

若年女子の臀部に発生した毛芽腫の1例

吉田 薫¹⁾, 宮川国久²⁾, 藤本 肇³⁾, 中東和彦⁴⁾, 江口正信⁵⁾, 宇野 隆⁶⁾

¹⁾千葉大学医学部附属病院 放射線科

²⁾沼津市立病院 放射線科

³⁾千葉大学医学部附属病院 画像診断センター

⁴⁾沼津市立病院 形成外科

⁵⁾沼津市立病院 病理診断科

⁶⁾千葉大学大学院医学研究院 画像診断・放射線腫瘍学

キーワード

Case report, Trichoblastoma, Magnetic Resonance Imaging

©日本放射線科専門医会・医会

要旨

症例は15歳女子。幼少期から左臀部皮下に腫瘤を触知し、徐々に増大したため受診した。MRIでは、臀部皮下に境界明瞭、辺縁平滑な腫瘤があり、T1強調画像では均一な低信号、T2強調画像では分葉状の内部構造がみられ、内部に多様な信号強度を伴っていた。拡散制限も認められた。悪性病変を疑い摘出術を実施した。灰白色の断面を有する分葉状の腫瘤であり、一部でメラニン沈着と思われる茶褐色～黒色の部分も見られた。組織像は、真皮深層～皮下組織を主座として、細胞成分の豊富な線維性間質と結節状・索状に増殖する上皮細胞巣から成っていた。上皮細胞巣の内部は、辺縁で柵状配列を呈する腫瘍細胞増生が見られ、中心部では様々なパターンの構造を呈していた。悪性細胞は認められなかった。以上の組織学的特徴から毛芽腫と診断した。毛芽腫は毛芽細胞様細胞の増生を特徴とする稀な良性腫瘍で、通常は50～70歳代の頭部や顔面皮下に好発する。若年者の臀部に発生することは極めて稀である。MRIにおいて悪性腫瘍と紛らわしい所見を呈することがあるため注意を要する。

緒言

毛芽腫(Trichoblastoma)は稀な皮膚良性腫瘍で、通常は中高年の顔面や頭部に好発し、若年発生例は稀である。また、そのMRI所見に関する報告は極めて少ない。今回我々は、若年女子の臀部に発生した毛芽腫の1例を経験したので報告する。

症例

患者：15歳女子

主訴：臀部皮下腫瘤

現病歴：幼少期より臀部皮下に腫瘤を自覚していたが、徐々に増大しているため当院形成外科を受診した。

既往歴、家族歴：なし

診察所見：臀部皮下に約2cmの硬結を2か所触知する。皮膚面の変化は小さな陥凹のみで色調変化なく、圧痛や自発痛はなく、可動性良好であったが、皮下腫瘍の尾側と一部癒着が疑われた。

病変の性状評価および深達度評価のため、MRI検査を施行した。

MRI所見：仙腸関節レベルの臀部やや左側寄りの皮下脂肪織内に長径4cmの腫瘤を認めた。画像上は皮膚との連続

受領：2023年2月16日 採択：2023年4月11日

責任著者：藤本 肇

千葉大学医学部附属病院 画像診断センター

〒260-0877 千葉県千葉市中央区亥鼻1-8-1

E-mail: hfujimot@lilac.ocn.ne.jp

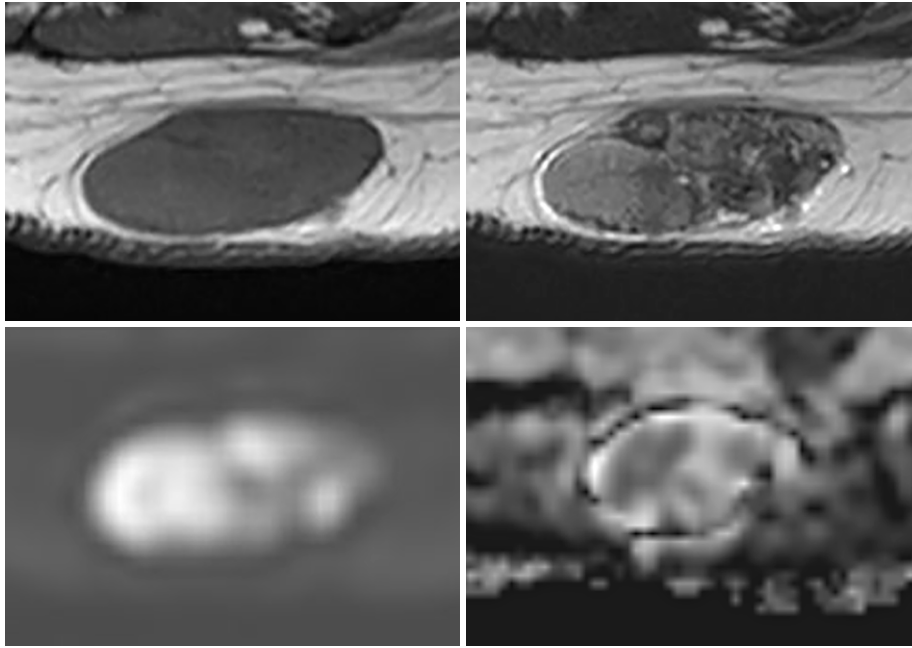


図1 MRI (全て軸位断, axial view)

