顎下部に発生した悪性間葉腫 malignant mesenchymoma の1症例

榎本 雅夫・松井 和夫・藤村 直樹
浜田 実・田端 敏秀*・石井 亨**

A Case Report of Malignant Mesenchymoma (Stout)

Tadao Enomoto, Kazuo Matsui, Naoki Fujimura,
Makoto Hamada, Toshihide Tabata, Tohru Ishii

(Wakayama Red Cross Hosp.)

A 19 year old female complained of a painless mass on the right side of the submaxillary area, with no particular symptoms and signs. This mass was a hen-egg sized tumor with elastic hardness. Clinical diagnosis was a mixed tumor of the submaxillary area. Under general anesthesia, an encapsulated tumor was excised.

Histological examination revealed malignant mesenchymoma (Stout) differentiating to fibrosarcoma, liposarcoma, hemangioendthelioma and leioma.

Malignant mesenchymoma is a rare occurrence and since the first report by Ishikawa, only 27 cases have been reported in Japan.

緒 言

著者らは、最近、顎下部の混合腫瘍の疑いで手術を行い、病理組織検査の結果、稀有な malignant mesenchymoma であった1症例を経験したので、本邦における本症の文献的考察も加え報告する。

症 例

患者：■■■■■，女，19才，■■■■■。

主訴：右顎下部腫脹。

既往歴：特記すべき著患なし。

家族歴：特記すべき事項なし。

現病歴：約半年前から右顎下部の腫脹に気づ

く。自発痛、摂食時の腫脹の増大ならびに疼痛などはない。昭和51年6月1日、某大学病院受診。右慢性顎下腺炎の診断で手術をすすめられたが、患者は当科での手術を希望し紹介された。

*和歌山赤十字病院耳鼻咽喉科

**和歌山赤十字病院病理

初診時所見：体格良。栄養状態良。右顎下部に鶏卵大の弾性硬のほぼ円形の腫瘍を触知する。その部の皮膚は軽度隆起。腫瘍は周囲組織と癒着なし。顎下腺は腫瘍のため触知不能。

初診時検査成績：

(血液) 赤血球数 490×10^4 , 赤色素量 14.3 g/dl , ヘマトクリット値 44%, 白血球数 5700, 白血球像, 好中球 67%, 好塩基球 1%, 単球 4%, リンパ球 28%, 血小板 256,000.

(血清) TP 8.6 g/dl , Al 66.0%, α_1 2.4%, α_2 7.0%, β 9.5%, γ 15.0%, A/G 1.97, GOT 16, GPT 5, LDH 353.

(尿) 蛋白 (-), 糖 (-), ウロビリ (正),

沈渣 (異常所見なし)

(心電図) 正常.

(胸部 x-p) 異常なし.

(出血時間) 1分30秒, (凝固時間) 8分30秒.

(顎下腺造影) モリヨドール (40%) 1.2ml を右ワルトン氏管へ注入した。ワルトン氏管は腫瘍により内方へ圧排されていたが, 漏洩, 中絶, 管の拡張などは認められず顎下腺そのものは intact であろうと考えられた.

以上の成績より, 慢性顎下腺炎を疑わす所見はなく, 顎下腺部の混合腫瘍であろうと考え手術に踏み切るとにした.

手術所見

下顎骨下縁から約 1.5cm 下方で, 下顎角から下顎骨下縁と平行に約 6cm の皮切を加え, 広頸筋を切開すると, 顎二腹筋, 口腔底, 顎舌骨筋に囲まれる部位に, 被膜でおおわれた境界鮮明な円形の腫瘍が認められた。剥離は容易で, 周囲組織との癒着は軽度であった。

摘出した腫瘍は, 写真 1 に示すように, ほぼ球形で弾性硬, 大きさは $5.1 \times 4.3 \times 4.6 \text{ cm}$, 重量 36g。剖面 (写真 2) は, やや赤味を帯びた灰白色の部分と黄色で軟かい部分が混在していた。

図 1. 摘出腫瘍 (昭和 51 年 6 月, 第 1 回目の摘出術) $5.1 \times 4.3 \times 4.6 \text{ cm}$. 重量 36g.

