腓骨近位部に発生した軟骨粘液線維腫の1症例

上 蘭 直 弘* 横 内 雅 博* 川 添 泰 臣* 篠 原 直 弘*
入 来 順一郎* 山 下 芳 隆* 有 島 善 也* 小 宮 節 郎*
義 岡 孝 子** 北 島 信 一***

Chondromyxoid Fibroma of the Fibula: A Case Report

Naohiro Uezono*, Masahiro Yokouchi*, Yasuomi Kawasoe*,
Naohiro Shinohara*, Junichiro Iriki*, Yoshitaka Yamashita*,
Yoshiya Arishima*, Setsuro Komiya*, Takako Yoshioka**,
and Shinichi Kitajima***

腓骨近位部に発生した軟骨粘液線維腫の1例を経験したので報告した。症例は16歳男性。右膝打撲後より疼痛が出現。近医受診し、単純X線上右腓骨頭に境界明瞭な骨透亮像を指摘され当科紹介受診。単純X線では骨皮質の膨隆と菲薄化を認め、髄内には隔壁構造を伴った骨透亮像を認めた。MRIではT1WIで筋と等信号、T2WIで高信号、不均一な造影効果を伴う骨内腫瘤を認めた。術中迅速病理診断を行い軟骨粘液線維腫の診断を得たため、病巣搔爬及び人工骨移植を行った。軟骨粘液線維腫は長管骨、特に脛骨の骨幹端部に好発する比較的稀な良性骨腫瘍であるが、腓骨近位部での発生の報告は少ない。搔爬での再発率は20%前後と比較的高い再発率の報告が多く、本症例においても今後の注意深い経過観察が必要と思われる。腓骨近位部における骨腫瘍の鑑別として、稀ではあるが軟骨粘液線維腫も念頭に置く必要があると思われた。

A case of chondromyxoid fibroma occurring at the proximal of the right fibula of a 16-year-old male is reported. Initial objective symptom was transient pain at the knee joint and radiological appearance was a relatively eccentric and expansile lytic lesion in the proximal of the right fibula with a sclerotic margin. There was no periosteal reaction. Computed tomography (CT) showed an expansile lesion of the proximal fibula with a soft tissue component in the medullary cavity. The cortex was thinned and partially destructed. Magnetic resonance imaging (MRI) showed intermediate signal intensity on T1-weight images and high signal intensity on T2-weight images in the Intramedullary space. The radiological features suggested a benign lesion. Open biopsy and curettage of the right fibula lesion were then performed and pathological findings revealed a chondromyxoid fibroma. Local recurrence was not observed for seven months after the operation.

There have been reports that the incidence of recurrence of chondromyxoid fibroma varies from 15% to 26%. The tendency for local recurrence is higher in children. Chondromyxoid fibroma of the fibula, although rare, must be considered as a differential diagnosis.

Key words: chondromyxoid fibroma (軟骨粘液線維腫), fibula (腓骨), curettage (搔爬)

は じ め に

軟骨粘液線維腫は、骨腫瘍全体の1%以下であり、

比較的稀な良性骨腫瘍である。好発部位は、長管骨の骨幹端部であり、特に脛骨近位端に好発する。鑑別診断としては軟骨芽細胞腫や軟骨肉腫が挙げられるが、

* 鹿児島大学大学院運動機能修復学講座整形外科学 Department of Orthopedic Surgery, Kagoshima University, Kagoshima, Japan

** 鹿児島大学大学院医歯学総合研究科腫瘍学講座腫瘍病態学分野 Department of Tumor Pathology Hematology and Immunology, Kagoshima University, Kagoshima, Japan

*** 鹿児島大学医学部歯学部付属病院病理部 Division of Surgical Pathology, Kagoshima University, Kagoshima, Japan

診断に難渋することも少なくない。今回我々は腓骨近位部に発生した軟骨粘液線維腫の1症例を経験したので若干の文献的考察を加え報告する。

症 例

症例：16歳男性。

主訴：右腓骨近位部の疼痛。

図1 上段：単純レントゲン写真、腓骨頭に皮質骨の膨隆と周辺硬化を伴う境界明瞭な骨透亮像を認めた。
下段：CT画像、皮質骨の部分欠損、及び腫瘍内の石灰化が明らかである。

現病歴：ラグビー中に右膝打撲を打撲。その後より右膝関節外側に疼痛が出現したために前医受診。単純X線で右腓骨頭に境界明瞭な骨透亮像を指摘され当科紹介受診となった。

既往歴：特記事項なし。

入院時理学所見：歩容正常。腓骨頭に軽度の圧痛を認めたが歩行時痛及び自発痛はなく、発赤、腫脹、熱感も認めなかった。

血液検査所見：異常所見を認めなかった。

画像所見：単純レントゲンでは腓骨頭に皮質骨の膨隆と周辺硬化を伴う境界明瞭な骨透亮像を認めたが、骨膜反応は認められなかった（図1上段）。CTでは、皮質骨の部分欠損、及び腫瘍内の石灰化が明らかであった（図1下段）。MRIのT1強調像では筋と等信号で