T1強調画像(a, SE法 TR 571 ms, TE 10 ms)では病変は均一な低信号を呈している。T2強調画像(b, SE法, TR 4119 ms, TE 90 ms)では分葉状構造が見られ、内部の信号強度は多彩である。拡散強調画像(c, b=1000)では著明な高信号を呈している。ADC mapでは、拡散強調画像の高信号域に一致したADC低下を認める。

a	b
c	d

Fig.1 The lesion appears homogenously hypointense on T1-weighted image (a). T2-weighted image shows a lobulated structure with various signal intensities (b). On diffusion-weighted image (DWI), the mass demonstrates markedly high signal intensities (c) On apparent diffusion coefficient (ADC) map, the lesion shows decreased signal intensities in accordance with high intensities on DWI.

は無かった。内部はT1強調画像において均一な低信号を呈した(図1a)。T2強調画像においては分葉状構造が見られ、その内部に多様な信号強度を有していた(図1b)。拡散強調画像において分葉構造の内部に様々な程度の異常信号を認めた(図1c)。拡散強調画像で高信号を呈している部分のADC値は $0.81 \times 10^{-3} \text{ m}^2/\text{sec}$ であった(図1d)。造影MRIは同意が得られなかったため行わなかった。

病理組織型の推定は術前の段階で困難であったが、内部不均一で拡散制限を有する信号パターンから悪性腫瘍の可能性もあると判断した。まず、癒着が疑われた部分の皮膚と皮下腫瘍を一回にして切除を行い、組織学的な検討を行った上で、悪性腫瘍であれば追加切除を行う方針とした。

初診約1か月後に皮膚・皮下腫瘍摘出術を行った。

肉眼所見: 摘出標本の大きさは $4.9 \times 3.7 \text{ cm}$ で、線維性の被膜に覆われていた(図2a)。断面は灰白色分葉状で、一部に茶褐色～黒色の色素沈着があり、メラニン沈着を反映した所見と考えられた(図2b)。

病理所見: 病変は真皮深層から皮下組織に存在し(図3a)、

境界明瞭な線維性被膜に覆われていた。線維性間質と、結節状または索状に増殖する毛芽細胞様の上皮細胞巢から成り、fibroepithelial unitを形成していた。一部にはメラニン沈着も見られた(図3b)。強拡大では、細胞成分の豊富な線維性間質に囲まれ、辺縁に柵状の上皮細胞が配列する、いわゆるperipheral palisading arrangementを示す上皮細胞巢が分布していた(図3c)。上皮細胞巢の中心部は様々な構造を呈し、比較的細胞成分が疎な部分や篩状構造を呈するものもあった。腫瘍内に悪性を示唆する細胞は認めなかった。

以上の臨床像および組織学的特徴から、毛芽腫と診断した。

術後2年間経過観察を行っており、再発徴候を認めていない。

考 察

毛芽腫は皮膚の毛母細胞由来の良性腫瘍で、通常は50歳台から70歳台の中老年の顔面や頭部の真皮から皮下に好発する。脂腺母斑との合併が知られており¹⁾、特に小

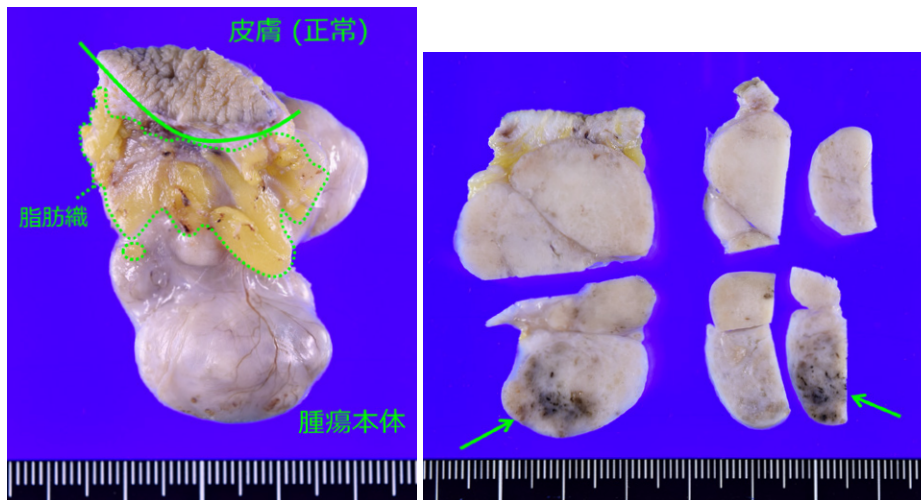


図2 肉眼所見
腫瘍は4.9×3.7cmで灰白色分葉状。線維性被膜に覆われている(a)。断面では、一部に黒色の色素沈着があり、メラニン沈着と思われる(b, 緑矢印)。

