HOKKAIDO UNIVERSITY

Title	側頭下窩に生じた炎症性偽腫瘍の１例
Author(s)	長峯, 杏介; 足利, 雄一; 堀向, 弘眞 他
Citation	北海道歯学雑誌, 37(2), 168-172
Issue Date	2017-03
Doc URL	https://hdl.handle.net/2115/65512
Type	journal article
File Information	37-02_09_nagamine.pdf

Hokkaido University Collection of Scholarly and Academic Papers : HUSCAP

北海道歯誌　37：168−172，2017.

症例報告

側頭下窩に生じた炎症性偽腫瘍の１例

長峯　杏介[1)]　　足利　雄一[1)]　　堀向　弘眞[2)]　　北村　哲也[3)]
進藤　正信[3)]　　鄭　　漢忠[1)]

抄　録：炎症性偽腫瘍は，炎症性細胞浸潤と線維化を主体とする腫瘍類似性病変である．今回，われわれは側頭下窩に生じた炎症性偽腫瘍の１例を経験したので報告する．症例は73歳女性．開口障害を主訴に，当科を紹介受診した．初診時の自力無痛開口量は16mmで，右頬骨下稜に硬結を伴う腫瘤性病変を認めた．CT，MR画像からは右頬骨下稜から側頭下窩に広がる軟組織病変を認めた．全身麻酔下に生検を行ったところ，病理組織学的には，炎症細胞の浸潤のみられる線維性瘢痕組織であった．以上より右側頭下窩偽腫瘍と診断し，ステロイド療法を開始した．投与開始から６週間経過した時点で，腫瘤は消失し開口量は48mmとなった．

キーワード：炎症性偽腫瘍，側頭下窩，ステロイド療法

緒　　言

炎症性偽腫瘍は炎症性細胞浸潤と線維化を主体とする比較的まれな腫瘍類似性病変[1)]である．頭頸部領域では眼窩に好発するが，側頭下窩に発生することはまれである．今回，われわれは側頭下窩に生じた炎症性偽腫瘍の１例を経験したので報告する．

症　　例

患　者：73歳，女性．

主　訴：開口障害．

現病歴：Ｘ年８月中旬より開口障害と右顎関節相当部の自発痛を自覚し，自意にて近医耳鼻咽喉科を受診した．中耳炎の診断にて抗菌薬を３日間服用したが，症状に改善はみられなかった．８月下旬より徐々に開口障害が増悪したため８月31日に当院顎関節治療外来を受診した．右側顎関節症を疑いMRIを撮像したところ，右顎関節周囲に異常信号がみられため，当科を紹介受診となった．

既往歴：橋本病

現　症：

全身所見：特記事項なく栄養状態は良好であった．

口腔外所見：

顔貌は左右対称で，顔面皮膚の発赤や知覚異常はみられなかった．

口腔内所見：

開口量は16mmで，6|歯肉頬移行部から右上顎結節にかけて硬結と圧痛を伴う腫瘤を触知した（写真１）．

初診時画像所見：

パノラマX線写真上では，異常所見は認められなかった（図１）．CTでは，右側頭下窩に不均一に造影される異常軟組織病変が認められた．病変と接する骨に明らかな骨破壊像は認められなかったが，右蝶形骨翼突

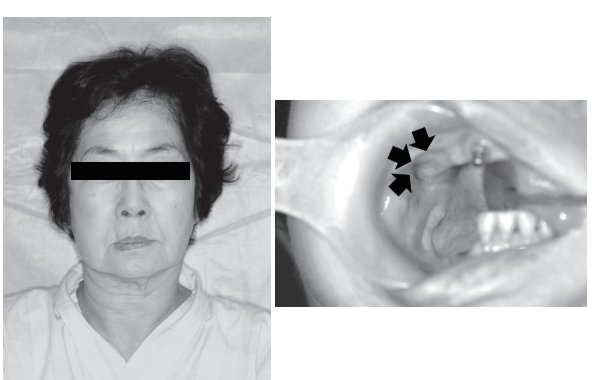


写真１　入院時の顔貌写真と口腔内写真
矢印に囲まれた部位に硬結を触知した．

[1)]〒060−8586 札幌市北区北13条西７丁目
北海道大学大学院歯学研究科　口腔病態学講座　口腔顎顔面外科学（主任：鄭　漢忠 教授）
[2)]〒065−0033 札幌市東区北33条西14丁目３番地１号
札幌東徳洲会病院歯科口腔外科（主任：西方　聡 主任部長）
[3)]〒060−8586 札幌市北区北13条西７丁目
北海道大学大学院歯学研究科　口腔病態学講座　口腔病理病態学（主任：進藤　正信 教授）

