干の文献的考察を行った。

引 用 文 献

- 1) Konwaler, B.E., Keasbey, L., et al.: Subcutaneous pseudosarcomatous fibromatosis. (Fasciitis) Am J Clin Path 25: 241-252 1955.
- 2) 岩崎 宏, 遠城寺宗知: 結節性筋膜炎(Nodular fasciitis)の臨床病理学的観察. 癌の臨床 18: 793-800 1972.
- 3) Stout, A.P. and Lattes, R.: Tumors of the soft tissues. Atlas of tumor pathology. Second series, fasc, 1, AFIP Washington D.C. 1967, p 25-30.

- 4) Enzinger, F.M., Lattes, R., et al.: Histological typing of soft tissue tumors. World Health Organization, Geneva, 1969.
- 5) Price, E.B., Jr., Silliphant, W.M., et al.: Nodular fasciitis: A clinicopathologic analysis of 65 cases. Am J Clin Path 35: 122-136 1961.
- 6) Soule, E.H. and Minn, R.: Proliferative (Nodular) fasciitis. Arch Path 73: 437-444 1962.
- 7) Rachmainoff, N., McDonald, J.R., et al.: Sarcoma-like tumors of the skin following irradiation. Am J Clin Path 36: 427-437 1961.
- 8) Kleinstiver, B.J. and Rodriguez, H.A.: Nodular fasciitis. A study of forty-five cases and review of the literature. J Bone Joint Surg 50A: 1204-1224 1968.
- 9) Bernstein, K. and Lattes, R.: Nodular (Pseudosarcomatous) fasciitis, A nonrecurrent lesion: clinicopathologic study of 134 cases. Cancer 49: 1668-1678 1982.
- 10) Shimizu, S., Hasimoto, H., et al.: Nodular fasciitis: An analysis of 250 patients. Pathology 16: 161-166 1984.
- 11) Werning, J.T.: Nodular fasciitis of the orofacial region. Oral Surg 48: 441-446 1979.
- 12) Majumder, B.: Spontaneously regressing nodular fasciitis of the neck. J laryngol otol 97: 973-977 1983.
- 13) Dahl, I. and Jarstedt, J.: Nodular fasciitis in the head and neck. A clinicopathological study of 18 cases. Acta Otolaryngol 90: 152-159 1980.
- 14) Stout, A.P.: Pseudosarcomatous fasciitis in children. Cancer 14: 1216-1222 1961.
- 15) Stokke, T.: Et tilfelle av pseudosarcomatous fibromatose i kjeven: Norske Tannlaegeforen Tid. 77: 85-88 1967.
- 16) Rakover, W.: Fasciitis, an unusual diagnosis, and the clinician's dilemma-report of case. J Oral Surg 29: 503-506 1971.
- 17) 工藤逸郎, 田中 博, 他: 下顎角下部に生じた結節性筋膜炎の1例. 日大歯学 55: 177-182 1981.
- 18) 高野伸夫, 中野洋子, 他: 小児の顎下部にみられた結節性筋膜炎の1例. 日口外誌 30: 686-689 1984.
- 19) Hutter, R.V.P., Foote, F.W., Jr., et al.: Parosteal fasciitis. A self-limited benign process that simulates a malignant neoplasm. Am J Surg 104: 800-807 1962.
- 20) Batsakis, J.G.: Tumors of the Head and Neck. Williams & Wilkins Co., Baltimore 1979, p 259-263.
- 21) 武智秀夫, 渡辺唯志, 他: Pseudosarcomatous fasciitis について. 臨整外 6: 1052-1057 1971.