

骨盤内に発生した結節性筋膜炎の1例

松田 陽介¹, 守山 典宏², 大山 伸幸³, 三輪 吉司³秋野 裕信³, 横山 修³, 海崎 泰治⁴¹公立丹南病院泌尿器科, ²斎藤病院泌尿器科³福井大学医学部医学科器官制御医学講座泌尿器科学教室, ⁴福井県立病院臨床病理研究科

NODULAR FASCIITIS AROSE IN THE PELVIS: A CASE REPORT

Yosuke MATSUTA¹, Norihiro MORIYAMA², Nobuyuki OYAMA³, Yoshiji MIWA³,Hironobu AKINO³, Osamu YOKOYAMA³ and Yasuji KAIZAKI⁴¹The Department of Urology, Tannan Regional Medical Center²The Department of Urology, Saito Hospital³The Department of Urology, Faculty of Medical Sciences, University of Fukui⁴The Department of Pathology, Fukui Prefectural Hospital

A 58-year-old woman presented to our emergency room with cystitis-like symptoms and macroscopic hematuria. Her symptoms were improved by the administration of an antibiotic, but transabdominal ultrasonography revealed a mass in her pelvis. The pelvic magnetic resonance imaging (MRI) depicted a solid tumor in the retropubic space. The patient requested hasty surgical excision of the tumor, rather than the conservative treatment after the diagnosis by cytology and biopsy. The postoperative histopathological examination revealed nodular fasciitis. She has been followed up for 8 months without any evidence of local recurrence. Nodular fasciitis is a mesenchymal lesion of proliferated fibroblast and commonly occurs in the subcutaneous tissue of the extremities. Frequently, it resembles a sarcoma, but it is said to be a benign disorder. In the urological domain, 14 intravesical cases have been reported. To our knowledge, this is the first case of the nodular fasciitis arising in the pelvis. We report this case and discuss the literature.

(Hinyokika Kiyo 56 : 35-39, 2010)

Key words : Nodular fasciitis, Retropubic space

緒 言

結節性筋膜炎は線維芽細胞の増殖を主体とした間葉性病変であり、肉腫に類似するが良性疾患であるとされている。発生部位として四肢や体幹に好発する¹⁾が、泌尿器科領域ではこれまでに14例の膀胱発生例が報告されている²⁾。今回、われわれは内骨盤筋膜に由来すると思われる結節性筋膜炎の1例を経験し、若干の文献的考察を加え報告する。

症 例

患者：50歳代，女性

主訴：排尿時痛，頻尿，残尿感，肉眼的血尿

家族歴：特記すべきことなし

既往歴：40歳時に経陰子宮摘出術。境界型耐糖能異常で経過観察を受けている。

現病歴：手術切除の約1.5カ月前に前述の主訴で当院救急外来を受診した。尿定性検査で蛋白（2+），潜血（3+），白血球反応（3+）であり，出血性膀胱炎の診断でレボフロキサシンの処方が開始された。この

際、腹部超音波断層検査で骨盤内に腫瘍が描出されていた。救急外来受診の2日後に当科初診となった。血尿は消失しており、軽度の排尿時痛、頻尿、残尿感の訴えがみられた。

現症：身長 150 cm，体重 45.2 kg，BMI 20.1。腹部に特記すべき所見なし。

検査所見：初診時尿検査上、潜血（±）以外に異常所見を認めず、蛋白尿、膿尿は消失していた。入院時血液検査において白血球増多などの異常所見を認めなかった。

画像検査所見：初診時腹部超音波断層検査でRetzius腔に径3×2cmの低エコー性腫瘍を認めた。膀胱や恥骨との境界は比較的明瞭であった。手術切除1カ月前に施行した骨盤部MRI検査において、骨盤底に尿道と接する径3×2cmの腫瘍を認め、T1強調画像では筋肉と同様の信号強度で内部は均質であり（Fig. 1a），T2強調画像では筋肉よりやや高い信号強度を示し内部は不均一であった（Fig. 1b）。初診時と比較して、腫瘍の大きさに著変を認めなかった。

