

Адамантинома – рідкісна кісткова пухлина (клінічний випадок)

О. Є. Вирва^{*A,E,F}, Я. О. Головіна^{B,C,D}, Р. В. Малик^{B,C}, Н. О. Ашукіна^{B,E}, З. М. Данишук^{C,D}

ДУ «Інститут патології хребта та суглобів імені професора М. І. Ситенка НАМН України», м. Харків, Україна

A – концепція та дизайн дослідження; B – збір даних; C – аналіз та інтерпретація даних; D – написання статті; E – редагування статті; F – остаточне затвердження статті

Адамантинома – одна з рідкісних злоскісних пухлин кісток, що має складну варіабельну морфологічну картину та специфічні рентгенологічні ознаки.

Складність діагностики та рідкісність цього захворювання – основні причини складної верифікації діагнозу та лікування хворих.

Наведено клінічний випадок адамантиноми нижньої третини лівої великогомілкової кістки T2N0M0, II стадія, II клінічна група.

Висновки. Своєчасна та правильна діагностика пухлини дає змогу обрати коректну лікувальну тактику. Методом вибору є хірургічний метод лікування. Саме радикальне видалення пухлини (en block) дає можливість отримати позитивний результат.

Ключові слова:
адамантинома,
великогомілкова
кістка, злоскісна
кісткова пухлина.

Патологія. – 2019. –
Т. 16, № 2(46). –
С. 299–304

DOI:
10.14739/2310-1237.
2019.2.177202

***E-mail:**
dr.olegvyrva@gmail.com

Адамантинома – редкая костная опухоль (клинический случай)

О. Е. Вирва, Я. А. Головина, Р. В. Малик, Н. А. Ашукіна, З. М. Данишук

Адамантинома – одна из редких опухолей костей, которая имеет сложную вариабельную морфологическую картину и специфические рентгенологические данные. Сложность диагностики и редкая встречаемость этого заболевания являются основными причинами трудностей при верификации диагноза и лечении пациентов. Описан клинический случай адамантиномы нижней трети левой большеберцовой кости T2N0M0, II стадия, II клиническая группа.

Выводы. Своевременная и правильная диагностика опухоли позволяет сделать корректный выбор лечебной тактики. Методом выбора является хирургический метод лечения. Именно радикальное удаление опухоли (en block) позволяет получить позитивный результат.

Ключевые слова:
адамантинома,
большеберцовая
кость, злокачественная костная опухоль.

Патология. – 2019. –
Т. 16, № 2(46). –
С. 299–304

Adamantinoma – rare bone tumor (case report)

O. Ye. Vyrva, Ya. O. Holovina, R. V. Malyk, N. O. Ashukina, Z. M. Danyshchuk

Adamantinoma is one of the rare bone tumors. It demonstrates a large variety of morphological patterns and specific radiological data. The complexity of the diagnosis and the rare frequency of this disease are the main reasons for difficult diagnostic verification and patients treatment.

The profile of the adamantinoma of the distal tibia, T2N0M0, II stage, the 2nd clinical group has been described.

Conclusions. Right and on time adamantinoma diagnostic procedure is the main success for correct treatment. En bloc resection has become a more effective treatment choice. Only radical tumor resection is the permission for positive treatment results.

Key words:
adamantinoma,
tibia, malignancy,
bone neoplasms.

Pathologia
2019; 16 (2), 299–304

Адамантинома (англ. *adamantinoma*) – одна з найрідкісніших злоскісних пухлин довгих кісток, що залишається недостатньо вивченою.

Maier в 1900 р. уперше описав цю пухлину, а в 1913 р. Fischer також повідомив про невідому та рідкісну пухлину кісток [1]. Обидва автори відзначали гістологічну схожість її з одонтогенною пухлиною – амелобластою, або адамантиною [1]. Пізніше в фаховій літературі з'являлися схожі повідомлення про цей вид пухлини: Rygie в 1932 р., Hebbel в 1940 р., Dockerty і Myerding в 1942 р., Baker у 1954 р [1]. Але тільки Mario Campanacci вперше дав назву цій пухлині, детально описав і дослідив її біологію. Також він виконав диференційну діагностику злоскісної адамантиноми з доброякісним захворюванням кісток,

яке виявляють переважно в дитячому віці, – остеофіброзною дисплазією [2].

Адамантинома – це рідкісна високодиференційована злоскісна пухлина, що виявляється в 0,1–0,5 % випадків серед усіх пухлин кісток [4]. Гістологічно ця пухлина характеризується варіабельною морфологічною структурою та найчастіше містить скупчення епітеліальних клітин, що оточені світлими веретеноподібними клітинами. «Класична» пухлина має два основні тканинні компоненти: епітеліальний і кістково-фіброзний. Їхнє співвідношення є дуже варіабельним. Нині розрізняють такі варіанти морфологічної структури адамантиноми: базалоїдний, тубулярний, веретеноклітинний, сквамоїдний і подібний до кістково-фіброзно-диспластичного [3]. Згідно з ВООЗ