図 2. 摘出腫瘍の剖面.

病理組織学所見

腫瘍の大部分は楕円形または紡錘形の核を有する異型細胞が主体であり, いずれの範疇に属する細胞か判定困難であったが, 腫瘍の部位により, 写真 3, 4 に示すように, アザン・マロリー染色で渦状, 束状の増殖を示す線維肉腫様

異型細胞とそれに囲まれて原形質の空胞化した脂肪肉腫様細胞の増殖している部分が認められた。写真 5 は脂肪肉腫様細胞の強拡大像を示す。また, この細胞は Sudan III 染色では胞体内に多量の脂肪滴が含まれ, 鍍銀染色では

図3. 鍍銀染色 ×100

線維肉腫様細胞とそれに囲まれた少数の脂肪肉腫様細胞の増殖を示す。

図5. HE染色 ×200

脂肪肉腫様の部分。異型細胞の1部には脂肪滴に由来する原形質の空胞化をみとめる。

図4. アザン・マロリー染色 ×100

脂肪滴を有する異型細胞と紡錘型の核を有し線維肉腫に相当すると思われる異型細胞の混在。

図6. HE染色 ×100

扁平な内皮細胞を持つ不整な小血管の増生を示す。

spider cell の周辺を銀線維が完全に包囲し、lipoblast の特徴的像を呈していた。さらに、写真6に示すように、扁平な内皮細胞を持つ不整な小血管の増生、すなわち、血管内皮細胞腫様の像も認められた。その他にも平滑筋腫と考

えられる部分も混在していた。以上の所見は、悪性間葉腫 malignant mesenchymoma の criteria (Stout)¹⁾²⁾ を充分満足する組織像であった。

その後の経過

右顎下部腫瘍摘出後、患者の経過は良好で全治退院したと考えられたが、1年3ヶ月後の昭和52年9月はじめ頃より、再び局所の硬結を伴った腫大を来した。同年10月入院の上、再度、根治的腫瘍摘出術を行った。前回と比べ腫瘍は周辺組織と強く癒着し剥離は困難であったが、

周辺の腫大したリンパ節も併せ腫瘍を一塊として取り出した。病理組織像は前回とはほぼ同様であった。術後、⁶⁰Co 照射計 6620R、5FU静注計 3750mg を追加し、同年11月退院した。現在、5FUシロップ300mg/日の内服で経過観察中であるが腫瘍の再発はみられない。

考 按

Stout¹⁾(1948) は線維(肉)腫以外に異った 2 種以上の間葉系組織成分より成る mixed mesenchymal tumor を mesenchymoma と名づけ, 良性と悪性に分け, malignant mesenchymoma として 8 例報告している. また, 1961 年²⁾ には小児の本症 42 例について詳細に, さらに, 1967 年軟部組織の本症例 201 例を集積³⁾ し報告している.

本症は極めて稀であり, 本邦では石川(1958)⁴⁾

の報告以来, 著者の渉猟し得た範囲では, 自験例も含めて 28 例^{4)~34)} であり, 耳鼻咽喉科領域からの報告はない. 全症例を一括して表 1 に示した. 宮崎⁹⁾ は悪性軟部腫瘍 66 例を Stout の分類にしたがって整理しているが, 本症は 1 例しかなく, 小林³⁰⁾ によれば 1965 年から 1969 年の 5 年間の日本病理剖輯報で 106, 957 件中 4 例と極めて稀な疾患である.

