原 著

足関節部に発生した石灰化腱膜線維腫の1例

産業医科大学 整形外科

酒 井 昭 典・鈴 木 勝 己
三 浦 直 彦・田 中 宏 明
嘉 村 親 芳・三 島 真 一
鶴 上 浩

Calcifying Aponeurotic Fibroma in the Area of the Ankle Joint (A Case Report)

by

Akinori Sakai, Katsumi Suzuki, Naohiko Miura,
Hiroaki Tanaka, Chikayoshi Kamura, Shinichi Mishima
and Hiroshi Tsurukami.

Department of Orthopaedic Surgery, School of Medicine,
University of Occupational and Environmental Health,
Yahatanishiku, Kitakyushu, 807 Japan.

Calcifying aponeurotic fibroma is a rarely seen benign soft part tumor. Throughout the world, from 70 to 80 cases have been reported and in Japan there have been only 6 cases since Keasbey reported the first one in 1953.

Recently we experienced such a case which is reported here.

A 5-year-old girl visited our hospital with the complaint of a tumor in the area of the left ankle joint after learning of calcification of the area by X-ray at a hospital in her neighborhood.

She had an elastic hard tumor, the size of the head of the little finger, in the anterior distal lateral malleolus of her left foot. The surface was smooth, the margin unclear, and adhesion to skin, mobility, redness and local heat was not found.

In the operative findings, the tumor was about $4.0 \times 2.0 \times 1.5$ cm in size, yellow-white, elastic soft and adhered tightly to the periosteum of fibula, anterior talo-fibular ligament, anterior tibio-fibular ligament and the capsule of ankle joint. These adhesions were invasive.

In the pathological findings, the tumor mainly consisted of spindle cells like fibroblasts, and these cells were of an interlaced pattern. Focal calcification was present and pathological diagnosis was calcifying aponeurotic fibroma.

は じ め に

石灰化腱膜線維腫 (calcifying aponeurotic fibroma) は、小児の手足に好発する非常に稀な良性軟部腫瘍である。今回われわれは、左足関節部に発生した石灰化腱膜線維腫の1例を経験した。本邦での報告例は数例であり、また、線維腫症との鑑別が困難な場合が多いため、組織学的所見を中心に若干の文献的考察を加え

て報告する。

症 例

症例：5才、女兒
主訴：左足関節部腫瘍
現病歴：昭和60年12月初旬、左足関節部の腫瘍に気づき、近医を受診。X線にて、同部の石灰化を指摘され、12月24日当科初診。初診時、自発痛、歩行時痛な

図1 初診時 X 線とそのシェーマ
シェーマの如く、距腿関節前面、距骨外側近位部に石灰化陰影を認める。

図2 手術所見のシェーマ
腫瘍は、腓骨骨膜、前距腓靭帯、前脛腓靭帯及び距腿関節包の一部と癒着し、浸潤性であった。

く、血液・生化学検査でも異常を認めず、外来で経過観察していたが、時々軽度自発痛出現したため、昭和61年7月16日当科入院。

既往歴・家族歴：特記すべきことなし

初診時現症：左足外果前遠位部に小指頭大の腫瘍が

図3 ①腫瘍、②その剖面、③ Soft X 線像

①大きさは約4.0×2.0×1.5cmで、黄白色、弾性硬の腫瘍である ②黄白色、実質性で、中央部に白色の石灰化部分を認める ③石灰化部分がより明らかにされる。

認められ、腫瘍は、弾性硬、表面平滑、皮膚との癒着はなく、辺縁不明瞭であり、可動性、発赤、熱感とは認められなかった。

入院時臨床検査所見：血液、生化学、尿検査とも異常は認められなかった。

図4 組織像 H.E. ×100
島状に軟骨及び石灰化巣を認める。

図5 組織像 H.E. ×400
紡錓形細胞は互いに交錯している。

図6 組織像 H.E. ×100
軟骨細胞には、核分裂像はほとんど認められず、異型性は乏しい。

初診時X線所見：側面像で距腿関節前面に、正面像で距骨の外側。近位部に、直径約1.5cmの石灰化陰影が認められた（図1）。

手術所見：昭和61年7月18日、腫瘍摘出術施行。シエーマ（図2）の如く、外果前方に接して、約4.0×2.0×1.5cmの黄白色で、弾性硬の腫瘍が認められた。

図7 組織像 H.E. ×400
軟骨形成巣の周囲に、軟骨芽細胞及び破骨細胞型の多核巨細胞を認める。

図8 組織像 H.E. ×100
動脈壁は硬化し、静脈壁の一部は腫瘍浸潤により置き換えられている。

明らかな被膜はないがpseudocapsule様のもので包まれている。腓骨骨膜、前距腓靭帯、前脛腓靭帯及び距腿関節乞の一部との癒着は強く、浸潤性であり、en block に切除した。悪性腫瘍も考え、術中迅速病理検査施行したが、結果は、benign fibrous tumor で悪性細胞は認められないということであった。

腫瘍の断面は、黄白色、実質性で、中央部に白色の石灰化部分が認められた（図3）。

その石灰化部分は、soft X線により、より明らかにされる（図3）。

病理所見：術後のHE染色による組織標本では、腫瘍は、線維芽細胞類似の紡錓形細胞が増殖し、主要構成成分をなし、島状に軟骨及び石灰化巣が認められる（図4）。これらの紡錓形細胞は互いに交錯する錯走した配列像を示し、細胞密度は中等度である（図5）。軟骨及び石灰化巣においては、軟骨細胞が含まれ、その軟

