

琉球大学学術リポジトリ

[症例報告]弾性線維腫の1例

メタデータ	言語: 出版者: 琉球大学医学部 公開日: 2010-06-30 キーワード (Ja): キーワード (En): elastofibroma 作成者: 重岡, 裕治, 正, 義之, 武藤, 良弘, 外間, 章, 里見, 昭, 山内, 和雄, 栗原, 公太郎, 日高, 修, 大野, 康治, Shigeoka, Yuji, Sho, Yoshiyuki, Muto, Yoshihiro, Hokama, Akira, Satomi, Akira, Yamauchi, Kazuo, Kurihara, Kotaro, Hidaka, Osamu, Ohno, Yasuharu メールアドレス: 所属:
URL	http://hdl.handle.net/20.500.12000/0002015713

弾性線維腫の1例

重岡 裕治 正 義之 武藤 良弘 外間 章 里見 昭
山内 和雄 栗原公太郎 日高 修 大野 康治

琉球大学医学部外科学第1講座

緒 言

弾性線維腫は1959年の Järvi と Saxen¹⁾による Finland 人の4症例の報告以来、世界各地から症例報告がなされるようになった。我が国では1967年遠城寺ら²⁾がその第1例を報告し、坂江及び佐藤³⁾が鹿児島地区の27例につき病理学的並びに電顕的検索の結果を報告した。長嶺ら⁴⁾は1982年に沖縄地区の本症201例につき報告した。これは世界の報告例292例の68.8%に当る。本症は我が国では沖縄、鹿児島地区以外では散発的に見られるに過ぎず、沖縄、鹿児島地区以外では極めて稀である。今回我々は典型的といえる両側性背部弾性線維腫の1例を経験したので報告する。

症 例

症例：53歳，女性，主婦

主訴：右肩甲下部の腫瘍

家族歴：2親等以内に弾性線維腫と診断された人なし。

既往歴：40歳の時，子宮筋腫で子宮摘出術を受けた。

現病歴：7年前より左肩甲下部の腫瘍に気付いていたが，自覚症状は全く無かった。近医でその腫瘍の摘出術を受け，脂肪腫と診断された。その16ヶ月後，同位部の腫瘍に再び気付いた。自覚症状としては軽度の左の肩凝りがある程度であったので放置していた。然し，徐々に増大

してきたため，4年前に当科で腫瘍摘出術を受け，その組織診断は弾性線維腫であった。その2年後，反対側，即ち右肩甲下部の腫瘍に気付いた。症状としては右の肩凝りがあるに過ぎなかったが，増大し，1年間で径約5cmから7.5cmとなり，右上肢の軽度の麻痺も出現したため，摘出を希望して，当科に再入院した。

入院時現症：左肩甲下部に軽度の膨隆があるが，皮膚の発赤はない。前回手術の瘢痕を認めるが，触診で腫瘍を触れない。

右肩甲下角の内側から下方にかけて境界不鮮明の膨隆を認めるが，皮膚の発赤や毛細管の拡張等を認めない。この部に腫瘍を触れ，その上半部は肩甲骨下角に覆われており，右上肢を胸部前方に内転し，肩甲骨をやや挙上すると膨隆は著明に見られるようになり，触れ易くなる。腫瘍の大きさは約7.0×7.5cmで，皮膚との癒着はないが，下床との移動性は乏しい。弾性硬で，表面は概ね平滑で，やや平たい球形をなし，波動は証明されず，圧痛はない。(Fig. 1)

胸部は打聴診で異常所見なく，レントゲン写真像で異常陰影を認めない。腹部では肝を3横指触れる以外に異常所見なし。(Table 1)

手術所見：肩甲骨下半分の内側縁より約2cm内側にて，内側縁に平行に皮切を行い，更に下角の下方を廻って外方へ向う弧状の皮切を加えた。腫瘍は僧帽筋と広背筋の間の結合織と菱形筋に覆われ，前面は強い線維性結合織及び脂肪織で，肋骨，肋間筋と癒着していた。腫瘍の上部は肩甲骨下まで及んでいた。境界は不明瞭で，