板・上顎骨に骨硬化像がみられた（図２）．MR像では，右側頭下窩を中心にT1強調像，T2強調像でともに低信号，脂肪抑制Gd造影T1強調像にて著明な造影効果を呈するび漫性の軟組織病変が認められた．病変は側頭筋・外側翼突筋・内側翼突筋内に進展していた（図３）．

初診時血液検査：

血液一般検査は全て基準内であった．CRPは6.71mg/dlと高値を示した．

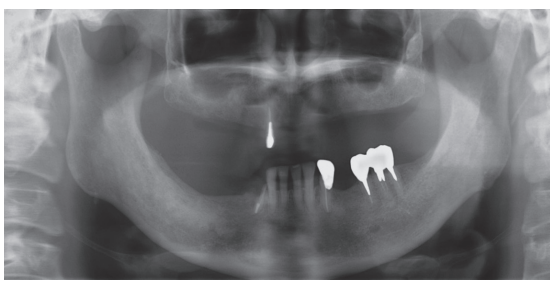


図１　入院時のパノラマX線写真

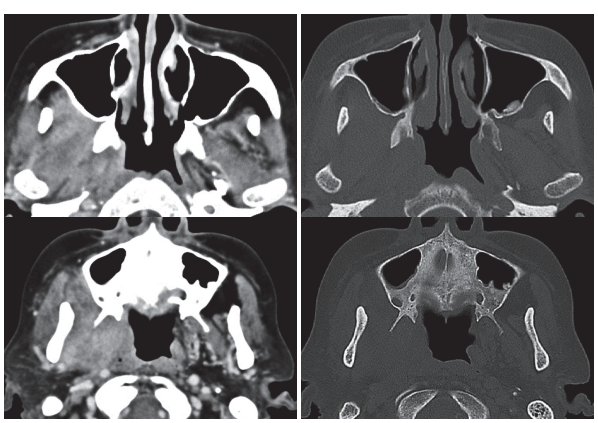


図２　入院時CT

造影CT（左）では、右側頭下窩を中心にび慢性に広がる軟部陰影が見られる．単純CT（骨条件）（右）では明らかな骨破壊像は見られない．

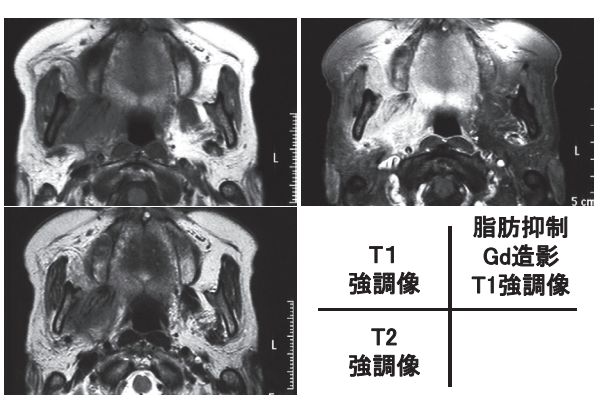


図３　入院時MR像

T1強調像，T2強調像で低信号，脂肪抑制Gd造影T1強調像で著明な造影効果を呈するび慢性の軟組織病変を認めた．

臨床診断：

炎症性偽腫瘍などの肉芽腫性病変，右慢性上顎骨骨髄炎または右側頭下窩腫瘍の疑い

処置および経過：

９月14日精査・加療目的に当科入院となった．明らかな感染源がなかったこと，CT・MR像で不均一に造影される軟組織病変を認め，さらにMR像でT1強調像，T2強調像でともに低信号であることから炎症性偽腫瘍などの肉芽腫性病変が最も疑われた．一方で，開口障害を呈するまで短期間であったこと，画像上では周囲軟組織へのび漫性に進展する病変がみられたことから，血行感染による炎症または腫瘍性病変の可能性も否定はできなかった．疾患鑑別のため，まずは消炎療法を開始した．入院当日よりセフトリアキソンナトリウム（ロセフィン®）2g/dayの投与を開始した．１週間投与したが開口量の改善がみられず，CRPにも変化はみられなかった．抗菌薬をメロペネム三水和物（メロペン®）1g/day，クリンダマイシン（ダラシン®）1.2g/dayに変更し３日間投与したが，CRPの軽度低下をみたものの開口量に変化はみられなかった．

