

AMCoR

Asahikawa Medical University Repository <http://amcor.asahikawa-med.ac.jp/>

皮膚病診療 (2001.11) 23巻11号:1123~1126.

【頬の皮膚病 腫瘍性】
臨床例
Nantaの骨母斑

橋本 任、橋本喜夫、飯塚 一

● 頬の皮膚病—腫瘍性—＜臨床例＞⑭

Nantaの骨母斑

橋本 任* 橋本 喜夫** 飯塚 一**

続発性骨形成を伴う母斑細胞母斑は、1908年に Heidingsfeldにより初めて報告¹⁾されたが、その後、Nantaが詳述²⁾したため、Nantaの骨母斑と呼ばれている。本邦報告は、過去18年間で49例・55個にすぎず、母斑細胞母斑の高い頻度を考えると、比較的まれな病態と思われる。われわれは、1996～1999年の4年間に5例経験したので報告し、文献的考察を加えた。

症例1 35歳，男。

初診 1996年4月24日。

家族歴，既往歴 特記すべきことなし。

現病歴 発症時期不明。初診の2，3日前から、右頬部の小結節が圧痛を伴うようになったため、当科を受診した。

現症 右頬部に、径6mm大の境界明瞭で、弾性軟、ドーム状に隆起した黒色の結節を認める。

病理組織学的所見 真皮上層から中層に母斑細胞の集塊を認める。左下方に骨様組織を認め、周囲にはリンパ球浸潤、異物肉芽腫を、近傍には拡張した毛包および嚢腫様構造も認める(図1)。

症例2 36歳，女。

初診 1996年8月9日。

家族歴 特記すべきことなし。

既往歴 多発性神経炎。

現病歴 幼少時から、顔面に黒子様の小結節が数個存在した。切除を希望し、当科を受診した。

現症 右下顎部に9×7mm大のドーム状に隆起した黒色の小結節を認める。

病理組織学的所見 真皮上層から中層に母斑細胞の集塊を認める。その下方に骨様組織を認め、周囲には軽度のリンパ球浸潤を認めるが、異物肉芽腫、毛包の破綻像、嚢腫様構造は認めない。

症例3 23歳，女。

初診 1997年5月2日。

家族歴，既往歴 特記すべきことなし。

現病歴 幼少時から、顔面に黒子様の斑が存在し、徐々に隆起してきたため、当科を受診した。

現症 左頬部に、径3mm大の境界明瞭な類円形で暗褐色小結節を認める(図2)。

病理組織学的所見 表皮—真皮境界部および真皮上層から中層に母斑細胞の集塊を認める。下方に骨様組織を認める(図3)。毛包の破綻像、炎症細胞浸潤、異物肉芽腫、嚢腫様構造はない。

症例4 55歳，女。

初診 1998年7月30日。

家族歴 特記すべきことなし。

既往歴 瞼裂斑，結膜結石。

現病歴 生直後から、左耳前部に黒子様のものがあり、徐々に増大したため、当科を受診した。

現症 左耳前部に境界明瞭な径9×9mm、弾性軟で半球状に隆起した暗褐色の結節を認める。

病理組織学的所見 真皮上層から中層に母斑細胞の集塊を認める。その下方に骨様組織を認め、周

..... Key words

Nantaの骨母斑，母斑細胞母斑，続発性皮膚骨腫

* Hashimoto, Makoto

名寄市立総合病院皮膚科(〒096-8511 名寄市西7条南8-1)

** Hashimoto, Yoshio(助教授) Iizuka, Hajime(教授)

旭川医科大学医学部皮膚科学教室(〒078-8510 旭川市緑が丘東2条1-1-1)



図1 症例1の病理組織像。真皮母斑の左下方に骨様組織を、その右近傍に囊腫様構造を認める(H-E染色, ×20)。



図2 症例3の臨床像。左頬下方の境界明瞭、類円形な暗褐色小結節

囲に軽度のリンパ球浸潤も認める。毛包の破綻像、囊腫様構造、異物肉芽腫はない。

症例5 46歳，女。

初診 1999年7月28日。

家族歴 特記すべきことなし。

既往歴 中心性頸椎損傷，頸椎後縦靭帯骨化症。

現病歴 生直後から，右頬部に黒子様のものが存在していた。2，3年前から，徐々に増大したため，当科を受診した。

現症 右頬部に境界明瞭な径8mm大，弾性軟で半球状に隆起した淡褐色の結節を認める。

検査所見 末血，生化ともに異常はなく，カルシウムの値も正常範囲内であった。

病理組織学的所見 真皮上層から中層に母斑細胞の集塊を認める。下方に軽度のリンパ球浸潤を伴う類円形の骨様組織を1個認める。毛包の破綻像，囊腫様構造，異物肉芽腫はない。骨様組織はvon Kossa染色で黒褐色に染まった。

