舌に発生した滑膜肉腫の1例

三宅 伸之・高橋 宏幸*・藤原 裕美*
田代 亨・岩田 和宏*・竹林 脩文*

Synovial Sarcoma of the Tongue

Nobuyuki Miyake and Toru Tashiro

(Hiroshima University School of Medicine)

Hiroyuki Takahashi, Yumi Fujihara, Kazuhiro Iwata and Shubun Takebayashi

(Hiroshima Prefectural Hospital)

Synovial sarcomas of the head and neck are extremely rare. A review of the literature revealed only 8 cases of synovial sarcomas in the head and neck in Japan.

We experienced the case a patient with a synovial sarcoma of the tongue. The patient was a 47-year-old man whose chief complaint was pain of the tongue. MRI revealed a high intensity mass in the tongue measuring $6 \times 5 \times 4$ cm in size. The initial histological diagnosis based on a biopsy specimen was an acinic cell carcinoma. Chemotherapy turned out to be ineffective, and surgical resection was then performed. A postoperative microscopic examination of the tumor showed both epithelioid cells and spindle cells. Immunohistochemically, the epithelioid cells were keratin immuno-positive, whereas the spindle cells were vimentin immunoreactive. On the basis of these findings, the tumor was diagnosed as the biphasic type of synovial sarcoma. The patient underwent postoperative radiotherapy, and has had no recurrence or metastasis at present.

Key words : synovial sarcoma, tongue, biphasic type

はじめに

滑膜肉腫は軟部悪性腫瘍の約10%を占め、四肢の関節周囲に発生することが多いが、頭頸部領域に発生することはきわめてまれである。本腫瘍は従来は滑膜由来と考えられ、現在まで滑膜肉腫の名称が用いられている。しかし滑膜には上皮性分化は見出せないことから、現在では滑膜組織由来ではなく未分化な間葉組織が腫瘍化に伴い上皮性分化を示したものではないかと推測されている¹⁾。

今回我々は、舌に発生した滑膜肉腫の1例を経験したのでこれを報告する。

症 例

症例：47歳，男性。

主訴：舌痛。

家族歴，既往歴：特記事項なし。

現病歴：平成8年11月頃から舌痛が出現。痛みが持続し構音障害も生じたため、平成8年12月25日県立広島病院耳鼻科初診となった。

初診時所見：左舌下面に二横指大の比較的軟らかい表面平滑な腫瘤を認めた。頸部リンパ節は触知せず。その他の耳鼻咽喉には異常所見を認めなかった。腫瘤部分の穿刺吸引では、少量の血液のみ吸引された。舌に発生した血腫や血管腫を疑い、諸検査施行した。

検査所見：平成9年1月17日に施行した頭頸部CT検査では、歯冠によるアーチファクトのため舌の描出不能で、MRI検査の予約をした。

平成9年1月後半から舌腫瘍の増大傾向あり、舌の前半分ほとんどを硬結として触知するようになった。

平成9年2月19日に頭頸部MRI検査を施行。MRI T2強調画像で、舌に約6×5×4 cmの高信号の腫瘍を認めた(図1)。T1強調画像ではやや高信号であり、ガドリニウムで造影された。腫瘍は前方では下顎骨に近接しており、いくつかに分葉しているように思われた。

平成9年2月25日腫瘍部分の生検を施行し、acinic cell carcinoma (腺房細胞癌)の疑いとの病理診断であった。

腫瘍の増大により経口摂取困難となったため、平成9年2月26日当科入院となった。

入院時検査では、血液検査、胸部レントゲンともに異常所見を認めなかった。Gaシンチグラムでは、舌と両下顎部に異常集積を認めた(図2)。

入院時、舌腫瘍は触診上表面に凹凸なく平滑で弾性硬

図1 MRI (T2強調画像, 矢状断)
舌に高信号領域を認めた。

図2 Gaシンチグラム
舌と両下顎部に異常集積を認めた。

であった。

入院後経過：平成9年3月19日から化学療法を施行。白金製剤のネダプラチン(アクプラ[®])を120 mg, 5FUを1000 mg×5日間持続点滴静注した。しかし腫瘍の縮小はなく、むしろ増大傾向で口呼吸も困難となってきたため、平成9年4月3日気管切開術を施行。平成9年4月10日全身麻酔下で腫瘍摘出手術を施行した。

手術所見：入院後の3月初めから触診上、左頸部にリンパ節を触知するようになったため、まず左保存的頸部郭清を行い、続いて舌腫瘍を摘出した。

下顎骨を正中断すると、薄い被膜に包まれた腫瘍が露出した(図3)。当初は舌全摘を予定していたが、腫瘍が

図3 術中所見
薄い被膜に包まれた腫瘍(矢印)を認めた。

よく被膜化され周囲との剥離が容易であったため、腫瘍のみを摘出することに方針を変更した。舌を正中で粘膜切開し、粘膜下の腫瘍を被膜上で剥離。舌背では一部粘膜をつけて一塊として摘出した。