確定診断を行うため，９月26日全身麻酔下に右頬骨下稜より生検を行った（写真２）．上顎歯肉頬移行部より切開を加え，頬筋下で剥離を行った．術野からの排膿は認められなかった．頬脂肪体内に，脂肪組織と線維組織が混じった弾性硬の組織を認めた．病変は上顎骨後壁に沿って上方に進展していたが，内側翼突筋との癒着はみられなかった．

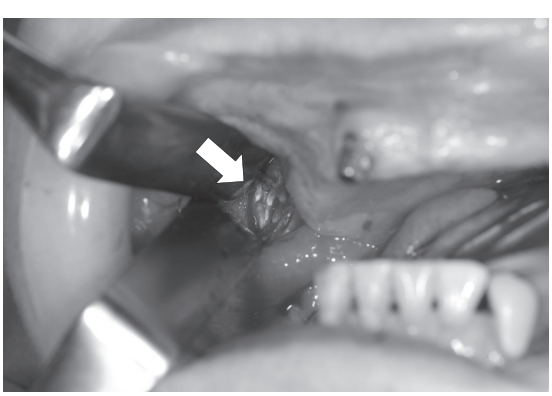


写真２　生検時の術中写真

脂肪組織と線維組織が混じった弾性硬の組織を認めた．

病理組織学的所見：

生検組織はリンパ球，形質細胞を主体とした炎症性細胞が軽度から中等度に浸潤している肉芽組織で，一部の線維に硝子化の傾向がみられた．腫瘍性病変を示唆する所見は認められなかった．（写真３）．

最終臨床診断：炎症性偽腫瘍

創部の治癒を待ってステロイド療法を開始した．最初の

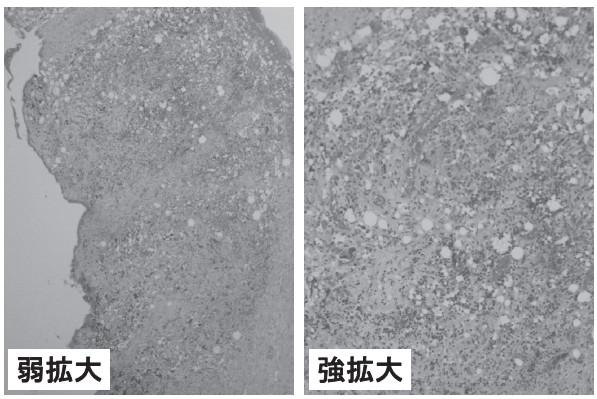
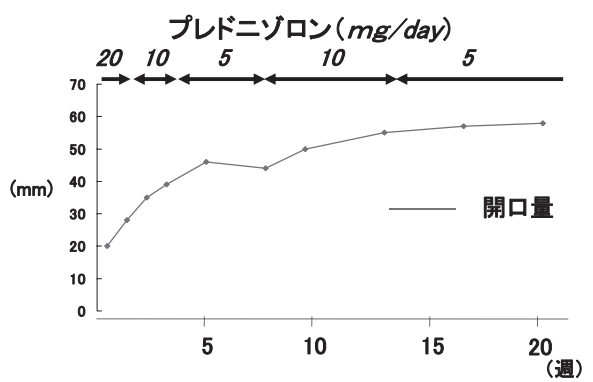


写真３　病理組織像（H-E染色）
リンパ球、形質細胞を主体とした炎症性細胞が浸潤する肉芽組織で，一部の線維の硝子化の傾向がみられた．腫瘍性病変を示唆する所見は認めなかった．

１週間はプレドニゾロン（プレドニン®）を20mg/day投与し，その後10mg/dayを２週間，５mg/dayを４週間投与した．プレドニゾロン投与開始の開口量は16mmであったが，６週間後には48mmとなった．投与開始７週目には一時的に開口量が減少したためプレドニゾロンの投与量を再び10mg/dayに増量したところ開口量が58mmまで増加した（表１）．ステロイド投与開始後６か月のMR画像では，右側頭下窩を中心としたび漫性の軟部組織病変は縮小し，右側頭筋・内側翼突筋・外側翼突筋内の異常信号は消失した（図４）．