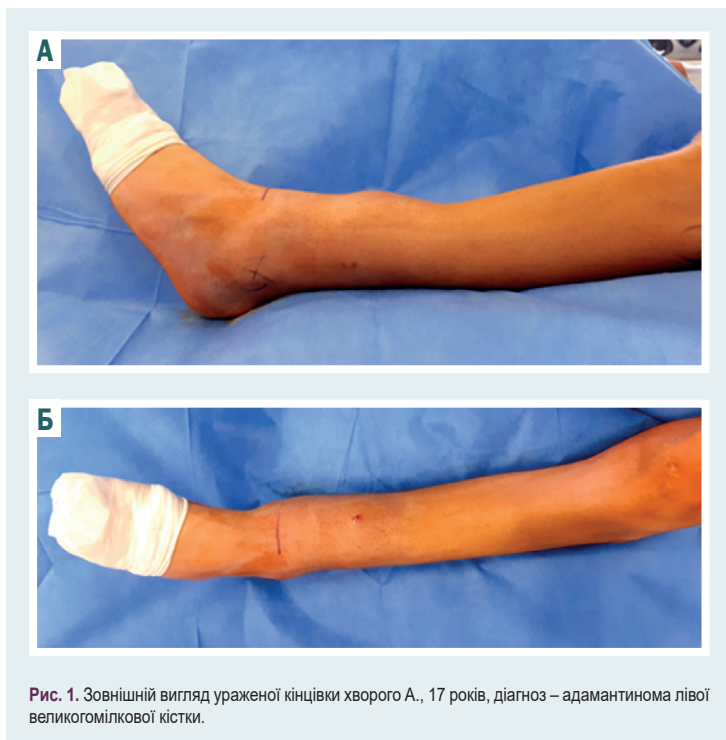


Рис. 1. Зовнішній вигляд ураженої кінцівки хворого А., 17 років, діагноз – адамантинома лівої великогомілкової кістки.

класифікацією пухлин кісток 2013 р., адамантинома (код морфології пухлини 9261/3) належить до групи «Різноманітні пухлини» [3].

Переважаю адамантинома уражає чоловіків другої та третьої декади життя – 75 % від усіх випадків виявлення пухлини. Часто травма або патологічний перелом ураженої кістки є першою ознакою захворювання. Характерним є тривалий період захворювання без больового синдрому [4].

Найчастіша локалізація пухлини – дистальний метаепіфіз великогомілкової кістки з переважним ураженням переднього коркового шару та передньої половини кістки [5]. Часто визначають мультифокальне ураження однієї кістки (skir-lesions), а також первинне ураження великогомілкової кістки та прилеглої малогомілкової. У науковій літературі є поодинокі повідомлення про локалізацію адамантиноми в інших кістках – плечовій, ліктьовій. Пухлина характеризується повільним ростом – від кількох місяців до років, може рецидивувати та метастазувати (переважно в легені) [4].

У рентгенологічній картині зазвичай спостерігають літичну деструкцію переважно передньої поверхні великогомілкової кістки з експансивним ростом та ексцентричним розташуванням, із залученням кістково-мозкового каналу в патологічний процес [6]. Ділянки остеолізу перемижуються з осередками остеосклерозу. Адамантинома може поширюватися до 13–15 см по довжині кістки. Нерідко адамантинома має такий рентгенологічний симптом, як ураження типу «поїдене мілля» [4].

Рецидиви та метастази цієї пухлини можуть виникати навіть через 7 років після діагностування. Є повідомлення про метастазування через 27 років після лікування [4].

Основним та єдиним методом лікування адамантиноми є хірургічний. Тривалі спостереження за цими

хворими показали, що тільки радикальне видалення пухлини (сегментарні резекції) дає змогу досягти тривалого безрецидивного періоду [7–9].

Враховуючи рідкісність і складність діагностики захворювання, наводимо клінічний випадок адамантиноми нижньої третини лівої великогомілкової кістки T2N0M0 II стадії, II клінічної групи.

Клінічний випадок

У клініку інституту ДУ «Інститут патології хребта та суглобів імені професора М. І. Ситенка НАМН України» звернувся хворий А. віком 17 років зі скаргами на наявність безболісного новоутворення в середньо-нижній третині лівої гомілки (рис. 1а,б). Новоутворення помітив після незначної спортивної травми 4 місяці тому. Раніше лікування не отримував.

Пацієнтові виконали комплексне обстеження: рентгенологічне, КТ-дослідження, біопсію патологічного утворення великогомілкової кістки.

На рентгенограмах, КТ і МРТ визначили масивну літичну деструкцію нижньої третини великогомілкової кістки з наявністю м'якотканного компонента. Патологічне вогнище розташовувалося ексцентрично, переважно на передній поверхні кістки (рис. 2а–в, 3 а,б). Рентгенологічна картина за період 2 міс. мала негативну динаміку: виявлено збільшення розмірів деструкції (рис. 4а–в).

У результаті КТ-онкоскрінінгу органів і систем організму метастатичні ураження не виявили.

Під час гістологічного аналізу біопсійного матеріалу встановили діагноз – адамантинома. Діагноз підтверджено імуногістохімічним дослідженням. Результати імуногістохімічного дослідження: CD 99(12E7) – негативна реакція; Epithelial Membrane Antigen (EMA) (E29) – вогнищева позитивна реакція; Cytokeratin pan (AE1 and AE3) – позитивна реакція. Висновок: адамантинома. ICD – O code 9261/3.

У результаті комплексної діагностики встановили діагноз: адамантинома нижньої третини лівої великогомілкової кістки T2N0M0, II стадія, II клінічна група.

Пацієнту виконали хірургічне втручання: видалення пухлини en bloc, заміщення післярезекційного дефекту нижньої третини великогомілкової кістки сегментарним артикуляційним алотрансплантатом із фіксацією блоківним інтрамедулярним стрижнем (рис. 5, 6а, б).

