臨床報告

病悩期間が長期に亘った頸部石灰化上皮腫の1例

表 武 典 能 崎 晋 一

A Case of Long-term Calcifying Epithelioma in the Neck Region

TAKENORI OMOTE AND SHINICHI NOZAKI

Abstract : Calcifying epithelioma is a benign tumor derived from hair matrix cells. It more commonly involves the face and upper extremities in children and females and rarely occurs in individuals aged > 50 years. It can be detected at an early stage, with a typical clinical presentation of a hard mass under the skin, and can be surgically resected.

Here we report the case of a 50-year-old male who presented with a scleroid-like tumor mass that could be palpated in his left neck. He had been aware of the tumor for approximately 30 years, and it had been progressively increasing in size. The tumor was located over the left sternomastoid muscle, was approximately the size of the tip of the fifth finger, and was hard and mobile. Two sharply demarcated oval opacities were demonstrated on computed tomography (CT), with the same CT value as that of bone. We diagnosed neck calcifying epithelioma and resected the tumor under local anesthesia. Histological examination revealed calcified material containing shadow cells with marginal ossification. The surface skin showed no apparent abnormalities. We report this rare case of neck calcifying epithelioma that went undiagnosed for more than 30 years and discuss the relevant literature.

Key words : calcifying epithelioma (石灰化上皮腫), hair matrix cell (毛母細胞), elderly (壮年)

〔Received Mar. 28, 2014〕

緒 言

石灰化上皮腫は毛母細胞由来の良性皮膚付属器腫瘍で、小児や若い女性の顔や上肢に好発し、50歳以上の壮年者でみえることは比較的まれとされている。臨床所見として皮下の硬い結節として触知されることから早期に発見され外科的に摘出することが多い。今回われわれは30年ほど前から頸部腫瘍として自覚していた石灰化上皮腫の1症例を経験したのでその概要を報告する。

症 例

患者：50歳代、男性。
初診：201X年3月13日。
主訴：左側頸部の腫瘍。
既往歴：特記事項なし。
家族歴：特記事項なし。
現病歴：20歳頃より左側頸部の腫瘍が存在することに

気付き若干の増大を自覚するも無痛性のため放置していた。201X年3月13日下顎左側臼歯部の疼痛を主訴に近歯科医院受診した際、当科での左側下顎第三大臼歯の抜歯を勧められ紹介受診となった。初診時パノラマX線撮影したところ、左側下顎角部よりやや下方に歯冠大の不透過像を認めたため不透過像について説明したところ、以前から頸部の腫瘍を自覚されており摘出を希望されたため摘出術施行となった。

現症：

全身所見：身長174cm 体重75kg 体格は中等度で栄養状態は良好であった。

口腔外所見：左側胸鎖乳突筋上に小指頭大の可動性のあ硬固物を触知した。

圧痛はなく腫瘍表面の皮膚は正常色であった。

口腔内所見：特記事項なし。

鑑別診断：石灰化腫瘍、側頸嚢胞、粉瘤、ガングリオン。

パノラマX線所見：左側下顎角部よりやや下方に大白

独立行政法人国立病院機構金沢医療センター歯科口腔外科（主任：能崎晋一郎長）

Department of Dentistry and Oral Surgery, National Hospital Organization Kanazawa Medical Center (Chief: Prof. SHINICHI NOZAKI)
1-1 Shimoishibikimachi, Kanazawa 920-8650, Japan.

