

腰椎椎体骨折後に生じた 両側対称性大腰筋骨化性筋炎の一例

大崎琢弥¹⁾, 白石慎哉¹⁾, 河中功一¹⁾, 赤木 涼¹⁾, 杉崎亜希子¹⁾, 三上芳喜²⁾, 平井俊範¹⁾

¹⁾熊本大学生命科学研究部放射線診断学講座

²⁾熊本大学大学院生命科学研究部細胞病理学講座

キーワード

骨化性筋炎, 大腰筋, 椎体骨折

©日本放射線科専門医会・医会

利益相反：いずれの著者にも利益相反はありません。

はじめに

骨化性筋炎は主に若年者において外傷後に生じることのある良性の異所性骨形成で, ubiquitin-specific protease6 (USP6) 再配列を原因とする腫瘍性疾患の一種と考えられており¹⁾, 四肢に生じることが多く, 腸腰筋に生じるとは極めて稀である。今回, 腰椎椎体骨折後に生じた両側対称性の大腰筋の骨化性筋炎の症例を経験したので, 文献的考察を加えて報告する。

症 例

50歳代, 女性。IgG4関連疾患に伴う脊髄障害による下肢運動障害があり, 仙骨部に褥瘡を生じたため治療目的に当院皮膚科へ入院となった。入院後より37℃台の発熱を認め, 熱源精査目的に造影CT, 造影MRIを撮像したところ, 化膿性脊椎炎が疑われた。抗菌薬加療後に症状は改善したが, 治療効果判定の造影MRIで膿瘍形成が疑われたため, ドレナージ目的に当科紹介となった。入院27日目にCT (Fig. 3a, b)を撮像したところ, 両側大腰筋内に, 辺縁優位に不均一で淡く, 内部で軟部影と混在

する石灰化を呈する腫瘤を認めた。

骨化性筋炎の可能性が疑われたため, ドレナージは中止となり, 非石灰化部と石灰化部に対して, CTガイド下針生検が施行された。病理組織所見 (Fig. 4a, b, c)では, 非石灰化部では軽度の粘液腫状の間質を背景に, 軽度の核腫大を示す線維芽細胞様の紡錘形細胞が骨格筋を分け入るように, 僅かな細胞密度の増加を伴って分布し, 石灰化部では上記に加えて反応性の骨形成を伴っており, 腫大性の骨芽細胞で縁取られた線維骨とともに, より成熟した層板骨の形成や, やや幼弱な硝子軟骨組織が認められた。針生検による断片的な検体であり, 辺縁や内部といった骨形成の分布について特定することはできなかったが, 画像所見と併せて大腰筋の骨化性筋炎が示唆された。以後, 抗菌薬を投与することなく発熱や炎症反応の再増悪はなく経過し, 入院35日目に退院した。退院から2年後に撮像されたCT (Fig. 5a, b)では, 腫瘤は骨化が進行し, 辺縁の石灰化は皮質骨, 内部の軟部影と混在した石灰化は海綿骨と類似した, 成熟骨と同様の形態を示していたものの, 増大は認められず, 定期的に経過観察を継続している。

受領：2025年1月14日 採択：2025年4月28日

責任著者：白石 慎哉

熊本大学大学院生命科学研究部放射線診断学講座

〒860-8556 熊本市中央区本荘1-1-1

E-mail: shiraishi@kumamoto-u.ac.jp



図1 入院8日目の発熱時のCT, MRI像。CTの冠状断 (a) にて第3腰椎に椎体骨折を認め、両側対称性に大腰筋は腫大している。両側大腰筋は、T2強調像軸位断、及び Short T inversion recovery (STIR) 像冠状断 (c) にてびまん性に高信号であり、ガドリニウム造影後脂肪抑制T1 強調像冠状断 (d) にてびまん性に増強される。

Fig.1 CT and MRI findings on the 8th day of the patient's hospitalization during a febrile episode. a: Coronal CT revealed a vertebral fracture of the third lumbar vertebra and bilateral symmetric enlargement of the psoas muscles. The psoas muscles exhibited high signal intensity on axial T2-weighted imaging (b) and coronal short tau inversion recovery (STIR) imaging (c). Diffuse enhancement was evident on coronal gadolinium-enhanced fat-suppressed T1-weighted imaging (d).



