原 著

下腿骨に発生した Ossifying Fibroma の 1 例

産業医科大学 整形外科

諫 山 智 洋・鈴 木 勝 己

永 田 善 之・坂 井 一 夫

Ossifying Fibroma of the Tibia and Fibulla (A Case Report)

by

Tomohiro Isayama, Katsumi Suzuki, Yoshiyuki Nagata
and Kazuo Sakai

Department of Orthopaedic Surgery, School of Medicine,
University of Occupational and Environmental Health, Japan.

Ossifying fibroma is one of a group of fibro-osseous lesions which are rarely seen in the long bones.

The patient reported here is a 15-year-old female whose tibia and fibulla is affected. Seventy-four cases have been reported from 1966 to 1984 throughout the world (Japan: 25, Other countries: 49).

We compared these two groups, and found that there were some differences in the age and sex between them.

This report describes clinical features of ossifying fibroma, and its distinction from fibrous dysplasia.

緒 言

長管骨に発生する ossifying fibroma は比較的稀とされている。今回著者らは下腿骨に発生した ossifying fibroma を経験したので、自験例および本邦と欧米とを対比させて、若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

患者：15才 女子高校生 (No. 8406166-2)

主訴：左下腿内側前面の腫脹と圧痛

既往歴；家族歴：特記すべき事なし

現病歴：昭和55年，崖をかけ降りた時につまづき左下腿部に疼痛を生じた。整骨院にて左腓骨々折と診断され，約2ヶ月間の保存的治療を受けた。以来時々同部に痛みが出現する様になったが軽度のため放置。

昭和59年5月，ハイキングに行った後に左下腿部

の腫脹が生じ，圧痛を認めた。近医受診し X線写真にて骨異常陰影を指摘されたので，昭和59年5月22日，当科を紹介され受診する。自発痛や夜間痛はなかった。

現症：左下腿内側前面に約3cm×3cmの円形状の骨性隆起を触知し，その中央には径約2cmの陥凹があった。局所の腫脹や熱感，さらに発赤などの炎症所見は認めなかったが，骨性隆起に一致して圧痛が軽度であり，特に強い叩打痛が認められた。

検査所見：一般検査や血沈は正常。血性アルカリフォスファターゼ，免疫電気泳動でも特に異常を認めなかった。

X線像：脛骨骨幹部，腓骨骨幹部末梢側にかけて膨隆した骨皮質内に多発性の骨透亮巣を認めるが，骨膜反応はみられない。

なお腓骨には骨折後の骨癒合を思わせる所見があ

図1-A 初診時X線所見

皮質の膨隆像、皮質内の透亮像、辺縁硬化像が見られ、いわゆる multiple bubbles を呈している。

図1-B ^{99m}Tc bone scintigram

った。(図1-A)

^{99m}Tc 骨シンチグラムでは病巣部に一致して著明な取り込みを認める。(図1-B)

以上の所見により著者らは fibrous dysplasia, fibrous cortical defect, non-ossifying fibroma, ossifying fibroma 等の良性骨腫瘍を疑い、昭和59年8月6日に骨生検術を行った。

手術所見：軟部組織には異常を認めなかったが、骨膜と軟部組織には軽度の癒着があり血管の増生してい

る様な感があった。骨膜は正常であり、膨隆した骨皮質は白っぽい色調を呈していた。膨隆部を含めて $1 \times 2.5\text{cm}$ の骨切除を行ったが、骨移植は特に行わなかった。

組織学的所見：組織像は線維性の組織を中心に新生骨梁が多数散在していた。①骨梁周囲には骨芽細胞が取り囲み、破骨細胞もみられた。(図2) ②特徴的とされる骨梁の層板状化は採取した病理組織には認めなかった。

図2 組織像 H.E. $\times 100$

線維性組織内に骨芽細胞にふちどられた成熟骨と骨芽細胞が見られる。破骨細胞も散見される。

しかし①による組織学的所見より著者らは本症例を骨化性線維腫 (ossifying fibroma) と診断した。

術後は運動をした後に軽度の痛みを訴える他には特に愁訴もないが、今後も長期にわたる経過観察が必要であると考えている。

考 察

ossifying fibroma なる名称は1966年 Kempson¹⁰⁾ が "ossifying fibroma of the long bone" として報告している。