性別については, Stout³⁾ によれば, 子供の

表 1 本邦報告例

No.	報 告 者	報告年代	症例年令	性別	発生部位	治 療			転帰	症状初発より死亡までの期間
						手術	放射線	抗癌剤		
1	石川 ⁴⁾	1958	20才	女	後腹膜	◎	○	○	死亡	7 年 5 ヶ月
2	東大(木本外科) ⁵⁾	1961	7 ヶ月	男	後腹膜	○			死亡	8 ヶ月
3	佐野 ⁶⁾	1962	26才	男	頸 部	○	○		死亡	約 1 年 5 ヶ月
4	堀 ⁷⁾	1964	69才	男	上 腕	◎		○	生存	
5	阿部 ³⁾	1964	27才	男	耳下腺部	△	○	○	死亡	2 年 3 ヶ月
6	宮崎 ⁹⁾	1964	1 才 3 ヶ月	女	腋 か	◎	○		死亡	7 年 5 ヶ月
7	岩下 ¹⁰⁾	1965	20才	女	前 腕	○			生存	
8	伊藤 ¹¹⁾	1966	52才	男	臀筋内	△			死亡	6 ヶ月
9	黒沢 ^{12) 13)}	1967	13才	女	後腹膜	△	○		死亡	4 ヶ月
10	岩浅 ¹⁴⁾	1967	不 詳	不詳	後腹膜		不詳		不詳	
11	服部 ^{15) 16) 17)}	1968	15才	男	肝	△			死亡	1 年
12	赤松 ¹⁸⁾	1969	8 才	男	脛 骨		不詳		不詳	
13	村上 ¹⁹⁾	1970	11 ヶ月	女	卵巣~後腹膜	△	○	○	死亡	7 ヶ月
14	片桐 ²⁰⁾	1970	51才	女	乳 房	◎		○	死亡	約 17 年
15	可児 ²¹⁾	1970	21才	女	大 腿	◎			死亡	約 1 年半
16	鯨島 ²²⁾	1970	10才	男	肝	△		○	死亡	3 ヶ月
17	伊藤 ^{23) 24)}	1971	50才	女	大 腿	◎			生存	
18	菊地 ²⁵⁾	1917	68才	男	大 腿	◎	○	○	生存	
19	明石 ²⁶⁾	1972	28才	男	後腹膜	○			不詳	
20	広野 ²⁷⁾	1973	5 才	男	腹 膜	○		○	生存	
21	川山 ²⁸⁾	1973	51才	女	乳 房	○		○	生存	
22	仲 ²⁹⁾	1974	2 才 7 ヶ月	女	後腹膜 (?)	△	○	○	死亡	6 ヶ月
23	小林 ³⁰⁾	1974	16才	女	後腹膜	△	○	○	死亡	3 ヶ月
24	越戸 ³¹⁾	1975	1 才 11 ヶ月	男	副 腎	○		○	不詳	
25	森田 ³²⁾	1975	65才	女	後腹膜	△			死亡	6 ヶ月
26	牛込 ³³⁾	1976	20才	女	肝	○			不詳	
27	青木 ³⁴⁾	1976	19才	女	骨盤腔壁	◎			死亡	4 ヶ月
28	榎本	1978	19才	女	顎下部	◎	○	○	生存	

手術: △姑息の手術 ○根治的腫瘍摘出術 ◎再発した例

表2 発症年齢

年 令	例 数
0 ～ 10	8
11 ～ 20	8
21 ～ 30	4
31 ～ 40	0
41 ～ 50	1
51 ～ 60	3
61 ～	3
不 詳	1
計	28

表3 発生部位 (Stout 1967)

Location	Total Number	%
Lower Extremity	89	44
Upper Extremity	35	17
Retroperitoneum	25	12
Anterior Torso	21	10
Head and Neck	11	5
Posterior Torso	10	5
Orbit	6	3
Mediastinum	4	2
Total	201	

場合2：1で男に多く、大人では男女間に差がないとしている。本邦例でも、男12、女15、不詳1であり男女差は認められなかった。

発症年齢は、表2に示すように、0～10才8例、11～20才8例、21～30才4例、31～40才なし、41～50才1例、51～60才3例、61才以上3例で20才以下に多い。

発生部位は、Stout の報告³⁾(表3)によれば、201例中、最も多いのが下肢の89例(44%)で、以下多い順に、上肢35例、後腹膜25例、腹部21例などであり、本症例のように頭頸部に発生した者は11例(5%)しかない。本邦例では表4に示すように、後腹膜が最も多く9例32% 下肢4例14%、頭頸部は肝、上肢と同様の頻度で3例11%であった。

臨床症状は、その発生部位によって種々であ

表4 発生部位 (本邦例)

発生部位	症例数	%
後 腹 膜	9	32
下 肢	4	14
上 肢	3	11
肝	3	11
頭 頸 部	3	11
そ の 他	5	18
不 詳	1	4
計	28	