図2 入院22日目の抗生剤治療後のMRI像。両側大腰筋の腫大は増悪し、T2強調像軸位断 (a)、STIR 像冠状断にて高信号、造影後脂肪抑制T1 強調像冠状断 (c) にて非増強域を認める。

Fig.2 MRI findings on the 22nd day of hospitalization following antibiotic therapy. Enlargement of the psoas muscles has progressed, demonstrating areas of high signal intensity on axial T2-weighted imaging (a) and coronal STIR imaging (b), as well as non-enhancing regions on coronal gadolinium-enhanced fat-suppressed T1-weighted imaging (c).

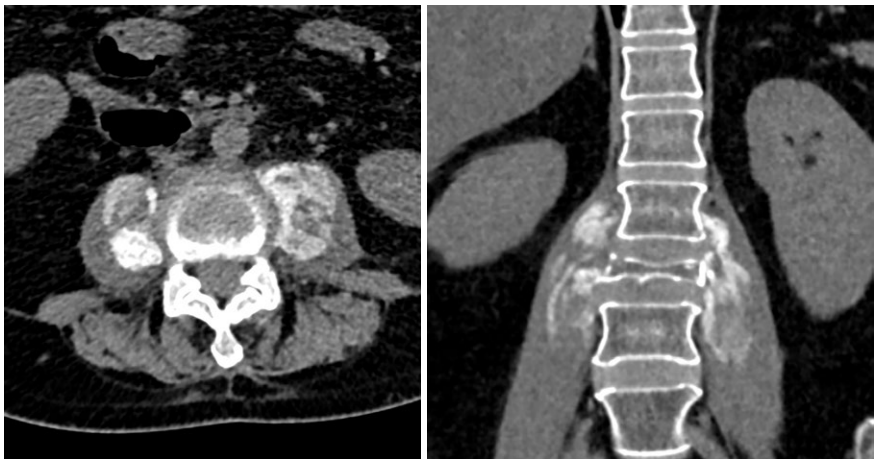


図3 入院27日目のCT冠状断にて、両側大腰筋の腫大は増大し、辺縁優位に淡く不均一な石灰化が出現している。内部は石灰化と軟部影が混在している。 a | b

Fig.3 Coronal CT findings on the 27th day of hospitalization showed further enlargement of the psoas muscles with the development of sparse and heterogeneous calcifications, especially in the rim. There was a mixture of calcification and soft part in the inner of the lesion.

