口底部に生じた結節性筋膜炎の1例

大内 治・山田一巳・福田喜安・大屋高德
工藤啓吾・武田泰典*

A case of nodular fasciitis occurring in the mouth floor

Osamu OHUCHI・Kazumi YAMADA・Yoshiyasu FUKUTA・Takanori OHYA
Keigo KUDO・Yasunori TAKEDA*

Abstract: Nodular fasciitis is a benign pseudosarcomatous proliferative lesion of the soft tissue originating from the subcutaneous fascia, most commonly in the upper extremity or trunk. Nodular fasciitis arising in the oromaxillofacial region is rare. This paper reports a case of nodular fasciitis arising in the mouth floor. The patient a 48-year-old woman who had noticed a rice-grain-sized tumor on the left side of the mouth floor 10 years previously. She was referred to our clinic because of tumor growth. At initial examination, a rather well demarcated, thumb-tip-sized tumor without pain was found at the mouth floor, and she complained of difficulty in talking. Histopathological examination showed nodular fasciitis.

Key words: nodular fasciitis (結節性筋膜炎), mouth floor (口底部), oromaxillofacial region (口腔顎顔面領域)

緒 言

結節性筋膜炎は筋膜から発生する反応性の線維芽細胞の増殖性病変で、四肢および体幹部に好発するが、口腔顎顔面領域での発症はきわめて稀である。今回われわれは、口底部に発生した結節性筋膜炎の1例を経験したので報告する。

症 例

患 者：48歳 女性。

初 診：1987年5月■日。

主 訴：左側口底部の腫脹。

既往歴および家族歴：特記事項なし。

現病歴：約10年前に左側口底部に米粒大の腫瘍を某開業医にて指摘されたが、疼痛等の自覚症状がない

岩手医科大学歯学部口腔外科学第1講座

(主任：工藤啓吾教授)

*岩手医科大学歯学部口腔病理学講座

(主任：佐藤方信教授)

First Department of Oral and Maxillofacial Surgery, School of Dentistry, Iwate Medical University. (Chief: Prof. Keigo Kudo)

*Department of Oral Pathology, School of Dentistry, Iwate Medical University. (Chief: Prof. Masanobu Satoh)

受付日：平成6年9月12日

ため放置していた。その後、腫瘍は徐々に増大傾向を示し、また発音障害もみられるようになったため紹介により当科に来院した。

現 症：全身および顔貌所見に異常はなく、口腔内所見では「1～5」部口底粘膜から舌側歯槽膜にかけて表面が平滑で正常粘膜に被覆された28×23×18mmの境界が比較的明瞭な半球状の腫瘍が認められた。また被覆粘膜との癒着はなく、可動性があり弾性硬で圧痛はなく、また舌下小丘からの唾液の流出量には左右差が認められなかった(写真1)。

臨床診断：左側口底部良性腫瘍。

処置および経過：上記臨床診断のもと術前に生検は行わず、1987年6月■日、全身麻酔下で腫瘍の摘出術を施行した。腫瘍は周囲組織と連続性はなく容易に剥離され、一塊として摘出された。術後の経過は良好で術後6年11か月を経過し再発は認められていない。

病理組織所見：腫瘍は膠原線維を主とした線維性組織の密で不規則な増生からなり、ところどころに種々の成熟像を呈する線維芽細胞の集簇巣が散見された(写真2, 3)。

病理組織学的診断：結節性筋膜炎。

考 察

結節性筋膜炎は良性の非腫瘍性疾患で、1955年に

写真1 初診時の口腔内写真

正常粘膜に被覆され、境界が比較的明瞭な半球状の腫瘍が認められた。

写真2 摘出物の病理組織像（H-E染色，×10）

膠原線維を主とした線維性組織の密で不規則な増生が認められた。

Konwaler ら¹⁾が報告して以来、おもに皮膚科領域、整形外科領域で報告されている。本邦では1963年に今井ら²⁾によって初めて発表されて以来、現在まで約220例の報告がなされている。病理組織学的には反応性の血管と線維芽細胞の増殖と考えられ、主として四肢とくに前腕部に多く、浅在筋膜を侵し周囲皮下組織に浸潤性に發育して、孤立性結節を形成するといわれている³⁾。発生頻度は比較的まれで、岩崎ら³⁾は病理組織標本約18万例中84例(0.5%)であったと報告している。

口腔顎顔面領域では現在まで22例の報告がなされているにすぎず、これらのなかでは顎下部と頬部が比較的多い⁴⁻⁸⁾。これらは口腔周囲の筋膜に発生して皮下腫瘍として生ずるものと粘膜下に発生するものがあり、多くは顎下部、頬部の皮下に発生している^{4,5,8)}。自験例は口底部粘膜下に発生しており、このような部位に生じた結節性筋膜炎の報告は今までになかった。