同様の疾患を1976年 Campanacci³⁾ が osteofibrous dysplasia として22例の報告を行い、臨床病理学的検討から fibrous dysplasia との鑑別を行っている。本邦でも1969年古屋⁶⁾ によって "Fibrous dysplasia とその類似疾患" として報告されて以来いくつかの報告がある。そこで著者らが調べ得た範囲で ossifying fibroma の概略をまとめてみる。

1) 年齢、性別：欧米では49例の報告例の内10才以下の報告が49例中41例 (83.7%) と大部分を占め、性

比に関しては男性が28例に対し女性が21例で、やや男性の方が多い傾向にあった。これに対して本邦では25例の報告例の内10才以上の報告が10例（40%）と比較的年長者にも多く見られ、性比に関しても男性よりも女性の報告例が19例（79%）と多かった。

2) 好発部位: 欧米, 本邦の報告例74症例中63例 (85.1%) が脛骨単独発生で、腓骨との合併例を含めると、70例 (95.9%) の高率で脛骨に発生することがわかる。なお下肢以外の長管骨の発生例は1例もなかった。

表 1 (欧米)

著者 (発表年度)	10) Kempson (1966)	8) Goergen (1977)	11) Markel (1978)	18) Schoen- ecker (1981)	4) Camp- nacci (1981)	9) John (1982)	7) Hubert (1983)	17) Zeanah (1983)	計
症例数	2	2	2	3	35	1	2	2	49
年齢									
10才>	2	1	1	3	33	0	0	1	41
10才<	0	1	1	0	2	1	2	1	8
性比(男:女)	1:1	1:1	2:0	2:1	21:14	0:1	1:1	0:2	(28:21)
発生部位									
脛骨	2	2	2	3	8	1	2	1	41
脛骨腓骨合併					5				5
腓骨					2				2
その他							大腸骨1		1

表 2 (本邦)

著者 (発表年度)	1) 赤松 (1981)	14) 中島 (1981)	13) 水野 (1981)	12) 松口 (1982)	5) 遠藤 (1984)	譚山 (1984)	計
症例数	5	12	1	1	5	1	25
年齢							
10才>	5	9	0	0	1	0	15
10才<	0	3	1	1	4	1	10
性比(男:女)	0:5	3:9	0:1	0:1	3:2	0:1	6:19
発生部位							
脛骨	5	11	1	1	4		22
脛骨腓骨合併		1				1	2
腓骨							
その他					大腸骨1		1

3) 臨床症状: aggressive で疼痛、腫脹などを主訴とするものが多く、又骨構造が脆弱なために、病的骨折や骨の変形をきたし、跛行を訴える症例も多い。

4) X線所見: 皮質の膨隆像、皮質内の透亮像、辺縁硬化像とともに、多房性のいわゆる "multiple bubbles" を呈する症例が多い。^{99m}Tc 骨シンチグラムにても旺盛な骨新生を示唆する様に、病巣部に一致して高い取り込みを示す。Zeanah¹⁷⁾ らによれば CT では骨皮質内に限局し、特徴的な高吸収域を示すことより診断上 CT が有効であったとしている。

5) 病理組織: 中心部に線維性組織があり、活動性の高い線維性の骨形成を示し、骨芽細胞にふちどられ

た層板状の成熟骨が多くみられ、破骨細胞も散見される。

6) 鑑別診断: Fibrous dysplasia との鑑別が問題となる場合が多い。臨床的には ossifying fibroma が前述の様な特徴を示すのに対して、fibrous dysplasia では、10才以上のあらゆる年齢層にも発生し、又全身の骨に発生する。X線所見では皮質の菲薄化、骨全幅の増大、スリガラス様変化を示し鑑別点となる。組織学的には原則的に骨芽細胞、破骨細胞を認めず、網状骨梁を示す。1963年 Reed¹⁸⁾ は fibrous dysplasia を「Bone maturation が woven bone の段階で止まった状態」と定義した。これに対して 1984 年遠藤⁵⁾ らは「fibrous dysplasia が骨形成間葉系細胞の増殖であるとするなら、ossifying fibroma は骨芽細胞の増殖である。」としている。(表 3)

