顎下リンパ節に発生せる細網肉腫の2例

土井 尚・谷口幸治・柴田寛一・堀田 一

Two cases of reticulosarcoma on submandibular region

Takashi DOI・Koji TANIGUCHI・Kanichi SHIBATA・Hajime HOTTA

緒 言

現在、悪性リンパ腫と言われている疾患には、細網肉腫、ホジキン氏病、リンパ肉腫、濾胞性リンパ腫、未分化細胞肉腫などがあるが、本邦では、細網肉腫の発生頻度が圧倒的に多く、しかも、耳鼻咽喉科領域での報告が大半をしめ、口腔領域における発現は少ないようである。今回、われわれは、顎下リンパ節に限局発生せる細網肉腫2例を経験したのでその概要を報告し、文献的考察を加えたい。

症 例 1

患者： 65 才 男性

初 診：昭和 43 年 9 月 日

入 院：昭和 43 年 9 月 日

主 訴：左側顎下リンパ節腫脹

家族歴、既往歴：特記事項なし

現病歴：約1カ月前より左側顎下リンパ節の腫脹に気づき某歯科受診し、本院紹介され来院。初診時Ⅰの骨膜炎による顎下リンパ節腫脹と診断。抗生剤、その他投与するも効果なく、安静のため、9月 日入院する。

現症：体格栄養共に可良であり、全身の特記事項認めず。左側顎下部が小児拳大に腫脹しており、鈍痛あり。腫脹部皮膚には異常なく、境界不鮮明で触診により、母指頭大の腫瘤3個を触れる（写真1）。右側顎下部異常なし。

口腔内所見： $\frac{47}{I}$ 根尖部瘻孔形成有り。

臨床検査成績：表1のごとく異常所見認めず。

臨床診断：ⅠC₃ 慢性 Per, W. Z. によるリンパ節炎。

処置および経過：9月 日歯根端切除術施行。

9月 日 $\frac{47}{I}$ 抜歯。9月 日左側顎下リンパ節周囲の腫脹、疼痛軽減するも、硬結著変なきため、9月 日（入院8日目）顎下リンパ節腫瘍を凝固局所麻酔にて、

写真1 正面顔貌

表1 症 例 1

一般状態 BD: 164~94 mmHg P: 80
T: 36.5°C, W: 59 kg

血液検査所見

赤血球数	348×10 ⁴
白血球数	4,500
血色素量	11.3 g/dl
血小板数	22×10 ⁴
ヘマトクリット値	42%
血液像（白血球）	
Basophilic	1%
Eosinophilic	3%
Staff	6%
Segmented	54%
Lymphocyte	30%
Monocyte	6%

出血時間 2分40秒

凝固時間 開始3分40秒

終了16分00秒

尿検査所見

比 重	1.024
沈 渣	磷酸石灰(++)
糖(定性)	[-]
タンパク質(定性)	[-]
ビリルビン	[-]
ウロビリノ	[-]
ウロビリノーゲン	[加温+]

国立名古屋病院歯科口腔外科（部長 堀田 一）
Department of Dentistry and Oral Surgery, Nagoya
National Hospital (Chief: Dr. Hajime Hotta)
受付 昭和 45 年 12 月 14 日

顎下リンパ節摘出手術を施行し、病理組織学検査回答により細網肉腫と診断。内科医および放射線科との連絡のもと、外来通院にて ^{60}Co 4000 R 照射経過観察の結果、2年経過せし現在、患部および全身的になんら再発、転移らしき兆候を認めていない。

摘出物所見：(1.5×1.5×1 cm³) のもの3個で、これらはいずれも楕円形、表面平滑で、断面滑沢充実性で、茶褐色を呈し、硬度軟であった。

病理組織学的所見：正常リンパ腺構造に見られるリン

パ濾胞が、消失しておりやや瀰漫性な像で、多少突起のある細胞の増殖があるがリンパ球の混在もかなりある(写真2)。増殖細胞は、原形質に富んだリンパ球より大きい紡錘形および楕円形で核も比較的大きく楕円形を呈しており、核分割像も見られる。この細胞はリンパ腺外にも浸潤し筋肉間にも入り、一般に大きな壊死巣は作っていないが個々の細胞の崩壊傾向が強く認められる(写真3)。鍍銀染色により多数の好銀性格子状線維が、相集まって線維束をなし細網眼状を呈している(写真4)。

病理組織学的診断：Reticulum-cell sarcoma.