歯冠大の不透過像あり。境界明瞭であり類円形を呈する(写真1)。

CT 所見：左側頸部耳下腺下極周囲皮下に石灰化結節あり。骨と同等のCT値で大きさの異なる2つの石灰化物認めた(写真2)。

臨床診断：頸部石灰化腫瘤。

処置および経過：201X年4月18日局所麻酔下に石灰化腫瘤摘出術施行した。左側下顎角から約2cm後下方の胸鎖乳突筋上表皮に尖刀で切開を入れモスキート鉗子で鈍的に剝離し石灰化物を明示した。石灰化物は2つ(以下摘出

物1, 摘出物2)皮下組織内に存在し(写真3), 摘出物1は癒着なくまた筋層に達しておらず容易に摘出可能であった。摘出物2は一部皮下に癒着しており頸部皮膚を含み摘出した。石灰化物摘出後は真皮を吸収糸で縫合し, 表皮をナイロン糸で縫合し閉創した。術後創部治癒状態は良好であり, 現在まで再発を認めていない。

病理所見および病理診断：摘出物1, 2ともに薄い被膜を有し, 断面内部粗造で乳白色の石灰化物を認めた。組織学的に腫瘍実質の大部分は陰影細胞が占め, 皮下に陰影細胞を含む石灰化物が増殖し, 辺縁部に層板構造を呈する骨形成を認めた(写真4)。両摘出物ともに組織学的に差異はなく, また悪性を疑う細胞異型は認めず, 頸部表皮は正常であることから石灰化上皮腫と診断した。

考 察

石灰化上皮腫の最初の報告は約130年前 Malherbe らによって epithelioma calcific の名で報告され¹⁾, その後組織学的所見より毛母細胞由来であることから毛母種とも呼ばれる良性腫瘍である。

本症例の好発部位は顔面, 上肢, 頸部に多く, 体幹, 下肢などにはみられない²⁾。また頭頸部においては, 上眼瞼部, 眉毛周囲部, 耳前部, 毛の生え際, 胸鎖乳突筋付近が

写真1 初診時オルソパントモ XP

写真2 初診時 CT 写真

写真3 摘出物 (左: 摘出物1 右: 摘出物2)

写真4 病理組織写真 HE 染色 ×20 (左: 摘出物1 右: 摘出物2)

好発部位といわれており³⁾、本症例においてもその好発部位である胸鎖乳突筋上に発生したものであった。発生年齢は4か月の乳幼児から85歳の高齢者にいたるまで広い年齢に渡って発生しているが、一般に若年者、特に10歳代、20歳代が圧倒的に多いとされている^{4,11)}。本症例の初診時年齢は50歳代と比較的高齢な部類に入るが、20歳頃から頸部腫瘍を自覚していることから長期にわたり放置されていた。このような病悩期間が長期にわたる症例は比較的まれとされ、大塚ら⁵⁾による89例の分析結果も、5年以上の放置例は7例(7.9%)にすぎない。また、性差はないとの報告もあるが、女性に多いという報告が多数を占めている⁶⁾。好発年齢や性差を考えると美容的見地から女性が医療機関を訪れることが多いからではないかとする説があるが¹⁵⁾、メンズエステの普及などにより最近の男性において美意識の高い者が多くみられるため、今後の報告では性差がなくなるのではないかと考える。

病理組織学的には本腫瘍の実質は好塩基細胞ならびに陰影細胞の2種類の細胞から構成される。好塩基細胞は大型で円形ないし類円形の塩基核を有し、毛母細胞に由来すると考えられ、一方、陰影細胞は核が不明瞭でわずかに好酸性に染まり、毛皮質細胞に由来すると考えられている。腫瘍における両細胞の構成比率は腫瘍の病期の進行に伴い変化することが知られており、本腫瘍形成の初期段階では、腫瘍実質は好塩基細胞が多くを占めているが、陳旧性では陰影細胞がそのほとんどを占め、好塩基細胞はほとんど認められなくなる⁷⁾。一方、本腫瘍は間質あるいは陰影細胞に石灰化物が形成されることが特徴とされるが^{8,9)}、その形成の程度は病態によって異なり、明らかな石灰化物が見られないものから骨形成を伴うものまでその程度はさまざまである。本症例では初発症状から約30年を経過した症例であり、病理組織学的にも腫瘍実質は陰影細胞が多く、また骨形成を伴っており陳旧性の症例であることが組織学的にも確認された。骨の形成転機については、陰影細胞に徐々にカルシウムが沈着し骨芽細胞の誘導とあいまって、骨化が生じるのではないかと考えた。しかし、石灰化上皮腫の多くが皮下結節であるため、腫瘍の出現時期があいまいであり、経過年数と組織での骨化との間に確固たる相関を見いだすことは困難であると思われる。最近、骨芽細胞の誘導については陰影細胞に発現するbone morphogenetic protein-2などが関与するとの報告もあり¹⁰⁾、腫瘍の経過とともに割合が多くなっていく陰影細胞自体が骨化を誘導する可能性が言われているが確立された見解は得られていな

