

同側の下腿骨過成長を伴った足部多発性グロームス腫瘍の1例

長野県立こども病院整形外科

赤羽 努・藤岡 文夫・塩澤 律

要旨 左足部に発生した多発性グロームス腫瘍の11歳女児を経験したが、罹患肢の下腿過成長を合併していた。MRIにて痛みの部位に一致した皮下腫瘍が描出され、摘出標本にて多発性グロームス腫瘍(glomangiomatosis)と診断した。罹患側の下腿骨は過成長と骨萎縮を呈していたが、このようにグロームス腫瘍に過成長が合併していた症例は本邦で4例、海外で1例報告されているのみである。

はじめに

グロームス腫瘍は比較的稀な良性腫瘍で、軟部腫瘍全体の1.6%を占める⁹⁾。成人の指の爪下に発生する単発性のものが多いが、10%を占める多発例は単発例よりも若年で発症し、場所も爪下以外が多い。今回足部の多発性グロームス腫瘍に同側の下腿骨過成長を伴った症例を経験したので報告する。

症例

症例は11歳の女児で、主訴は左足部痛である。9歳時より痛みが続いており、跛行も伴うため原因検索目的で紹介となった。母親によると、痛みのため2年間十分な荷重ができていないとのことであった。

見かけ上健側と2cmの脚長差が存在していたが、跛行は痛みによる逃避性の跛行であった。圧痛を左踵部内側と左足底に認めたが、同部に腫脹、局所熱感、発赤はなく、腫瘤も触知できなかった。左足関節に軽度の底屈制限があったが、筋力・感覚・反射は全て正常であった。大腿周径に左右差



図1 初診時両下腿X線像
2cmの脚長差を呈しており、
患側は骨萎縮が認められる。

はなかったが、下腿周径は健側と2.5cmの差があった。血液・生化学検査にも異常所見はなかった。

単純X線像上左右下腿骨は計測上2cm長く、骨萎縮を呈していた(図1)。骨膜反応および髓内病

Key words : multiple glomus tumors(多発性グロームス腫瘍), foot(足部), overgrowth(過成長)

連絡先: 〒386-8610 長野県上田市緑が丘1-27-21 独立行政法人国立病院機構長野野病院整形外科 赤羽 努
電話(0268)22-1890

受付日:平成20年10月31日

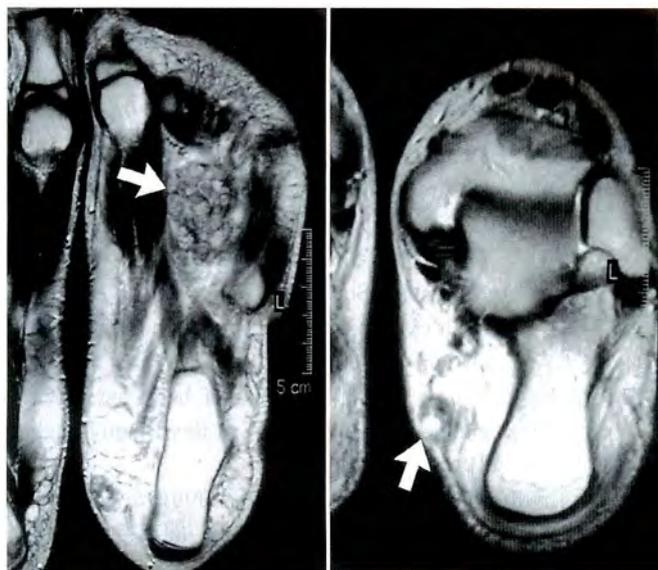


図 2. 術前足部 MRI 像
 a : 前足部斜前額断 T2 強調画像 (TR 4100 ms ; TE 100 ms)
 b : 後足部横断面 T2 強調画像
 どちらも同じ信号強度を呈していた。

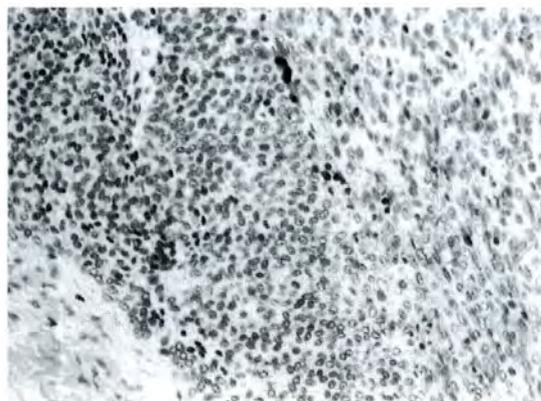


図 3. 病理所見
 HE 染色, ×100

変は認められなかった。MRI にて圧痛に一致した部位に T1 強調像にて低信号、T2 強調像で高信号を呈する腫瘍性病変が 2 個描出された (図 2)。

鑑別診断として、血管腫、グロームス腫瘍、神経鞘腫、神経線維腫および血管周皮腫が挙げられたが、経過から悪性疾患の可能性は低いと考え、摘出生検を行った。2 か所とも暗紫色の柔らかい腫瘍で肉眼上は海綿状血管腫様であった。足底部の腫瘍は足底神経を取り囲むように存在していた。

