

症例報告

傍脊柱筋内に生じ、悪性腫瘍との鑑別を要した 小児骨化性筋炎の一例

青木 優一¹⁾, 佐々木 康二²⁾, 加藤 生真³⁾,
伊藤 淳⁴⁾, 伊藤 秀一⁵⁾, 松田 基⁴⁾

¹⁾ 藤沢市民病院 こども診療センター

²⁾ 横浜市立みなと赤十字病院 小児科

³⁾ 横浜市立大学医学部 分子病理学

⁴⁾ 小田原市立病院 小児科

⁵⁾ 横浜市立大学医学部 小児科学

要旨: 症例は生来健康な9歳男児。誘因なく発症した背部痛にて受診した。画像検査にて脊柱起立筋内の腫瘍性病変を認め、組織学的検査で骨化性筋炎の診断となった。骨化性筋炎は、その発症初期の画像所見から悪性疾患との鑑別が困難となることがある。本症例においては、発症初期の画像検査で悪性疾患の否定ができず、組織学的検査を行った。体幹部脊柱起立筋の骨化性筋炎では側彎症の合併が報告されているが、本症例は経過観察のみで自然軽快が得られ、側彎症などの合併症や運動障害を残さず経過した。体幹部、特に傍脊柱起立筋内に発症した骨化性筋炎は稀であり、背部の腫瘍性疾患で悪性疾患との鑑別が困難である場合、早期の組織学的検査をためらうべきではないと考える。

Key words: 小児 (pediatrics), 骨化性筋炎 (Myositis Ossificans), 軟部腫瘍 (Soft tissue tumor), 石灰化病変 (Calcified lesions), 腰部 (lumbar region)

症 例

症例は9歳10か月の生来健康な男児で、腰背部痛を主訴に当院を紹介受診した。既往歴、周産期歴には特記事項なく、生活歴はクラブ活動を含め、定期的なスポーツ歴はなかった。家族歴は特記事項なく、血縁者に軟部腫瘍含め腫瘍性疾患はなかった。受診9日前、特に誘因なく腰背部痛を自覚した。受診7日前に近医整形外科を受診し鎮痛薬を処方されたが症状改善なく、受診3日前に再診した。他院紹介にて腰部MRIを実施されたが骨・神経に異常なしと判断され経過観察を指示された。その後さらに腰背部痛は増悪し歩行困難も認め、精査目的に当院紹介受診となった。

来院時身体所見は意識清明、体温36.7度、脈拍数82回/分、血圧100/61mmHg、SpO₂ 99% (室内気) とバイタルに異常所見は認めなかったが、腰背部痛著明で立位困

難であった。胸腹部に異常所見はなく、四肢運動感覚障害、腱反射に異常はなかった。第12胸椎 (Th12) レベルを中心に左脊柱起立筋に沿って強い圧痛を認めたが、同部位の発赤、腫脹および熱感は認めなかった。

血液検査所見: WBC 8540/ μ l (Seg 55%), Hb 13.7g/dl, Plt 29.2×10^4 / μ l, TP 7.4g/dl, Alb 4.0g/dl, AST 22IU/l, ALT 10IU/l, LD 172IU/l, CK 69IU/l, Na 136mEq/l, K 4.6mEq/l, Cl 101mEq/l, Ca 9.9mg/dl, UN 11.5mg/dl, Cre 0.33mg/dl, CRP 1.07mg/dl, ESR 60分値 43.0mm, 血液培養陰性

画像検査: 前医撮影の磁気共鳴画像法 (Magnetic Resonance Imaging; MRI) ではTh12レベルの左脊柱起立筋内にT2強調像で高信号、T1強調像で等信号を示す腫瘍を認めた。また腫瘍周囲の筋に、T2強調像で高信号変化を認めた (図1 a, b)。腰椎単純X線写真では明らかな異常所見を認めなかった (図2)。当院撮影