Для гістологічного дослідження взяли фрагмент дистального відділу великогомілкової кістки з новоутворенням розміром 11 × 5 × 5 см. На розрізі виявили множинні порожнини діаметром 1,5–2,5 см із гладенькою стінкою, котрі містили напівпрозору сірувато-рожеву рідину. Більшість із них розташовувалися по краю утворення. Центральна частина представлена кількома поєднаними вузлами сірого кольору щільної еластичної консистенції (рис. 7).

У процесі мікроскопічного дослідження волокнистої тканини, що багата на веретеноподібні клітини, виявили елементи пухлини: вогнища неправильної форми, розгалужені тяжі з клітин епітеліального типу (рис. 8).

По периферії пухлини розташовані веретеноподібні подовжені клітини типу базальних багаточарового

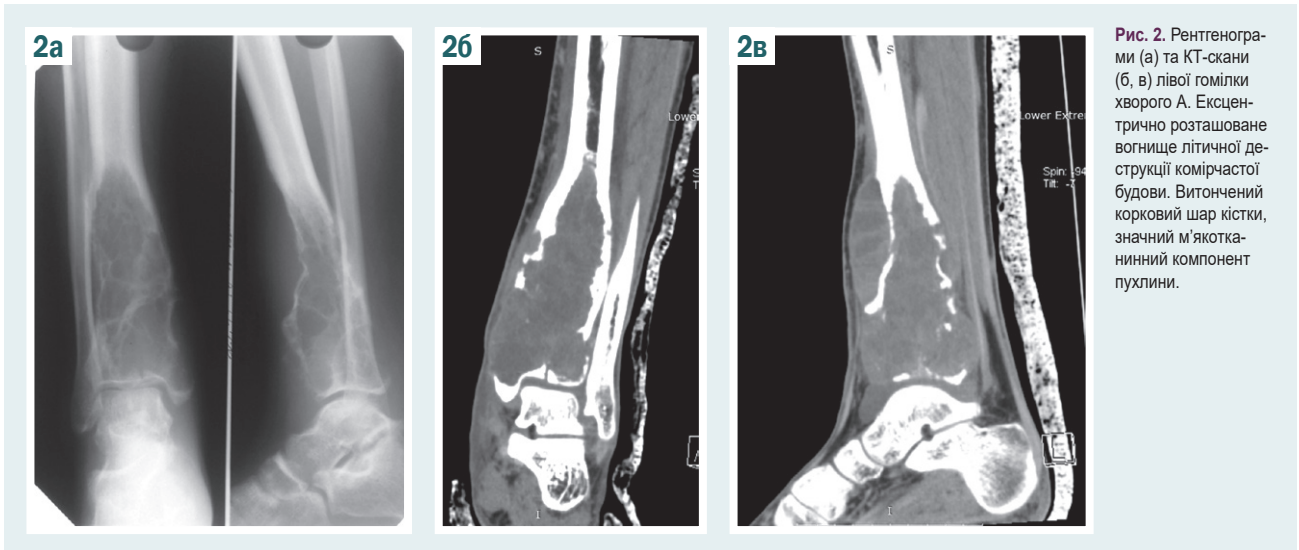


Рис. 2. Рентгенограми (а) та КТ-скани (б, в) лівої гомілки хворого А. Ексцентрично розташоване вогнище літичної деструкції комірчастої будови. Вітончений корковий шар кістки, значний м'якотканинний компонент пухлини.

плоского епітелію, а ближче до центру – плоскі та полігональні (рис. 9). У деяких осередках виявили рідину.

Місцями визначали солідні ділянки, що нагадували пласти багат шарового плоского епітелію. У полях зору виявили округлі кістозні порожнини, що вистелені одним рядом сплюснених і кубічних клітин. У всіх полях зору клітинний та ядерний поліморфізм був слабо вираженим, мітотична активність низька (рис. 10а, б). Загалом описана патогістологічна картина відповідає діагнозу адамантинома.

Протягом періоду спостереження після операції визначили зрощення алотрансплантата і кістки реципієнта. Проте на контрольних рентгенограмах і КТ лівої гомілки на восьмому післяопераційному місяці визначили рецидивування адамантиними, «skip-lesions» великогомілкової кістки у верхній третині діафіза та ураження лівої малогомілкової кістки в дистальному та проксимальному відділах, а також тотальне ураження лівої таранної кістки (рис. 11а–е). Клінічно визначили погіршення загального стану хворого, ознаки інтоксикації, анемію.

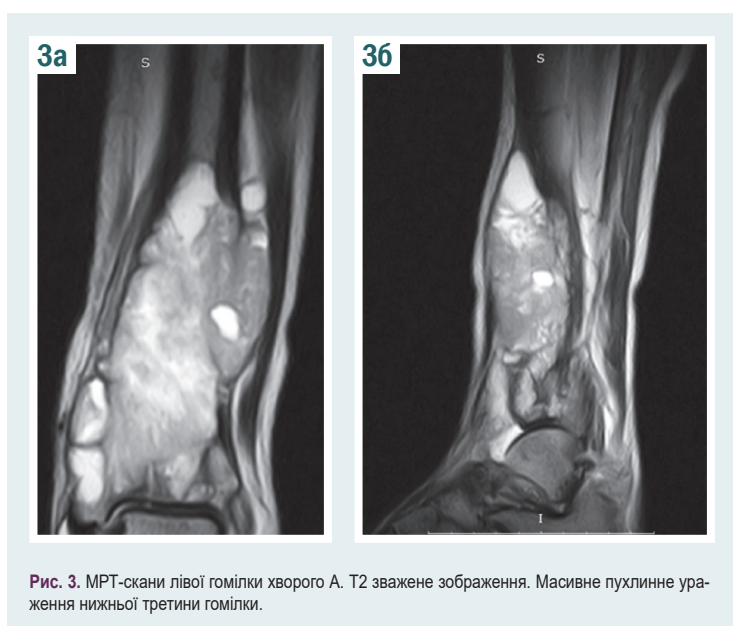


Рис. 3. МРТ-скани лівої гомілки хворого А. Т2 зважене зображення. Масивне пухлинне ураження нижньої третини гомілки.