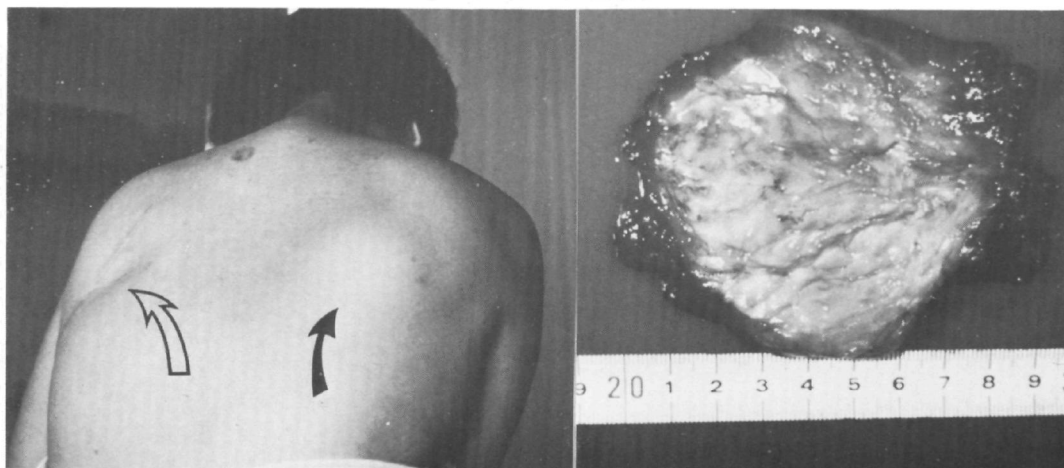


Fig. 1 (left) A nodule (black arrow) is noted in the right subscapular region. The overlying skin appears normal. A surgical scar is seen in the left subscapular region in which the same tumor has previously been removed. (right) The resected tumor is fist-sized, flat and poorly circumscribed. The tumor is white-yellow in color and hard in consistency.

Table 1 Preoperative Lab. Data

WBC	7500/mm ³	Glu.	100mg/dl
RBC	463×14 ⁴ /mm ³	TB	0.5mg/dl
Hb	13.7g/dl	GOT	22K. U.
Ht	42.0%	GPT	29K. U.
Plat.	31.1×10 ⁴ /mm ³	AL-P	7.9K. A. U.
T. P.	7.5g/dl	LDH	330Iu/l
Alb.	4.3g/dl	r-GTP	26mU/ml
A/G	1.36	T-chol.	238mg/dl

被膜はない。周囲結合織と共に一塊として腫瘤を摘出した。6.5×6.5×2.0cm, 弾性硬で、断面は黄白色であった。

病理学的所見：豊富な膠原線維と少量の脂肪織を混じ、その中に Weigert の弾性線維染色に好染する弾性線維腫線維 (Elastofibroma

fiber) が存在していた。弾性線維腫線維は棍棒状ないし球状、連珠状を呈し、その中に弾性線維染色に濃染する central core が存在しているものもあった。血管系には著しい変化は認めなかった。(Fig. 2, Fig. 3)

術後 Halothane 肝炎と思われる急性肝炎が発症したが、安静及び薬剤投与により軽快し、術後29日目に退院した。外来で経過観察を行い、1年半後の今日、再発も他の部位の腫瘤発生も見られない。

考 察

弾性線維腫は沖縄県、特に渡名喜島をはじめとする離島に多発する軟部組織の腫瘤で、ヌチナガーグーフ(長寿コブ)として古くから地元の人々に知られている疾患である。長嶺らが1982年に沖縄県内の201例を報告している⁴⁾。これは世界の全報告例の68.8%にあたり、沖縄県は世界的に見て驚異的な多発地域である。長嶺の報告例中93%の187例が女性である。年令的には70~79歳にピークがあり、平均年令は70.5歳で、中年以後の女性に多い。又、同一家系内発生例が非常に多いことも特徴的である。遺伝形式は未だ明らかでないが、過激な労働を経験した人や、女性に多い等、単純な遺伝形式ではなく、多因子性遺伝の可能性が高い。