手術までの経過：画像検査より、尿道原発の平滑筋

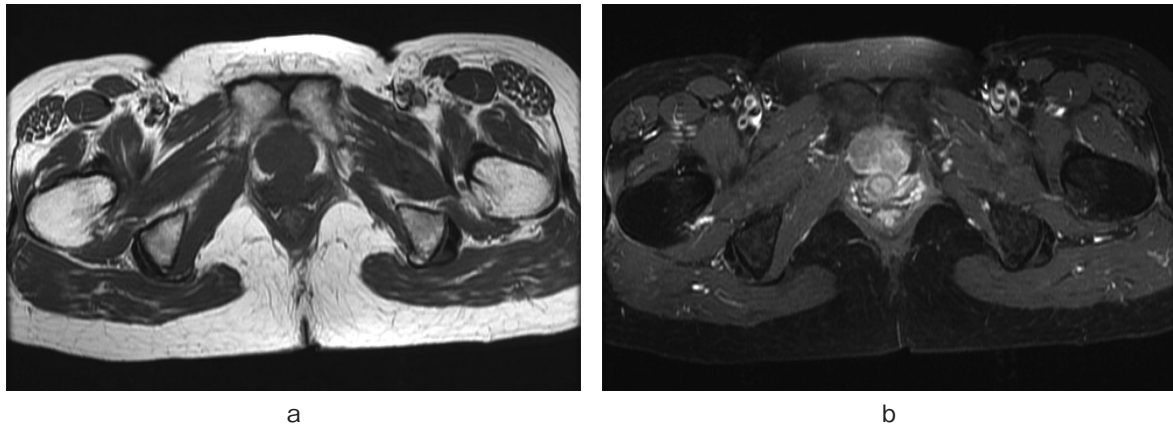


Fig. 1. Horizontal MRI shows an oval solid tumor in the retropubic space (a: T1-weighted image, b: T2-weighted image).

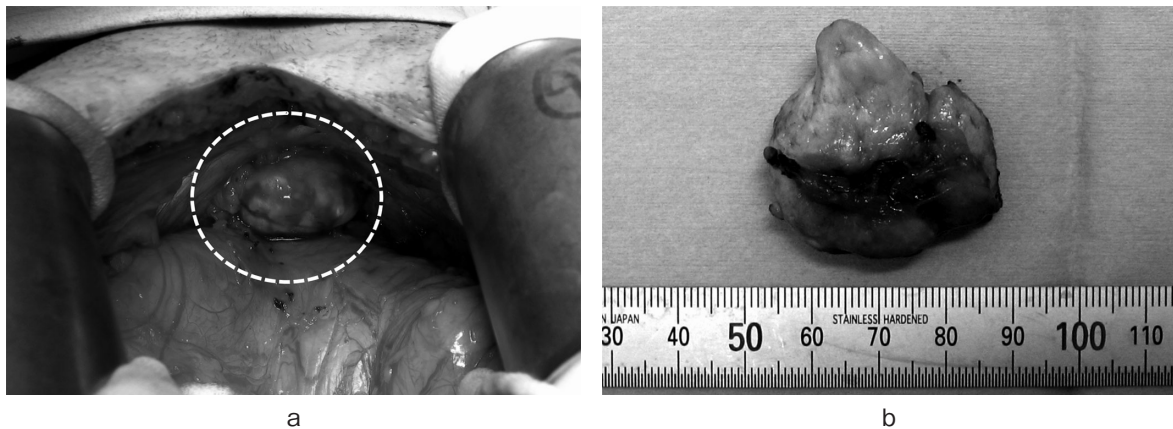


Fig. 2. a: The gross appearance of the tumor during operation (surrounded by a dashed line). b: Macroscopic appearance of the resected specimen. It was a beige, ovoid-shaped elastic mass.

腫や平滑筋肉腫、線維腫や線維肉腫などの間葉性腫瘍を疑った。われわれも本症例のような Retzius 腔の腫瘤性病変の経験がなく、まず細胞診や生検による組織診断を患者に勧めた。しかしながら、患者は侵襲的検査や悪性腫瘍であった場合の播種を心配し、手術による一期的切除を希望したため、病巣の手術切除となった。

た。

手術所見：下腹部正中切開でアプローチを行った。尿道腹側の内骨盤筋膜に接して表面不整の結節性病変を認めた (Fig. 2a)。表面は易出血性であったが、周囲との癒着はなく、容易に切除が可能であった。尿道との連続性はなく、内骨盤筋膜由来の病変と考えた。