表5 手術による治療の内訳

姑息的手術 (試験開腹術なども含む)	9
根治的腫瘍摘出術	17
再発例 (再発率 53%)	(9)
不 詳	2
計	28

表6 予 後

死 亡	16
生 存	7
不 詳	5
計	28

るが、自験例のように、その部の腫脹のみが主症状であり、疼痛などの症状のないことが多い。

組織学的には、Stout¹⁾によれば、横紋筋肉腫、血管肉腫、平滑筋肉腫、脂肪肉腫、軟骨肉腫などが多く、細網肉腫、骨肉腫、粘液肉腫などがそれに続く。本邦例では、線維肉腫、脂肪肉腫、軟骨肉腫、横紋筋肉腫、平滑筋肉腫、骨肉腫、血管外皮細胞腫が多く、著者例は、線維肉腫、脂肪肉腫、血管内皮細胞腫、平滑筋腫への分化を示す組織像であった。

治療に関してであるが、表5に示すように、初診時すでに根治的腫瘍摘出術を行い得ない症例が多く、また、行い得ても再発する例が多く、再発率は53%にものぼる。Stout²⁾は5 cm以下の腫瘍では13例中4例(31%再発し、5 cm以

上では 9 例中 8 例 (89%) も再発したと報告している。さらに、放射線療法や化学療法 (エンドキサン, MMC, ビンクリスチン, ナイトロミン, その他) が行われているが感受性が低く効果的でなく, 手術による完全摘出のみが手段である現状である。

結 語

19才女子の右顎下部に発生した malignant mesenchymoma を経験したので若干の文献的考察を加え報告した。

文

- 1) Stout, A. P.: Mesenchymoma, the mixed tumor of mesenchymal derivatives. Ann. Surg. 127: 278~290, 1948.
- 2) Nash, A., Stout, A. P.: Malignant mesenchymoma in children. Cancer 14: 524~533, 1961.
- 3) Stout, A. P., Latters, P.: Tumor of the soft tissues. AFIP, Washington, D.C. 2-1: 172~175, 1967.
- 4) 石川栄世, 新井昭雄, 田口舜一, 児玉政男: 後腹膜より発生した Malignant mesenchymoma. 臨床病理 6: 148~151, 1958.
- 5) 東大医学部木本外科教室: 後腹膜腫瘍について. 外科診療 3: 1222~1230, 1961.
- 6) 佐野量造: 悪性間葉腫 (Malignant mesenchymoma) の 1 剖検例. 青森県病誌 7: 61~65, 1962.
- 7) 堀浩, 宮高進, 吉年昌三, 北村旦, 中村平, 鹿子木貞夫: 成人男子の上腕部に発生した Stout の所謂 Mesenchymoma の 1 例. 奈良医誌 15: 294~296, 1964.
- 8) 阿部力哉, 高橋希一, 佐藤定見: 動静脈瘻を形成した耳下腺悪性間葉腫 malignant Mesenchymoma の 1 症例. 癌の臨床 10: 762~765, 1964.
- 9) 宮崎通城: 悪性軟部腫瘍に関する研究. 日整会誌 38: 395~421, 1994.
- 10) 岩下圭一, 富谷潤, 今井清勝: 前腕に発生した Mesenchymoma と思われる 1 例. 日整会誌 39: 936, 1965.
- 11) 伊藤紀克, 三浦武, 川上和彦, 西田一己: 高度の