発生部位は肩甲下部が大部分で、他に肘下部⁵⁾、側胸部⁵⁾、坐骨結節部⁵⁾発生例も報告されている。慢性的、機械的刺激や圧迫が加わる部位に多いようであるが、その因果関係は不明である。2ヶ所以上の多発例は長嶺の報告の201例中35例(21.4%)にみられ、稀ではない⁴⁾。長嶺の報告例中の1例は7ヶ所、他の1例は4ヶ所に発生した⁹⁾。

此等多発例の発生時期が異時性であるか同時性であるかについては記載が明らかでないが、長嶺の報告例中、肘下部発生の30例中29例に肩甲下部にも同時に弾性線維腫が見られている。この事から、正確な発生の時は不明としても、同時に複数個の腫瘤が見つかる事が屢々あると思われる。本論文の症例では、結局対称性、両

側性であった。然し発見の時は異り、左腫瘍は7年前、右は2年前で、恐らく発生時期は異なると思われるが断定出来ない。

本症例の左側の腫瘍は7年前に他病院で摘出され脂肪腫と診断された。我々はそのブロック標本より、顕微鏡薄切標本を作成し、H・E染色、Weigert染色、Elastica-Van Gieson染色を行ない、検索した結果、弾性線維腫である事が明らかとなった。4年前当科で摘出された左側肩甲下部の弾性線維腫は、その発生部位が全く同一である事から再発である事が確定した。

症状としては、自覚症状が全くない例が殆どで、稀に患部痛、上肢のしびれ感、肩凝り等、腫瘤による圧迫症状を呈する症例がある程度で、弾性線維腫に特徴的な症状はない。本例では患側の肩凝りと上腕のしびれ感を訴えていた。

視診及び触診で、他の軟部組織腫瘍との鑑別は容易でない。強いて弾性線維腫に特徴的と言えることは、肩甲下部に発生する場合は非常に多いことと、肩甲下部に埋没しているため、両腕を胸壁前で組ませて肩甲骨を上外方に挙げさせることにより、腫瘤が明瞭となることである。又、患者の出生地、生涯の生活の場所、職業なども多少の参考となる。然し、視診、触診にて弾性線維腫と診断することは非常に危険であり、常に肉腫の可能性を考え、穿刺細胞診又は試験切除による生検が必要である。殊に肩甲下部以外の発生例では視診、触診のみによる診断は困難である。

摘出標本は被膜を有せず、境界不鮮明で、灰白色、硬度は弾性硬で、割を入れ難い。断面は灰白色で、ところどころ黄色部分が混在している。

病理組織学的には、膠原線維に富む線維性結合織と少量の脂肪織を混じ、これらの線維性結合織の中にHE染色に淡染し、Weigert弾性線維染色又はVerhoeff弾性線維染色に好染する弾性線維腫線維が多数存在していることが特徴的である。弾性線維腫線維は棍棒状、球状、鋸歯状、連珠状等種々の形態を呈し、又膨化崩壊して不定形を呈するものもある。又、弾性線維腫線維の内部に、弾性線維染色に濃染するcen-