図3 術後単純レントゲン
外側皮質骨を1×2cmの大きさに開窓し、内容物を搔爬した後、人工骨を充填した。

図2 MRI所見
T1強調で筋肉と等信号、T2強調で高信号、不均一に造影される腫瘍を認めた。

図4 a 摘出標本
灰白色調の脆い腫瘍が摘出された。出血はほとんど認められなかった。
b 病理組織像 (HE 染色)
弱拡大で特徴的な大小の分葉状構造を示している。

内部に一部高輝度の領域が散在していた。T2 強調像では均一に高信号で、造影効果のある腫瘍を認めたが、明らかな軟骨病変は認められなかった (図 2)。

これらの画像所見より軟骨芽細胞種などの良性骨腫瘍を疑い、術中迅速を併用した腫瘍掻爬を予定した。外側アプローチで腓骨神経を保護した後、腓骨頭外側を 1 cm × 2 cm の大きさに開窓した。内部からの出血はほとんど認められず、術中迅速病理診断では軟骨粘液線維腫の診断であった。悪性の所見は認められなかったことより病巣掻爬及び人工骨 (ネオボーン) を充填した (図 3)。掻爬された腫瘍は灰白色で軟骨様であった (図 4 a)。永久病理診断では、弱拡大で特徴的な大小の分葉状構造を示し、軟骨粘液線維腫の診断であった (図 4 b)。現在術後 6 カ月で再発を認めておらず、ラグビーへの復帰訓練中である。

考 察

軟骨粘液線維腫は 1948 年に Jaffe らによりはじめて提唱されたきわめて稀な良性腫瘍であり²⁾、病理組織学的には myxoid な疎な部分とそれを取り囲む細胞密度が高い部分とが大小の分葉状構造を示すことが特徴である³⁾。原発性骨腫瘍の 0.5% を占め 10 歳～30 歳に多く性差は認めない。長管骨、特に脛骨の骨幹端部に好発するが、骨端部にまで広がる症例もしばしばみられる⁵⁾。Wu ら⁵⁾ による軟骨粘液線維腫 278 例の解析では腓骨近位発生はわずか 7 例 (2.5%) のみであった。

術前画像診断としては骨幹端の偏心性骨透亮像が多

く基本的には良性の画像所見を有する。すなわち辺縁硬化像が約半数に認められ、また骨膜反応は非常にまれである⁵⁾。これらの所見より、臨床的鑑別疾患としては、軟骨芽細胞腫や巨細胞腫などの良性骨腫瘍が挙げられる。しかししばしば皮質骨の部分欠損像を呈することなどから軟骨肉腫、骨肉腫などの悪性骨腫瘍が鑑別として問題となることがある¹⁾。我々の症例も皮質骨の膨隆と辺縁効果像を有しており良性病変を強く疑ったが、皮質骨の部分断裂、一部欠損も認められ低悪性度の骨腫瘍も完全には否定できなかった。

臨床的鑑別疾患のひとつである軟骨芽細胞腫は病理学的にも軟骨粘液線維腫と近縁の病変ともいわれている⁴⁾。好発年齢も近く、さらに前述のように軟骨粘液線維腫は骨端部にまで広がることがしばしばみられる⁵⁾ ため両者の鑑別は臨床的に困難である場合が考えられる。軟骨芽細胞腫は再発率 10% 前後であるのに対し軟骨粘液線維腫は 20% 前後との報告が散見され、治療方針決定にはより慎重を要する。このことから、腓骨頭発生軟骨粘液線維腫はまれではあるが、鑑別診断のひとつとして念頭にいれ、生検方法を含めた適切な診断及び治療方針決定が必要である。

軟骨粘液線維腫の治療は基本的には掻爬でよいとされているが十分な掻爬が困難な部位では en bloc resection が推奨されている。また小児症例では高い再発率の傾向があるとされ、このような症例では初回からの radical な方法を推奨する報告もある³⁾。今回自験例は若年のスポーツ選手であり、骨温存目的で掻爬を選択したが、腓骨近位部発生軟骨粘液線維腫の報告

は少ないため、再発に関する今後の十分な経過観察が必要と思われる。

ま と め

①腓骨近位部に発生した稀な軟骨粘液線維腫の一例を報告した。

②腓骨近位部における骨腫瘍の鑑別として稀ではあるが軟骨粘液線維腫も念頭に置く必要がある。

③症例が少なく比較的高い再発率の報告が多いため、注意深い経過観察が必要である。

参 考 文 献

- 1) Feldman, F., et al.: Chondromyxoid fibroma of bone. Radiology, 94 : 249-260, 1970.
- 2) Jaffe, H. L., Lichtenstein, L.: Chondromyxoid fibroma of bone: A distinctive benign tumor likely to be mistaken especially for chondrosarcoma. Arch. Pathol., 45 : 541-551, 1948.
- 3) Merine, D., et al.: Chondromyxoid Fibroma of the fibula. J. Pediatr. Orthop., 9 : 468-471, 1989.
- 4) 日本整形外科学会, 骨・軟部腫瘍委員会: 整形外科・病理. 悪性骨腫瘍取り扱い規約第3版, pp.56-61. 東京, 金原出版, 2000.
- 5) Wu, C. T., et al.: Chondromyxoid fibroma of bone: A clinicopathologic review of 278 cases. Hum. Pathol., 29 : 438-446, 1998.