軟 骨 粘 液 線 維 腫 例

西平 茂樹・石川 和夫*

A Case of Chondromyxoid Fibroma (CMF)

Shigeki Nishihira

(Ogachi Central Hospital)

Kazuo Ishikawa

(Akita University School of Medicine)

Chondromyxoid fibroma (CMF) is an uncommon benign tumor of the bone system first described by Jaffe and Lichtenstein in 1948. A review of world wide literature revealed 38 cases of head and neck CMF lesions up to October 1996. There were 15 cases in the mandible, 4 in the maxilla, 13 in the cranium, 1 in the pterygopalatine fossa, 1 in the zygoma and 4 in the nose and paranasal sinus. In this paper we present a new case of CMF which arose in the ethmoid sinus. In addition, a review of the literature is presented.

A 34-year-old Japanese man presented with left exophthalmus. The patient had noticed the protuberance on the left side of the nasal base 12 months previously. Anterior nasal speculum examination revealed no tumors in the nasal cavity. A plain CT scan revealed a large lump involving the left ethmoid sinus, extending superiorly into the bilateral frontal sinuses and into the left orbit. MR imaging showed a low intensity signal relative to the gray matter on T₁-weighted images, isointensity on proton density images, a jagged island like lesion with a hyperintense high signal was seen within the high intensity signal on T₂-weighted images and marked peripheral enhancement was noted on postcontrast (Gd-DTPA) studies of T₂-weighted images.

The tumor was removed completely by way of external ethmoid approach. The tumor dimensions were 6×4×3.5 cm. Grossly the surface was grayish-white, capsule-less, lobular, solid in texture and rather firm, but rubbery in consistency. The cut surface of the tumor was glazed and generally yellowish-white in color. Histopathologic examination confirmed the diagnosis of CMF. After 34 months of clinical and radiological follow-up, the patient showed no evidence of recurrence.

Key words : chondromyxoid fibroma, ethmoid sinus, CT, MRI

はじめに

軟骨粘液線維腫 (chondromyxoid fibroma) は軟骨組織に由来するまれな良性腫瘍でそのほとんどは脛骨、腓骨、大腿骨等の長管骨から発生している¹⁾。頭頸部領域での発生は非常にまれで1948年に分類命名²⁾された時点から1996年10月現在までに下顎骨15例^{3)~17)}、上顎骨4

例^{14)18)~20)}、頬骨1例²¹⁾、鼻・副鼻腔4例^{22)~25)}、頭蓋骨・翼口蓋窩14例^{26)~38)}のわずか38例の報告を見るのみである。今回、眼球突出を来した篩骨洞原発症例を経験した。文献的考察を加え報告する。

症 例

患者：34歳，男性．

主訴：左側眼球突出．

現病歴：1993年12月頃左眼内側の腫脹に気づいたが放置していた．その後眼球突出が増強し疲労時に眼球圧迫感が生じたため，1994年12月眼科受診．CTにて左側眼窩内側壁を外側に圧排する腫瘍を指摘され当科紹介となった．

現症：左側内嚢部から前額部にかけ輪郭のはっきりしない骨隆起あり．同部に自発痛や圧痛なく，皮膚に浮腫や発赤は認められなかった．左側眼球は外下方に圧排偏位され突出していたが，眼球運動障害は明らかでなく複視も認められなかった．鼻腔内に腫瘍は観察されなかった．

X線所見：後前方撮影像では両側前頭洞の下方2/3の範囲に淡い混濁像を認めた．Waters撮影像では鼻骨および眼窩上内方前縁部が消失し前頭洞前壁部分に周囲骨硬化像を伴う半月形透亮像を認めた(図1-a, b)．

CT所見：単純CTのみを行った．腫瘍は両側前頭洞から左側篩骨洞，眼窩，上顎洞上部にまたがり存在した．骨組織の条件(window width 2000, window level 250)冠状断像で腫瘍が一部眼窩内に浸潤しているような印象を受けたが，軸位像で内直筋との境が明瞭に区別され，

軟組織の条件(WW250, WL20)冠状断像でも腫瘍の直接浸潤はないものと判読された．X線で観察されなかった左側鼻骨は腫瘍辺縁に偏位して存在し，前頭洞後壁，天蓋を含め骨の浸潤破壊像は認められなかった．腫瘍は全般的に一様な吸収値を示して観察されたが，軟組織条件では低ないし高吸収域の斑状陰影が観察された(図2-a, b, c, d, e)．

MRI所見：T₁強調(440/15)画像で脳灰白質より低信号強度に，プロトン(3000/40)画像で灰白質とはほぼ等信号強度に，T₂強調(3000/100)画像で灰白質より若干高い信号強度の腫瘍陰影中に前頭洞内で腫瘍の上方に貯留している粘液とはほぼ同等の高信号強度で諸島状の像が観察された．Gd-DTPA使用後のT₁強調(440/15)画像では中心部が低信号で周囲が高信号強度に描出されドーナツ状を呈した(図3-a, b, c, d)．