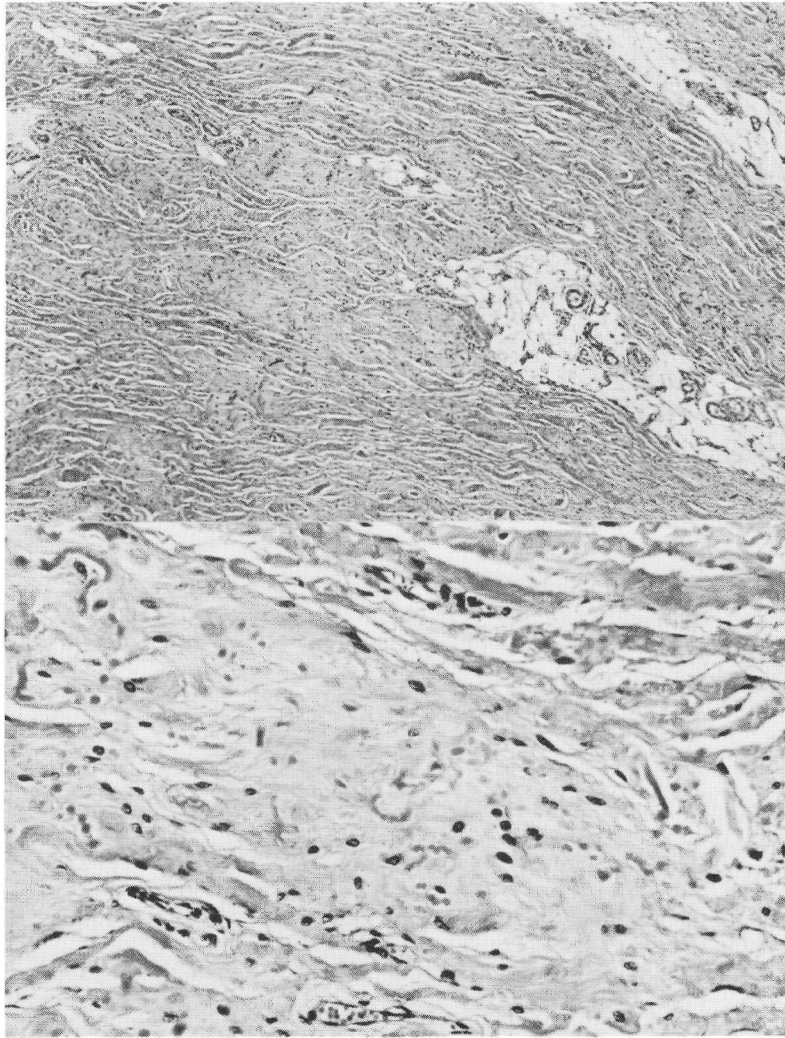


Fig. 2 (top) The tumor is composed of dense connective tissue mingled with fat tissue (HE, $\times 40$). (bottom) The broad bundles are sclerotic with homogeneous acidophilic fibrillary or globular material (HE, $\times 400$).

tral core と呼ばれる針金状の芯が認められることがある。長嶺らは弾性線維腫線維の形態を大きく5型に分類した⁸⁾⁹⁾ 弾性物質が細く連珠状ないしひも状に連なり、central coreが認められないものをA型線維、弾性線維腫線維の中に極めて細いcentral coreが認められるものをB型線維、弾性線維腫線維の中にcentral coreが針金状に太く認められるものをC型線維、cen-

tral coreが弾性線維腫線維の大半を占める程に膨化するなど内部構造が不明瞭なものをD型線維、弾性線維腫線維が崩壊して不定型の弾性物質塊となったものをE型線維としている。そして若年にて摘出された症例にはA, B, C型線維が多く、腫瘤形成後長期間経過した症例にはD, E型線維が多いとしている。本報告の症例はD型に属すると考えられる。