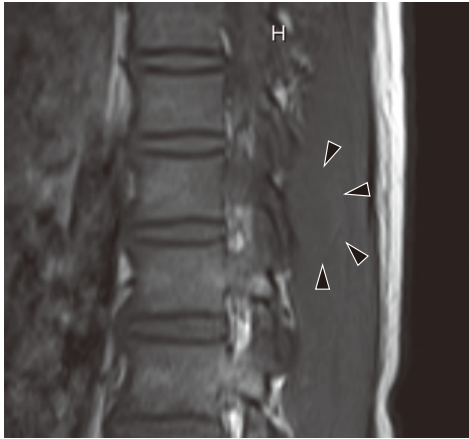


図1 a 腰部単純MRI T1 強調像 矢状断 (発症6日目)
Th12レベルの左傍脊柱筋内に筋と同信号の腫瘍性病変 (黒三角矢印) を認める。

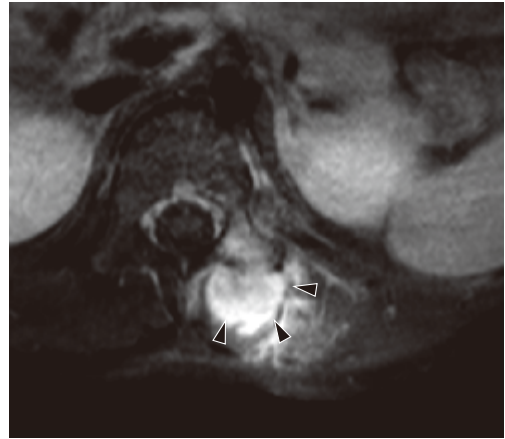


図3 腰部造影MRI T1 強調像 軸位断 (発症10日目)
Th12レベルに強い増強効果を持った腫瘍性病変 (黒三角矢印) および周囲筋に増強効果を認める。

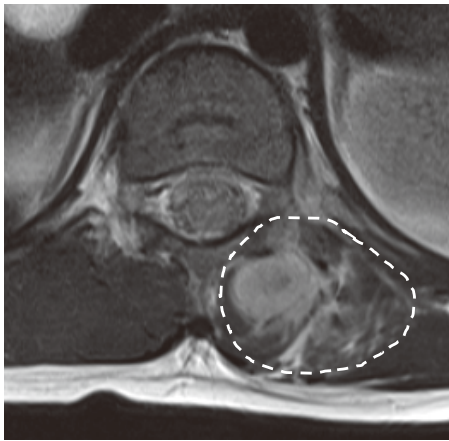


図1 b 腰部単純MRI T2 強調像 軸位断 (発症6日目)
Th12レベルに高信号を示す腫瘍性病変および周囲筋の高信号変化 (白破線内) を認める。

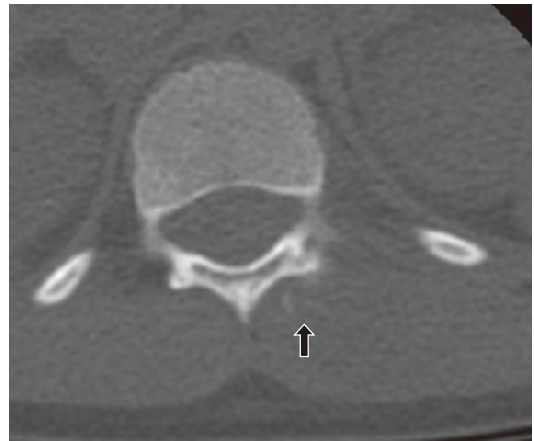


図4 a 腰部単純CT骨条件 軸位断 (発症13日目)
明らかな椎弓の骨皮質断裂は認めない。腫瘍に一致した部位に一部石灰化 (黒矢印) を疑う所見あり。

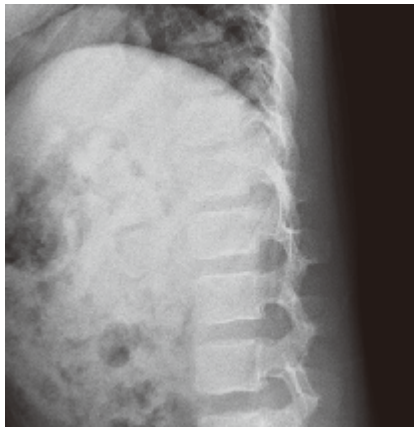