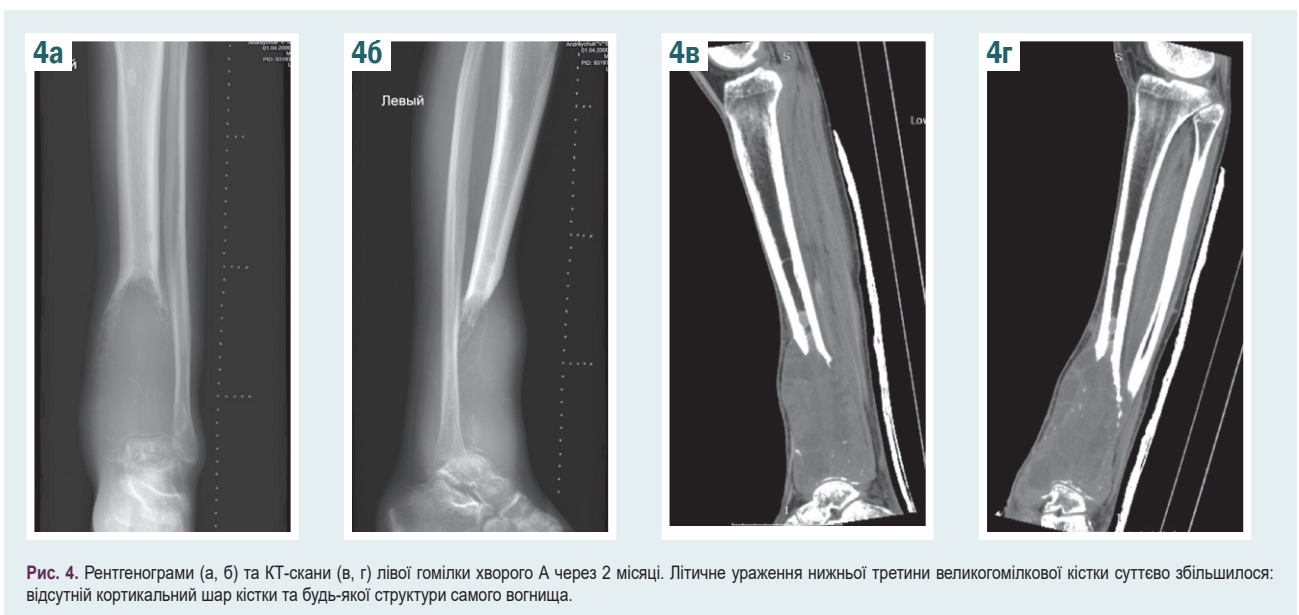


Рис. 4. Рентгенограми (а, б) та КТ-скани (в, г) лівої гомілки хворого А через 2 місяці. Літичне ураження нижньої третини великогомілкової кістки суттєво збільшилося: відсутній кортикальний шар кістки та будь-якої структури самого вогнища.

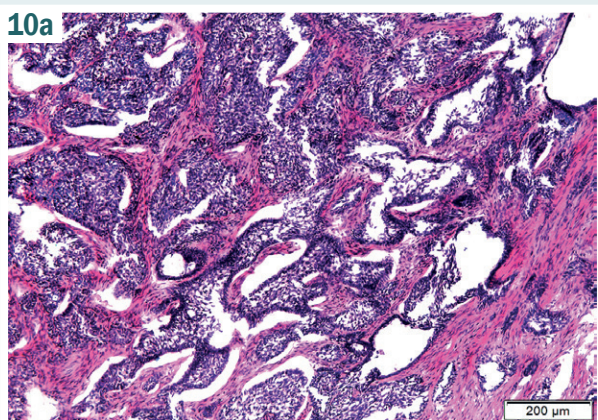
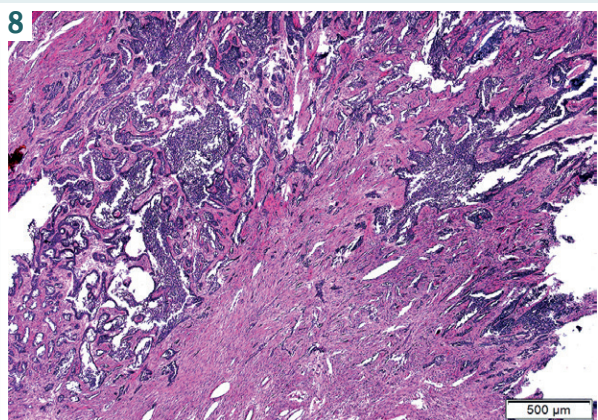
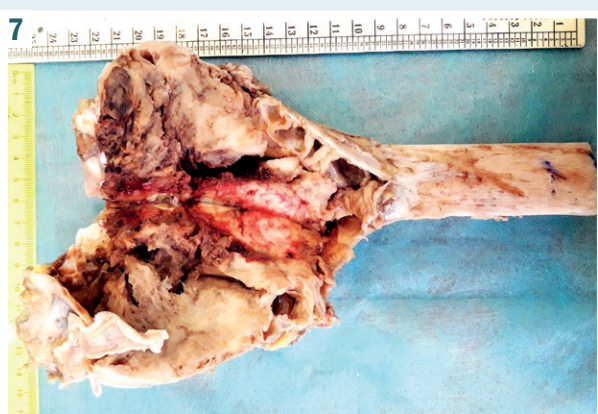
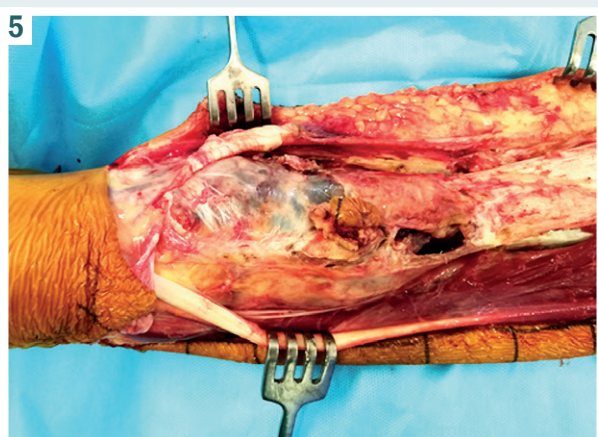