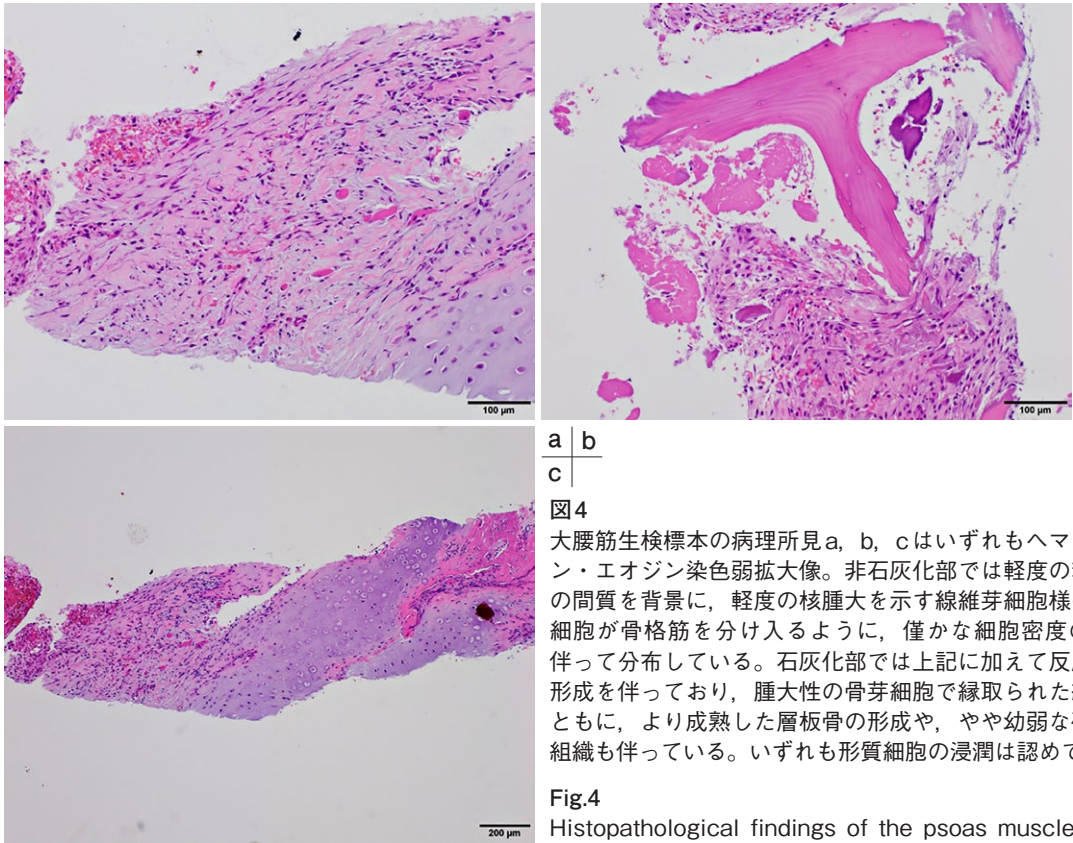


図4 大腰筋生検標本の病理所見 a, b, c はいずれもヘマトキシリン・エオジン染色弱拡大像。非石灰化部では軽度の粘液腫状の間質を背景に、軽度の核腫大を示す線維芽細胞様の紡錘形細胞が骨格筋を分け入るように、僅かな細胞密度の増加を伴って分布している。石灰化部では上記に加えて反応性の骨形成を伴っており、腫大性の骨芽細胞で縁取られた線維骨とともに、より成熟した層板骨の形成や、やや幼弱な硝子軟骨組織も伴っている。いずれも形質細胞の浸潤は認めていない。

Fig.4 Histopathological findings of the psoas muscle biopsy. a-c: Hematoxylin and eosin-stained sections under low power field. In non-calcified areas, mild myxoid stroma was observed, with spindle-shaped fibroblast-like cells exhibiting mild nuclear enlargement and infiltrating skeletal muscle, accompanied by a slight increase in cell density. In calcified areas, reactive bone formation was noted, characterized by hypertrophic osteoblast-lined woven bone, mature lamellar bone, and immature hyaline cartilage tissue. No evidence of plasma cell infiltration was observed.

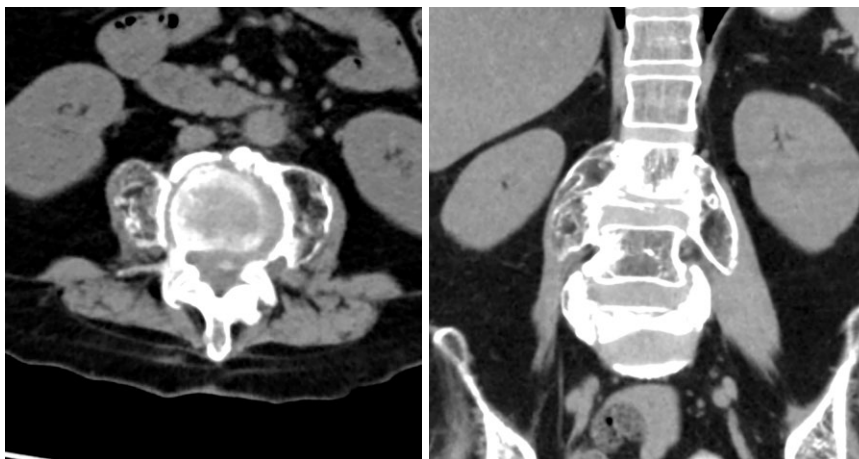


図5 退院から2年後のCT冠状断にて、両側大腰筋の著明な萎縮が見られる。大腰筋内の石化骨形成は明瞭化し、増大している。皮質骨と海綿骨に類似した構造が観察される。第3腰椎の椎体骨折は進行し、新たに第5腰椎の椎体骨折が出現している。

Fig.5 Coronal CT images taken 2 years after the patient's discharge showed significant atrophy of the bilateral psoas muscles. The ossified bone formation within the psoas muscles was more distinct and had increased in size. Structures similar to cortical bone and trabecular bone were observed. (b) Progression of the vertebral (b) fracture at the third lumbar vertebra was evident, along with a newly identified vertebral (b) fracture at the fifth lumbar vertebra.