図2 腰椎単純X線写真 側面像 (発症10日目)
単純レントゲンにて明らかな異常所見を認めない。

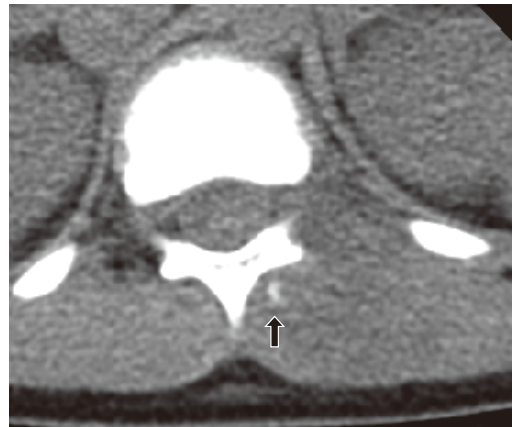


図4 b 腰部単純CT軟部条件 軸位断 (発症13日目)
明らかな腫瘍性病変は認めない。図4 aと同部位に石灰化 (黒矢印) を疑う高吸収あり。周囲筋はやや低吸収変化を認める。

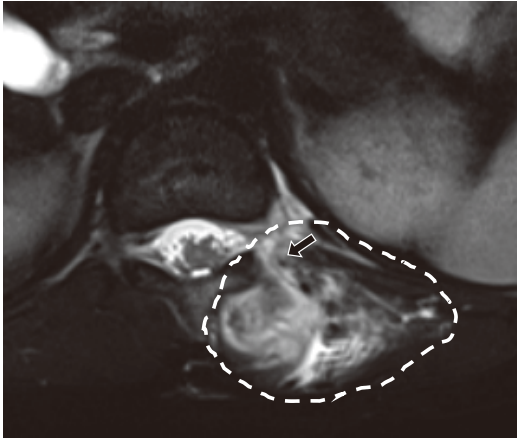


図5 腰部単純MRI T2強調像 軸位断 (発症16日目)

Th12レベルに内部不均一な高信号を示す腫瘍あり。周囲筋の高信号変化あり (白破線内)。左椎弓根に高信号性変化の波及あり (黒矢印)。

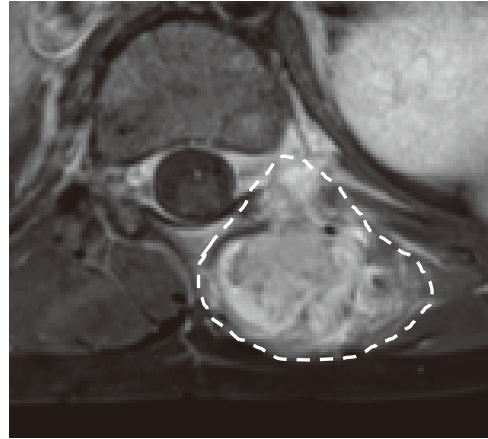


図7 腰部Gd造影MRI T1強調像 軸位断 (発症20日目)

Th12レベルに不均一な増強効果を持つ腫瘍性病変あり。周囲筋および椎弓根に増強効果 (白破線内) を認める。

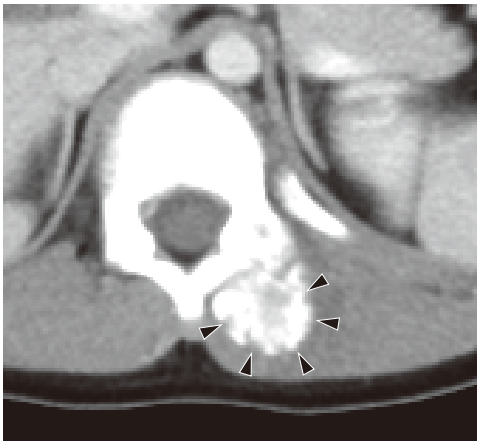


図6 腰部造影CT 軸位断 (発症20日目)