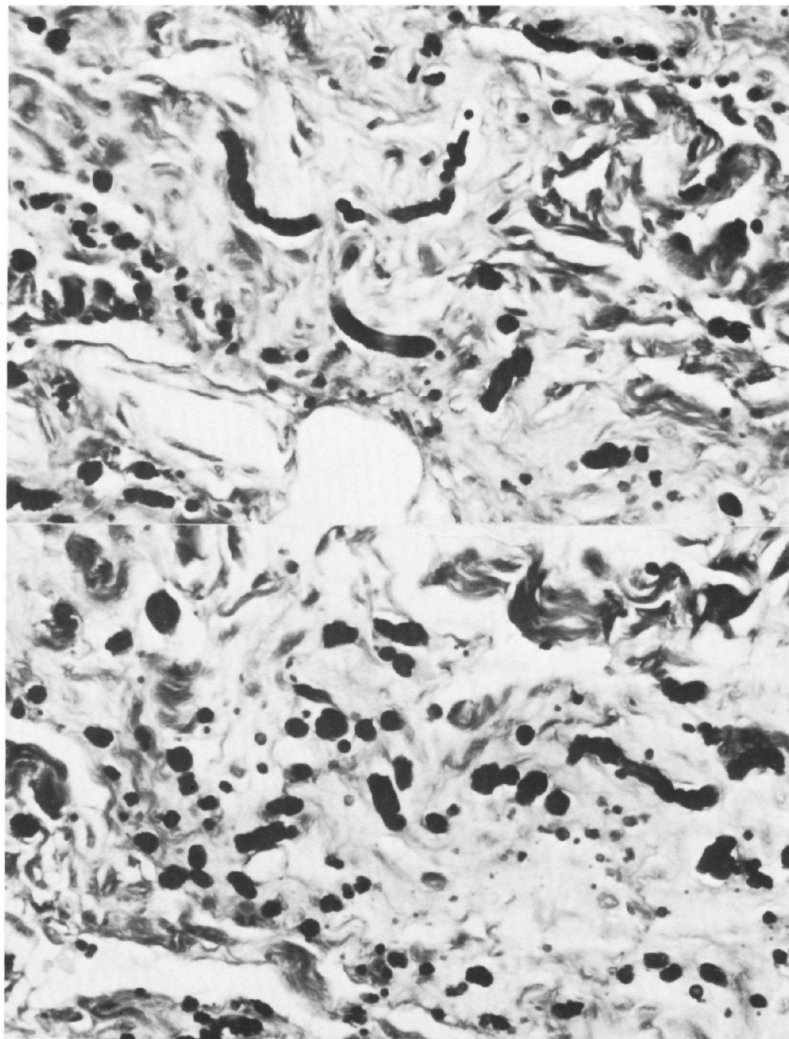


Fig. 3 The black-stained elastic materials are segmented into strings(top), and broken up into globules(bottom) (Weigert's elastic stain, $\times 400$).

弾性線維腫線維の形成に関しては現在までに種々の説が発表されている。

Stemmermann and Stout (1962)¹⁰⁾ は既存の弾性線維に膠原線維の変性物質が付着したものと考え、Järviら (1969)¹¹⁾ は既存の弾性線維の肥大、変性と考え、Winkelmann and Sams (1969)¹²⁾ は既存の弾性線維に過剰に産生された弾性物質が付着したものとした。坂江ら(1977)³⁾

は本病変の完成像は断裂した弾性線維及び膠原線維の変性等に対する弾性線維の反応性修復過程と考えている。又 Akhtarら (1977)¹³⁾ と長嶺ら (1978)⁸⁾ はほぼ同様の考え方をしており、体質的素因を背景とする弾性物質の過剰産生と、弾性線維の形成障害によるとしている。以上の如く本腫瘍は Järvi 等が a degenerative pseudotumor とも称している如く真性の腫瘍で