Рис. 7. Адамантинома великогомілкової кістки. Фото макропрепарату пухлини в розрізі. Кісти по краю, кілька з'єднаних вузлів сірого кольору.

Рис. 8. Мікрофотографія з патологічного вогнища пацієнта А. Множинні порожнини та щілини, що вистелені плоскими та кубічними клітинами, розгалужені тяжі з епітеліальних клітин. Гематоксилін та еозин, $\times 40$.

Рис. 9. Мікрофотографія з патологічного вогнища пацієнта А. Комірки з веретеноподібними клітинами по типу базальних на периферії, плоских і полігональних – всередині. Гематоксилін та еозин, $\times 200$.

Рис. 10. Мікрофотографія з патологічного вогнища пацієнта А. Волокниста тканина з веретеноподібними клітинами. Комірки неправильної форми різного розміру, солідні пласти з клітин типу багатшарового плоского епітелію. Слабко виражений клітинний і ядерний поліморфізм. Гематоксилін та еозин, $\times 100$ (а), $\times 400$ (б).

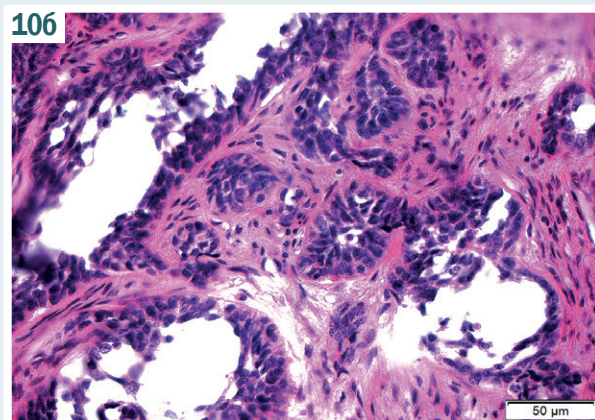
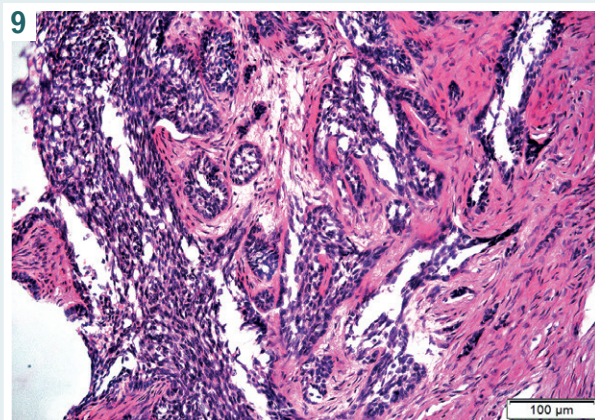


Рис. 5. Інтраопераційне фото пухлинного ураження нижньої третини великогомілкової кістки хворого А. Пухлинне ураження всього дистального відділу великогомілкової кістки з тонким шаром псевдокапсули.

Рис. 6. Рентгенограми лівої гомілки хворого А. після оперативного втручання. Післярезекційний дефект нижньої третини великогомілкової кістки замщений алотрансплантатом і фіксований інтрамедулярним стрижнем.