考 察

骨化性筋炎は、筋や軟部組織に生じる良性、異所性の骨形成である²⁾。主に思春期から若年成人において、鈍的外傷や反復する軽微な外傷の後に生じることが多い。全身に生じる可能性があるが、大腿や臀部、上腕といった四肢に多く発生する³⁾。大腰筋に生じることは稀であるが、過去には腰椎椎体骨折後に生じた例が報告されている^{4,5)}。これまで詳細な原因は不明で、椎体骨折時に生じた骨格筋における外傷性の炎症後の変化と考えられていたが⁶⁾、2008年に骨化性筋炎症例における ubiquitin-specific protease 6 (USP6) 遺伝子の再配列が報告されて以後、一部の症例で同様の遺伝子変異が報告され、現在では動脈瘤様骨嚢腫や結節性筋膜炎などと共に、USP6 関連腫瘍というカテゴリーが提唱されている¹⁾。

骨化性筋炎は、組織学的には発症から3～4週間で肉芽組織や線維芽細胞が増殖した後、次の3～4週間で辺縁より未熟な層状骨が形成される zone 現象が特徴的である⁷⁾。その後8～10週間かけて成熟し、最終的に皮質骨と海綿骨からなる正常骨に近い形態となる^{7,8)}。その際、中心部では活発な分裂像を示す未分化な間葉系細胞を認めるため、組織生検の結果悪性腫瘍と誤診される可能性がある⁹⁾。

画像診断上は、発症から1～2週間以内に軟部腫瘍を生じ、zone 現象を反映して6～8週間後に辺縁に骨形成

を生じる⁷⁾。その後、5～6ヶ月間で腫瘍は縮小する³⁾。MRIにおいては初期にT2強調像で高信号を示し、骨形成に従って辺縁より低信号を示す。初期のT2強調像高信号は非特異的であり、肉腫や感染症と誤診されることもある^{3,6)}。

本症例においては、腰痛の訴えはあったものの、椎体骨折の受傷機転は不明であった。ただし、以前から脊髓障害に対して当院で複数回胸腰椎CT、MRIが撮像されており、以前の画像検査では第3腰椎の椎体骨折が認められなかったことから、入院時に近い時期に椎体骨折が生じたものと類推している。また、椎体骨折部上下の両側大腰筋の腫大を認めたことから、はじめは椎体骨折部の化膿性脊椎炎とその大腰筋への炎症の波及と考えられていた。また、入院22日目のMRIで大腰筋内に非増強領域が認められたことから膿瘍形成が疑われた。しかし、12日間の短期的な抗菌薬投与で炎症反応が改善し、一般的に長期間の抗菌薬投与が必要となる化膿性脊椎炎の経過とは矛盾した。今回施行されたのは針生検で、断片的な組織検体による病理診断であったため、骨化性筋炎に特徴的な zone 現象を観察することは困難であった。しかし、画像上は辺縁優位の石灰化を認め、内部では軟部影と混在しており、それぞれ辺縁の層状骨形成、内部の線維化と未熟な骨形成を反映し、zone 現象に矛盾しないと思われた。また、その後の経過観察で増大傾向が認

められなかったことから、悪性腫瘍は否定的と思われた。加えて、組織内に形質細胞浸潤が認められないことから、IgG4関連疾患の関与も否定的であった。なお、IgG4関連の筋炎による化骨形成の報告は見られなかった。そのため、非増強域は骨化性筋炎の骨形成の初期像を見ていたものと思われる。