生検結果：初診時生検では，粘液性間質中に小型で多形性の核を有する細胞が密に増殖する部分があり肉腫も考えられたが核異型が軽度で核分裂像も認められず良性腫瘍と判断された．確認のため再度生検を施行したところ，細胞成分は線維芽細胞と膠原線維が主体で基質中の酸性ムコ多糖体が著明に増加，細胞密度は高くなく異型性や分裂像も観察されないことから粘液線維腫が最も考えられた．

a

b

図1 単純X線像

a) 後前方撮影像 b) Waters 撮影像

図2 単純CT像

骨組織条件: a) b) 冠状断像 c) 軸位断像

軟組織条件: d) 冠状断像 e) 軸位断像

手術前の眼科所見: 視力・眼圧は左右差なし。眼球突出度は右側 23 mm, 左側 29 mm, 外・内嚙間距離は前者 110 mm, 後者 41 mm, 瞳孔間距離は 74 mm, 複視は 9 方向で認めなかった。

術前検討: 画像診断上腫瘍は骨破壊を伴うが膨張性発育による圧排破壊像で、腫瘍境界も非常に明瞭なことより良性腫瘍と考えられた。病理組織検査結果からは肉腫に類似する細胞密度の高い部分がある一方細胞密度の低い部分も混在し、線維性ならびに粘液性の性質を持つ良性腫瘍と考えられた。腫瘍は両側前頭洞に進展し左側篩

骨洞で最も深く、眼窩内側壁を圧排して存在することから、キリアン氏前頭洞手術の皮膚切開を内嚙部に沿って延長しつつ開窓すれば腫瘍前面全体と眼窩内側壁ならびに天蓋が明視下におけ安全な手術が可能と考えた。

手術所見: 全身麻酔下に手術を行った。眼窩上神経を切断しないように皮膚切開後前頭洞前壁と菲薄化された内嚙部の骨を含めた骨膜弁を眼窩側に剥離挙上したところ、直下に被膜を持たず表面が凹凸に分葉した乳灰白色の腫瘍が認められた(図4-a)。腫瘍はシリコンゴムの硬さを持ち部分的に挙上することは不可能であったた

a

b

c

d

図3 MRI 像

- a) T₁ 強調(440/15)軸位断像 b) プロトン(3000/40)矢状断像
c) T₂ 強調(3000/100)矢状断像 d) 造影後 T₁ 強調(440/15)軸位断像

め腫瘍前面の骨を顔貌に影響しない程度で削開，内嘴靱帯は剥離して外側に翻転した．残存鼻骨は正中側を軸にした扉状の粘膜骨弁として翻転させた．腫瘍と周囲組織間の癒着は強くなく比較的容易に剥離されたが，形態が複雑であったため腫瘍後面の剥離に手間取った．腫瘍を

一塊として摘出後左右前頭洞粘膜を処理した．前頭洞後壁の骨破壊は認められなかった．鼻前頭管にドレーン留置後挙上しておいた骨膜弁で前頭洞部を被覆．内嘴靱帯は正中側に引き寄せて固定，鼻骨も上下を吸収糸で固定した．

a

b

c

図4 手術所見および摘出腫瘍とその剖面

- a) 挙上された前頭洞前壁を含む骨膜弁(*)と腫瘍の表面(↓)
- b) 腫瘍の外観
- c) 腫瘍剖面：腫瘍下端部近くに生検で生じた出血巣を認める

病理所見：腫瘍は $6 \times 4 \times 3.5$ cm 大，表面は凹凸に分葉した乳灰白色，剖面は粘液様の光沢を有し周辺の一部

で暗赤色を呈するが全体的に薄い黄白色であった(図4-b, c)．組織学的には，短紡錘形，紡錘形，星芒状の織

維芽細胞と線維性膠原線維が軟骨基質ないし粘液様基質を背景に増生，細胞成分の多い部分と少ない部分が混在し分葉傾向を示して観察された．個々の細胞は軽度の多形性と大小不同を示すが全体像として核分裂がほとんどなく分葉構造も不完全であることから軟骨粘液線維腫と

診断された(図5-a, b, c, d)．

電顕所見：基質は密ないし粗な膠原線維で埋められ，明らかな小球状の軟骨基質顆粒は認められないものの軟骨様基質に類似して見える部分が認められた．細胞質内に多量のグリコゲンをもつ多形性腫瘍細胞では，細

図5 病理組織像(H. E. 染色)

- a) 軟骨様部分(×200)
- b) 粘液様部分(×200)
- c) 線維性膠原線維に富む部分(×200)
- d) 腫瘍全貌(×40)：a～cの細胞数差による見かけ上の分葉構造

胞質内に粗面小胞体がありグリコーゲン顆粒に核が圧排されたように観察された(図6-a, b, c).