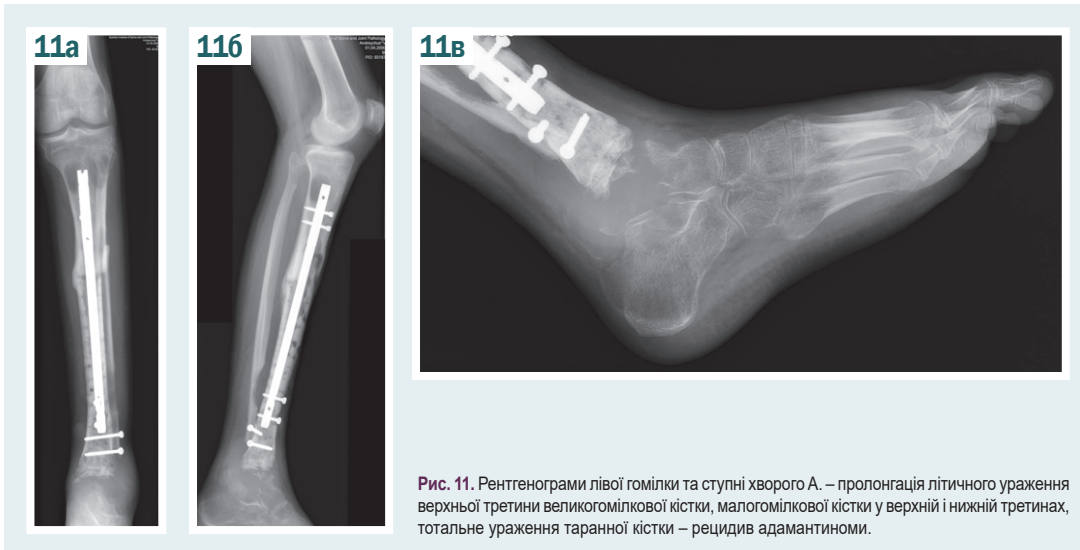


Рис. 11. Рентгенограми лівої гомілки та ступні хворого А. – пролонгація літичного ураження верхньої третини великогомілкової кістки, малогомілкової кістки у верхній і нижній третинах, тотальне ураження таранної кістки – рецидив адамантиноми.

Враховуючи масивне пухлинне ураження кісток лівої гомілки та лівої стопи, вирішили виконати ампутацію лівої нижньої кінцівки на рівні нижньої третини стегна. Через 3 місяці після хірургічного лікування ознак рецидиву і віддаленого метастазування не виявили. Здійснили протезування лівої кінцівки, пацієнт реалізує акт ходи без додаткової опори, продовжує навчання у виші.

Обговорення

Адамантинома – рідкісна злоякісна агресивна пухлина довгих кісток, що має типову локалізацію та складну варіабельну морфологічну структуру. Діагностика цього пухлинного утворення часто викликає труднощі [10,11].

Диференційну діагностику адамантиноми здійснюють насамперед із метастазом раку в кістки. Ці види патології мають схожу морфологічну картину. На відміну від метастазу карциноми в кістку, в адамантиномі виявляють осередки різної мікроскопічної будови – епідермоїдної та аденоматоїдної. В адамантиномі клітинний і ядерний поліморфізм слабо виражений, мітотична активність низька. Якщо ці патогістологічні ознаки поєднуються з відповідними клінічними (типова локалізація у великогомілкову кістку, відсутність первинного вогнища, тривалий клінічний перебіг) і своєрідною рентгенологічною картиною, то можна встановити діагноз адамантинома [10,11]. Виконання імуногістохімічного дослідження біопсійного матеріалу та наявність позитивних специфічних реакцій дають можливість підтвердити діагноз.

Також диференційну діагностику адамантиноми здійснюють із остеофіброзною дисплазією. Ці захворювання мають схожі рентгенологічні ознаки, характерну локалізацію пухлин, але остеофіброзна дисплазія має доброякісний характер перебігу та ніколи не метастазує, у випадку вдалого радикального оперативного втручання не дає рецидивів. Основними диференційними рентгенологічними ознаками адамантиноми є ураження великогомілкової кістки, типова картина по межах ураження («поїдена міллю»),

залучення кістково-мозкового каналу, завжди наявний екстракортикальний м'якотканинний компонент пухлини, часто – «skip-lesions». Саме множинне ураження кістки та ураження сумісних кісток свідчать про агресивний перебіг захворювання [12,13].

Адамантинома не чутлива до поліхімотерапії та променевої терапії. Тому методом вибору в лікуванні цієї патології є оперативне втручання – радикальне видалення пухлини en block (сегментарна резекція кістки, що уражена) та заміщення післярезекційного дефекту кістки [14,15]. Кюретаж пухлини призводить до не радикального її видалення та, відповідно, до розвитку рецидивів адамантиноми та швидкого поширення, метастазування хвороби.

Висновки

1. Комплексна діагностика захворювання, що включає клінічне, рентгенологічне, КТ-дослідження, патоморфологічне та імуногістохімічне дослідження, дає змогу своєчасно та точно встановити діагноз адамантинома.
2. Від правильно встановленого діагнозу залежить коректний вибір лікувальної тактики та післяопераційного моніторингу хворого.
3. Саме радикальне видалення пухлини (en block – ампутація ураженого сегмента кінцівки) дає змогу досягти позитивного результату лікування.
4. Післяопераційне динамічне спостереження за хворим (періодичне виконання рентгенологічного та КТ-дослідження, плановий онко-скринінг) дає можливість діагностувати на ранніх етапах локальні рецидиви та метастатичні ураження легенів.

Конфлікт інтересів: відсутній.

Conflicts of interest: authors have no conflict of interest to declare.

Надійшла до редакції / Received: 11.03.2019

Після доопрацювання / Revised: 19.03.2019

Прийнято до друку / Accepted: 08.04.2019

Відомості про авторів:

Вирва О. Є., д-р мед. наук, професор, зав. відділу кісткової онкології, головний лікар, ДУ «Інститут патології хребта та суглобів імені професора М. І. Ситенка НАМН України», м. Харків.