Th12レベルに不均一な強い造影効果を持った腫瘍 (黒三角矢印) を認める。

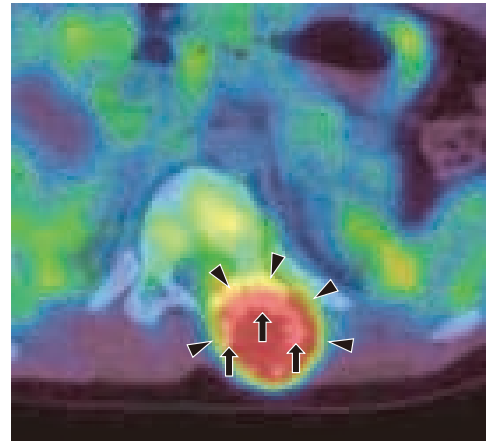


図8 18FDG-PET/CT像 (発症23日目)

腫瘍に局限し、SUVmax7.9の強い集積を認める。腫瘍周囲には不均一な石灰化を認める (黒三角矢印)。

の造影MRIで、腫瘍に一致した不正な造影効果を認めた (図3)。

入院後経過：血液検査所見で、軽度の炎症反応上昇は認められたが明らかな逸脱酵素は認められなかった。筋逸脱酵素の上昇はなく、画像所見から筋内膿瘍、化膿性脊椎炎、骨軟部腫瘍、自己免疫性疾患などを鑑別として挙げ、抗菌薬 (アンピシリンスルバクタム100mg/kg/day 8時間毎、バンコマイシン60mg/kg/day 6時間毎) の投与を開始した。抗核抗体およびアルドラーゼは陰性であった。経過中発熱は認めなかったが疼痛は改善しなかった。入院4日目 (発症13日目) に実施した単純コンピュータ断層撮影 (computed tomography; CT) では、椎弓への炎症波及や骨皮質の断裂を認めなかった (図4a, 4b, 5)。入院7日目 (発症16日目) に単純MRIを再検し腫瘍の増大を認め、椎間孔への炎症波及を認めた (図5)。抗菌薬への反応を認めず各種

自己抗体も陰性であったことから、腫瘍性疾患の可能性が否定できず、また脊髄へ炎症が波及している可能性もあり、入院10日目 (発症19日目) に大学病院へ転院した。

転院後経過：造影CTで辺縁優位の強い造影効果をもつ腫瘍性病変を認めた (図6)。明らかな転移を疑う所見は認めなかった。造影MRIではT2強調像で不均一な高信号を認め、腫瘍の増大を認めた (図7)。ポジトロン断層法 (positron emission tomography; PET) では、腫瘍に一致してSUVmax7.9の集積亢進を認めた (図8)。これらの画像所見、臨床経過から悪性腫瘍を鑑別するため、切開生検を行った。術中透視にてTh12を確認し、腫瘍直上より切開。腫瘍は石灰化した被膜に覆われていた。被膜を切開し、内部の組織を採取した。病理所見：線維芽細胞の増生が広範囲にみられ、周囲には骨や類骨の形成が領域性をもって見られた。悪性を

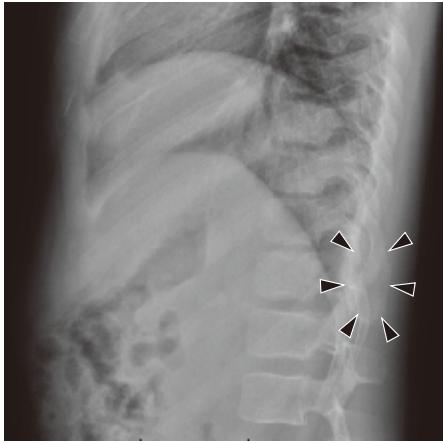


図9 腰部単純X線写真 側面像(発症166日目)

Th12レベルの腫瘍と一致した傍脊柱に異所性石灰化を認める。(黒三角矢印)

示す核異形は目立たず、骨化性筋炎の診断となった。生検後経過：骨化性筋炎に対しては鎮痛薬の頓用のみで経過観察を行った。発症3週間ほどで疼痛は自然軽快し、鎮痛薬の使用なく自宅退院となった。退院2週間後の外来では、症状の再燃を認めず、運動制限や生活指導は不要であった。退院後半年で撮影した腰椎単純X線にてTh12レベルの傍脊柱に石灰化所見の残存を認めた(図9)。その時点で側弯の出現はなく、椎体の前後屈などの機能障害はなかった。疼痛改善しており、今後の合併症発症の可能性はないと判断し、経過観察終了した。