術後経過: 術後34カ月が経過した1996年10月現在腫瘍の再発は認められない. 顔面骨削開部の陥凹は認められない. 鼻前頭管は十分に開存している. 眼球突出度は左側 25 mm, 外・内嘴間距離は前者 98 mm, 後者 34 mm, 瞳孔間距離は 70 mm に改善された.

考 察

軟骨肉腫や粘液肉腫あるいは粘液軟骨肉腫と診断され悪性腫瘍として取り扱われた症例中に実際は良性腫瘍が含まれていたことを指摘して, Jaffe ら²⁾ が1948年本腫瘍を分類命名し後に Dahlin³⁹⁾ や Iwata ら⁴⁰⁾ が悪性腫瘍と誤診される危険性を再度強調した. 1985年までに400例を超える報告がなされている⁴¹⁾⁴²⁾. 報告のほとんどは

a

b

c

図6 電顕像

- a) 全体像: 基質は密ないし粗な膠原線維で埋められている (×700)
- b) 膠原線維に富む部分 (×2500)
- c) 細胞質内に多量のグリコーゲンを有する多形性腫瘍細胞 (×9500)

表1 頭頸部領域軟骨粘液線維腫報告例39症例のまとめ

<下顎骨>

No	報告者/報告年度	年齢/性別	治 療	再発の有無 (観察期間)
1	Paul ら ³⁾ /1951	67/M	搔 爬	無 (5 カ月)
2	Sleeper ⁴⁾ /1952	60/F	一塊切除	無 (8 カ月)
3	Srivastava ⁵⁾ /1955	25/F	核 出	—
4	Schutt ら ⁶⁾ /1971	10/F	核 出	無 (8 カ月)
5	Spjut ら ⁷⁾ /1971	—	—	—
6	Grotepass ら ⁸⁾ /1976	16/F	搔 爬	無 (21カ月)
7	Browne ら ⁹⁾ /1977	13/M	搔爬2度	有 (2 年)
8	Bisaj ら ¹⁰⁾ /1982	16/M	一塊切除	無
9	Thompson ら ¹¹⁾ /1982	42/F	搔 爬	無 (15カ月)
10	Kearney ¹²⁾ /1983	12/F	一塊切除	無 (2 年)
11	Happonen ら ¹³⁾ /1984	54/M	一塊切除	無
12	Lustmann ら ¹⁴⁾ /1986	23/M	搔 爬	無
13	Pinholt ら ¹⁵⁾ /1986	24/M	核 出	無
14	Batsakis ら ¹⁶⁾ /1989	—	—	—
15	Lingen ら ¹⁷⁾ /1993	10/M	搔 爬	有 (2 年)

— は文献中に記載なし。

* 岸本ら⁶⁰⁾ の症例 (1979年) は線維肉腫を一部に認めたため除外した。

<上顎骨>

No	報告者/報告年度	年齢/性別	治 療	再発の有無 (観察期間)
1	堀越ら ¹⁸⁾ /1983	20/F	一塊切除	無 (3 年)
2	Damm ら ¹⁹⁾ /1985	24/F	搔 爬	無 (18カ月)
3	Lustmann ら ¹⁴⁾ /1986	25/F	核 出	無 (18年)
4	Fujii ら ²⁰⁾ /1988	38/F	搔 爬	無 (5 年)

<頬骨>

No	報告者/報告年度	年齢/性別	腫瘍サイズ	治 療	再発の有無 (観察期間)
1	Carr ら ²¹⁾ /1992	41/F	3 (cm)	一塊切除	無 (18カ月)

<鼻・副鼻腔>

No	報告者/報告年度	年齢/性別	腫瘍サイズ	治 療	再発の有無 (観察期間)
1	Szmeja ら ²²⁾ /1981	8/F	7×6×4 (cm)	全 摘 出	無 (6 カ月)
2	八川 ら ²³⁾ /1989	15/M	—	全 摘 出	—
3	Isenberg ら ²⁴⁾ /1995	34/M	2.5×1.4×0.7	全 摘 出	無 (8 カ月)
4	Koay ら ²⁵⁾ /1995	57/F	2.5×2.0×1.5	全 摘 出	無 (6 カ月)
5	自験例 /1996	34/M	6×4×3.5	全 摘 出	無 (34カ月)