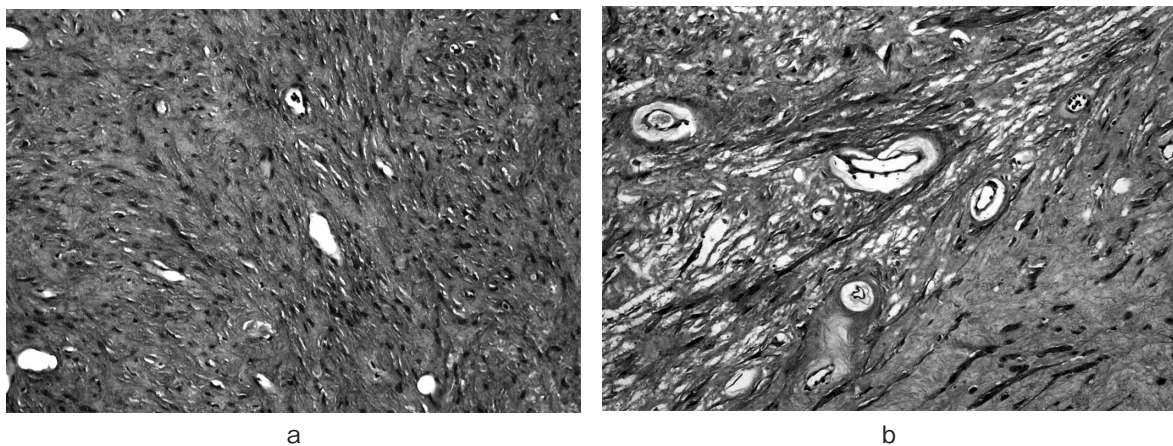


Fig. 3. Histopathological findings of resected retropubic mass. a: Microscopically, the mass was composed of proliferating spindle-shaped fibroblasts (HE staining $\times 100$). b: A different part showed myxoma-like ground substance, well-formed capillaries, and infiltration of inflammatory cells (HE staining $\times 400$).

切除した標本は明瞭な被膜を欠き、弾性硬であった (Fig. 2b)。割を入れて観察したところ、灰白色充実性の病変で、肉眼的に壊死組織などを認めなかった。

病理組織学的検査所見: HE 染色では、粘液腫様の基質を背景にして、好酸性の細胞質を有し、紡錘形の淡明な核を有する線維芽細胞と考えられる細胞が不規則に増殖していた (Fig. 3a)。また新生毛細血管形成像も認められ、赤血球の血管外遊出像も認められた (Fig. 3b)。リンパ球などの炎症細胞浸潤が散見されたが、多核巨細胞は認めなかった。異型細胞、異常細胞分裂象を認めず、悪性間葉系腫瘍は否定的であり、上記の所見より結節性筋膜炎と診断された。

術後経過: 入院中経過に異常なく、現在に至るまで再発を認めていない。

考 察

結節性筋膜炎は1955年に Konwaler が pseudosarcomatous fibromatosis (fasciitis) として報告して疾患単位として確立し³⁾、1961年に Price らが nodular fasciitis (以下 NF) として報告して⁴⁾以来その名称が一般化した疾患である。

Allen の集計によれば¹⁾、好発年齢は20~40歳代で、発生部位は上肢が46%と最も多く、体幹 (20%)、頭頸部 (20%)、下肢 (13%)、その他 (頬粘膜、食道、膣、子宮円索、大陰唇) (1%) の順に報告されている。性差については男性が55%と若干多いが施設による症例選択のバイアスと考察されている。本邦の報告では好発年齢は30~50歳代で、自覚症状として自発痛または圧痛が多く、部位では前腕、大腿、胸壁に多いと報告されている⁵⁾。病変は急速に増大し、結節に気付いてから手術を受けるまでの期間は2週間以内のものが68.0%であったとされる⁵⁾。病因についてはまだ確定的なものはないが、岩崎らは筋膜炎が老化、ホルモンの変調あるいは外傷などによって変質し、そこに何らかの刺激が加えられた結果生じた血管・結合組織の特異な反応形態ではないかと想定している⁵⁾。

NF の診断は通常病巣切除後につくため、その自然史は明らかではない⁶⁾。NF は myxoid subtype, cellular subtype, fibrous subtype の3亜型に分類されるが、組織成分と病変の経過との相関が示されている⁴⁾。新しい病変では myxoid subtype が優勢であるが陳旧化した病変では線維性成分が増加すること、myxoid and fibrous type よりも myxoid and cellular type または cellular and fibrous type の組み合わせが多くみられることから、経過とともに myxoid subtype から cellular subtype へ、それから fibrous subtype に移行することが推測されている⁴⁾。

