OUKA
The University of Osaka
Institutional Knowledge Archive

Title	頬粘膜に発生した線維形成性線維芽腫の1例
Author(s)	和田, 剛信; 並川, 麻理; 永田, 雅英 他
Citation	大阪大学歯学雑誌. 2015, 59(2), p. 97-100
Version Type	VoR
URL	https://hdl.handle.net/11094/60671
rights	
Note	

The University of Osaka Institutional Knowledge Archive : OUKA

https://ir.library.osaka-u.ac.jp/

The University of Osaka

阪大歯学誌　59(2)：97 ～ 100，2015

頬粘膜に発生した線維形成性線維芽腫の１例

和田剛信[1)]，並川麻理[1)]，永田雅英[2)]，川嵜康大[3)]，占部一彦[1)]

（平成 27 年 1 月 15 日受付）

緒　言

線維形成性線維芽腫（collagenous fibroma）は，1995 年 Evans[1)]が類腱性線維芽細胞腫（desmoplastic fibroblastoma）で良性線維性軟部腫瘍をとして報告したのが始まりである。その後 1996 年 Nielsen[2)]は，本腫瘍は成熟した線維芽細胞からなり，これら細胞が膠原線維を産生するとして線維形成性線維芽腫と呼ぶことを再提唱した。顎顔面領域からの報告はきわめて少なく，5 例の先行文献がみられるのみだった。今回われわれは 75 歳女性の左側頬粘膜に生じた線維形成性線維芽腫の 1 例に遭遇し治療する機会を得たので，その概要を報告する。

症　例

患　者：75 歳，女性。

初　診：2012 年 11 月初旬。

主　訴：左頬粘膜部の腫脹。

既往歴：特記事項なし（外傷の既往もなし）。

家族歴：特記事項なし。

現病歴：2012 年 8 月頃に左側頬粘膜部が腫脹しているのに気付くも疼痛などがないため放置していた。しかし徐々に増大傾向を示したため同年 11 月に当科受診をした。

現　症：

口腔外所見；左側頬部が外向性に腫脹し，顔貌左右非対称。所属領域リンパ節の腫脹などは認めなかった。

口腔内所見：左側頬粘膜腫脹により直径約 35mm 大の類円形の弾性硬の腫瘤を触知した。明らかな圧痛や発赤など認めなかった（写真 1）。左下 3 は腫瘤と接触を認めず，歯髄電気診で生活歯と判定された。

画像所見：パノラマエックス線所見で腫瘤周囲の骨吸収像は認めなかった（写真 2）。MRI 検査では境界明瞭で T1 強調画像では低信号，T2 強調画像で不均一な高信号を示した。辺縁は比較的平滑で，骨への浸潤は認めなかった（写真 3）。

処置および経過：左側頬粘膜良性腫瘍の診断の下，2012 年 12 月初旬，まず確定診断を目的として，左側頬粘膜部病変を局所麻酔下にて生検を施行した。病理組織学的検査の結果，線維腫症疑いの診断を得た。同年 12 月末，腫瘍実質が急速に増殖し咀嚼障害をきたしたため，全身麻酔下にて左側頬粘膜腫瘍切除術を施行した。腫瘍は弾性硬で表面は一層の滑沢な薄い線維性皮膜に覆われ，周囲の結合組織や骨との連続性は認めず，比較的容易に一塊として摘出できた。創部は一期縫縮を行った。

摘出標本所見：摘出物は，約 55 × 35 × 35mm 大，弾性硬で線維性被膜に被われた腫瘍で，割面は白色で充実性であった（写真 4）。

病理組織学的所見および診断：全切除標本は境界明瞭な白色充実性腫瘍で，緻密な線維粘液腫状基質の中に疎な紡錘形の線維芽細胞の腫瘍細胞が増殖していた。腫瘍細胞には，大小不同や異型性はな

1）医療法人徳洲会　八尾徳洲会総合病院　歯科口腔外科（主任：占部一彦部長）
2）大阪大学大学院歯学研究科　顎口腔病因病態制御学講座　口腔外科第一教室（主任：古郷幹彦教授）
3）医療法人友紘会　奈良友紘会病院　歯科口腔外科（主任：北川太二部長）