症 例 2

患者：[] 40才 女性

初診：昭和44年2月 [] 日。

入院：昭和44年3月 [] 日。

主訴：右側顎下リンパ節腫脹。

家族歴：特記事項なし。

既往歴：昭和41年10月、左側顎下部腫脹にて、某外科にて指頭大の皮様嚢胞と思われるものの摘出手術を受けた。

現病歴：昭和43年12月末、右側顎下部母指頭大の腫脹に気付き昭和44年2月 [] 日某外科医にて、ダメトン、マイシリンの投与12日間受けるも著変なく本院紹介されて来院。外来にて2月 [] 日より抗生剤、その他7日間投与するも反応せぬため、3月 [] 日リンパ節摘出手術のため入院する。

現症：体格栄養共に可良であり、全身的特記事項認めず。右側顎下部が拳掌大に腫脹しており、圧痛軽度で、腫脹部皮膚には異常なく境界不鮮明で触診により鶏卵大のリンパ節腫瘍1個を触る(写真5, 6)。右頸部を斜めにすると異物感増大する。左側顎下部異常なし。口腔内異常所見なし。

臨床検査成績：表2のごとく異常所見認めず。

写真2 (×100)

写真3 (×400)

写真4 鍍銀染色 (×600)

写真5 正面顔貌

写真 6 左側顔貌

表 2 症例 II

一般状態 BD: 126~80 mmHg, P: 90
T: 36.4°C, W: 52 kg

血液検査所見

赤血球数 375×10^4
白血球数 4,400
血色素量 12.0 g/dl
血小板数 26×10^4
ヘマトクリット値 40%

血液像 (白血球)

Basophilic 0%
Eosinophilic 4%
Staff 2%
Segmented 52%
Lymphocyte 32%
Monocyte 10%

出血時間 3分 00秒

凝固時間 開始 4分 50秒

終了 14分 20秒

尿検査所見

比重 1.027
沈 渣 白血球 (++) 尿酸石灰 (++)
糖 (定性) [-]
タンパク質 (定性) [-]
ビリルビン [-]
ウロビリノゲン [-]
ウロビリノーゲン [加温+]

臨床診断: 右側顎下リンパ節炎, 皮様嚢胞, リンパ節腫瘍.

処置および経過: 昭和 44 年 3 月 日, 局所麻酔にて, 顎下リンパ節摘出手術を施行し, 病理組織学検査回答により細網肉腫と診断. 4 月 日より ^{60}Co 照射開始する. 予定線量 3000~4000 R, 19 日照射回数 17 回にて 4000 R に達したので照射終了する. ^{60}Co 治療期間中 X-ray 火傷を認めたが, 週 1 回の血液検査所見には異常認めず, 5 月 日退院. 外来通院させ経過観察の結

果 1 年 6 カ月後の現在, 患部および全身的になんら再発, 転移らしき兆候を認めていない.

摘出物所見: $(3.5 \times 2.5 \times 2.0 \text{ cm}^3)$ のもの 1 個で症例 I と同様表面平滑で, 断面滑沢充実性で, 茶褐色を呈し, 硬度軟であった.

病理組織学的所見: 諸所見は前記第 1 例と同様である (写真 7, 8, 9, 10).

病理組織学的診断: Reticulum-cell sarcoma.