表 3

	ossifying fibroma	fibrous dysplasia
発生部位	多くは脛骨、腓骨	あらゆる全身骨
病巣の広がり	片側皮質	全骨質に及ぶ
年齢	多くは10才以下	多くは10才以上
X線所見	皮質の膨隆像 皮質内の透亮像 辺縁硬化像	皮質の菲薄化 骨全幅の増大 "スリガラス像"
組織所見	骨芽細胞による骨梁閉鎖 破骨細胞 辺縁部骨梁の層状化	骨芽細胞、破骨細胞を原則的に認めず 網状骨梁

7) 治療: 文献的には10才以前の病巣播爬、植骨術などの外科的治療には再発例が多いので、基本的には保存的療法を行い、患肢の変形等に対しては変形矯正装具を使用し経過を観察する。病巣が急速に進行し、偽関節を形成したり、骨折を起した症例にかぎり手術を行うべきである。

自然治癒傾向もみられるが、10才をすぎて変形が残る場合には青春期以降に外科的療法を行う。

ま と め

今回著者らは下脛骨に発生した ossifying fibroma を経験したので、若干の文献的考察を加えて報告した。

(本論文の要旨は第 1 回福岡県整形外科医会で口演した.)

参 考 文 献

- 1) 赤松功也ほか：難治性 fibrous dysplasia について，整形外科，32：313，1981
- 2) 赤松功也ほか：脛骨に発生する再発性の骨腫瘍性疾患について，整形外科，34：57，1983
- 3) Campanacci, M.: Osteofibrous dysplasia of long bones Italian J. Orthop. and Traumatol. 2：221, 1976
- 4) Campanacci, M.: Osteofibrous dysplasia of the tibia and fibula J Bone & Joint Surg., 63-A：367, 1981
- 5) 遠藤昭彦ほか：Osteofibrous dysplasia (Campanacci) の 5 症例の報告ならびに Fibrous dysplasia との関連性についての検討，整形災害外科，27：779，1984
- 6) 古屋光太郎ほか：Fibrous dysplasia とその類似疾患，日整会誌，43：151，1969
- 7) Hubert, A. Ossifying Fibroma of Bone Report of Two Cases. Balletin, Hosp. Joint Diseas. Orthop. Znst. 13：1983
- 8) Goergen T.G. Long bone ossifying fibromas Cancer 39：2067，1977
- 9) John E. Ossifying Fibroma of the Peripheral skeleton Rhode Isl. n.J. Vol 65：151-154，1982
- 10) Kempson, R.L.: Ossifying fibroma of the long bones Arch. Pathol. 82：218，1966
- 11) Maricel S.F.: Ossifying fibroma of the long bone Am.J. clin Pathol, 69：91，1978
- 12) 松口信行ほか：脛骨にみられた Ossifying fibroma の一例，整形外科と災害外科，31(2)：117，1984
- 13) 水野耕作ほか：脛骨に発生した Ossifying fibroma の一例，整形外科，32(5)：509，1981
- 14) Y. NAKASHIMA "Osteofibrous Dysplasia (Ossifying Fibroma of the long Bones) A study 12 cases, Cancer 52：909，1983
- 15) Reed, R.J.: Fibrous dysplasia of the bone Arch. Pathol., 75：480，1963
- 16) Schoenecker, P.L. et al.: Ossifying Fibroma of the tibia. Report of a case and Review of the Literature. J. Bone and Joint Surg., 63-A：483-488，1981
- 17) Zeanah, W.R. Computed Tomography of ossifying Fibroma of the Tibia. J. Comput. Ass. Tomogr. 7(4)：688-691，1983