写真 1　初診時の口腔内写真
左側頬粘膜部に，直径が 35mm 大で弾性硬の腫瘤を触知し，可動性は比較的良好であった。

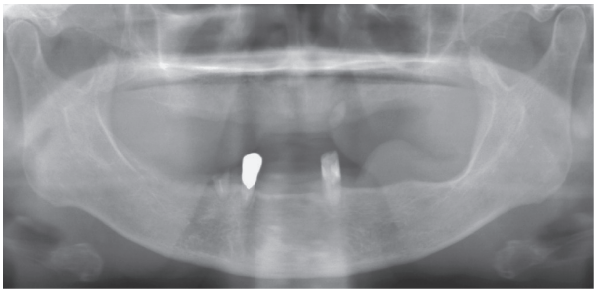


写真 2　パノラマ X 線所見
パノラマエックス線所見で腫瘤周囲の骨吸収像は認めなかった。

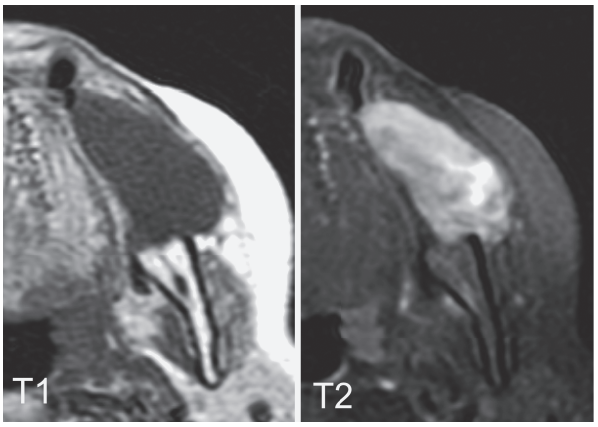


写真 3　術前 MRI 水平断画像
左：T1 強調画像　右：T2 強調画像。
T1 強調画像で低信号を示し，T2 強調画像で内部不均一な高信号であった。



写真 4　摘出物所見
55 × 35 × 35mm 弾性硬の被膜に被われた腫瘤。

写真 5A

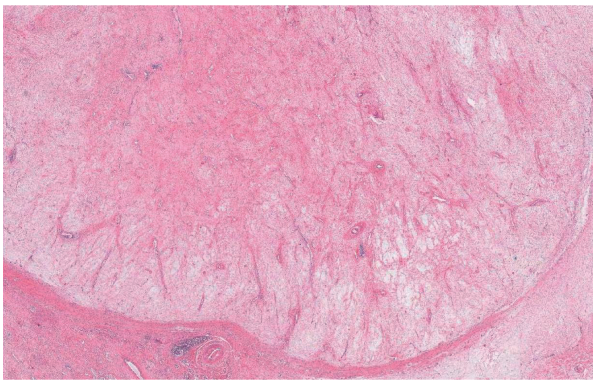


写真 5B

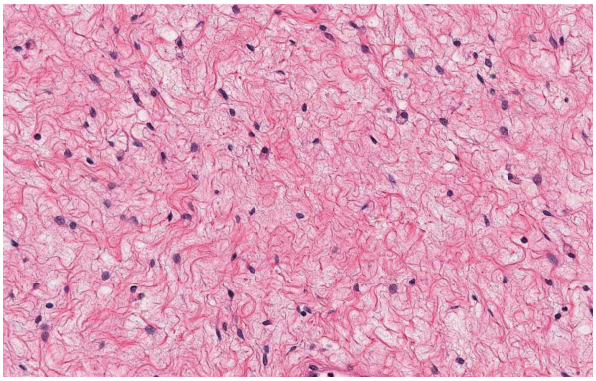


写真 5　病理組織像
写真 5A（HE 染色 × 10）：腫瘍と周囲との境界は比較的明瞭。
写真 5B（HE 染色 × 200）：緻密な線維粘液腫状基質の中に疎な紡錘形の線維芽細胞の増殖を認めた。

