症 例

胸腔鏡補助下に摘出した肋骨発生線維性骨異形成の1例

楠本 英則, 竹内 幸康, 大瀬 尚子
桃實 徹, 前田 元

要 旨

症例は28歳男性, 検診胸部X線検査にて左第5肋骨の腫大を指摘され, 当院を受診した。自覚症状はなく, 既往歴・外傷歴も特になかった。胸部CT検査にて左第5肋骨腫瘍と診断し手術を施行した。手術は左腋窩小切開にて行い, 病変の進展範囲を確認するために胸腔鏡を併用した。腫瘍は周囲組織へ浸潤傾向を示しておらず, 腫瘍より約3 cmのmarginをとった位置で左第5肋骨を切除した。病理組織検査の結果は線維性骨異形成であった。胸腔鏡は病変部位および進展範囲の確認に有用であると考えられる。

索引用語: 線維性骨異形成, 肋骨, 胸腔鏡手術

fibrous dysplasia, rib tumor, video-assisted thoracoscopic surgery

はじめに

線維性骨異形成は成因不明の非腫瘍性骨病変で, 骨組織が化生骨を含む線維組織に置き換わる一種の形成異常と考えられている。今回, 肋骨腫瘍の診断にて胸腔鏡補助下に第5肋骨を切除した1例を経験したので報告する。

症 例

症 例: 28歳, 男性。

主 訴: 特になし。

家族歴: 特になし。

既往歴: 特になし。

現病歴: 胸部X線検査にて胸壁腫瘍を指摘され当院紹介となった。

入院時現症: 身長171 cm, 体重72.6 kg, 呼吸音は清明で身体所見に異常を認めなかった。

入院時血液検査所見: 異常を認めなかった。

胸部X線所見 (Fig. 1): 左第5肋骨の限局性肥厚を認めた。

胸部CT所見 (Fig. 2): 第5肋骨の中央部が6 cm長にわたり限局性に膨隆しており, 同部位の骨皮質の菲薄化が見られた。腫瘍は骨皮質に覆われており, 周囲

Fig. 1 Chest radiograph showing localized enlargement of the left fifth rib.

Fig. 2 Chest CT suggested a tumor of the left fifth rib, which was surrounded with a thin bone cortex.

Fig. 3 Thoracoscopy revealed no tendency of the tumor to invade adjacent organs.

Fig. 4 Resected specimen of the left fifth rib. The tumor was $5.8 \times 2.1 \times 2.5$ cm and showed a fusiform enlargement.

への浸潤の所見は認めなかった。

入院後経過：上記より左第5肋骨腫瘍（線維性骨異形成または巨細胞腫）の診断にて胸腔鏡補助下に左第5肋骨腫瘍切除術を施行した。

手術所見（Fig. 3）：右側臥位，左腋窩に縦に小切開をおき，第5肋骨を露出した。第7肋間中腋窩線にポートを留置し，胸腔内を観察した。腫瘍は第5肋骨に局限しており，肺との癒着なく周囲への浸潤所見を認めなかった。腫瘍より約3 cmのmarginをとった位置で肋骨剪刀にて肋骨を切断し腫瘍を摘出した。

切除標本肉眼所見（Fig. 4）：腫瘍は長径58 mmで最大幅は25 mmで，紡錘状に腫大していた。固定後で正常骨髓との境界は明瞭であった。

病理組織学的所見（Fig. 5）：線維芽細胞の増殖巣からなり，内部に地図状，鉤状の未熟な骨梁が島状に散見された。骨芽細胞による骨梁の縁取りはほとんど見られず，軟骨形成も明らかでなかった。線維芽細胞に核の異型や分裂像を認めず線維性骨異形成と診断された。

考 察

線維性骨異形成（以下，本症）は，成因不明の非腫瘍性骨病変で，骨組織が化生骨を含む線維組織に置き換わる一種の形成異常と考えられている。単骨性と多骨性に分類され，多骨性のもので皮膚色素沈着，性的早熟を伴うものは Albright 症候群と呼ばれる¹⁾。岡崎

Fig. 5 Histologically, the tumor was composed of immature bone trabeculae with the proliferation of fibroblasts, and showed no malignant features of osteoblasts or fibroblasts.

らは、男女比は1.7:1で男性に多く、20~30歳代に好発すると報告した²⁾。大腿骨、脛骨、肋骨の順に好発するとされ³⁾、無症状のことが多いが、疼痛・腫脹・変形・病的骨折で発見されることもある。治療法は、手術のみが治療法となる。骨折の危険性が少なく、臨床症状の軽い症例では経過観察されることもあるが、単骨性の約0.5%、Albright症候群の約4%に悪性化が見られるとの報告がある⁴⁾。単骨性の本症は無症状のことが多いが、外傷の既往がなく急速に増悪する持続的な痛みは悪性化の可能性があると考えられる⁵⁾。

本症の予後は単骨性の場合、切除されればほぼ無再

発にて経過する。肋骨発生の場合は長管骨に比べ切除後の機能障害が少ないため、十分な距離をとって切除し、再発防止を優先することが大切である。本症例では、胸腔鏡を併用することで病変の進展範囲を確認し、腫瘍より十分距離をとった位置で肋骨を切除することができた。本症は術前診断や術中迅速診断が困難であり、悪性の骨腫瘍も念頭に置いた上で、十分な切除範囲を確保することが必要と考える。

結 語

肋骨発生線維性骨異形成の1切除例を報告した。肋骨腫瘍切除に際し、胸腔鏡は病変部位および進展範囲の確認に有用と考えられた。

文 献

1. Albright F, Butler AM, Hampton AO, Smith P. Syndrome characterized by osteitis fibrosa disseminata, areas of pigmentation and endocrine dysfunction, with precocious puberty in females: Report of five cases. *New Engl J Med* 1937; **216**: 727-46.
2. 岡崎泰長, 山城敏行, 野並芳樹, 他. 左第2~4肋骨に多発した polyostotic fibrous dysplasia の1症例. *日臨外医会誌* 1994; **55**: 2013-7.
3. 国立がんセンター. 全国骨腫瘍患者登録一覧表. 1995.
4. Schwartz DT, Alpert M. The malignant transformation of fibrous dysplasia. *Am J Med Sci* 1964; **247**: 1-20.
5. Hoshi M, Matsumoto S, Manabe J, et al. Malignant change secondary to fibrous dysplasia. *Int J Clin Oncol* 2006; **11**: 229-35.

A resected case of fibrous dysplasia of the rib with thoracoscopic assistance

*Hidehori Kusumoto, Yukiyasu Takeuchi, Naoko Oose
Tohru Momozane, Hajime Maeda*

Department of General Thoracic Surgery, National Hospital Organization Toneyama Hospital

A 28-year-old man was admitted because of enlargement of the left fifth rib on a chest radiograph film. He had no symptoms and no past medical history nor traumatic injury. Computed tomography suggested a tumor of the left fifth rib. We observed that the tumor exhibited no tendency to invade adjacent organs by video monitoring through a thoracoscope. Resection was performed employing a small thoracotomy with thoracoscopic assistance. The fifth rib was resected with a margin of 3 cm to the tumor. Pathologic examination revealed fibrous dysplasia. Video-assisted thoracoscopic surgery is helpful to detect the location and the extent of tumor invasion.