骨化性筋炎に対する特異的な治療はなく、疼痛や可動制限に対する対症療法や理学療法が主体となる¹⁰⁾。本症例においても、抗菌薬終了後は特に骨化性筋炎に対する治療介入は行われず、その後、病変領域の筋全体の萎縮と化骨形成の進行が認められた。

結 語

腰椎椎体骨折後に生じた大腰筋骨化性筋炎の症例を経験した。発症初期には感染性筋炎や膿瘍形成等との鑑別が困難であることがあるため、腰椎椎体骨折後に発熱を生じる大腰筋腫大は、感染症とともに骨化性筋炎も考慮する必要がある。

参考文献

- 1) Hiemcke-Jiwa LS, van Gorp JM, Fisher C, and et al. USP6-Associated Neoplasms: A Rapidly Expanding Family of Lesions. *Int J Surg Pathol*. 2020; 28(8): 816-25.
- 2) Kransdorf MJ, Meis JM, Jelinek JS. Myositis ossificans: MR appearance with radiologic-pathologic correlation. *AJR Am J Roentgenol*. 1991; 157(6): 1243-8.
- 3) Parikh J, Hyare H, Saifuddin A. The imaging features of post-traumatic myositis ossificans, with emphasis on MRI. *Clin Radiol*. 2002; 57(12): 1058-66.
- 4) Kim SW, Choi JH. Myositis ossificans in psoas muscle after lumbar spine fracture. *Spine (Phila Pa 1976)*. 2009; 34(10): E367-70.
- 5) Mi Yong Choi MD, Gyung Kyu Lee, M.D., Kyung Jin Suh, M.D. Myositis Ossificans of the Psoas Muscle After Compression Fracture of Lumbar Spine: CT and MR Imaging Findings. *Journal of Korean Society of Radiology*. 2010; 63: 4.
- 6) Sirvanci M, Ganiyusufoglu AK, Karaman K, and et al. Myositis ossificans of psoas muscle: magnetic resonance imaging findings. *Acta Radiol*. 2004; 45(5): 523-5.
- 7) Saad A, Azzopardi C, Patel A, and et al. Myositis ossificans revisited - The largest reported case series. *J Clin Orthop Trauma*. 2021; 17: 123-7.
- 8) Palmer W, Bancroft L, Bonar F, and et al. Glossary of terms for musculoskeletal radiology. *Skeletal Radiol*. 2020; 49(Suppl 1): 1-33.
- 9) Saussez S, Blaivie C, Lemort M, and et al. Non-traumatic myositis ossificans in the paraspinal muscles. *Eur Arch Otorhinolaryngol*. 2006; 263(4): 331-5.
- 10) Walczak BE, Johnson CN, Howe BM. Myositis Ossificans. *J Am Acad Orthop Surg*. 2015; 23(10): 612-22.

Bilateral Symmetric Myositis Ossificans of the Psoas Major Muscles Following a Lumbar Vertebral Fracture

Takumi Osaki¹⁾, Shinya Shiraishi¹⁾, Koichi Kawanaka¹⁾, Ryo Akagi¹⁾

Akiko Sugisaki¹⁾, Yoshiki Mikami²⁾, Toshinori Hirai¹⁾

¹⁾Departments of Diagnostic Radiology, Faculty of Life Sciences, Kumamoto University

²⁾Departments of Cellular Pathology, Faculty of Life Sciences, Kumamoto University

Abstract

Myositis ossificans, commonly observed in young adults' extremities following trauma, is a benign heterotopic bone formation. We report a rare case of bilateral psoas muscle myositis ossificans that occurred in a Japanese woman in her 50s after she experienced a lumbar vertebral fracture. She initially presented with fever, elevated inflammatory markers, and psoas muscle swelling, leading to a misdiagnosis of infectious or IgG4-related myositis. Antibiotic treatment was administered. Imaging later revealed calcifications in the psoas muscles, and a CT-guided biopsy confirmed the diagnosis of myositis ossificans. Without further treatment, inflammation did not recur; progressive bone maturation and muscle atrophy developed over 2 years. This case emphasizes the need to consider myositis ossificans in differential diagnoses of post-fracture fever and muscle swelling.

Keywords

Myositis ossificans, Psoas muscle, Vertebral fracture