鑑別診断および診断確定

臨床的な鑑別疾患としては，骨形成を認めない，通常の母斑細胞母斑およびそれとの鑑別を要するすべての疾患があげられるが，臨床的には鑑別困

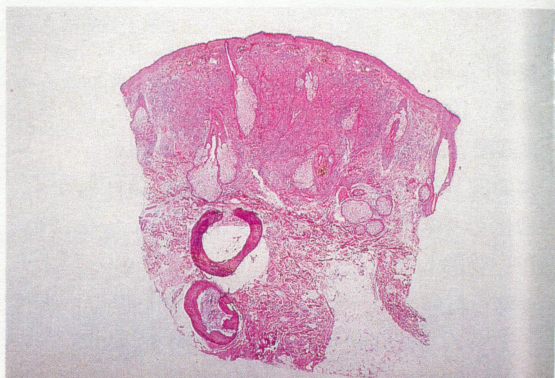


図3 症例3の病理組織像。複合母斑の左下方に骨様組織を認める(H-E染色, ×20)。

難で，術後の病理組織により初めて診断がくだされることがほとんどである。

病理組織学的には皮膚骨腫(表1)として，先行皮膚病変を認めない原発性皮膚骨腫および外傷，慢性炎症，腫瘍などが先行する続発性皮膚骨腫があげられる。Nantaの骨母斑も続発性皮膚骨腫に属するが，ほかにメラノサイト系腫瘍では，青色母斑，若年性黒色腫，giant congenital melanocytic nevusに生じた悪性黒色腫に伴った続発性皮膚骨腫が鑑別疾患としてあげられる。

診断は，既往歴，骨形成を認める部分周囲の病

表1 皮膚骨腫の分類

- I. primary cutaneous ossification without demonstrable cutaneous pathology
 - A. Albright's hereditary osteodystrophy (pseudohypoparathyroidism and pseudopseudohypoparathyroidism)
 - B. osteoma cutis
 1. platelike
 2. subungual exostosis
 3. other
- II. secondary or metaplastic cutaneous ossification
 - A. secondary to cutaneous tumors
 1. pilomatrixoma
 2. basal cell carcinoma
 3. appendageal tumors
 4. chondroid syringoma
 5. melanocytic proliferations
 6. fibrohistiocytic proliferations
 - B. secondary to trauma
 1. scar
 2. multiple facial osteomas
 3. chronic venous stasis
 - C. secondary to inflammatory conditions
 1. myositis ossificans
 2. all forms of cutaneous calcification
 - D. secondary to noncutaneous malignant tumors
 - E. secondary to cartilaginous tumors

(文献3より引用, 一部改変)

理組織像などによってなされる。

治療と経過

5例とも切除術を行い, 再発は認めない。

考 按

Nantaの骨母斑は, 本邦では1983年の浅野ら⁴⁾の報告を嚆矢として, 自験例を含めて49例・55個の報告がある(表2)⁴⁻¹⁹⁾。

母斑細胞母斑全体に対する本症の頻度は, 海外では, Rothら²⁰⁾は1.9%, Moulinら²¹⁾は1.4%と報告している。本邦では, 平均3.17%であるが, 0.4%⁷⁾~6.2%⁸⁾と施設間のばらつきがみられる。全例に表面脱灰, 連続切片等で詳細な検討を加えれば頻度は増加すると推定される⁸⁾。当科においては, 母斑細胞母斑71例・90個中5個(5.6%)で, 勝俣ら⁸⁾の結果に近い。当科の母斑細胞母斑は, 美容面から顔面の切除例の比率(51.1%)が高く, 骨母斑が実際の頻度より高めに出ている可能性がある。本症は圧倒的に顔面発生例が多く, 勝俣らは顔面の母斑細胞母斑の13.1%と報告しており, 当科でも顔面発

表2 自験例も含めた本邦の骨形成を伴う母斑細胞母斑, いわゆる, Nantaの骨母斑のまとめ(1983~2000年)

1. 報告例数 49例55個, 多発例6例(12.2%)
2. 母斑細胞母斑全体に占める割合 0.4~6.2% (平均3.17%)
3. 臨床所見
 - 1) 切除時の年齢
 - 平均年齢 43.9歳
 - 記載のあった41例中
 - 最年少22歳, 最高齢71歳
 - 男女別平均年齢
 - 記載のあった男性10例 42.0歳
 - 記載のあった女性30例 44.5歳
 - 2) 性別
 - 男性13例(26.5%), 女性36例(73.5%) (男女比1:2.77)
 - 3) 発生部位(記載のあった47例53個中)
 - 顔面 44例50個(94.3%)
 - 頬部24個(45.3%), 下顎部7個, 前額部5個, 眉間・眉毛部3個, 鼻翼部2個, 耳前部2個, 口角部2個, こめかみ部1個, 内眼角部1個, 顎部1個, 耳下部1個, 人中部1個
 - 顔面以外 3例3個(5.7%)
 - 後頭部1例1個, 後頸部1例1個, 下背部1例1個
 - 4) 形状(記載のあった39例42個中)
 - 半球状29個(69.0%), 軽度隆起4個(9.5%), 扁平隆起3個(7.2%), 単に腫瘤2個(4.8%), 小結節4個(9.5%)
 - 5) 色調(記載のあった37例40個中)
 - 黒褐色11個, 黒色10個, 茶褐色6個, 淡褐色5個, 単に褐色3個, 暗褐色3個, 紫紅色1個, 灰褐色1個
 - 6) 大きさ(記載のあった39例42個中)
 - 径2×2 mm~15×15 mm
4. 組織学的所見
 - 1) 組織型(記載のあった38例42個中)
 - 真皮内母斑32個(76.2%), 複合母斑10個(23.8%)
 - 2) 骨組織周囲の病理組織所見(記載のあった26例28個中, 重複記載を含む)