写真 7 (x100)

写真 8 (x400)

写真 9 鍍銀染色 (x600)

写真 10 鏡銀染色 (×600)

考 案

細網肉腫とは、造血組織である特殊な性状を持つ、細網内皮系の肉腫、つまり、悪性リンパ腫の1型であり、その歴史は高原¹⁾によれば1893年 Kundrat によって、リンパ肉芽腫より分離独立せられた Kundrat 氏リンパ肉腫においても非定型的な病理組織像を呈するものが、見出されていたが、細網内皮系より発生せる腫瘍だとは知られていなかった。1924年 Komocki²⁾ はこれに、細網腫なる名称を与え、1925年 Goormaghtigh は、細網内皮系より発生した腫瘍たることを病理組織学的に立証した。一方、骨髄性細網肉腫も、1928年 Oberling³⁾ によって、独立疾患として分類されるようになったのである。細網内皮系は、リンパ腺内、リンパ腺様組織内、骨髄内に存する。よって、リンパ性細網肉腫と骨髄性細網肉腫に分類されているが、われわれの経験せるものは、この前者であり、臨床像として、全般的に最も特徴的な点は、まずどこかのリンパ域に初発したものが、比較的短期間のうちに全身のリンパ節、リンパ組織を犯すと言うことである。発病後全身に転移するまでの日数は、種々の報告を総合するに、遅くとも1カ年内外にて転移するようである。この点われわれの2例は、第1例が、自覚後約1カ月、第2例が自覚後約3カ月に来院していることや、造血臓器の腫瘍であるため血液像に注意したが、高原⁴⁾の言う、リンパ球減少や白血球増多などの白血病様血液像を呈していなかった点からして、リンパ節腫瘍が1リンパ領域に局限せる発病初期であると考え緒方⁵⁾の分類の限局性細網肉腫であり、著明な好銀線維の増殖を来しておりこれに腫瘍細胞が密着している点から、赤崎の分類による分化型、網状型に属すると思うが、この組織型の発生頻度は最っとも高いようである。本症の種類別頻度について、赤崎^{6),7)}は細網肉腫の生検例(183例)ならびに剖検例(63例)を自己の分類法にしたがって分類したが、いずれの場合にも、リンパ性細網肉腫が、95%以上を占め、一方、木村⁸⁾の全国的に集めた網内系腫瘍(1443例)の統計成績でもやはり、リンパ

性細網肉腫が80%を占め、芝⁹⁾の症例(111例)でも79.3%は、リンパ性細網肉腫であったとしている。また、臨床的には、リンパ性細網肉腫は、顎下リンパ節に始めて見出されることが多く、口腔領域においてもリンパ性細網肉腫が大多数でその好発部位は軟口蓋および咽頭であり、腫瘍は容易に潰瘍を形成し、またリンパ節に転移を生ずるようである。初発部位について、高原⁴⁾は、40例中、口蓋扁桃15例、鼻咽腔12例、顎部7例、咽頭4例とし、赤崎^{6),7)}は顎部32例、口蓋扁桃20例、鼻腔2例とし芝⁹⁾は149例中、鼻咽腔内56例、顎部45例、塚本¹⁰⁾の92例では扁桃、鼻咽腔および咽頭が49例とし、顎部、鼻咽腔、口腔内に初発するようである。高原¹¹⁾は顎部リンパ節中に顎下リンパ節を含めているが、主に胸鎖乳突筋前縁および後縁の表在性および深在性リンパ腺であり、大塚¹²⁾らは、顎下リンパ節2%としている点からして、顎下リンパ節に初発することは、比較的まれようである。ちなみに本院他科受診せし本症の過去8年間の内訳を見ると、総数32例中、顎部20例、咽頭2例、顎下2例、その他6例であった。また、文献的には、上顎^{13)~18)}、下顎¹⁹⁾、口蓋扁桃^{20)~28)}、咽頭^{29)~31)}、鼻、副鼻腔^{32)~36)}、顎部³⁷⁾、舌根部³⁸⁾、歯肉^{39),40)}に本症を経験している報告がある。年齢の關係は、幼児から高齢者までの報告を見るが、高原⁴⁾、赤崎^{5),6)}は40~60才、塚本¹⁰⁾は60才前後に好発するとし癌年齢に多く発現すること1つの特徴であろう。われわれの2例も65才と40才で好発年齢の域であった。性別頻度について、塚本¹⁰⁾は3:1、赤崎^{6),7)}は2:1、Greifenstein⁴¹⁾は、2:1、大塚¹²⁾は2.3:1でいずれも男性罹患率が多いと述べている。われわれの2例は男女各1名であった。館石⁴²⁾は臨床的に、リンパ肉腫およびリンパ性白血病、結核性リンパ腺腫、ホジキン氏病、梅毒性リンパ腺腫、ボック氏類肉腫などとの鑑別診断は困難であり、病理組織所見によってのみ可能であるとしている。われわれもホジキン氏病をも疑ったが、組織学的にホジキン氏病は、炎症性肉芽腫であり類上皮細胞、Fibroblastが主でその間にリンパ球、プラズマ細胞、細網細胞が混じり、好酸球の増殖とSternberg氏巨細胞の存するのが特徴であり、鑑別診断は容易であった。本肉腫はX線深部照射に対する感受性がきわめて鋭敏でX線なら2000~4000Rで消退するといわれ、放射線療法が最高の治療とされているが、抗癌剤にて効果を認めている報告もあり、抗癌剤としては、アルキル化剤、Vincristine、Vinblastine、Adrenocorticosteroid Hormones、Mitomycin C、などである。しかし、放射線および、抗癌剤のいずれにも、抵抗を示し、増大し、死の転帰を取った症例を経験している報告もある。