— は文献中に記載なし。

(表1つづき)
 <頭蓋骨・翼口蓋窩>

No	発症部位	報告者/報告年度	年齢/性別	治療	再発の有無 (観察期間)
1	錐体骨	Jaffe ら ²⁾ /1948	—	—	—
2	頭蓋底	Everke ²⁶⁾ /1966	—	—	—
3	側頭骨	Aegerter ら ²⁷⁾ /1968	—	—	—
4	後頭骨	Rahimi ら ²⁸⁾ /1972	—	—	—
5	錐体骨	大久保ら ²⁹⁾ /1972	15/F	全摘出	無(21ヵ月)
6	前頭骨	Rao ら ³⁰⁾ /1976	30/F	部分切除	無(21ヵ月)
7	錐体骨	藤原ら ³¹⁾ /1976	32/M	部分切除	—
8	翼口蓋窩	Toremalm ら ³²⁾ /1976	53/F	全摘出	—
9	前頭骨	Miyamoto ら ³³⁾ /1981	15/F	全摘出	無(10ヵ月)
10	前頭骨(眼窩上壁)	金丸ら ³⁴⁾ /1982	15/M	全摘出	無(31ヵ月)
11	前頭骨	渡部ら ³⁵⁾ /1985	20/M	全摘出	無(8ヵ月)
12	頭蓋底	森川ら ³⁶⁾ /1987	47/F	部分切除	無(21ヵ月)
13	前頭骨	Morimura ら ³⁷⁾ /1992	41/M	全摘出	—
14	後頭骨	Dumas ら ³⁸⁾ /1994	43/F	—	—

— は文献中に記載なし。

整形外科領域からのものである。脛骨、腓骨、大腿骨等の下肢長管骨骨幹端部に膝関節周囲に最も多く、発生部位全体の40～65%を占める。一般的に骨端軟骨より発生し骨幹端部へ発育する軟骨由来の良性腫瘍と認識されている⁴⁰⁾⁴³⁾が腫瘍発現起源に関しては、軟骨が関係する部位では胎生期軟骨遺残からとする考え方²⁾が、軟骨が関係しない部位では幼弱な間葉細胞や線維芽細胞の化生による軟骨形成あるいは軟骨遺残の迷入などが論じられている⁴⁴⁾⁴⁵⁾。

発生頻度：骨腫瘍全体の0.5%³⁹⁾から1%以下⁴⁵⁾と言われる。本邦では、1972年から1976年までの5年間で全国骨腫瘍患者登録例⁴⁶⁾に原発性骨腫瘍4219例中23例(0.5%)が登録されている。頭頸部領域では1996年までに世界中で38例の報告がある。頭頸部領域で最初に報告され、また現在症例数が最も多いのは下顎骨であるが、その第1例目の症例報告年度の1951年から筆者らが検索した1996年10月までになされた最終症例報告年度1993年(以降1951年～1993年と表現)までに15例の報告がある。同様に上顎骨4例(1983年～1988年)、頬骨1例(1992年)、鼻・副鼻腔4例(1981年～1996年)、頭蓋骨12例(1958年～1994年)、翼口蓋窩1例(1976年)がある(表1)。

好発年齢：一般に10代から20代に多く30歳未満の者が60%(190例/315例中)¹⁾を占める。頭頸部領域では、われわれの症例を含めた39例中年齢記載のあった33例で平均年齢29.6歳(0～10代11例、20代7例、30代5例、40代5例、50代3例、60代2例)であった。男女比は161:116¹⁾、101:68⁴⁷⁾で男性が若干多いが、頭頸部領域では男性14例、女性19例であった(表1)。

臨床症状：主訴となる症状は腫瘍の発生部位と大きさにより異なるが一般に軽度である。局所疼痛が84%と最も多く、次いで腫瘍(腫脹)が67%⁴⁸⁾である。症状が軽微なため外傷時のX線検査や病的骨折により偶然発見された例⁴³⁾⁴⁹⁾もある。頭頸部領域では、頭蓋門蓋部では頭部腫瘍³⁰⁾³³⁾、翼口蓋窩や錐体骨等に発生した場合には局所神経症状が²⁹⁾³²⁾、上顎骨および下顎骨では局所腫瘍(腫脹)時に疼痛が主体であった¹⁷⁾。鼻・副鼻腔症例は鼻閉と眼球突出²²⁾、鼻出血²³⁾、副鼻腔炎で通院中に発見された²⁴⁾、鼻根部腫瘍²⁵⁾で報告されている。

X線：長管骨では、腫瘍内に石灰化陰影を認めず境界明瞭な円形または橢円形の透亮像として観察され、骨膜性反応は骨折を生じない限り認められない⁵⁰⁾⁵¹⁾。頭頸部領域では、骨破壊像と石灰化像²¹⁾³⁴⁾⁴⁴⁾が主なものである。

が、症例によって辺縁骨硬化像を伴う円形あるいは不規則な形の骨透亮像のみで石灰化や骨破壊像を伴わない³³⁾、周囲骨硬化を伴う円形透亮像と石灰化像をみるが骨破壊像を伴わない³⁷⁾などと報告されており一定しない。われわれの症例では鼻骨ならびに眼窩上内方前縁部の骨破壊を思わせる像と前頭洞前壁部分での周囲骨硬化像を伴った円形透亮像として観察され、石灰化陰影は認められなかった。