考 察

骨化性筋炎は全軟部腫瘍のうちの0.2%ほどとされ¹⁾、筋肉内に異所性の骨化を示す腫瘍性病変である。症状は急激に増悪する疼痛と腫脹であり、60-75%が外傷や外科手術後などの外的要因に続発する²⁾。全年齢で発症しうるが、若年者に多いとされる。好発部位としては大腿や上腕腹側が多い^{1, 2)}。体幹、特に傍脊柱筋での発生は報告が少ない。本例では明確な外傷歴はなく、また外傷を受けにくい体幹筋であることから、非外傷性の骨化性筋炎と考えられた。傍脊柱筋に生じた骨化性筋炎は、脊椎側弯症の発症および進行に影響を及ぼす可能性が報告されており注意を要する³⁾。本症例においては疼痛の改善が得られ、脊柱の運動制限は見られなかった。そのため骨化性筋炎による側弯症の発症はなく、経過観察が終了となっている。

骨化性筋炎は、炎症性的変化により罹患筋の浮腫性変化を認める。急速な増大を示すため非外傷性のもものでは悪性腫瘍との鑑別が問題となることがあり、“pseudomalignant osseous tumor”とも呼ばれる。一方で骨

外性骨肉腫を骨化性筋炎と診断されていた報告⁴⁾や、骨化性筋炎と骨外性骨肉腫が混合して存在していたとの報告⁵⁾もあり、両者の鑑別には非常に注意を要する。また、背部に生じた軟部腫瘍では悪性疾患の可能性が高いことも報告されている³⁾。病理像としては筋肉内の線維芽細胞の増生および骨、時に軟骨形成が特徴的である。発症時期によって病理像に変化がみられるのも特徴的である¹⁾。発症早期(3-6週)では、粘液様基質と活動性の線維芽細胞の増生がみられる。時に類骨形成を伴う。中期(6-8週)では辺縁部における線維芽細胞の骨芽細胞への分化、類骨形成が進行する。また、辺縁より層状骨形成が始まる。後期(8週以降)では、成熟した層状骨形成がみられる。本例では病理像からは中期の病理像が得られている。同時期の¹⁸F-FDG-PET/CTでは辺縁の石灰化を認めており、画像所見とも一致すると考える。

画像においては、骨化性筋炎は発症3-4週間で腫瘍辺縁部の石灰化を認めるといった、特徴的な所見を呈する(ゾーン現象)^{6, 7)}。しかし発症後3-4週までは石灰化を認めず、不均一な造影効果を認めるのみである。MRIにおいても発症初期では腫瘍内部にリング状の低信号帯、その内部に不均一の信号強度を認め、腫瘍周囲には炎症に伴う罹患筋の浮腫性変化による所見を認めるのみである。そのため画像検査では悪性腫瘍との鑑別が困難となることがある。時間経過によって罹患筋の浮腫性変化は消失し、MRIにおいて内部の脂肪髄により辺縁低信号、内部高信号を示し、単純X線、CTにおいて腫瘍辺縁の石灰化といった特徴的画像所見を呈するため、画像による診断が比較的容易となる。しかし本例では、発症初期に画像評価を行っており、骨化性筋炎としての特徴的画像所見を認められず、他疾患との鑑別に苦慮した。また、¹⁸F-FDG-PET/CTでは腫瘍に局限してSUVmax7.9と高度の集積を認め、悪性軟部腫瘍の否定ができず生検へと至った。Etchebereらの報告によると、¹⁸F-FDG-PET/CTにおいてSUVmaxのカットオフ値を2.4とすると、骨軟部腫瘍における悪性疾患との鑑別が可能であったと報告している(感度96%、特異度77%)⁸⁾。しかし、FDGが悪性疾患のほか炎症性疾患あるいは肉芽腫といった良性疾患においても集積してしまうため、本例のように偽陽性を見ることがあり注意を要する。

本例においては、生検後の経過観察期間で腫瘍辺縁の石灰化が出現しており、画像所見の経時的変化としては典型的なものであったと考えられる。一般的に、骨化性筋炎はその特徴的な画像所見の経時的変化によって診断されることが多いが、発症部位や発症初期の所見によっては悪性腫瘍との鑑別が問題となる。そのため、悪性腫瘍との鑑別が困難である場合には、生検による早期確定診断をためらうべきではないと考える。