術前診断の手法として、画像検査における NF の特徴的な所見はないが、MRI の有用性を示す報告が散

見され、前述の経過による成分の変化が MRI の信号強度に反映されるとされる^{7,8)}。

病理学的特徴は岩崎らの報告が詳しく、①大型の幼若線維芽細胞の活発な増殖と周囲組織への浸潤、②粘液腫様の基質、③新生毛細血管と赤血球の血管外遊出、④炎症性細胞および少数の多核巨細胞、⑤浅在または深在筋膜炎が侵されることが述べられている⁵⁾が、本態は線維芽細胞の増殖を主体とした良性の非腫瘍性疾患である⁹⁾。NF としての臨床的特徴が少ないことと、急速な増大から線維肉腫などの悪性疾患と誤診されることもあり、鑑別診断が重要である⁵⁾。鑑別すべき悪性疾患として悪性線維性組織球腫、平滑筋肉腫、線維肉腫、脂肪肉腫などの腫瘍性病変が挙げられる。一般的に肉腫の場合はしばしば巨大となり深部に浸潤する傾向が大きい⁵⁾、NF では直径1~2 cm のものが大半で鶏卵大以上は例外的とされ^{5,6)}、深部への浸潤傾向に乏しく、核の異型もみられない。悪性線維性組織球腫では高度の異型性と多様性を有する腫瘍細胞が出現し、花むしろ様の配列 (storiform pattern) を呈することが多い¹⁰⁾。平滑筋肉腫では腫瘍細胞が束状に配列して交錯し、線維肉腫では腫瘍細胞が交錯して特徴的な矢筈模様 (herring-bone pattern) を形成するが、NF の場合細胞束を形成する傾向に乏しく、粘液基質に富む背景に紡錘形線維芽細胞が不規則に増殖する羽毛状形態 (feathery pattern) を呈するとされる⁵⁾。脂肪肉腫の場合、線維性組織に混在して単空胞性の脂肪芽細胞および散在性の異型細胞を認め、壊死巣もしばしば存在するが、NF でみられるのは正常の皮下脂肪組織であり、壊死巣も通常みられない⁵⁾。鑑別上問題となる良性病変としては、線維腫や線維腫症、非特異性炎症性肉芽組織や線維化巣があげられる。線維腫症は5 cm を超えて大きく、筋肉や深部筋膜、腱膜や腱を侵す反面、皮下組織には生じにくいなどの NF との差異が見受けられ、粘液腫様の基質を有することも稀とされる¹⁾。非特異性炎症性肉芽組織や線維化巣の場合は、NF に比して膠原線維の量が多く、線維芽細胞の増殖の程度が弱く、羽毛状形態や毛細管の放射状配列が目立たないことが鑑別点とされる⁵⁾。この他の NF に類似した疾患として、炎症性筋線維芽細胞性腫瘍 (inflammatory myofibroblastic tumor; IMT)、増殖性筋炎 (proliferative myositis; PM) が挙げられる。炎症性偽腫瘍 (inflammatory pseudotumor) は IMT に含まれ¹¹⁾、IMT も炎症細胞の浸潤を伴った筋線維芽細胞の特徴を示す紡錘形細胞の増殖像を呈するが、臨床経過や羽毛状形態の有無で鑑別されている¹⁰⁾。岩崎らは PM が NF と本質的に同種の病態であり、侵される部位が主として骨格筋か筋膜炎の差異ではないかと推測している⁵⁾、PM と増殖性筋膜炎 (proliferative fasciitis; PF) が類似するものの、発症年齢や病巣の境

界性、神経節細胞様巨細胞などの点から、NFとは異なる疾患であるとする報告もある^{12,13)}。BernsteinらはPFをPMでみられるような神経節細胞様巨細胞を伴ったNFの一亜型ととらえており¹⁴⁾、まだ鑑別が明確でなく議論の余地もあるため、今後の決着を待ちたい。

NFに対する治療は局所切除が適当とされている^{2,15)}。Allenは、切除後の再発は1%、病巣の不十分な切除でも再発を生じず、再度切除された切片中に病変を認めないことが多いと報告している¹⁾。Fine needle aspiration cytology (FNAC)の有用性を示す報告もみられる^{6,16)}が、通常、確定診断には組織診断を要することなどから、手術切除が治療の主体となっている⁷⁾。NFが稀であることと肉腫を見逃す潜在的リスク¹⁵⁾、生検による播種の可能性なども手術切除を推す理由として挙げられる。また臨床的特徴が少ないことから、腫瘍または肉腫として切除され、その後に診断が確定することが多いと報告されている²⁾。

しかしながら、手術切除を行わずに経過観察を行った場合、自然退縮を期待しうることが報告されている^{6,16,17)}。Stanleyらの11症例を経過観察した報告では、経過を追跡できた9症例すべてにおいて、8週間以内にNF病変の消失を認めている⁶⁾。またWongは13症例中10例が平均4.7週間で病巣の自然退縮を生じたと報告している¹⁶⁾。両者はFNACによるNFの診断が可能で、治療手段として経過観察が適当であり^{6,16)}、病変が5cmより大きい場合⁶⁾や4～8週間しても退縮がえられない場合に手術切除を施行すべきであると主張している¹⁶⁾。