はない。

治療は痛み等自覚症状の強いもの、美容を害するものは単純摘出をする。完全摘出をしないと本症の如く再発するので、完全摘出を原則とする。

手術以外の療法として、放射線照射により治癒した報告例¹⁴⁾もある。

現在のところ、悪性化例の報告はなく、腫瘤が小さいか、症状が軽いものは放置してさしつかえないと考える。

ま と め

1) 7年前に左肩甲下部の腫瘤の摘出を受けたが再発し、4年前にその摘出により弾性線維腫と判明した53歳女子の右肩甲下部に同腫瘤が発生し摘出した1例を報告した。

2) 弾性線維腫は中年以後の女性の肩甲下部に発生することが多い軟部腫瘤で、家系内発生が多く、特に沖縄県に多い。

3) 術前診断は困難で、肉腫との鑑別を常に考え、生検をすべきである。

4) 病理組織学的特徴は弾性線維染色に好染する弾性線維腫線維が多数存在することである。

5) 治療として単純摘出をするが、完全摘出をしないと再発する。

6) 悪性化しないので、診断が確かであれば、症状のないものや軽いものは放置してさしつかえない。

文 献

- 1) Järvi, O. H. and Saxen, E: Elastofibroma dorsi. Acta Path. Microbiol. Scand. 51 (Suppl. 144) : 83-84, 1961.
- 2) 遠城寺宗知, 菊地三郎: 背部弾性線維腫 (Elastofibroma dorsi) 日本癌学会26回総会記事, p288. 1967.
- 3) 坂江清弘, 佐藤栄一: 背部弾性線維腫 (Elastofibroma dorsi) の臨床病理学的並びに電顕的検索, 日癌治 13: 366, 1978.
- 4) 長嶺信夫, 野原雄介, 伊藤悦男: 沖縄における弾性線維腫の分布調査と家庭内発生例について, 臨整外 17: 196-203, 1982.
- 5) 長嶺信夫, 野原雄介, 伊藤悦男: 肩甲下部以外に発生した弾性線維腫 (Elastofibroma) の臨床病理学的検討, 臨床外 14: 288-289, 1979.
- 6) Waisman, J. and Smith, D. W.: Fine structure of an elastofibroma. Cancer 22: 671-677, 1968.
- 7) 長嶺信夫, 遠藤巖, 源河圭一郎, 外間章, 宮城靖, 正義之, 野原雄介, 伊藤悦男, 上江洲英子: 弾性線維腫 (Elastofibroma) 21例の臨床病理学的検討, 癌の臨床 23: 203-213, 1977.
- 8) 長嶺信夫, 遠藤巖, 源河圭一郎, 外間章, 宮城靖, 正義之, 野原雄介, 伊藤悦男, 上江洲英子: 弾性線維腫 (Elastofibroma) の臨床と病理, 癌の臨床 24: 1023-1029, 1978.
- 9) Nobuo Nagamine, Yusuke Nohara and Etuo Ito: Elastofibroma in Okinawa. Cancer 50: 1794-1805, 1982.
- 10) Stemmermann, G. H. and Stout, A. P.: Elastofibroma dorsi. Am. J. Clin. Path. 37: 499-506, 1962.
- 11) Järvi, O. H. Saxen, A. E., Hopsu-Havu, V. K., Wart, J. J., Ovaarn, and Vaissalo, V. T.: Elastofibroma. A degenerative pseudotumor. Cancer 23: 42-63, 1969.
- 12) Winkelmann, R. K. and Sams, W. M.: Elastofibroma: Report of a case with special histochemical and electronmicroscopic studies. Cancer 23: 406-515, 1969.
- 13) Akhtar, M. and Miller, R. M.: Ultrastructure of elastofibroma. Cancer 40: 728-735, 1977.
- 14) Deutsch, G. P.: Elastofibroma. dorsalis treated by radiotherapy. Brit. J. Radiol 47: 621-623, 1974.

A Case of Elastofibroma

Yuji Shigeoka, Yoshiyuki Sho, Yoshihiro Muto, Akira Hokama
Akira Satomi, Kazuo Yamauchi, Kotaro Kurihara, Osamu Hidaka
and Yasuharu Ohno

First Department of Surgery, Faculty of Medicine, School of Medicine,
University of the Ryukyus

Key word : elastofibroma

A case of a 53-year-old female with bilateral subscapular elastofibroma was reported. She had extirpation of a left subscapular soft tissue mass seven years ago, which recurred three years later. At that time, the tumor was excised and its pathology was elastofibroma.

On this admission, she presented with a right subscapular mass which was excised. The pathological study revealed elastofibroma.

Elastofibroma is uncommon and only 261 cases have been reported in world literature up to date. Over two-thirds of these were from Okinawa Prefecture, in Japan. It occurs predominantly in the subscapular region of aged females. Occasionally, the tumors are found bilaterally, just like in our case. The diagnosis of this disease is not easy except for the tumors in the subscapular region. When the patient complains of severe pain, the tumor is necessary to be excised. Otherwise it is not harmful to the patient.