病理所見としては単調な円形の単核細胞の増生が認められ、胞体は好酸性を呈していた (図 3)。核も均一小円形で核小体が明瞭であり、異常核分裂像・壊死は見られなかった。これらの腫瘍細胞が不規則に拡張した血管腔の周囲性に充実性かつ上皮様配列を示していた。免疫染色では平滑筋アクチンが陽性であったが、CD34 は血管内皮細胞にのみ、S100 は神経成分にのみ陽性で、腫瘍細胞には陰性であった。MIC2 も陰性で MIB-1 index は 1.5% であった。以上より足底部に多発したグロームス腫瘍 (glomangiomas) と診断した。

術後痛みは消失し、荷重歩行可能となった。神経脱着徴候も発生しなかった。1 年経過の時点で再発は無いものの、脚長差と X 線上の骨萎縮に変化はない。

考 察

今回多発性のグロームス腫瘍 (glomangiomas) に同側の下腿骨過形成を合併した症例を経験した。多発例は爪下以外の身体各所に発生し、比較的若年者にも発生する。一部に遺伝性があるものの^{1),7)}、今回の症例は家族歴・遺伝性のない多発性グロームス腫瘍であった。

グロームス腫瘍の鑑別として、血管腫、神経鞘腫、神経線維腫、血管周皮腫などが挙げられる。グロームス腫瘍の MRI での特徴的な所見はないが、腫瘍のサイズに比して痛みが強いことから、MRI での腫瘍の存在と臨床症状から診断はそれほど困難ではない。

グロームス腫瘍の特徴として前述の「強い自発痛」が挙げられるが、痛み発生のメカニズムは解明されていない⁹⁾。またそのほかに随伴症状として感覚障害、筋萎縮、罹患部位の骨粗鬆が記載されている。稀ながらホルネル徴候といった自律神経障害の合併も報告されている。罹患部位の骨粗鬆は廃用性萎縮によるものと思われるが、それ以外の随伴症状に関する原因はやはり不明である。

下腿に発生したグロームス腫瘍に、罹患側の下

肢過成長を伴った症例が国内で4例^{2),5),6),8)}, 海外で1例³⁾報告されている。過成長の原因として、以前より罹患肢の過形成を合併する動静脈瘻および多発血管腫が報告されていることから^{4),5)}, 動静脈吻合による骨発育の助長が提唱されている。しかしながら臨床上、グロームス腫瘍での動静脈吻合と骨発育の助長の関連性を証明した症例報告や基礎研究はなく推測の域を出ない。今回の症例でも動静脈吻合を示唆する所見は得られなかった。

グロームス腫瘍の治療法としては、速やかな外科治療が推奨されている⁹⁾。悪性グロームス腫瘍は稀であるが、多発性グロームス腫瘍は再発例の報告も多く、長期の経過観察が必要である。

まとめ

多発性グロームス腫瘍に罹患肢の下腿骨過成長を合併した11歳女児を経験した。診断にはMRIが有用であった。同様の症例が本邦で4例、海外で1例報告されているが、成因に関しては不明である。

文献

1) Boon LM, Brouillard P, Irrthum A et al : A gene for inherited cutaneous venous anomalies (“glomangiomas”)

localizes to chromosome 1p 21-22. *Am J Hum Genet* **65** : 125-133, 1999.

- 2) 広谷速人：一次性骨変化を伴ったグロームス腫瘍。日整会誌 **31** : 93-100, 1957.
- 3) Kummel B, Stahl D, Fielding JW : Overgrowth of an extremity caused by glomus tumor. *Clin Orthop* **82** : 80-81, 1972.
- 4) Levine C : The imaging of body asymmetry and hemihypertrophy. *Crit Rev Diagn Imaging* **31** : 1-80, 1990.
- 5) 南郷明德, 山崎 誠, 熊谷守可ほか：下腿に多発した glomus 腫瘍の1例。関東整災誌 **11** : 377-382, 1980.
- 6) 根本哲夫, 石名田洋一, 中村明訓：脚長差を伴った若年者下腿グロームス腫瘍の1例。関東整災誌 **15** : 412-416, 1984.
- 7) Tran LP, Velanovich V, Kaufmann CR : Familial multiple glomus tumours : Report of a pedigree and literature review. *Ann Plast Surg* **32** : 89-92, 1994.
- 8) 鶴藺雅史, 高倉義典, 三井宜夫ほか：過成長を伴った下腿グロームス腫瘍の1例。臨整外 **22** : 1111-1114, 1987.
- 9) Weiss SW, Goldblum JR : Glomus Tumor. In *Enzinger and Weiss's Soft Tissue Tumors* (Weiss SW et al ed), Mosby, Missouri, 985-1001, 1995.

Abstract

Subcutaneous Glomangiomas Accompanied by Limb Overgrowth : A Case Report

Tsutomu Akahane, M. D., et al.

Department of Orthopedic Surgery, Nagano Children's Hospital

We report a rare case of multiple glomus tumors in the left foot of an 11-year-old girl, that was accompanied by limb overgrowth. Magnetic resonance imaging revealed not only the lesions in the left foot showing two soft tissue tumors but also the left tibia and fibula showing hyperplasia and bone atrophy. Histology confirmed glomangiomas. This is only the sixth report worldwide of a glomus tumor accompanied by limb overgrowth.