側頭骨に発生した軟骨芽細胞腫例

三谷 知生・星川 広史*・藤原 聖子・森 望

Chondroblastoma of the Temporal Bone

Tomoo Mitani, Seiko Fujiwara and Nozomu Mori

(Kagawa University)

Hiroshi Hoshikawa

(Takamatsu Red Cross Hospital)

Chondroblastoma is a rare tumor of the bone that represents approximately 1% of all primary bone tumors. This tumor frequently grows within the epiphysis of long bones, and, very rarely, in the temporal bone.

We report a case of chondroblastoma of the temporal bone and discuss the clinical features, histopathological findings, differential diagnosis and treatment.

Key words : chondroblastoma, temporal bone, diagnosis

はじめに

軟骨芽細胞腫は原発性骨腫瘍の約1%を占める腫瘍で、長管骨の骨端部に好発する。頭蓋骨に発生することはきわめてまれであり、全体の6.8%とされている¹⁾。今回、われわれは側頭骨に発生した本腫瘍の1例を経験したので文献的考察を含めて報告する。

症 例

症例：36歳，男性。

主訴：右頬部腫脹，開口時痛，開口障害。

既往歴：平成13年10月，右鼓膜チューブ挿入。

現病歴：平成12年頃より上記症状があり，徐々に増悪してきたため平成13年8月，近医耳鼻咽喉科を受診し，局所麻酔下の生検にて巨細胞腫との診断で経過観察されていたが，平成14年6月19日セカンドオピニオンを求めて当科を受診した。

現症：右耳前部に弾性硬の5cm大の腫瘤を触れた。可動性，圧痛はなかった。開口2.5cmで制限があった。右

耳内に鼓膜チューブを認めた。その他耳鼻咽喉科領域に異常所見はなく，神経学的異常所見も認めなかった。

画像所見：CT上，造影効果を認める長径5.5cmの腫瘍が下顎骨の関節突起をとりまくように進展し，側頭骨を破壊して頭蓋内へ突出している（図1）。3D-CTでは側頭骨鱗部の下顎窩を中心に骨破壊を認めた。頬骨弓の基部も欠損していた（図2）。MRI上，腫瘍はT1で低信号，T2で不均一な等信号であり，Gdでやや増強されていた。硬膜浸潤は疑われたが，明らかな脳内への浸潤は認めなかった（図3）。血管造影では外頸動脈から栄養される淡い腫瘍陰影を認めた。Tcシンチでは側頭骨のみに集積を認めた。

経過：右耳前部より局所麻酔下に生検を施行したところ，巨細胞腫と診断され，後日全身麻酔下に側頭下窩アプローチによる摘出術を施行した。皮膚切開は前頭部から右側頭部にかけて冠状切開で行い，下方は右耳前部まで延長した。側頭筋と切断した頬骨弓を下方に翻転し，腫瘍の上方に接した側頭骨鱗部をクラニオトムにて脛

図 1 造影 CT (軸位断)
腫瘍は造影効果を認めた (矢印).

図 2 3D-CT
側頭骨鱗部の下顎窩を中心に骨破壊を認めた (矢印).

図 3 造影 MRI (冠状断)
硬膜浸潤が疑われたが明らかな脳内への浸潤は認めなかった (▽印).

図 4 術後 6 ヶ月の造影 MRI (冠状断)
矢印は充填した側頭筋.

円形に開頭することによって腫瘍を明視下に置いた。腫瘍は茶褐色で軟らかく、一塊での摘出は困難であった。腫瘍近傍の側頭骨はやや暗赤色に変色し、びらん状であった。下顎骨の関節突起や関節包は破壊を認めなかったが、下顎窩周辺が最も骨破壊が強く、この辺りが発生日部位であると思われた。腫瘍が硬膜に浸潤した部分は可及的に切除し、断端をバイポーラにて焼灼し、硬膜は温存した。肉眼的には腫瘍のすべてを搔爬した。創腔には側頭筋弁を充填し、手術を終了した。術後は開口 3.5 cm まで改善し、開口時痛もなくなった。術後 6 ヶ月の MRI で再発を認めていない (図 4)。

病理組織所見：多数の多核巨細胞の浸潤と、紡錘形～類円形の腫瘍細胞 (図 5a) が認められ、一部に軟骨形成 (図 5b) やチキンワイヤー状の石灰化 (図 5c) といわれる特徴的な所見がみられた。二次性的変化と思われるヘモジデリンの沈着や動脈瘤様骨嚢腫様変化が広範囲に認められた。腫瘍細胞は S-100 蛋白に陽性であった (図 5d)。以上のことより軟骨芽細胞腫と診断した。