献

- 粘液腫様化を示した悪性間葉腫の 1 剖検例. 医学のあゆみ 59: 489~490, 1966.
- 12) 黒沢恭子: Malignant Mesenchymoma の 1 例 小児科診療 30: 1023, 1967.
 - 13) 黒沢恭子: Malignant Mesenchymoma の 1 剖検例. 小児科診療 39: 85~89, 1976.
 - 14) 岩浅茂夫, 曾田益弘: Mesenchymoma の 1 例. 岡山医誌 79: 538, 1967.
 - 15) 服部信, 有馬道雄, 熊岡夾一, 木村禧代二, 長谷川博, 渡辺裕, 石川七郎, 佐野量造, 広田映五, 大星章一, 森井浩世, 井林博, 坂口勲: 著明な高 Ca 血症を伴った巨大な肝臓の悪性 Mesenchymoma の 1 例. 日本臨床 26: 2049~2051, 1968.
 - 16) 佐野量造, 大星章一, 下里幸雄, 広田映五, 片桐一, 牛込新一郎, 馬場謙介, 服部信, 長谷川博: 高カルシウム血症を伴った肝悪性間葉腫の 1 剖検例. 医学のあゆみ 70: 81~82, 1969.
 - 17) 長谷川博, 服部信: 高カルシウム血症を伴った肝の悪性 Mesenchymoma の 1 例. 肝臓 9: 466, 1968.
 - 18) 赤松功也, 大沢欣式, 菅正隆: Primary malignant mesenchymoma of bone の 1 例. 整形外科 43: 85, 1969.
 - 19) 村上基千代, 平本忠憲: Malignant Mesenchymoma. 小児科 11: 1086~1087, 1970.
 - 20) 片桐秀昭, 三上次郎, 金子仁: Malignant Mesenchymoma の 1 剖検例. 日内会誌 59: 304, 1970.
 - 21) 可児弘美, 石井宏典, 和田和代史: 右大腿部に発

- 生した Malignant Mesenchymoma の1剖検例. 大阪医大誌 29: 233~240, 1970.
- 22) 鮫島夏樹, 田辺達三, 清田典宏, 中島進, 池田久美, 小室勝利: 小児の肝悪性間葉腫の1症例. 日小外誌 6: 167~171, 1970.
- 23) 伊藤素之, 面川利皓, 小田桐充孝, 張間行直, 阿部広介, 佐々木昭: Malignant mesenchymoma (Stout) の1例. 弘前医学 23: 146, 1971.
- 24) 面川利皓, 伊藤素之, 佐々木昭, 船場泰文, 菊地正教, 高谷彦一郎: 悪性間葉腫の1例. 青県病誌 16: 109~116, 1971.
- 25) 菊地芳彦, 後藤守, 山脇慎辺: Malignant Mesenchymoma の1例. 北海道整災害外科誌 16: 129~130, 1971.
- 26) 明石孝幸, 中西昌美, 佐野文男, 西村昭男: Mesenchymoma の1治験例. 北海道外科雑誌 17: 147~148, 1972.
- 27) 広野禎介, 日比輝彦, 泉二郎, 村田勇: 小児 malignant mesenchymoma の1例. 十全医学会雑誌 82: 328, 1973.
- 28) 川山照雄, 下段光裕, 西村亘, 渡辺節夫, 佐伯尚白松幸爾, 戸塚守夫, 室谷光三: 乳房 malignant mesenchymoma の1例. 日臨外医会誌 34: 49~52, 1973.
- 29) 仲綾子, 伊藤哲夫, 白井俊一, 松本三郎: 悪性間葉腫を伴った神経節芽細胞腫の1剖検例. 北海道医学雑誌 49: 167~168, 1974.
- 30) 小林政美, 遠藤光夫, 木下裕宏, 井手博子, 原宣: Malignant mesenchymoma の1例. 東女医大誌 44: 1006~1010, 1974.
- 31) 越中克和: 小児副腎悪性間葉腫の1例. 日泌尿会誌 66: 279, 1975.
- 32) 森田哲, 笹川美年子, 鮫島美子, 塩田登志也, 北島拓弥: 著明な肝転移をきたした後腹膜原発悪性間葉腫の1例. 日本消外会誌 72: 1344~1345, 1975.
- 33) 牛込新一郎, 田所衛, 及川恵子, 出月康夫, 金杉和夫: 肝原発の悪性間葉腫例の細胞診. 日本臨床細胞学会雑誌 15: 288~289, 1976.
- 34) 青木陽一郎, 林雄三, 横山吉宏, 松村豪晃: 19才女性の骨盤腔に見られた悪性間葉腫 (malignant mesenchymoma) の1剖検例. 広島医学 29: 737~738, 1976.

原稿到着: 昭和53年4月6日
別刷請求先: 榎本雅夫
〒640 和歌山市小松原通4-1
和歌山赤十字病院耳鼻咽喉科