泌尿器科領域においては14例の膀胱内発生例が報告されている²⁾が、FNACによる診断は困難で、もっぱら内視鏡観察下での鉗子生検あるいはTUR生検が必要になると考えられる。泌尿器科領域でのNFの知見は乏しく、通常は膀胱腫瘍として、一期的にかなり広汎に切除されてしまうのではないかと推測する。NFとの診断が可能であれば経過観察も可能であり、完全切除できなくとも追加切除の必要性も少なくなると思われる。

自験例を顧みた場合、自然退縮を期待できるNFの性質から考えれば、早急な手術切除の必要がない可能性があった。病変は恥骨の内側にありFNACや経皮的生検に困難が伴うと考えられる点、患者が侵襲的な検査を希望しなかった点もあるが、術前診断を確実にすべきであったと反省される。初診時の主訴とNFとの関係は明確ではないが、抗生物質投与により尿検査所見、自覚症状が改善していることから、両者の因果関係は乏しく、膀胱炎を契機にNFが発見されたものと考えた。

結 語

今回、われわれは内骨盤筋膜に由来すると考えられる結節性筋膜炎の1例を経験したため、若干の文献的考察を加え報告を行った。

この論文の要旨は第422回日本泌尿器科学会北陸地方会にて発表したものである。

文 献

- 1) Allen PW: Nodular fasciitis. *Pathology* **4**: 9-26, 1972
- 2) Senoh H, Nonomura N, Akai H, et al.: A case of nodular fasciitis of the bladder. *Hinyokika Kiyo* **40**: 427-429, 1994
- 3) Konwaler BE, Keasbey L and Kaplan L: Subcutaneous pseudosarcomatous fibromatosis (Fasciitis). *Am J Clin Pathol* **25**: 241-252, 1955
- 4) Price EB Jr, Silliphant WM and Shuman R: Nodular fasciitis: a clinicopathologic analysis of 65 cases. *Am J Clin Pathol* **35**: 122-136, 1961
- 5) 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* **18**: 793-800, 1972
- 6) Stanley MW, Skoog L, Tani EM, et al.: Nodular fasciitis: spontaneous resolution following diagnosis by fine-needle aspiration. *Diagn Cytopathol* **9**: 322-324, 1993
- 7) Leung LYJ, Shu SJ, Chan ACL, et al.: Nodular fasciitis: MRI appearance and literature review. *Skeletal Radiol* **31**: 9-13, 2002
- 8) Wang XL, De Schepper AMA, Vanhoenacker F, et al.: Nodular fasciitis: correlation of MRI findings and histopathology. *Skeletal Radiol* **31**: 155-161, 2002
- 9) Haas AF: Nodular fasciitis of the forehead. *Dermatol Surg* **25**: 140-142, 1999
- 10) 小田義直, 恒吉正澄: 炎症性偽腫瘍と鑑別すべき炎症性腫瘍および腫瘍状病変. *病理と臨* **25**: 459-465, 2007
- 11) Coffin CM, Watterson J, Priest JR, et al.: Extrapulmonary inflammatory myofibroblastic tumor (inflammatory pseudotumor). a clinicopathologic and immunohistochemical study of 84 cases. *Am J Surg Pathol* **19**: 859-872, 1995
- 12) Honda Y, Oh-i T, Koga M, et al.: A case report of proliferative fasciitis in the abdominal region. *J Dermatol* **28**: 753-758, 2001
- 13) 勝俣道夫, 野崎清恵: Nodular fasciitis—病理組織学的, 電子顕微鏡的検討—. *臨皮* **42**: 117-122, 1988
- 14) Bernstein KE and Lattes R: Nodular (Pseudosarcomatous) fasciitis, a nonrecurrent lesion: clinicopathologic study of 134 cases. *Cancer* **49**: 1668-1678, 1982
- 15) Das S, Upton JD and Amar AD: Nodular fasciitis of the bladder. *J Urol* **140**: 1532-1533, 1988

- 16) Wong NL: Fine needle aspiration cytology of pseudosarcomatous reactive proliferative lesion of soft tissue. *Acta Cytol* **46**: 1049-1055, 2002
- 17) Yanagisawa A and Okada H: Nodular fasciitis: spontaneous with degeneration and regression. *J Craniofac Surg* **19**: 1167-1170, 2008
(Received on April 16, 2009)
(Accepted on August 5, 2009)