毛の断面あるいは毛包	15個
表皮囊腫様構造	6個
炎症細胞浸潤	14個
異物肉芽腫	10個
 - 3) 骨組織の数(記載のあった28例31個中)

1個	13個 (41.9%)
2個	5個 (16.1%)
3~5個	10個 (32.3%)
6~9個	2個 (6.5%)
10個以上	1個 (3.2%)

(文献4~19)に自験例を加えて集計)

生例46個中5個, 10.9%であった。したがって, 本症の頻度のばらつきは, 施設間の顔面の母斑細胞母斑の頻度のばらつきに起因すると推定される。

本症の切除時年齢は, 本邦報告例中記載のあつ

た41例では、最年少22歳、最高齢71歳で、平均は43.9歳であった。これは、欧米のRothら²⁰⁾の42歳、Moulinら²¹⁾の46歳の報告とほぼ等しいが、自験5例では、平均37.0歳と若干低年齢であった。当科71例の母斑細胞母斑の切除時年齢は、平均36.3歳で、本症の切除時平均年齢と有意な差は認めない。これに対し、舟橋ら¹⁰⁾は母斑細胞母斑全体に比較して、本症は切除時年齢が高いと報告しており、長期間の存在で種々の刺激を受け、骨化をおこしたものと推測している。本症の発生機序は、いまだ不明であるが、なんらかの刺激によってひきおこされる化生(metaplasia)により骨化が生じると考えられており⁴⁾、炎症あるいは毛包の関与が推定されている。毛包が多く、刺激による炎症が生じやすい顔面に好発することも、これを示唆する所見である。自験例について検討すると、5例とも組織学的に骨様組織の近傍に毛包が存在したが、症例1のみ毛包の拡張、表皮囊腫様構造、炎症細胞浸潤、異物肉芽腫が認められた。他の4例は軽度のリンパ球浸潤を認めるのみであった。周囲に炎症細胞や異物肉芽腫がみられない場合は、すでに炎症が収まっているとする見解もあり¹⁰⁾、症例1以外はこれに相当するのかもしれない。一方、自験症例5では、合併症としての頸椎の後縦靭帯骨化症(以下、OPLL)の存在が注目される。OPLLは、靭帯組織のhyperplasiaを伴う靭帯そのものの骨化であり、

靭帯骨化過程においては、未分化間葉系細胞(血管周細胞あるいは線維芽細胞様細胞)の増殖・基質合成の亢進による靭帯の肥厚が生じ、靭帯の軟骨化・骨化が進行するといわれている²²⁾。このような未分化間葉系細胞の変化が骨化の初期相であることは、Nantaの骨母斑でも考えられており、この2つの病態が合併したことは骨化機序を推定するうえで興味深い。

<文 献>-----

- 1) Heidingsfeld, L.M. : Arch Derm Syph 92 : 337, 1908
- 2) Nanta, M. : Ann Derm Syph (Par) 2 : 562, 1911
- 3) Demis, D.J. et al. : Clinical Dermatology, Lippincott-Raven, Philadelphia · New York, Unit24-13, 1989, p.24, 1989
- 4) 浅野翔一ほか：皮膚臨床 25 : 592, 1983
- 5) 土屋雅則ほか：日皮会誌 99 : 393, 1989
- 6) 島田辰彦ほか：西日皮膚 56 : 875, 1994
- 7) 小林博人ほか：皮膚 34 : 218, 1992
- 8) 勝俣道夫ほか：皮膚臨床 35 : 1429, 1993
- 9) 大野ますみほか：臨皮 50 : 626, 1996
- 10) 舟橋美雪ほか：臨皮 50 : 737, 1996
- 11) 松尾光馬ほか：日皮会誌 107 : 1281, 1997
- 12) 大島洋子ほか：日皮会誌 107 : 1145, 1997
- 13) 雨宮道子ほか：日皮会誌 107 : 1158, 1997
- 14) 勝俣道夫ほか：日皮会誌 108 : 974, 1998
- 15) 阿部裕明ほか：皮膚臨床 41 : 236, 1999
- 16) Sasaki, S. et al. : J Dermatol (Tokyo) 26 : 183, 1999
- 17) 小菅治彦ほか：日皮会誌 109 : 52, 1999
- 18) 前田文彦ほか：臨皮 54 : 353, 2000
- 19) 平賀 剛ほか：皮膚臨床 42 : 954, 2000
- 20) Roth, S.I. et al. : Arch of Pathol 76 : 44, 1963
- 21) Moulin, G. et al. : Ann Dermatol Venereol 118 : 199, 1991
- 22) 宮本紳平ほか：整・災外 40 : 815, 1997