CT：単純CTでは低いし高吸収域の不均一な腫瘍陰影を見る。造影後は、全体的に不規則な形の増強効果を認めた例³⁶⁾、部分的に低吸収域の増強した例³³⁾、逆に高吸収域が増強され低吸収域が嚢胞状に観察された例³⁴⁾等がある。一方、造影剤の増強効果は認めないが軟組織条件(WW100)で様な高吸収域として観察されたものが条件を骨組織(WW600)に広げたところ salt and pepper or mottled appearance を呈した前頭骨での報告もある³⁷⁾。われわれの症例では逆に軟組織条件の水平断像で部位によって低いし高吸収域の斑状陰影が観察された。

MRI：森川ら³⁶⁾はSE1600/60にて腫瘍は高信号強度を呈し進展が明瞭に描出されると報告。Morimuraら³⁷⁾はT₁強調(500/20)画像で脳灰白質より低信号強度、プロトン画像で灰白質と等信号強度、T₂強調(2000/120)画像で灰白質より高信号強度、Gd-DTPA 使用後では中心部が低信号でその周囲がかなりの高信号強度で描出されると報告した。われわれの症例でもほぼ同様の所見が得られたが、T₂強調(3000/100)画像で灰白質より若干高い信号強度の腫瘍中に高信号強度の諸島状の像が観察された。

骨シンチ：^{99m}Tc-MDPで鮮明な集積像が報告されている⁴⁴⁾。

血管撮影：腫瘍陰影は認められず血管の圧排像が特徴的であるとされる³⁴⁾³⁵⁾。

腫瘍の肉眼所見ならびに性状：頭頸部領域では、症例によって「灰赤色、寒天状、柔らかく容易に吸引」³⁵⁾、「淡黄色半透明ゼリー状、柔らかく吸引され、被膜あり」³⁶⁾、「橙黄色、半透明、直径7mmのゼリー状塊の集合」²⁹⁾、「乳白色境界明瞭な被膜をもち比較的弾力性に富む部分と硬い部分からなり、一部石灰化し断面は大小さまざまな多くの嚢胞からなり嚢胞内には黄色ゼリー状液体を満たし、一部出血巣や壊死巣も見られた」³⁴⁾、と様々であり一定しない。教科書的には、「骨皮質が破壊した場合に骨膜および周囲組織により被膜を有す」⁵⁰⁾が「一般に

被膜のない白色調で光沢のある弾力性軟骨部分と灰白色粘液性部分をみる」⁵²⁾、「表層は分葉状である」⁵¹⁾と記載されている。われわれの症例では、表面は被膜を持たず凹凸に分葉した乳灰白色であり、断面は充実性で周辺の一部は暗赤色を呈するが全体的には薄い黄白色で粘液様の光沢を有した。硬度は一樣で弾力性に富み、ゼリー状の部分や石灰化あるいは嚢胞状の部分は存在しなかった。

病理組織：腫瘍の肉眼所見と性状が多彩なように病理組織も個々の腫瘍で異なり名称に示される軟骨-粘液-線維の基本的三組成も種々のバランスで観察される。組織学的特徴は、(1)多数の空腔に富み細胞間質が均一で軟骨の細胞間質を思わせる基質中にクロマチンの豊富な円形核腫瘍細胞が密在し幼若軟骨組織に類似する軟骨様部分(chondroid lesion)、(2)ムチカルミン染色陰性⁴⁸⁾でalcian blue-PAS染色で青色に染まる基質³⁵⁾に富み、星状から紡錘形の細長い細胞が粗に観察される粘液様部分(myxomatous lesion)、(3)クロマチンに富む大きく肥大した核を有する細胞境界不明瞭な線維芽細胞が多く、膠原線維新生を見る線維様部分(fibromatous lesion)があり、(4)これらの三組成が比較的規則性を持った細胞配置をなして見かけ上の分葉構造(pseudo-lobular pattern)を形成する。配置の規則性としては、個々の葉中心部では細胞成分の少ない軟骨様部分と粘液様部分が多く見られる²⁾。腫瘍が成熟すると粘液様部分でも膠原線維新生が見られるようになる²⁾⁴⁸⁾が一般的には線維様部分は葉辺縁部に多く見られる。(5)葉間は小血管に富み線維芽細胞の集団からなる疎性結合組織の隔壁中に、種々の大きさの多核巨細胞やマクロファージ、線維性原形質突起を持つ細胞などを見る。(6)石灰化巣は一般に見られないとする報告が多い⁴²⁾⁴³⁾が、頭蓋内あるいは頭蓋底の症例では石灰化が観察された例が多い³²⁾³⁴⁾³⁵⁾³⁷⁾⁴⁴⁾。(7)腫瘍細胞は異型性を呈するが核分裂像は認めない⁴³⁾⁴⁵⁾、等が特徴としてあげられる。