一般に本疾患の臨床的特徴は、腫瘍が偶然に発見されることが多く、自発痛や圧痛を伴うことは少ない。また、腫瘍の發育速度については、きわめて速いもの、一部緩徐なもの、または不変であるものなどが報告されている⁶⁾。自験例では腫瘍の存在が自覚されてから当科を受診するまでの期間が約10年と長期間を要したことから、緩徐な發育過程を示したと考えられた。

写真3 摘出物の病理組織像（H-E染色，×50）

種々の成熟像を呈する線維芽細胞の集簇巣が散見された。

本疾患の病理組織学的特徴としては、粘液様の基質の中に幼弱な線維芽細胞が一定の方向性を示さず、不規則な増殖を示し、その中に多核巨細胞の存在が確認されること、また毛細血管が豊富に存在し、リンパ球を主体とする炎症性細胞浸潤が認められることなどである。なお、病巣中に膠原線維の豊富な部分も認められるとの報告もある³⁾。またPriceら⁹⁾は本症を構成している細胞、基質、線維、血管結合組織などの様相からtype 1 (myxomatous type), type 2 (intermediate type), type 3 (fibromatous type) の3型に分類している。自験例はこの基準にしたがって評価するとtype 3に属するものと考えられる。

発生原因については、Konwaler ら¹⁾、Soule ら¹⁰⁾は腫瘍が創治癒時の組織像に似ていることや、上肢に多いことなどから、外傷性刺激による結合組織の反応性増殖であると推測している。しかし、本疾患の原因は未だ明確でない^{4,6,7)}。

本疾患の治療は一般に腫瘍の摘出術が行われている。また一般に、本症は線維組織からなる腫瘍もしくは腫瘍性病変との鑑別がかなり困難であると考えられ、線維肉腫、脂肪肉腫、血管肉腫、横紋筋肉腫、平滑筋肉腫、紡錘型肉腫、神経鞘腫、神経線維腫、粘液線維腫、線維性組織球腫、などとの鑑別が必要と考えられる。実際、過去において線維肉腫などの悪性腫瘍と診断され、大手術を施行されたり、放射線照射を施行された症例も報告された⁶⁾。自験例では初診時の臨床所見および発生部位が口底部であったことから当初、類表皮嚢胞、線維腫、脂肪腫、神経鞘腫などとの鑑別が必要とされた。しかしながら、生検によっても本症の確定診断を得ることは出来ず、手術によって一塊として摘出された腫瘍を病理組織学的に診断するまではこれら病変との鑑別に苦慮した。このように他疾患との鑑別はかなり困難と考えられ、良性腫瘍との確定がなされた段階での早期手術の必要性が示唆された。予後は比較的良好で、少数例では再発も報告されているが、取り残しがあっても自然消失する場合や¹¹⁾、生検後、急速に消失した症例も報告されている¹²⁾。自験例では術後6年

11 か月を経過した現在, 再発を認めず良好に経過している.

結 語

48 歳, 女性の左側口底部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.

本論文の要旨は, 平成 2 年 2 月第 16 回日本口腔外科学会北日本地方会 (弘前市) において発表した.

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) 今井 環, 唐仁原 誠: 肉腫様筋膜炎 (pseudosarcomatous fasciitis) について. *臨床と研究* 40: 952-955 1963.
- 3) 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.
- 4) 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.

- 5) 今村光俊, 杉原一正, 他: 頬部に発生した結節性筋膜炎の 1 例. *口科誌* 32: 567-572 1983.
- 6) 桐田忠昭, 中川 徹, 他: 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. *日口外誌* 31: 2785-2790 1985.
- 7) 守谷友一, 佐藤隆吉, 他: 下顎に発生した結節性筋膜炎の 1 例. *日口外誌* 32: 1505-1509 1986.
- 8) 仁木 寛, 平木慎一郎, 他: 頬部に発生した結節性筋膜炎の 1 例と本邦における統計的観察. *日口外誌* 32: 42-46 1986.
- 9) 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.
- 10) Soule, E.H. and Minn, R.: Proliferative (Nodular) fasciitis. *Arch Path* 73: 437-444 1962.
- 11) 高木 実, 迫田由紀子, 他: 口腔領域の結節性筋膜炎. *口病誌* 45: 121-126 1978.
- 12) 阿曾三樹, 島雄周平: 生検後急速に消失した nodular fasciitis. *西日皮膚* 41: 589 1979.