考 察

軟骨芽細胞腫は 1928 年 Ewing により calcifying giant cell tumor と名付けられ、巨細胞腫の一亜型とされていたが、1942 年 Jaffe と Lichtenstein により benign chondroblastoma と名付けられ、巨細胞腫と区別されるようになった²⁾。それ以来、本邦での側頭骨原発例は今回の 1 例を含めて現在まで 16 例の報告がある^{3)~17)}。

好発年齢は、側頭骨原発の場合 30 ~ 40 歳代といわれ、長管骨原発の 10 歳代と比べると高い傾向にある¹⁾⁶⁾¹²⁾¹⁵⁾。

図5 病理組織所見 (a～c: HE 染色, d: 免疫染色)

- a: 多数の多核巨細胞の浸潤と、紡錘形～類円形の腫瘍細胞を認めた. (×400)
 b: 一部に軟骨形成を認めた (矢印). (×100)
 c: チキンワイヤー状といわれる細胞周囲の石灰化が一部に認められた (矢印). (×400)
 d: 腫瘍細胞は S-100 蛋白に陽性であった. (×400)

性差は男女比 2:1 と報告されている¹⁾。症状は側頭骨原発の場合、局所の腫脹、疼痛のほか、難聴、耳鳴なども多くみられ¹⁵⁾¹⁶⁾、今回の症例でも腫瘍が耳管を圧迫することによる滲出性中耳炎を生じ、鼓膜チューブ挿入が行われた。また、頭蓋内へ進展した場合には痙攣発作や頭蓋内圧亢進症状がみられ¹⁸⁾、本症例のように頭蓋底より下方に進展した場合は開口障害を生じうる。

病理組織像は、切れ込みのある円形～類円形の核を持った腫瘍細胞の密な増生と、多数の破骨細胞型多核巨細胞の浸潤が特徴的である。また、細胞周囲が石灰化し、金網状になったチキンワイヤー状の石灰化や、軟骨島の形成も本疾患に特徴的な所見である。免疫組織化学的に

は腫瘍細胞が S-100 蛋白に陽性であり、診断に重要である。鑑別診断には巨細胞腫、動脈瘤様骨嚢腫、軟骨肉腫、巨細胞性修復肉芽腫などがあるが、典型例では光顕レベルで診断可能である⁶⁾。しかし側頭骨原発のものは長管骨原発と比べて二次性のヘモジデリン沈着や動脈瘤様骨嚢腫様の変化が目立つようになり、診断に苦慮する場合もある⁶⁾¹⁶⁾。本症例も最初の生検時には巨細胞腫と診断され、摘出後の病理組織所見より確定診断に至った。やはり二次性の変化が目立ち、先述した典型的な所見は一部に認めるのみであった。このような場合は S-100 蛋白の証明が診断確定に有用であると思われる。

治療方針は一般的に可及的な局所切除で十分とされて

いる⁶⁾¹⁹⁾²⁰⁾。全摘するのが望ましいが、側頭骨原発では解剖学的に全摘が難しく、搔爬が行われることも多い。術後の再発率はやはり全摘に比べて搔爬の方が高く、吉田ら¹⁰⁾の統計によると、搔爬を行った14例では6例(43%)に再発がみられたが、全摘を行った15例では再発は3例(20%)と、搔爬の方が再発が約2倍多い。また34例中の再発は10例(29%)であったと報告されている。比較的再発率が高く、特に本症例のように搔爬を行った場合は嚴重な経過観察が必要であると思われる。放射線治療には感受性はあるものの、照射後の肉腫発生も多数報告されているため第1選択にはならず、手術不能例で考慮される⁹⁾。都志見ら⁶⁾の統計によると、再発した9例中、拡大手術が2例(22%)、搔爬ないし腫瘍摘出が6例(67%) (そのうち2例で外照射併用)、手術不可が1例(11%)と報告されており、再発時には手術治療を選択し、手術が困難な例では放射線治療を考慮するのが良いと思われる。側頭骨原発では遠隔転移の報告はないが、四肢、体幹骨原発のもので遠隔転移の報告もあるため⁶⁾²⁰⁾、長期の経過観察が必要である。

ま と め

1. 側頭骨に発生した軟骨芽細胞腫の1例を経験した。
2. チキンワイヤー状の石灰化、軟骨島の形成、S-100蛋白の証明等の特徴的な組織所見が診断確定のために有用である。
3. 治療は手術による摘出が第1選択であり、術後の長期の経過観察が必要である。