鑑別診断：腫瘍の主となる組成の違いにより鑑別対象は異なるが、最も鑑別が困難なものとして分化型の軟骨肉腫があげられ⁴³⁾誤診率は高い⁵³⁾。共に粘液様部分に富み、細胞異型が強く、クロマチンに富む核を有し、分葉構造を示す共通点がある¹⁷⁾が、軟骨肉腫では結合織性の完全な分葉構造を呈し、本腫瘍と比較してより粘液様部分が多く、硝子軟骨像を有し、線維性要素を欠き、二核細胞や核分裂像の出現頻度が高いこと等が鑑別点としてあげられる。

治療：整形外科領域では掻爬が行われた例が多く見られるが、病巣の掻爬のみでの再発率は12.5%⁴⁷⁾⁴⁸⁾、25%³⁹⁾80%⁴⁵⁾と高い。掻爬後骨移植を行う方法も検討され再発率は掻爬のみより低いとの報告もあるが10%~40%と同様に高い³⁹⁾。特に15歳以下の若年者⁵⁴⁾や組織学的に粘液様部分の優位な場合⁵⁵⁾には再発を起こしやすいとされる。健康骨辺縁を含めた完全摘出が推奨されている⁴³⁾⁴⁵⁾⁴⁹⁾。

脳外科領域では危険個所を回避するために小切片にしての除去や分割切除あるいは吸引等による全摘出治療が多く、再発が懸念されるものであるが、実際には予後の記載があった6例中4例で8カ月から31カ月の観察期間で再発を認めず、部分摘出を余儀なくされた2症例も共に21カ月間の経過で再発を認めていない³⁰⁾³⁶⁾。上顎・下顎骨では19例中17例で手術の方法と再発の有無に関しての記載がある。核出あるいは一塊として摘出された9例では再発を認めないが、掻爬の施行された8例中2例には再発が生じている。頭頸部領域でも今後更に症例を蓄積することで、重要臓器周辺や顔貌に影響するような部位での最も適当な手術方法が決定されるものと考えられる。われわれの症例は腫瘍表面に傷をつけないよう注意を払い一塊として摘出した。

放射線療法は無効である⁴⁷⁾⁴⁹⁾。照射後線維肉腫が発生した例²⁸⁾⁵⁶⁾も報告されている。

予後：再発しても進行が遅いため予後は一般的に良好である。しかし、再発や掻爬手術の繰り返しあるいは抜歯等の外的刺激により悪性化して線維肉腫や軟骨肉腫となる可能性も示唆されており^{40)57)~61)}注意は必要である。

多発例：近隣の骨に孤立した結節として出現した非常にまれな症例⁴³⁾はあるが、一度に多発した症例の報告は認められない。

おわりに

篩骨洞に発生した軟骨粘液線維腫の34歳男性症例を報告した。術前生検では軟骨成分が採取されておらず確診が得られなかったが、画像診断上も病理組織診断上も悪性所見が認められなかったことから良性腫瘍と判断し手術を行った。摘出標本の検索により軟骨成分が見いだされて軟骨粘液線維腫との確診が得られた。術後34カ月を経た現在再発を認めない。

謝 辞

病理診断に際し種々御指導頂きました秋田大学医学部整形外科教室の岡田恭司先生、同第二病理学教室の南條 博先生にお礼申し上げます。また御校閲頂きました秋田大学医学部耳鼻咽喉科学教室戸川 清教授に深謝致します。

参考文献

- 1) Pinholt E, Eldeeb M and White D : Chondromyxoid fibroma. *Int J Oral Maxillofac Surg* **15** : 553~564, 1986.
- 2) Jaffe HL and Lichtenstein L : Chondromyxoid fibroma of bone ; a distinctive benign tumor likely to be mistaken for chondrosarcoma. *Arch Pathol* **45** : 541~551, 1948.
- 3) Paul JK : Chondromyxosarcoma of the mandible. *J Oral Surg* **9** : 319~328, 1951.
- 4) Sleeper EL : Chondromyxoma of the mandible. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* **5** : 916~822, 1952.
- 5) Srivastava SP : Tumors of the jaw. *Indian J Surg* **17** : 1~34, 1955.
- 6) Shutt PG and Frost HM : chondromyxoid fibroma. *Clin Orthop* **78** : 323~329, 1971.
- 7) Spjut HJ, Dorfman MD, Fechner RE, et al : Tumors of bone and cartilage. *Atlas of Tumor Pathology, Second Series, Fascicle 5*. pp 50~59, Armed Forces Institute of Pathology, Washington DC, 1971.
- 8) Grotepass FW, Farman AG, Nortje CJ, et al : Chondromyxoid fibroma of the mandible. *J Oral Surg* **34** : 988~994, 1976.
- 9) Browne RM and Ribas PH : Chondromyxoid fibroma of the mandible ; a case report. *Br J Oral Surg* **15** : 19~25, 1977.
- 10) Bisaj M and Tomaszewska R : Chondromyxoid fibroma of the mandible ; case report. *Patol Pol* **33** : 291, 1982.
- 11) Thompson SH, Weathers DR and Vatrall JJ : Chondromyxoid fibroma of the jaws. *Head Neck Surg* **4** : 330~334, 1982.
- 12) Kearney V : Chondromyxoid fibroma of the mandible. *Br J Oral Surg* **21** : 304~307, 1983.
- 13) Happonen RP, Aho HJ, Ekfors TO, et al : Chondromyxoid fibroma of the mandible ; ultrastructural comparison with a typical chondromyxoid fibroma of the femur. *Proc Finn Dent Soc* **80** : 230~237, 1984.
- 14) Lustmann J, Gazit D, Ulmansky M, et al : Chondromyxoid fibromas of the jaws ; a clinicopathological study. *J Oral Pathol* **15** : 343~346, 1986.
- 15) Pinholt E, El Deeb M and Waite D : Chondromyxoid fibroma. *Int J Oral Maxillofac Surg* **15** : 553~564, 1986.
- 16) Batsakis JG and Raymond AK : Chondromyxoid fibroma : pathology consultation. *Ann Otol Rhinol Laryngol* **98** :