骨化性筋炎は、多くの病変で保存的治療のみで縮小・

消退する¹⁾。関節の可動域制限や神経・血管の圧迫症状を認める症例では、手術による摘出が考慮される^{1-2, 9)}。本症例では、傍脊柱筋内に生じたが、脊椎の側弯変化や運動制限は認めず、疼痛も自然軽快したため保存的加療を選択し、良好な経過を得た。

結 語

傍脊柱筋内に生じた小児の非外傷性骨化性筋炎の一例を経験した。

骨化性筋炎の臨床像は経時的に変化するため、発症早期には悪性疾患との鑑別が困難であることが多い。CTやMRI、¹⁸F-FDG-PET/CTなどの適切な画像評価を行い、悪性疾患の可能性が否定できない場合は生検による病理学的評価が必要であると考えられる。症状、発生部位によって悪性疾患や機能障害などの可能性が否定できない場合には早期の専門診療科による経過観察および病理学的評価を依頼すべきである。

謝 辞

本症例の診断にあたり、切開生検術を実施してくださいました、横浜市立大学附属病院整形外科学教室林田健太先生に厚く御礼を申し上げます。

文 献

1) 古谷博和：骨化性筋炎別冊日本臨牀新領域別症候群

- シリーズ骨格筋症候群. 日本臨牀社: 399-401, 2015.
- 2) 小池玄文, 上谷雅孝: 骨化性筋炎の画像診断. 臨床画像, **33**: 600-606, 2017.
- 3) Mehmet Resid Onen1, Eyup Varo, et al.: Nontraumatic Myositis Ossificans as an Uncommon Cause of Scoliosis: Case Report and Review of the Literature: World Neurosurg, **123**: 208-211, 2019.
- 4) Jing X, Yan G, Huafeng W, et al.: Extra skeletal osteosarcoma of the forearm: a case report and literature review. Arch Histopathol D.D., **19**: 27-30, 2012.
- 5) Yamaga K, Kobayashi E, et al.: Pediatric myositis ossificans mimicking osteosarcoma. Pediatrics International, **57**: 996-999, 2015.
- 6) 稲岡 努: 骨化性筋炎とゾーン現象. 画像診断, **32**: 144-145, 2012.
- 7) 高取義雄, 小久保 宇: 骨化性筋炎の罹患筋における磁気共鳴画像の特徴. 関東整災会誌, **21**: 648-650, 1990.
- 8) Etchebehere E.C., Hobbs B.P., Milton D.R., et al.: Assessing the role of 18F-FDG PET and 18F-FDG PET/CT in the diagnosis of soft tissue musculoskeletal malignancies: a systematic review and meta-analysis. Eur J Nucl Med Mol Imaging, **43**: 860-870, 2016.
- 9) Peng-Fei Li, Zi-Ling Lin, et al.: Non-traumatic myositis ossificans circumscripta at elbow joint in a 9-year old child: Chinese Journal of Traumatology, **19**: 122-124, 2016.

Abstract

A CASE OF PEDIATRIC MYOSITIS OSSIFICANS OF PARASPINAL MUSCLE NEEDING
DIFFERENTIATION FROM MALIGNANT TUMORS

Yuichi AOKI¹⁾, Koji SASAKI²⁾, Ikuma KATO³⁾, Jun ITO⁴⁾, Shuichi ITO⁵⁾, Motoi MATSUDA⁴⁾

¹⁾ *Children's Medical Center, Fujisawa City Hospital*

²⁾ *Department of Pediatrics, Yokohama City Minato Red Cross Hospital*

³⁾ *Department of Molecular Pathology, Yokohama City University School of Medicine*

⁴⁾ *Department of Pediatrics, Odawara Municipal Hospital*

⁵⁾ *Department of Pediatrics, Yokohama City University School of Medicine*

Myositis ossificans is a mass lesion that shows ectopic ossification in the muscle. Its imaging findings are characteristic, such as calcification of the surrounding area, but it may be difficult to distinguish from malignancy in the early stage. Depending on the site, rapid diagnosis may be required. A case of non-traumatic myositis ossificans that occurred in the paraspinal muscles and was difficult to distinguish from a malignant tumor is reported.