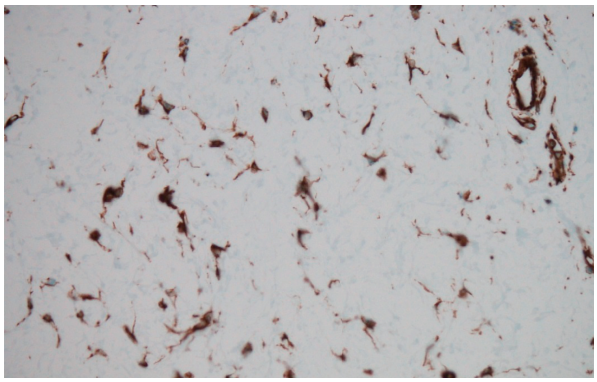


写真６　免疫組織染色画像（Vimentin 染色× 200）
免疫染色で線維芽細胞のほとんどが Vimentin に陽性であった。

く，核分裂像も見られなかった（写真 5A，B）免疫組織化学検査では，Vimentin 陽性を示した（写真 6）。desmin，S-100 蛋白，α-SMA，EMA，CD34 は陰性，Ki-67 は 0％の所見が得られた。

病理組織学的診断：線維形成性線維芽腫。

考　察

線維性軟部腫瘍は多種多様で十分整理分類されているとはいい難い。1998 年 Miettinen[3]がこの腫瘍の臨床的，病理組織学的特徴を位置づける目的で 63 例をまとめ，詳細を報告した。Miettinen らは，線維形成性線維芽腫の特徴について，平均発症年齢は 50 歳（16 ～ 81 歳）で，中年男性に多く（80％），大きさは平均 3cm（1 ～ 20cm）と報告していた。自験例は，55 × 35 × 35mm と非常に大きく，Miettinen[3]の報告からすると本症例は平均的な大きさより大きかった。

画像診断上は，一般的には MRI で病理組織学的に疎な膠原線維基質を反映し T1，T2 強調画像とも低信号を呈しているが，Shuto[4]および石村ら[5]は T2 強調画像にて高信号を呈する部分が存在し，疎な膠原線維基質をもつ病変の中の細胞密度の高い部分を反映していると報告している。自験例においても，T2 強調画像で部分的に高信号を認めており，上記と矛盾しない所見であった。

病理組織学的な特徴としては，周囲組織と境界明瞭で白色の割面を有する固い充実性の腫瘍で，緻密な線維性基質と疎な紡錘形細胞より構成され，細胞成分に乏しく，核分裂像は見られず，また，免疫組織学的には，紡錘形の細胞のほとんどが Vimentin 陽性で，その一部が actin にも反応を示すが，desmin，S-100，CD34 などは陰性であるとされている[2]。自験例において Vimentin に陽性を示し，S-100，CD34，desmin，EMA，α-SMA に陰性であった。過去の免疫組織検査で線維形成性線維芽腫と診断された中で，α-SMA 染色結果は，陽性，弱陽性，陰性を示すものと結果が一定ではなかった[6～9]。α-SMA 染色陰性の症例は，Miettinen らは，筋線維芽細胞が発病後，早期では増殖，後期では消失の傾向にあるとしている[10～11]。大部分の報告で，診断するにあたり線維形成性線芽腫と診断に至ったのは腫瘍細胞が線維芽細胞を認めその周囲に膠原線維を産生していることが重要であるとしている[12]。以上より，臨床所見，画像所見，病理組織学的所見を考慮した総合的な診断により線維形成性線維芽腫と診断された。

鑑別疾患には，良性腫瘍としては，線維腫，神経線維腫，神経鞘腫，筋線維腫，外傷性線維腫，脂肪腫など，悪性腫瘍としては，線維肉腫などが挙げられる。悪性腫瘍との鑑別が重要であるが，線維肉腫との鑑別は，画像所見や臨床所見も加味するが，最終的には，核分裂像や異型性の有無などの病理組織的所見によって診断される。

これまでに顎顔面領域に発生した線維形成性線維芽腫の報告を渉猟したところ，詳細な記載のある報告例は 5 例のみであった（表 1）。本邦で報告されたものは，Ide[13]と Shimmoyama ら[14]の 2 例が報告されており，自験例は，3 例目の報告となる。過去の報告では治療に関して，本腫瘍の治療法は腫瘍本体が被膜に包まれているため，主に摘出術が行われており，摘出術で十分とされ，きちんと切除されれば再発や転移を認めた報告はない[15]。自験例においても被膜で包まれた状態で，被膜の外で，剥離摘出され，術後 1 年経過しているが再発は認められていない。Collagenous fibroma の提唱により未分類であった軟部のいわゆる線維腫の一群が今後再整理されていくものと考えられる。