- 571~572, 1989.
- 17) Lingen MW, Solt DB and Polverini PJ : Unusual presentation of a chondromyxoid fibroma of the mandible. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* **75** : 615~621, 1993.
- 18) 堀越 勝, 力丸浩一, 大森直樹, 他 : 上顎に発生した軟骨粘液線維腫の1例. *日口外誌* **29** : 1596~1599, 1983.
- 19) Damm DD, White DK, Geissler RH, et al : Chondromyxoid fibroma of the maxilla, Electron microscopic findings and review of the literature. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* **59** : 176~183, 1985.
- 20) Fujii N and Eliseo MLT : Chondromyxoid Fibroma of the maxilla. *J Oral Maxillofac Surg* **46** : 235~238, 1988.
- 21) Carr NJ, Rosenberg AE and Yaremchuk MJ : Chondromyxoid fibroma of the zygoma. *J Craniofac Surg* **3** : 217~222, 1992.
- 22) Szmaja Z, Obrebski A, Strzykowski M, et al : Chondromyxofibroma ossificans of the ethmoidal in a child. *Int J Pediatr Otolaryngol* **3** : 151~156, 1981.
- 23) 八川公爾, 山根英雄, 松永一博, 他 : 鼻腔内 chondromyxoid fibroma の一例. *耳鼻臨床 補* **35** : 25~26, 1989.
- 24) Isenberg SF : Endoscopic removal of chondromyxoid fibroma of the ethmoid sinus. *Am J Otolaryngol* **16** : 205~208, 1995.
- 25) Koay CB, Freeland AP and Athanasou NA : Chondromyxoid fibroma of the nasal bone with extension into the frontal and ethmoidal sinuses. *J Laryngol Otol* **109** : 258~261, 1995.
- 26) Everke H : Ein Myxochondrom —Chondromyxoid Fibrom—der Schadel basis mit Ausdehnung in den Canalis spinalis. *Acta Neurochir (Wien)* **15** : 150~158, 1966.
- 27) Aegerter E and Kirkpatrick JA Jr : Chondromyxoid fibroma. 3rd edition, *Orthopedic Disease*. pp 647~654, WB Saunders, Philadelphia, 1968.
- 28) Rahimi A, Beabout JW, Ivins JC, et al : Chondromyxoid fibroma ; a clinicopathologic study of 76 cases. *Cancer* **30** : 726~736, 1972.
- 29) 大久保忠男, 郭隆 榮, 高久 久, 他 : 頭蓋錐体部に発生した, 巨大なる Chondromyxoid fibroma の1手術治験例. *脳と臨床* **25** : 355~359, 1973.
- 30) Rao KVG and Reddy CRRM : Chondromyxoid fibroma of frontal bone ; report of a case. *Indian J Orthoped* **10** : 137~139, 1976.
- 31) 藤原 潔, 大洞慶郎, 玉木紀彦, 他 : 脳室内血腫を合併した左中頭蓋窩底部 chondroma の1例. *臨床神経学* **16** : 468, 1976.
- 32) Toremalin NG, Lindstrom C and Malm L : Chondromyxoid fibroma of the pterygopalatine space. *J Laryngol Otol* **90** : 971~978, 1976.
- 33) Miyamoto E, Kuriyama T, Iwamoto M, et al : Cranial chondromyxoid fibroma. *J Neurosurg* **55** : 1001~1003, 1981.
- 34) 金丸禮三, 後藤昌澄, 平原一穂, 他 : 右眼窩上壁より発生した巨大な Chondromyxoid fibroma の1治験例. *脳神経外科* **10** : 731~736, 1982.
- 35) 渡部洋一, 後藤 健, 佐々木達也, 他 : 前頭骨に発生した Chondromyxoid fibroma の1例. *脳神経外科* **13** : 167~172, 1985.
- 36) 森川栄治, 佐々木富男, 馬杉則彦, 他 : 中頭蓋窩より後頭蓋窩に進展した Chondromyxoid fibroma の1例. *脳神経外科* **15** : 1233~1238, 1987.
- 37) Morimura T, Nakano A, Matsumoto T, et al : Chondromyxoid fibroma of the frontal bone. *AJNR* **13** : 1261~1264, 1992.
- 38) Dumas MD, Munk PL and Munoz DG : Chondromyxoid fibroma of the occipital bone. *Can Assoc Radiol J* **45** : 303~306, 1994.
- 39) Dahlin DC : Chondromyxoid fibroma of bone, with emphasis of its morphologic relationship to benign chondroblastoma. *Cancer* **9** : 195~203, 1956.
- 40) Iwata S and Coley BL : Report of six cases of chondromyxoid fibroma of bone. *Surg Gynecol Obstet* **107** : 571~576, 1958.
- 41) Begg JG and Stoker DJ : Chondromyxoid fibroma of bone. *Clin Radiol* **33** : 671~679, 1982.
- 42) Kreibergs A, Loennquist PA and Willems J : Chondromyxoid fibroma. *Acta path microbiol. immunol. scand Sect A* **93** : 189~197, 1985.
- 43) Schajowicz F and Gallardo H : Chondromyxoid fibroma of bone ; a clinicopathological study of thirty two cases. *J Bone Joint Surg* **53-B** : 198~216, 1971.
- 44) Gabrielsen TO and Kingman Jr. AF : Osteocartilaginous tumors of the base of the skull ; report of a unique case and review of the literature. *Am J Roentgenol Rad Therapy & Nuclear Med* **91** : 1016~1023, 1964.
- 45) Gherlinzoni F, Rock M and Picci P : Chondromyxoid fibroma. *J Bone Joint Surg* **65-A(2)** : 198~204, 1983.
- 46) 新臨床整形外科全書(天児民和監修). 第2巻B : 骨腫瘍. 5頁, 金原出版, 東京, 1981.
- 47) Feldman F, Hecht H and Johnston AD : Chondromyxoid fibroma of bone. *Radiology* **94** : 249~260, 1970.
- 48) Frank WE and Rockwood CA : Chondromyxoid fibroma ; review of the literature and report of four cases. *J Southern Med* **62** : 1248~1253, 1969.
- 49) Nimityongsukul P, Anderson LD and Dowling EA : Chondromyxoid fibroma. *Orthop Rev* **21** : 863~870, 1992.
- 50) 前山 巖, 佐野量造 : 骨腫瘍各論, 軟骨粘液性線維腫. 骨・軟部腫瘍図譜(塚本憲甫監修). 261頁, 中山書店, 東京,