いため、骨への転機については今後検討すべき課題であると考えた。

本腫瘍は全摘出術によって良好な結果が得られるが、まれに再発することも報告されており^{4,12)}、また再発を繰り返し悪性化した症例の報告も見られる^{13,14)}。本症例においても摘出術施行半年以上経過し再発は確認されておらず良好な結果がえられているが、今後も注意深く経過観察を行う必要があるものと思われる。

結 語

今回われわれは、病悩期間が長期に渡った頸部石灰化上皮腫の1例を経験したので、その概要を報告した。

謝辞ならびに利益相反 本論文について利益相反はありません。

引用文献

- 1) Malherbe, A. and Caenantai, S.J.: Notesur l' épithéliome calcifié des glandes sébacées. *Progres Medical*, 8 : 826-828, 1880.
- 2) 久志本東 : Pilomatrixoma の統計. *皮膚病診療*, 9 : 76-78, 1987.
- 3) Forbis, R.J. and Helwing, E.B.: Pilomatrixoma (Calcifying epithelioma). *Arch Dermatol*, 83 : 606-618, 1961.
- 4) 倉地洋一, 坂巻秀明, 真鍋真人, 他 : 頬部に発生した石灰化上皮腫の1例. *日口外誌*, 35 : 2176-2182, 1989.
- 5) 大塚 寿, 塩谷信幸 : Calcifying epithelioma の臨床像について. *形成外科*, 16 : 447-452, 1961.
- 6) 高野実貴子, 富永和宏, 古澤博久, 他 : 耳下腺咬筋部に発生した石灰化上皮腫の2例. *日口外誌*, 39 : 1356-1358, 1993.
- 7) 宮原麻由美, 田沼順一, 川島清美, 他 : 著明な石灰化と骨形成を伴った石灰化上皮腫の1例. *日口外誌*, 53 : 499-503, 2007.
- 8) Mohlenbeck, F.W.: Pilomatrixoma (Calcifying epithelioma) a statistical study. *Arch Dermatol*, 108 : 532-534, 1973.
- 9) 塚本剛一, 佐々木朗, 松村智弘, 他 : 急速に増大した耳下腺咬筋部石灰化上皮腫の1例. *日口外誌*, 40 : 215-217, 1994.
- 10) 福安厚子, 多田弥生, 大西誉光, 他 : 著明な骨化を呈した石灰化上皮腫の1例. *臨皮*, 65 : 527-529, 2011.
- 11) 素輪善弘, 沼尻敏明, 西野健一 : 乳児の頭部に生じた巨大腫瘤型石灰化上皮腫の1例. *皮膚臨床*, 53 : 369-371, 2011.
- 12) 藤田 耕, 原田浩之, 長谷川正午, 他 : 頭頸部領域に生じた石灰化上皮腫6症例の臨床病理学的検討. *日口外誌*, 51 : 285-290, 2005.
- 13) Lopansri, S. and Mihm, M.C.: Pilomatrix carcinoma or calcifying epitheliocarcinoma of Malherbe. *Cancer*, 45 : 2368-2373, 1980.
- 14) Walt, J.D. and Rohlova, B.: Carcinomatous transformation in a pilomatrixoma. *Am J Dermatopathol*, 6 : 63-69, 1984.
- 15) 鎌倉慎治, 佐藤隆吉, 藤田 靖, 他 : 右側耳介下部に発生した石灰化上皮腫の1例. *日口外誌*, 37 : 1002-1006, 1991.