Fig.2 The mass measures 4.9 × 3.7 cm. It is a grayish-white, lobulated mass covered with a fibrous capsule (a). Cut surface shows grayish white and partially contained black spots, which indicate pigmentation with melanin (b, green arrow).

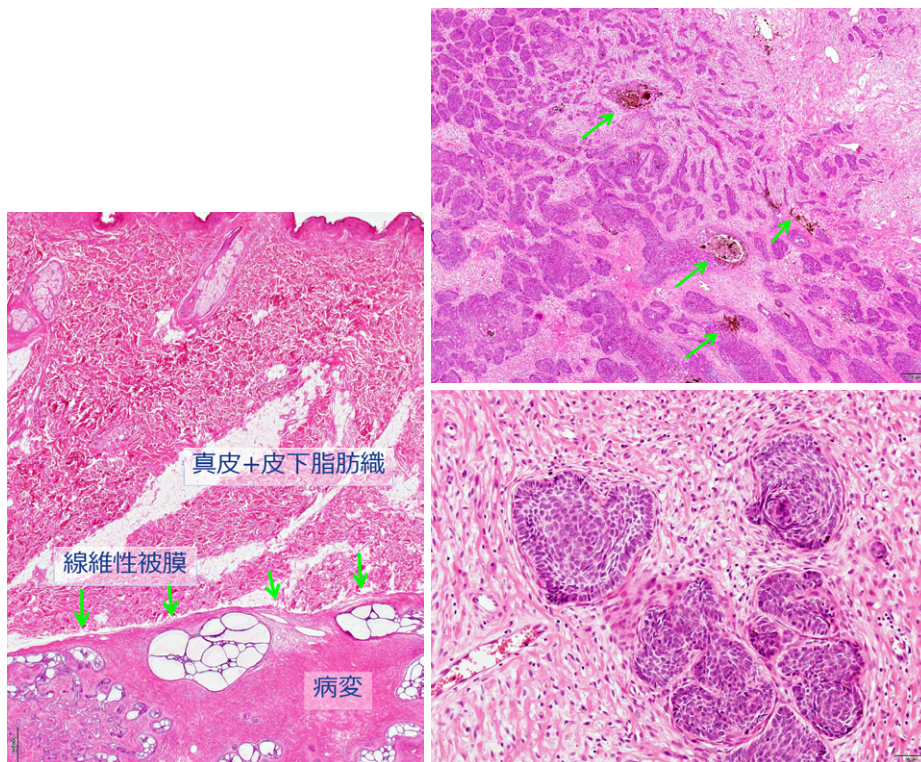


図3 理組織所見(全てHE染色)
病変は真皮深層～皮下脂肪織内に存在している(a, 緑矢印)。腫瘍は、細胞質豊富な線維性間質と毛芽細胞様の上皮細胞巢から成り、fibroepithelial unitを形成している(b)。一部にはメラニン沈着も見られる(緑矢印)。上皮細胞巢は、辺縁において柵状配列を示す(c)。

Fig.3 The lesion is located in the deep dermis and subcutaneous tissue (a, green arrow). The tumor consists of fibrous cellular stroma and lobules of follicular germinative cell nests, forming a structure referred to as a fibroepithelial unit (b). It also contains pigmentation with melanin (green arrow). The tumor cells show peripheral palisading arrangement (c).

児～若年での症例報告例は脂腺母斑と合併した報告が多いとされる²⁾。

毛芽腫の最も重要な組織学的特徴は、毛芽細胞類似の上皮細胞巢が分葉状に分布し、密な線維性間質に取り囲まれ、fibroepithelial unitを形成することである。上皮細胞巢の内部では、辺縁に柵状の上皮細胞核が分布するperipheral palisading arrangementを呈し、中心部では結節状、篩状など様々な構造をとる³⁾。これらの組織学的特徴は基底細胞癌と極めて類似し、病理学的にも鑑別が問題になる。