表１　治療経過



プレドニゾロンを投与したところ，開口量が改善していった．

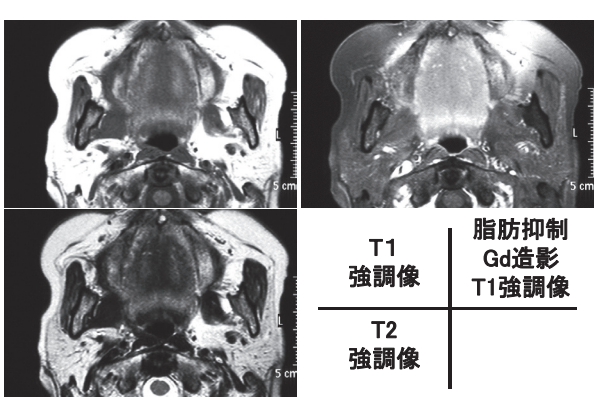


図４　ステロイド投与開始後６か月のMR像
右側頭窩下を中心としたび漫性の軟部組織病変は縮小し，異常信号は消失した．

考　　察

炎症性偽腫瘍は，1954年にUmikerら[2]が肺における病変について報告したのが最初とされる．病理組織学的には非特異的慢性炎症像を呈する良性疾患である．しかし臨床的には周囲組織への浸潤を示す事が多く，画像所見においても骨破壊像が高率に認められ悪性疾患との鑑別が困難とされる[2]．今回の症例においても臨床的には開口障害を認め，画像所見からは骨破壊像は認められなかったものの，周囲組織にび漫性に浸潤する像が見られたため悪性腫瘍も疑われた．

本疾患は全身での報告例があり，頭頸部領域では，眼窩内に好発し，扁桃，喉頭，甲上腺，気管，副咽頭間隙などでの報告がある．顎口腔領域では上顎洞，下顎や頬粘膜，顎下腺などの報告[3-7]があるが，側頭下窩での発生は稀である．原因は不明であるが，代謝障害，免疫反応，炎症，外傷，ウイルス感染などが考えられている．また，眼窩炎症性偽腫瘍がCrohn病と合併した症例の報告[8]など全身性疾患の症状の一つとの考えもある．近年では炎症性偽腫瘍とIgG4関連疾患の関係を示唆する報告[9, 10]が増えてきている．今回の症例では血清IgG4の精査を行わなかったが，今後再発等あれば考慮する必要があると考える．

肉芽腫性病変として鑑別に軟部好酸球肉芽腫が考えられるが，本症例では血液検査で好酸球数の増加は認められず，また病理組織学的にもリンパ濾胞の形成や明らかな好酸球の浸潤も認められないため軟部好酸球肉芽腫は否定的であった．右蝶形骨翼突板･上顎骨でみられた骨硬化像は，炎症細胞浸潤への骨の防御反応と考えられた．

治療は外科的切除やステロイド療法，放射線治療，抗菌薬，免疫抑制剤などの報告があり一定の見解は得られていない．また生検後や経過観察中に退縮や消失した報告もある[11-13]．眼窩内の炎症性偽腫瘍では，ステロイド療法や放射線治療の単独または併用がおこなわれている[14, 15]．渡辺らは，病理組織像を肉芽腫型，リンパ腫型，硬化型の３基本型に分類してステロイド療法や放射線療法の適応を判断している[14]．

本症例では，外科的切除を行った場合には高度な機能障害を起こす事が予想されたため，瀬野ら[15]の報告を参考にステロイド療法を行うことにした．その結果，画像上で病変の消失と開口量の回復が認められた．ステロイド療法を行わずに病変が自然消失した可能性も否定はできないが，ステロイド７週目で減量したところ開口量の減少があり，ステロイドの増量が必要であった．このことからステロイド療法による治療効果と考えた．治療後３年経過時点

で再発は認められていない．予後に関しては良好とされているが再発を繰り返す症例もあり慎重な経過観察が必要である．

結　　語

今回，側頭下窩に発生した炎症性偽腫瘍に対してステロイド療法にて良好な結果が得られた1例を経験したのでその概要を報告した．炎症性偽腫瘍の治療にはステロイドは有効な手段と考えられたが，鑑別を慎重に行った上での治療が重要と考えられた．