ORCID ID: 0000-0003-0597-4472

Головіна Я. О., канд. мед. наук, старший науковий співробітник відділу кісткової онкології, ДУ «Інститут патології хребта та суглобів імені професора М. І. Ситенка НАМН України», м. Харків.

ORCID ID: 0000-0002-1605-9109

Малик Р. В., канд. мед. наук, науковий співробітник відділу кісткової онкології, ДУ «Інститут патології хребта та суглобів імені професора М. І. Ситенка НАМН України», м. Харків.

ORCID ID: 0000-0001-9070-4834

Ашукіна Н. О., канд. біол. наук, зав. лабораторії морфології сполучної тканини, ДУ «Інститут патології хребта та суглобів імені професора М. І. Ситенка НАМН України», м. Харків.

ORCID ID: 0000-0002-0478-7440

Данишук З. М., науковий співробітник лабораторії морфології сполучної тканини, ДУ «Інститут патології хребта та суглобів імені професора М. І. Ситенка НАМН України», м. Харків.

ORCID ID: 0000-0003-2968-3821

Сведения об авторах:

Вирва О. Е., д-р мед. наук, профессор, зав. отделом костной онкологии, главный врач, ГУ «Институт патологии позвоночника и суставов имени профессора М. И. Ситенко НАМН Украины», г. Харьков.

Головина Я. А., канд. мед. наук, старший научный сотрудник отдела костной онкологии, ГУ «Институт патологии позвоночника и суставов имени профессора М. И. Ситенко НАМН Украины», г. Харьков.

Малык Р. В., канд. мед. наук, научный сотрудник отдела костной онкологии, ГУ «Институт патологии позвоночника и суставов имени профессора М. И. Ситенко НАМН Украины», г. Харьков.

Ашукина Н. А., канд. биол. наук, зав. лабораторией морфологии соединительной ткани, ГУ «Институт патологии позвоночника и суставов имени профессора М. И. Ситенко НАМН Украины», г. Харьков.

Данишук З. Н., научный сотрудник лаборатории морфологии соединительной ткани, ГУ «Институт патологии позвоночника и суставов имени профессора М. И. Ситенко НАМН Украины», г. Харьков.

Information about authors:

Vyrva O. Ye., MD, PhD, DSc, Professor, Chief Medical Officer, Head of the Bone Tumor Department, SI "Sytenko Institute of Spine and Joint Pathology of National Academy of Medical Sciences of Ukraine", Kharkiv.

Holovina Ya. O., MD, PhD, Senior Researcher of the Bone Tumor Department, SI "Sytenko Institute of Spine and Joint Pathology of National Academy of Medical Sciences of Ukraine", Kharkiv.

Malyk R. V., MD, PhD, Researcher of the Bone Tumor Department, SI "Sytenko Institute of Spine and Joint Pathology of National Academy of Medical Sciences of Ukraine", Kharkiv.

Ashukina N. O., PhD, Head of the Laboratory of Connective Tissue Morphology, SI "Sytenko Institute of Spine and Joint Pathology of National Academy of Medical Sciences of Ukraine", Kharkiv.

Danyshchuk Z. M., Researcher of the Laboratory of Connective Tissue Morphology, SI "Sytenko Institute of Spine and Joint Pathology of National Academy of Medical Sciences of Ukraine", Kharkiv.

Список літератури

- [1] Roque P., Mankin H. J., Rosenberg A. Adamantinoma: an unusual bone tumour. *Chir Organi Mov*. 2008. Vol. 92. Issue 3. P. 149–154. doi: 10.1007/s12306-008-0060-5
- [2] Campanacci M. Bone and soft tissue tumors. New York: Springer Verlag, 1999. P. 707–732.
- [3] Григоровский В. В. Современная классификация опухолей костей ВОЗ (IV издание, 2013г.). Комментарий патолога. *Ортопедия, травматология и протезирование*. 2015. Vol. 4. P. 103–120. doi: http://dx.doi.org/10.15674/0030-598720154103-120
- [4] Osteofibrous dysplasia, osteofibrous dysplasia-like adamantinoma and adamantinoma: correlation of radiological imaging features with surgical histology and assessment of the use of radiology in contributing

- to needle biopsy diagnosis / M. Khanna et al. *Skeletal Radiol*. 2008. Vol. 37. Issue 12. P. 1077–1084. doi: 10.1007/s00256-008-0553-1
- [5] Dorfman H. D., Czerniak B. Bone tumors. St. Louis: Mosby, 1998. P. 481–491, p. 949-973.
- [6] Tumors and Tumor-Like Lesions of Bone / E. Santini-Araujo et al. Springer-Verlag London Ltd, 2015. 963 p. doi: 10.1007/978-1-4471-6578-1
- [7] Adamantinoma of bone: long-term follow-up of 46 consecutive patients / M. T. Houdek et al. *J.Surg Oncol*, 2018. Vol. 118. Issue 7. P. 1150–1154. doi: 10.1002/jso.25269
- [8] Adamantinoma of the distal femur diagnosed 5 years after initial surgery: a case report / Kai Cao et al. *Journal of Medical Case Reports*. 2016. Vol. 10. P. 185. doi: 10.1186/s13256-016-0974-8
- [9] Long-term outcome following treatment of Adamantinoma and Osteofibrous dysplasia of long bones / S. E. Puchnera et al. *Orthopaedics & Traumatology: Surgery & Research*. 2016. Vol. 102. P. 925–932. doi: 10.1016/j.otsr.2016.08.010
- [10] Краевский Н. А., Смоляников А. В., Саркисов Д. С. Патолого-анатомическая диагностика опухолей. Москва: Медицина, 1993. Т. 1. 370 с.
- [11] Нейштадт Э. Л., Маркович А. Б. Опухоли и опухолеподобные заболевания костей. Санкт-Петербург: Фолиант, 2007. 340 с.
- [12] Adamantinoma / L. G. D. Gasca et al. *Acta Medica Grupo Angeles*. 2016. Vol. 14. Issue 1. P. 39–40.
- [13] Adamantinoma arising in the distal end of the fibula / S. Yoshida et al. *Rare tumors*. 2017. Vol. 9. Issue 1. P. 6823. doi: 10.4081/rt.2017.6823
- [14] Adamantinoma of the tibia: a case report / M. N. Anoumou et al. *Journal of orthopaedic case report*. 2014. Vol. 4. Issue 1. P. 15–17. doi: 10.13107/jocr.2250-0685.140
- [15] High-grade squamous cell carcinoma arising in a tibial adamantinoma / N. K. Dashti et al. *Human Pathology*. 2018. pii: S0046-8177(18)30470-2. doi: 10.1016/j.humpath.2018.11.018