- 1972.
- 51) 真角昭吾, 徳永純一, 天児民和, 他: 骨系統の整形外科学総論. 神中整形外科学(天児民和編). 262頁, 南山堂, 東京, 1977.
- 52) 吉村義之: 骨腫瘍と腫瘍様発育. 病理学各論(下)飯島宗一編. 406~407頁, 文光堂, 東京, 1973.
- 53) Zillmer DA and Dorfman HD: Chondromyxoid fibroma of bone; thirty six cases with clinicopathologic correlation. Hum Pathol **20**: 952~964, 1989.
- 54) Ralph LL: Chondromyxoid fibroma of bone. J Bone Joint Surg **44-B**: 7~24, 1962.
- 55) Scaglietti O and Stringa G: Myxoma of bone in childhood. J Bone Joint Surg **43 (A)**: 67~80, 1961.
- 56) Ackerman LV and Spjut HJ: Tumors of bone and cartilage. Atlas of tumor Pathology. Sect. II, Fasc., 4. pp 17~19, Armed forces institute of pathology, Washington DC., 1962.
- 57) 松野誠夫: Chondromyxoid fibroma の1例. 北整災誌 **6**: 197, 1960.
- 58) Fillipone MJ: Malignant chondromyxofibroma. J Am Pediatr Assoc **56**: 237~238, 1966.
- 59) Gilmer Jr. WS, Kilgore W and Smith H: Central cartilaginous tumors of bone. Clin Orthop **26**: 81~103, 1963.
- 60) 岸本 源, 阿部本晴, 日下雅裕, 他: 一部に肉腫像を認めた下顎軟骨粘液線維腫の1例. 日口外誌 **25**: 1147, 1979.
- 61) Sehayik S and Rosman MA: Malignant transformation of a chondromyxoid fibroma in a child. Can J Surg **18**: 354~360, 1973.
- (別刷請求先: 西平茂樹
〒012 湯沢市表町3-3-15
秋田県厚生連雄勝中央病院耳鼻咽喉科)