結　語

今回，我々は 75 歳女性の左側頬粘膜に発生した線維形成性線維芽腫の 1 例を経験したので，文献的考察を加え，その概要を報告した。

謝　辞

投稿を終えるにあたり，本症例の治療にご協力を賜

りました大阪大学歯学部付属病院　検査部　福田 康夫先生および八尾徳洲会総合病院病理診断科　山下憲一先生に深謝いたします。

本論文の要旨は，第58回日本口腔外科学会総会（福岡県）において発表した。

引用文献

1）Evans HL.（1995）: Desmoplastic fibroblastoma. A report of seven cases. *Am J Surg Pathol*, **19**, 1077–1081.
2）Nielsen GP, O'Connel JX, et al.（1996）: Collagenous fibroma（desmoplastic fibroblastoma）: a report of seven cases. *Mod Pathol*, **44**, 1945–1954.
3）Miettinen M, Fetsch JF.（1998）: Collagenous fibroma（desmoplastic fibroblastoma）: a clinicopathologic analysis of 63 cases of a distinctive soft tissue lesion with stellate-shaped fibroblasts. *Human Pathol*, **29**, 676–682.
4）Shuto R, Kiyosue H, et al.（2002）: CT and MR imaging of desmoplastic fibroblastoma. *Eur Radiol*, **12**, 2474–2476.
5）石村大輔，鷲見大輔，山本康洋ほか（2007）：Desmoplastic fibroblastoma（Collagenous fibroma）の2例．中部整災誌，**50**, 1117–1118, 平成19.
6）Watanabe H, Ishida Y, et al.（2008）: Desmoplastic fibroblastoma（collagenous fibroma）. *J Dermatol*, **35**, 93–97.
7）Jang JG, Jung HH, et al.（1999）: Desmoplastic fibroblastoma（collagenous fibroma）. *Am J Dermatopathol*, **21**, 256–258.
8）Dagly M, Eryilmaz A, et al.（2004）: Collagenous fibroma（desmoplastic fibroblastoma）. *Yonsei Med J*, **45**, 941–943.
9）Weisberg NK, Dicaudo DJ, et al.（1999）: Collagenous fibroma（desmoplastic fibroblastoma）. *J Am Acad Dermatol*, **41**, 292–294.
10）Sappino AP, Schurch W, et al.（1990）: Differetiation repertoire of fibroblastic cells: Expression of cytoskeletal proteins as marker of phenotypic modulation. *Lab Invest*, **63**, 144–161.
11）Schmitt-Graff A, Desmouliere A, et al.（1994）: Heterogeneity of myofibroblast phenotypic features: An example of fibroblastic plasticity. *Virchows Arch*, **424**, 3–24.
12）De Sousa SF, Caldeira PC, et al.（2011）: Desmoplastic fibroblastoma（collagenous fibroma）: A Case Identified in the Buccal Mucosa. *Head Neck Pathol*, **5**, 175–179.
13）Ide F, Shimoyama T, et al.（1999）: Collagenous fibroma（desmoplastic fibroblastoma）presenting as a parotid mass. *J Oral Pathol Med S*, **28**, 465–468.
14）Shimoyama T, Horie N, et al.（2005）: Collagenous fibroma（desmoplastic fibroblastoma）: a new case originating in the palate. *Dentomaxillofac Radiol*, **34**, 117–119.
15）Sanjay B, Manish J, et al.（2012）: Collagenous fibroma（desmoplastic fibroblastoma）of the oral cavity. *J Oral Maxillofac Pathol*. **16**, 277–279.
16）Mesquita RA, Okuda E, et al.（2001）: Collagenous fibroma（desmoplastic fibroblastoma）of the palate. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod*, **91**, 80–84.

表1　口腔外科領域における線維形成性線維芽腫の報告例（1999年～2013年，6例）

No.	報告者	発表年	年齢	性別	部位	大きさ（mm）	再発
1	Ide ら[13]	1999	50	男	耳下腺	40 × 50	なし
2	Mesquita ら[16]	2001	37	女	口蓋	50	なし
3	Shimoyama[14]	2005	49	女	口蓋	60	なし
4	De Sousa ら[12]	2011	56	男	左側頬粘膜	35	なし
5	Sanjay ら[15]	2012	58	女	左臼歯部歯肉	10 × 20	なし
6	自験例	2013	75	女	左側頬粘膜	55 × 35	なし

＊肩カッコは引用文献番号を示す