腫瘍の大きさは $6 \times 5 \times 4.5$ cm で、弾性硬、表面不整で充実性、割面が黄褐色粥状であった(図4)。舌を縫縮、下顎骨を正中でミニプレートにて固定し手術終了した。

病理組織：摘出した舌腫瘍のHE染色では、表面被覆性に存在する上皮性成分と、上皮下に存在する紡錘形細胞からなる間葉性成分の2者を認め、細胞異型と核分裂像を認めた(図5)。免疫染色では、上皮成分はケラチン陽性、間質成分はビメンチン陽性であった。以上より滑膜肉腫と診断された。なお、左頸部組織の病理組織検

図4 摘出標本

被膜を有する弾性硬、充実性腫瘍であった。

図5 病理組織像(HE染色 ×100)

表面被覆性に存在する上皮性成分と、上皮下に存在する紡錘形細胞からなる間葉性成分の2者を認めた。

査では明らかな転移は認めなかった。

術後経過：術後18日の平成9年4月28日から経口摂取可能となり、呼吸困難も消失したため、平成9年5月5日気管孔を閉鎖した。構音も日常生活には支障を認めない程度となった。

術後約1カ月の平成9年5月6日から6月10日まで術後の補助療法として ^{60}Co の放射線療法25回計50 Gyを施行。平成9年6月29日退院となった。

退院後は外来で経過観察中であるが、術後約1年経った現在、腫瘍の明らかな再発および転移は認めていない。

考 察

滑膜肉腫は、主に四肢の関節近傍に発生する軟部悪性腫瘍で、軟部悪性腫瘍の4～10%を占め、特に下肢に好発する²⁾。頭頸部領域での報告は数少なく、本邦では我が国が検索し得た範囲では8例^{3)~10)}のみであった(表1)。

頭頸部領域においてRothら¹¹⁾は頸椎前部に多く発生すると報告している。年齢的には小児より老人に至る広い年齢層に発生するが30歳代がもっとも多い²⁾。

臨床症状としては、頭頸部領域では嚥下障害や呼吸困難を伴うことがある¹²⁾。疼痛は腫瘍の大きさや広がりによって異なる²⁾。本症例では舌に巨大な腫瘍が発生し、舌痛、構音障害、嚥下障害、呼吸困難が出現した。

検査所見として、臨床生化学所見に特徴的なものはないが、単純X線検査で明瞭な軟部腫瘍陰影として認められることが多く、しばしばその中心部に石灰沈着をみる。血管造影では富血行性でpooling, A-V shunt, tumor stainなどの悪性所見がみられる²⁾。本症例では腫瘍部は

表1 本邦における報告例

報告者	年齢	性別	部 位	治 療
宇野ら ³⁾	12	男	喉 頭 (披裂部)	外科的切除・化学療法
水城ら ⁴⁾	42	女	翼突下顎隙	外科的切除・化学療法 放射線療法
若林ら ⁵⁾	36	男	頤下部	外科的切除
川田ら ⁶⁾	28	男	副咽頭	外科的切除・化学療法
松井ら ⁷⁾	14	女	下咽頭 (輪状後部)	外科的切除
中尾ら ⁸⁾	81	女	副咽頭	外科的切除
田辺ら ⁹⁾	72	男	第2頸椎	外科的切除・化学療法
音田ら ¹⁰⁾	38	男	頤 部	外科的切除・化学療法

(田辺牧人, 他: 1995⁹⁾ より改変)

MRI T1 強調画像でやや高信号, T2 強調画像で高信号, ガドリニウムで造影され, Ga シンチでは腫瘍部に異常集積を認めた.

病理学的所見としては, 立方形または円柱状の上皮様細胞と線維肉腫様の紡錘形細胞の二種の細胞が存在する二相型と, 上皮様細胞と紡錘形細胞のいずれか一方が腫瘍の大部分を占める単相型とがある. 上皮様細胞の部分には, 細胞が管腔様の間隙や嚢胞を囲んでいる¹³⁾. 紡錘形細胞の部分には, 細胞は充実性で束状に配列している. 免疫染色で上皮様細胞の部分にはケラチン陽性に, 上皮様細胞の部分にはビメンチン陽性となる¹⁴⁾. 本腫瘍を組織学的に診断するのは難しく, 本症例でも外来の生検組織からは上皮性腫瘍の腺癌細胞癌との病理診断であったが, 手術による切除組織により上皮様組織と肉腫様組織の混在が指摘され滑膜肉腫(二相型)との診断がなされた.