References

- [1] Roque P., Mankin H. J., & Rosenberg, A. (2008). Adamantinoma: an unusual bone tumour. *Chir Organi Mov*, 92(3), 149–154. doi: 10.1007/s12306-008-0060-5
- [2] Campanacci, M. (1999) *Bone and soft tissue tumors*. New York: Springer Verlag.
- [3] Hryhorovskiy, V. V. (2015). Sovremennaya klassifikatsiya opukholej kostej VOZ (IV izdanie, 2013g.). Kommentarii patologa [Modern classification of bone tumors according to WHO (IV edition, 2013 year). Comments of pathologist. *Ortopediya, travmatologiya i protezirovaniye*, 4, 103–120. [in Russian]. doi: http://dx.doi.org/10.15674/0030-598720154103-120
- [4] Khanna, M., Delaney, D., Tirabosco, R., & Saifuddin, A. (2008). Osteofibrous dysplasia, osteofibrous dysplasia-like adamantinoma and adamantinoma: correlation of radiological imaging features with surgical histology and assessment of the use of radiology in contributing to needle biopsy diagnosis. *Skeletal Radiol*, 37(12), 1077–1084. doi: 10.1007/s00256-008-0553-1
- [5] Dorfman, H. D., & Czerniak, B. (1998). *Bone tumors*. St. Louis: Mosby.
- [6] Santini-Araujo, E., Kalli, R. K., Bertoni, F., & Park Y.-K. (2015) *Tumors and Tumor-Like Lesions of Bone*, Springer-Verlag London Ltd. doi: 10.1007/978-1-4471-6578-1
- [7] Houdek, M. T., Sherman, C. E., Inwards, C. Y., Wenger, D. E., Rose, P. S., & Sim, F. H. (2018). Adamantinoma of bone: long-term follow-up of 46 consecutive patients. *J.Surg Oncol*, 118(7), 1150–1154. doi: 10.1002/jso.25269
- [8] Kai, Cao, Michiro, Susa, Itsuo, Watanabe, Kazumasa, Nishimoto, Keisuke, Horiuchi, Aya, Sasaki, et al. (2016). Adamantinoma of the distal femur diagnosed 5 years after initial surgery: a case report. *Journal of Medical Case Reports*, 10, 185. doi: 10.1186/s13256-016-0974-8
- [9] Puchnera, S. E., Vargaa, R., Hobuscha, G. M., Kasparka, M., Pano-topoulosa, J., Langb, S., et al. (2016) Long-term outcome following treatment of Adamantinoma and Osteofibrous dysplasia of long bones. *Orthopaedics & Traumatology: Surgery & Research*, 102(7), 925–932. doi: 10.1016/j.otsr.2016.08.010
- [10] Kraevskij, N. A., Smolyannikov, A. V., & Sarkisov, D. S. (1993) *Patologo-anatomicheskaya diagnostika opukholej [Pathoanatomical diagnostics of tumours (Vol. 1)*. Moscow: Medicina [in Russian].
- [11] Nejshtadt, E. L., & Markochiev, A. B. (2007). *Opuhohli i opukholiepodobnye zabolevaniya kostej [Tumours and tumour-like lesions of bones]*. Saint Petersburg: Foliant. [in Russian].
- [12] Gasca, L. G. D., Constantino, J. M., Trigueros, J. A., & Carrilo, L. G. D. (2016). Adamantinoma. *Acta Medica Grupo Angeles*, 14(1), 39–40.
- [13] Yoshida, S., Murakami, T., Suzuki, K., Itou, Sh., Watanuki, M., Hosaka, M., & Hagiwara, Y. (2017). Adamantinoma arising in the distal end of the fibula. *Rare tumors*, 9(1), 6823. doi: 10.4081/rt.2017.6823
- [14] Anoumou, M. N., Kouameu, M., Koffi, E. K., & Varango, G. (2014). Adamantinoma of the tibia: a case report. *Journal of orthopaedic case report*, 4(1), 15–17. doi: 10.13107/jocr.2250-0685.140
- [15] Dashti, N. K., Howe, B. M., Inwards, C. Y., Fritchie, K. J., & Carter, J. M. (2018). High-grade squamous cell carcinoma arising in a tibial adamantinoma. *Human Pathology*, doi: 10.1016/j.humpath.2018.11.018