本論文の要旨は日本耳鼻咽喉科学会第29回四国四県地方部会連合会(平成15年6月15日、松山)にて口演した。

参考文献

- 1) Kurt AM, Unni KK, Sim FH, et al. : Chondroblastoma of bone. *Human Pathol* 20 : 965 ~ 976, 1989.
- 2) Jaffe HL and Lichtenstein L : Benign chondroblastoma of bone; a reinterpretation of the so called calcifying or chondromatous giant cell tumor. *Am J Pathol* 18 : 969 ~ 991, 1942.
- 3) Tanohata K, Noda M, Katoh H, et al. : Chondroblastoma of temporal bone. *Neuroradiology* 28 : 367 ~ 370, 1986.
- 4) 吉村恵理子, 奥野妙子, 原田勇彦, 他 : 側頭骨 Chondroblastoma の1症例. *耳鼻喉頭* 60 : 119 ~ 123, 1988.
- 5) 内藤恵理, 八木伸也, 内藤 泰, 他 : 側頭骨 chondroblastoma の一例. *耳鼻臨床* 81 : 805 ~ 810, 1988.
- 6) 都志見格, 森山 寛, 金子省三, 他 : 側頭骨に発生した軟骨芽細胞腫—病理組織学的知見を中心に—. *耳展* 33 : 131 ~ 138, 1990.
- 7) 小川 郁, 神崎 仁, 佐藤彰芳, 他 : 側頭骨軟骨芽細胞腫の一症例. *Otol Jpn* 1 : 49 ~ 53, 1991.
- 8) 田中久哉, 村田清高, 木村裕毅, 他 : 顔面神経麻痺を示した側頭骨軟骨芽細胞腫例. *耳鼻臨床* 85 : 41 ~ 47, 1992.
- 9) 成田善孝, 森本 正, 西川 亮, 他 : 側頭骨 chondroblastoma の1例—自験例1例と54例の文献的考察—. *脳神経* 44 : 143 ~ 148, 1992.
- 10) 吉田和秀, 渡辺徳武, 重見英男, 他 : 側頭骨軟骨芽細胞腫の1症例. *Otol Jpn* 4 : 283 ~ 287, 1994.
- 11) 久保長生, 高倉公朋 : 側頭骨 chondroblastoma の一例. *Clinical Neuroscience* 12 : 1056 ~ 1057, 1994.
- 12) 清水 純, 海渡信義, 秋葉洋一, 他 : 側頭骨原発 chondroblastoma の1治験例. *脳外* 25 : 555 ~ 559, 1997.
- 13) 立山 尚, 多田豊曠, 中村隆昭, 他 : 側頭骨に発生した軟骨芽細胞腫の1例. *日本臨床細胞学会* 37 : 91 ~ 95, 1998.
- 14) 中原哲朗, 古川 顕, 高桜竜太郎, 他 : 側頭骨に発生した軟骨芽細胞腫の一例. *臨床MRI* 10 : 69 ~ 73, 1999.
- 15) 金澤隆三郎, 山王なほ子, 水谷暢秀, 他 : 側頭骨に発生した chondroblastoma の一治験例. *CI研究* 23 : 275 ~ 279, 2001.
- 16) 山下理子, 広川満良, 佐野壽昭, 他 : 二次性変化を伴った側頭骨軟骨芽細胞腫の1例. *診断病理* 19 : 11 ~ 14, 2002.
- 17) Ishikawa E, Tsuboi K, Onizawa K, et al. : Chondroblastoma of the temporal base with high mitotic activity. *Neurol Med Chir (Tokyo)* 42 : 516 ~ 520, 2002.
- 18) 三宅裕治, 端 和夫, 任 清, 他 : 頭蓋内良性軟骨芽細胞腫の1例. *脳外* 12 : 419 ~ 425, 1984.
- 19) Flowers CH, Rodriguez J, Naseem M, et al. : MR of Benign chondroblastoma of the temporal bone. *AJNR Am J Neuroradiol* 16 : 414 ~ 416, 1995.
- 20) Dahlin DC and Ivins JC : Benign chondroblastoma; a study of 125 cases. *Cancer* 30 : 401 ~ 413, 1972.

原稿受付 : 平成15年11月17日
 原稿採択 : 平成16年1月14日
 別刷請求先 : 三谷知生
 〒761-0793 香川県木田郡三木町池戸1750-1
 香川大学医学部耳鼻咽喉科学教室