治療法としては、Diamond⁴³⁾が提唱しているように病変が1リンパ域に単発し全身症状のないものには、外科的療法と放射線療法を行なうことを原則とし、病変の拡が

りが、今だ局所リンパ域と考えられる範囲に局限しており、全身症候のあるものとなないものがある場合には化学療法を、病変が全身に拡がり全身症候を伴うものには、1, 2 回化学療法を行ない生命の延長を図るべきであるとしており、これに順ずるべきだと思うが、芝⁹⁾らは強行に治療方針として化学療法に重点をおき他の局所療法は、補助的療法にすぎないとしているが、この相異は、今だリンパ性細網肉腫の発生、転移、蔓延する形式が確立しておらず、一中心性に発生、転移、蔓延するものならば、他の悪性腫瘍と同様、原発巣の早期発見、切除摘出という局所療法が成り立つが、多中心性に発生、蔓延するものとすれば、外科的意義は少なく、化学療法に重点を置かねばならない。しかしわれわれの症例は一中心性に発生したものと考えた。前述の点からも細網肉腫の転帰観察が最とも重要で、数多くの文献を総合すると視察期間を5年としているが、ほとんど3年以内に転移再発し死の転帰を取っており、組織型とは無関係であり5年以上の生存率はきわめて少なく、Lumb⁴⁾は3年以上生存率20%、5年以上12.5%とし、芝⁹⁾は108例中5年以上の生存者は無いとしている点からも長期生存率はきわめて低い。よってわれわれも一応、効果判定期間を5年とし、今後も経過観察するつもりである。

結 語

著者らは、65才の男性と40才の女性の顎下リンパ節に発生せる細網肉腫を経験し、外科的療法および、放射線照射療法の併用により良好な結果をえて、約2年経過せし現在、転移再発らしき症状を呈していない症例を報告した。