参 考 文 献

1）橋本　洋：炎症性偽腫瘍をどうとらえるか．橋本　洋編．病理と臨床：418-420, 2007.
2）Umilker WO, Iverson L : Postinflammatory tumors of the lung: report of four cases simulating xanthoma, fibroma, or plasma cell tumor. J thorac Surg, 28 : 55-63, 1954.
3）豊岡辰明，岩永　彩，館　裕一，奥　竜太，内藤愼二：顎下腺炎症性偽腫瘍の1例．日本臨床細胞学会雑誌，43 : 345-346, 2004.
4）木村有一，藤枝重治，高林哲司，窪　誠太：上顎洞に発生した炎症性偽腫瘍の1症例．頭頚部外科，17 : 231-235, 2007
5）Oh JH, Yim JH, Yoo BW, Choi BJ, Lee DW, Kwon YD : Inflammatory psedotumor in the mandible. J Craniofac Surg, 19 : 1552-1553, 2008.
6）Date A, Yamagata K, Onizawa K, Yanagawa T, Karube R, Ishibashi N, Bukawa H : Inflammatory pseudotumor report of a case in the mandible. Oral Maxillofac Surg, 16 : 65-68, 2012.
7）長谷部麻由，中岡一敏，山田浩之，中谷安典，金井郁代，濱田良樹：左側下顎に発生した炎症性偽腫瘍の1例．日口外誌，59 : 259-264, 2013.
8）Weinstein JM, Koch K, Lane S : Orbital pseudotumor in Crohn's colitis. Ann Ophthalmo, 16 : 275-278, 1984
9）松原　修，今関信夫，津田　均，稲山嘉明，藤井丈士，米盛葉子，中谷行雄：肺の炎症性偽腫瘍．橋本　洋編．病理と臨床：427-432, 2007.
10）門脇　晋，加藤賢一郎，天野穂高，三浦文彦，豊田真之，和田慶太，早野康一，渋谷　誠，前野佐和子，高田忠敬，浅野武秀，竹下浩二，古井　滋，福島純一，近藤福雄，福里利夫：IgG4関連疾患との鑑別が問題となった肝炎症性偽腫瘍の1例．Liver cancer, 15 : 204-212, 2009.
11）岡原　聡，安達靖代，鈴木朝子，牧口祐介，青木繁雄，仲川尚明，小林壮光，矢花　剛，稲福慶子，高坂　一，佐々木一晃，細川英明，遠藤高夫，今井浩三：切除生検後に退縮した，腸間膜炎症性偽腫瘍の1例．日消誌，101 : 1221-1226, 2004.
12）五十嵐俊三，土屋淳紀，中野応央樹，鱒　陽介，山本幹，横山純二，横尾　健，上村顕也，高村昌昭，川合弘一，山際　訓，寺井崇二：自然経過で縮小した多臓器（肝，肺，腎）炎症性偽腫瘍の1例．耳鼻臨床，57 : 287-294, 2004.
13）大城泰平，弥政晋輔，京兼隆典，東島由一郎，後藤秀成，松田眞佐男：1年6か月経過観察の後切除した脾炎症性偽腫瘍の1例．日臨外会誌，69 : 2665-2669, 2008.
14）渡辺弥生：眼窩炎症性偽腫瘍の臨床病理学的研究．日眼会誌，81 : 122-134, 1977.
15）瀬野悟史，鈴木幹男，花満雅一，桜井弘徳，那須準子，北西　剛，清水猛史：眼窩内炎症性偽腫瘍例．耳鼻臨床，97 : 1083-1087, 2004.

Hokkaido J. Dent. Sci., 37 : 168−172, 2017.

CASE REPORT

Inflammatory pseudotumor of the infratemporal fossa

Kyosuke Nagamine[1)], Yuichi Ashikaga[1)], Hiromasa Horimukai[2)], Tetsuya Kitamura[3)], Masanobu Shindoh[3)] and Kanchu Tei[1)]

ABSTRACT : In this study we report on a case of inflammatory pseudotumor of the infratemporal fossa. A 73-year-old woman was admitted to our hospital because of trismus. CT and MR findings revealed the right infratemporal fossa mass had invaded the adjacent soft tissue. We suspected a malignant tumor of the right infratemporal fossa and performed an open biopsy under general anesthesia. Histopathological findings were we discovered fibrous scar tissue with inflammatory cell infiltrate. The patient was diagnosed with inflammatory pseudotumor in the right infratemporal fossa, and oral prednisolone was given for 6 months. The patient's symptoms, including trisumus, improved dramatically with reduction in lesion size.

Key words : Inflammatory pseudotumor, infratemporal fossa, steroid therapy

[1)]Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Division of Oral Pathobiological Science, Graduate School of Dental Medicine, Hokkaido University (Chief : Prof. Kanchu Tei) Kita 13 Nishi 7, Kita-ku, Sapporo, 060-8586, Japan
[2)]Sapporo Higashi Tokusyukai Hospital (Chief : Satoshi Nishikata) 3-1, Kita 33 Higashi 14, Higashi-ku, Sapporo, 065-0033, Japan
[3)]Department of Oral Pathology and Biology, Division of Oral Pathobiological Science, Graduate School of Dental Medicine, Hokkaido University (Chief : Prof. Masanobu Shindoh) Kita 13 Nishi 7, Kita-ku, Sapporo, 060-8586, Japan