毛芽腫の画像所見に関する報告は少なく、我々が検索し得た範囲ではOgataらの報告の一例⁴⁾のみである。その報告によれば、毛芽腫の画像的特徴は ①CTで筋肉と同程度の吸収値 ②T1強調画像で筋肉と同様の信号強度で、ガドリニウム造影で増強効果あり ③T2強調画像で高信号と低信号の混在するmosaic pattern ④T1強調画像で豊富な血管構造 の4点が特徴であったとされる。画像所見に関する文献的な考察が少ない理由としては、毛芽腫が真皮から皮下に生じる腫瘍で生検も容易であり、画像で質的診断を行う必要が少ないためと考えられる。

上記を踏まえて本症例を検討すると、まず臨床像は、年齢・部位のいずれも好発年齢に合致せず、非典型的なものであった。“幼少期より存在していた皮下腫瘍”が毛芽腫であったのか脂性母斑であったのかについては本例では証明が困難であるが、少なくとも病理学的検討において、脂性母斑との合併を疑う所見はなかった。

MRI所見は、後方視的には本腫瘍の特徴をよく反映したものであった。まずT2強調画像においては分葉状の構

造であったが、この所見は組織学的に線維性間質+上皮細胞巢(fibroepithelial unit)に相当するものである。分葉状構造の内部が様々な信号強度・拡散制限を呈していたが、これは組織学的には、腫瘍の中の上皮細胞巢の多彩な構造、細胞密度を反映していた所見であったと考える。一方、T1強調画像での高信号など、メラニン沈着の所見については画像から得ることができなかった。

この所見は基底細胞癌などの悪性腫瘍にも類似するものであり、術前の時点で良悪性の判断は困難であったと考える。

結 語

稀な若年女性の毛芽腫の症例を経験した。毛芽腫はMRIにおいて悪性腫瘍と紛らわしい所見を呈することがあり、注意を要する。

引用文献

- 1) Fatimazahra C, Madiha E, Mounia E, Faycal A, Soumiya C: Trichoblastoma arising from the nevus sebaceus of Jadassohn. *Cureus* 2021; 13: e15325.
- 2) Kang TW, Kang H, Kim HO, Song KY: Trichoblastoma in a child. *Pediatric Dermatol* 2009; 26: 476-77.
- 3) Parth P, Shiri N, Kelsey H, Amor K: Trichoblastomas mimicking basal cell carcinoma: The importance of identification and differentiation. *Cureus* 2020; 12: e8272.
- 4) Ogata T, Tanaka S, Goto T, et al: Giant trichoblastoma mimicking malignancy. *Arch Orthop Trauma Surg* 1999; 119: 225-7.

(本症例は第32回骨軟部放射線研究会において発表した)

A Case of Trichoblastoma Arising from the Subcutaneous Tissue of the Gluteal Region in a Young Woman

Kaoru Yoshida¹⁾, Kuniyoshi Miyagawa²⁾, Hajime Fujimoto³⁾

Kazuhiko Nakatsuka⁴⁾, Masanobu Eguchi⁵⁾, Takashi Uno⁶⁾

¹⁾Department of Radiology, Chiba University Hospital

²⁾Department of Radiology, Numazu City Hospital

³⁾Diagnostic Imaging Center of Chiba University

⁴⁾Department of Plastic and Reconstructive Surgery, Numazu City Hospital

⁵⁾Department of Diagnostic Pathology, Numazu City Hospital

⁶⁾Department of Diagnostic Radiology and Radiation Oncology, Graduate School of Medicine, Chiba University

Abstract

We report the case of a 15-year-old girl who presented with a gradually enlarging subcutaneous mass in the left gluteal region. Magnetic resonance imaging (MRI) revealed a well-defined mass with a smooth margin. The lesion appeared homogeneously hypointense on T1-weighted images, while T2-weighted images showed a lobulated structure with various signal intensities. On diffusion-weighted images, the lesion demonstrated markedly high signal intensities. These findings suggested an aggressive soft-tissue neoplasm. The patient underwent a total resection of the mass. The resected specimen was a lobulated mass covered with a fibrous capsule. The cut surface showed grayish white and partially contained black spots, which indicated pigmentation with melanin. Histopathological examination revealed that the tumor consisted of fibrous cellular stroma and lobules of follicular germinative cell nests, forming a structure known as a fibroepithelial unit. The tumor cells showed peripheral palisading arrangement. There were no atypical cells suggestive of malignancy. The final diagnosis was thus trichoblastoma, which is a rare benign cutaneous neoplasm that derives from germinative hair follicle cells. It usually arises in the face or neck of middle-aged or older adults, and its occurrence in the gluteal region of a young girl is thus unusual. On MRI, it may mimic an aggressive soft-tissue neoplasm.

Keywords

Case report, Trichoblastoma, Magnetic Resonance Imaging