滑膜肉腫の治療法は外科的切除が第一選択であり, 健康組織を含めた広範切除が原則である¹²⁾. 放射線療法については有効性は不明であるが, これを手術と併用した方がよいとする報告もある¹⁵⁾. 化学療法についても有効性は不明であるが, CYVADIC 療法 (VCR, ADM, DTIC, CPM) がある程度有効であったとする報告もある¹⁶⁾. 本症例では外来での生検で腺癌細胞癌との病理診断で, まず腫瘍の縮小をはかるため術前化学療法を施行した. 手術での切除組織で滑膜肉腫との病理診断であったため, 術後放射線療法を追加した.

滑膜肉腫は一般に腫瘍の発育は緩徐であるが, 血行性に肺転移を起こすことが多い. 症例の60~70%が後になって転移をきたすとされており¹⁷⁾, そのため予後は一般に不良で, Enzinger ら¹²⁾は5年生存率は45%, 10年生存率は16%と報告をしている.

なお本腫瘍の由来組織としては, 前述のように未分化な間葉組織ではないかと推測されている. 本症例も本来滑膜の存在しない部位からの発生例であった.

まとめ

1) 頭頸部領域ではまれである舌に発生した滑膜肉腫の1例を経験したので報告した.

2) 術前化学療法では腫瘍の縮小はなく, 全身麻酔下で腫瘍摘出手術を施行. 術後に放射線療法を施行した.

3) 外来での生検組織では確定診断が得られず, 病理組織学的に診断が難しい腫瘍であった.

4) 症例の過半数が後になって転移をきたすとされて

おり, 今後長期の経過観察が必要と思われた.

本論文の要旨は第23回日本耳鼻咽喉科学会中国四国地方部会連合学会(平成9年11月, 高知)にて口演した.

参考文献

- 1) 広瀬隆則, 工藤英治: 滑膜肉腫. 病理と臨床 10: 1361~1367, 1992.
- 2) 柴田大法: 滑膜肉腫. 整形外科学総論(下巻)(伊藤鐵夫編). 812~814頁, 金原出版, 東京, 1986.
- 3) 宇野敏行, 小野寿之, 大槻晃直, 他: 喉頭より発生した滑膜肉腫(synovial sarcoma)の1症例. 耳喉頭頸 61: 567~571, 1989.
- 4) 水城春美, 戸高勝之, 松島りん太郎, 他: 翼突下顎隙に発生した滑膜肉腫の1例. 口腔腫瘍 1: 35~40, 1989.
- 5) 若林淳一, 佐藤昌明: 頤下部滑膜肉腫. 病院病理 8: 40, 1990.
- 6) 川田育二, 竹内紳一, 小佐井真, 他: 副咽頭腔に発生した滑膜肉腫の一例. 耳鼻臨床 補50: 43, 1991.
- 7) 松井伸一郎, 設楽公一, 鎌田英男, 他: 下咽頭滑膜肉腫の1例. 日気食会報 42: 189, 1991.
- 8) 中尾 泉, 鈴木 聡, 松浦正朗, 他: 右副咽頭部に発生した滑膜肉腫の1例. 日口外誌 40: 951, 1994.
- 9) 田辺牧人, 山本悦生, 大村正樹, 他: 頸部滑膜肉腫例. 耳鼻臨床 88: 759~763, 1995.
- 10) 音田 貢, 岡本和己, 安藤修二, 他: オトガイ部に生じた滑膜肉腫の1例. 日口外誌 42: 521~523, 1996.
- 11) Roth JA, Enzinger FM, Tannenbaum M, et al: Synovial sarcoma of the neck; a follow up study of 24 cases. Cancer 35: 1243~1253, 1975.
- 12) Enzinger FM and Weiss SW: Synovial sarcoma. Soft Tissue Tumors 2nd ed (ed by Stamatidis G). pp 659~688, The CV Mosby Company, St. Louis, 1988.
- 13) 大野藤吾, 二ノ宮節夫, 吉川靖三, 他: 滑膜肉腫. 臨床整形外科学 5 疾患編. 204~206頁, 中外医学社, 東京, 1988.
- 14) Leader M, Patel J, Collins M, et al: Synovial sarcomas true carcinosarcomas? Cancer 59: 2096~2098, 1987.
- 15) 石田俊武, 大向孝良, 高見勝次, 他: 軟部悪性腫瘍に対する放射線療法・化学療法・免疫療法の併用下での, 非根治的外科療法の適応について. 整形外科 40: 1001~1010, 1989.
- 16) 松本誠一, 川口智義, 真鍋 淳, 他: 軟部肉腫における化学療法の意義 —単独施設における14年間の症例の検討—. 臨整形 30: 1377~1382, 1995.
- 17) 福馬久俊: 滑膜肉腫. 新整形外科学(下巻)(岩原寅猪, 片山良亮編). 128~130頁, 医学書院, 東京, 1976.

(別刷請求先: 三宅伸之
〒734-8551 広島市南区霞1-2-3
広島大学医学部耳鼻咽喉科学教室)