骨細胞には、核分裂像はほとんど認められず、異型性は乏しい(図6)。これらの軟骨形成巣の周囲には、軟骨芽細胞とともに、破骨細胞型の多核巨細胞が認められる(図7)。動・静脈周囲には、細胞密度の高い部分がみられ、動脈壁は硬化し、静脈壁の一部は腫瘍浸潤によって置き換えられている。周囲脂肪組織との境界は比較的鮮明であるが、初膜の形成はなく、脂肪組織の中に進展している部分もある(図8)。以上の病理組織学的所見により石灰化腱膜線維腫と診断された。

鑑別診断：線維腫症，軟部軟骨腫，手掌・足底線維腫症，滑膜性骨軟骨腫症があげられる。軟骨性分化や石灰化巣が少なければ，線維腫症との鑑別が困難であるが，通常，線維芽細胞の束状配列と，密でしばしば硝子化した膠原線維，部位的に手指，手掌に好発することにより鑑別されている。軟部軟骨腫は，通常，成人に好発し，組織学的には，線維組織はごく少なく，分葉状で，石灰化巣は局在や線状配列をせず，むしろびまん性に存在する。手掌・足底線維腫症は小児にはまれで，周囲脂肪組織や筋肉へは分岐してゆかず，結節をつくり，石灰化や軟骨への分化は欠如している。滑膜性骨軟骨腫症は，30歳から50歳と男性に好発し，小結節が滑膜中あるいは関節内浮遊体として，関節腔内に認められる。好発年齢，臨床症状ともに鑑別点となる。

考 察

石灰化腱膜線維腫は，1953年 Kearsby⁷⁾により初めて報告されて以来，世界で70から80例の症例が報告されているが，本邦での報告は6例と非常に少ない(表1)。

Kearsby は本症を小児の手や足の軟部組織より好発し，線維腫症のひとつと考えて，若年性腱膜線維腫と名づけ，独立した疾患として報告した。組織学的には線維芽細胞由来のものとし，石灰化や軟骨性分化については本質的なものと考えていなかった。しかし，1964年 Lichtenstein ら⁸⁾は，この疾患の本能は線維腫症の軟骨性類似であり，紡錘形の間葉系細胞が軟骨や石灰化を形成すると報告している。1985年広瀬ら³⁾も，免疫組織学的にも，電顕的にも明らかな軟骨性分化巣を有し，線維芽細胞が連続性に軟骨細胞に移行してゆくと考え，本腫瘍を軟骨形成能を有する線維細胞から構成された線維腫症病変だと述べている。

また，発生は小児に限られるものではないとして，現在，石灰化腱膜線維腫と呼ばれている。この腫瘍は浸潤性に増殖し，単純切除例の少なくとも半数では局所再発がみられるが，本来は良性で，悪性化や転移の報告はない。

岩崎ら⁴⁾の報告によると，現在までの文献例62例をまとめた結果，性別では男44例，女18例，男女比5:2で男性優位である。発生部位をみると，手掌が35.2%と最も多く，手掌・手指・手関節部を合わせると60.6%，足趾・足蹠・足関節部を合わせると14.0%となり，この部に好発しているようである(図9)。

表1 本邦での報告例

年代	報告者	症例数	年 齢	性 別	部 位
1973	岩崎ら	3	11 歳		左手関節部尺側手根屈筋腱
			29 歳		右足関節部後脛骨筋腱
			30 歳		右第1趾部軟部組織
1983	岩崎ら	1	40 歳		左手関節部軟部組織
1984	笠島ら	1	4ヶ月		右腋窩部筋肉内
1985	広瀬ら	1	6 歳		左手関節部軟部組織
1986	著者ら	1	5 歳		左足関節部軟部組織

部位別発生頻度 (%)

図9

手・足に好発している

ま と め

今回、著者らは、石灰化腱膜線維腫の1例を経験したので、若干の文献的考察を加えて報告した。

(本論文の要旨は第5回福岡県整形外科医会で口演した)

参 考 文 献

- 1) Enzinger, F.M. and Weiss, S.W.: Soft tissue tumors, The C.V. Mosby, Saint Louis, 93-98, 1983.
- 2) Goldman, R.L.: The cartilage analogue of fibromatosis (Aponeurotic fibroma). Further observations based on 7 new cases. *Cancer* 26:1325-1331, 1970.
- 3) 広瀬隆則, 他: 石灰化腱膜線維腫の1例. 病理と臨床, 3: 797-801, 1985.
- 4) 岩崎宏, 他: 石灰化腱膜線維腫. 福岡医誌, 64: 52-62, 1973.
- 5) Iwasaki, H. et al.: Juvenile aponeurotic fibroma. An ultrastructural study. *Ultrastructural Pathol.* 4: 75-83, 1983.
- 6) 笠島武, 他: 生後4ヶ月の男児に発症した石灰化腱膜線維腫の一例. 日網会誌, 24: 133-141, 1984.
- 7) Keasbey, L.E.: Juvenile aponeurotic fibroma (Calcifying fibroma). A distinctive tumor arising in the palms and soles of young children. *Cancer* 6: 338-346, 1953.
- 8) Lichtenstein, L. and Goldman, R.L.: The cartilage analogue of fibromatosis. A reinterpretation of the condition called "Juvenile aponeurotic fibroma". *Cancer* 17: 810-816, 1964.