文 献

- 1) 高原高三：淋巴器に発生する細網肉腫症（緒方）に就て（I）。耳鼻臨床 34：779 1939.
- 2) Komocki, W.: Virchow's Arch 250: 517 1924. 1) より引用.
- 3) Oberling, Ch.: Bull Assoc France. Étud Cane 18: 259 1928. 1) より引用.
- 4) 高原高三：淋巴器に発生する細網肉腫症（緒方）に就て（Ⅲ）。耳鼻臨床 34：859 1939.
- 5) 緒方知三郎：細網内皮系統の腫瘍について。癌 33：455 1939. 1) より引用.
- 6) 赤崎兼義：細網内皮系統とその腫瘍。最新医学 7：406 1952.
- 7) 赤崎兼義：細網内皮系統とその腫瘍。日病会誌 41：1 1952.
- 8) 木村禮代二：日本における網内系腫瘍（臨床的立場から）。第3回日本網内系学会総会 1963. 12) より引用.
- 9) 芝 茂：悪性リンパ腫の化学療法。最新医学 19：2353 1964.
- 10) 塚本憲甫：癌 37：42 1943. 12) より引用.
- 11) 高原高三：淋巴器に発生する細網肉腫症（緒方）に就て（Ⅱ）。耳鼻臨床 34：867 1939.
- 12) 大塚 久：悪性リンパ腺腫症、特に細網肉腫（症）およびHodgkin 氏病の統計的組織学的観察。日病会誌 47：256 1958.
- 13) 吉尾 勝，他：上顎細網肉腫の2例。口科誌 8：365 1959.
- 14) 河田政一，他：両側上顎細網肉腫剖検例。日耳鼻 64：816 1961.
- 15) 森 健，他：上顎に生じた細網肉腫の1例。齒科月報 37：294 1963.
- 16) 今井忠治，他：上顎細網肉腫と亜急性白血病とが併発せる1症例。日口外誌 12：208 1963.
- 17) 深谷昌彦，他：細網肉腫の1例。愛知学院歯学会誌 4：89 1964.
- 18) 加藤純彦，他：悪性変化した巨大な上顎形質細胞腫。日耳鼻 70：2044 1967.
- 19) 林 翔，他：下顎に初発時主症状を呈した細網肉腫の1例。口科誌 18：195 1969.
- 20) 香山匡史，他：左口蓋扁桃に原発せる細網肉腫の1剖検例。日耳鼻 64：1476 1961.
- 21) 高橋宏明，他：再三異所再発を来したその都度X線照射が卓効を奏した細網肉腫症の1例。日耳鼻 64：554 1961.
- 22) 近藤 豊，他：扁桃細網肉腫の1症例。日耳鼻 65：99 1962.
- 23) 賀川興夫，他：扁桃細網肉腫の治験例。日耳鼻 65：44 1962.
- 24) 河辺義孝，他：口蓋扁桃細網肉腫の二症例。日耳鼻 67：927 1964.
- 25) 木村哲夫，他：組織診断難なる扁桃細網肉腫。日耳鼻 68：1631 1965.
- 26) 中村 玄，他：扁桃周囲炎を思わしめた扁桃細網肉腫の1例。日耳鼻 69：254 1966.
- 27) 原 八州雄，他：口蓋扁桃細網肉腫症例。日耳鼻 69：258, 1966.
- 28) 宮崎正徳，他：口蓋扁桃細網肉腫症例。日耳鼻 69：683 1966.
- 29) 前田 真，他：自然消失した細網肉腫の皮膚転移。日耳鼻 64：64 1961.
- 30) 森田俊男，他：最近経験せる咽頭細網肉腫の三治験例。日耳鼻 67：1499 1964.
- 31) 谷 一郎，他：咽頭細網肉腫の2症例。日耳鼻 72：842 1969.
- 32) 武内元成，他：副鼻腔細網肉腫の1剖検例。日耳鼻 64：1022 1961.
- 33) 三宅 弘，他：鼻腔より発生した細網肉腫の2症例。日耳鼻 67：1477 1964.
- 34) 不破成和，他：鼻腔より発生した細網肉腫の2症例。日耳鼻 67：1657 1964.
- 35) 長岡梧郎，他：鼻腔細網肉腫の2症例。日耳鼻 68：2416 1965.
- 36) 吉田順之助，他：耳鼻咽喉科領域における細網肉腫に関する研究（第1報）。日耳鼻 71：244 1968.
- 37) 小田雅義，他：頭頸部細網肉腫について。日耳鼻 68：1530 1965.
- 38) 森川道也，他：舌根部に原発せる細網肉腫。日耳鼻 68：1530 1965.
- 39) 高須 淳，他：肥大性歯肉炎を思わせた淋巴性細網肉腫に小骨髄芽球性白血病が併発した1例。口科誌 13：358 1964.
- 40) 河村正昭，他：肥大性歯肉炎様の歯肉腫脹を示した細網肉腫の1例。日口外誌 3：358 1964.
- 41) Greifenstein, A.: Arch Ohr-usw. Heilk 143: 189 1937.
- 42) 館石 叔：Hodgkin 氏病リンパ肉芽腫症。診断と治療 33：854 1958.

- 43) Diamond, H.D. : Clinical indications for the use of nitrogen mustard and triethylene melanine in malignant lymphomas and leukemias. Ann New York Acad Sci 68 : 974 1958. 9) より引用.
- 44) Lumb, G. : Tumors of Lymphoid Tissue. Edinburgh & London, 1954. 9) より引用.
-