下顎に発生した紡錘細胞癌の1例

内山 公男・鬼澤勝弘・岩渕博史・角田和之

A case of spindle cell carcinoma arising in the mandible

Kimio UCHIYAMA・Katsuhiro ONIZAWA・Hiroshi IWABUCHI・Kazuyuki TSUNODA

Abstract: In the past, spindle cell carcinoma was referred to by various names, but it is now classified as a subtype of squamous cell carcinoma. A very unusual case of spindle cell carcinoma arising in the mandible in a 45-year-old man is presented. Although chemotherapy and operation were performed, he died approximately 3 years after the onset of symptoms such as paresthesia of the lower lip and swelling of the cheek.

Key words: spindle cell carcinoma (紡錘細胞癌), intraosseous carcinoma (骨中心性癌), mandible (下顎)

緒 言

紡錘細胞癌は紡錘形細胞を主体とする混合性の腫瘍細胞の増殖からなり、一見肉腫を思わせる像を呈するまれな悪性腫瘍であるが、現在では扁平上皮癌の一亜型として取り扱われている¹⁾。本腫瘍の発生例の報告は、皮膚、上部消化管、口腔粘膜からのものが散見されるが、その発生頻度は低い。今回われわれは、さわめてまれな下顎に発生した紡錘細胞癌の1例を経験したので報告する。

症 例

患 者：45歳 男性。

初 診：平成6年3月■日。

主 訴：左側頬部疼痛および腫脹。

既往歴：特記事項なし。

家族歴：特記事項なし。

現病歴：平成5年7月下唇に知覚麻痺が出現し、某院耳鼻咽喉科および脳神経外科受診するも特に異常なしと診断され放置。同年10月左側頬部の腫脹および軽度の疼痛が出現し、某院口腔外科を受診した。下顎骨骨髓炎の診断にて、抗生剤を内服するも症状の改善がなかったため、翌年2月某院口腔外科に入院し精査した。病理組織検査で骨肉腫あるいは悪性線維性組織

球腫 (malignant fibrous histiocytoma, 以下 MFH と略す) と診断され、メソトレキセート (MTX) の超大量療法による化学療法を施行されたが、その効果はなかった。その後、患者の希望により3月■日紹介にて当科を受診した。

現症

全身所見：体格中等度、栄養状態良好で特記事項なし。

局所所見：顔貌所見では左側頬部の有痛性腫脹と左下唇からオトガイ部の知覚麻痺を認めた。頸部リンパ節は触知されなかった。口腔内所見では、「67」の著明な動揺と「8」部から「8」部にかけての頬側歯肉の圧痛を伴った腫脹を認めた。

画像検査所見：パノラマ X 線写真にて、「5」部下顎体部から左側下顎枝部にかけて境界不明瞭な蜂巣状 X 線透過像を認めた。CT 所見では、同部に骨破壊像を認めたが、皮質骨は下顎枝内側の一部のみ破壊されていた (写真1)。Ga シンチグラムでは、左側下顎部に集積を認めたが、他部位には異常な集積は認めなかった。

臨床診断：左側下顎骨悪性腫瘍。

処置および経過：平成6年3月■日に入院させ、疼痛軽減および生検目的に3月■日腫瘍を直接刺激し疼痛を誘発していた「67」を抜歯し、抜歯窩内に認めた腫瘍状病変を生検材料とした (写真2)。病理組織検査の結果、MFH の診断を得たため、3月■日よりアドリマイシン (ADM) 50mg/body/day を2回

国立栃木病院歯科口腔外科

(主任：内山公男)

Department of Dentistry and Oral Surgery, Tochigi National Hospital (Chief: Kimio Uchiyama)

受付日：平成8年5月20日

写真1

(上) 初診時のパノラマ X 線写真
矢印は蜂巣状 X 線透過像を示す。
(下) 初診時の CT 像
矢印は皮質骨の破壊部位を示す。

写真2 「67」 拔牙および生検時の顔
貌(上)と口腔内(下)
矢印は「67」拔牙窩内の腫瘍状病変
を示す。

写真3 生検材料の病理組織像
(上10倍, 下50倍: H-E 染色)

膠原線維が不規則に錯綜し
storioform pattern を示し, 紡錘形異
形細胞が散見される。

写真4 切除物の病理組織像

左: 腫瘍中心部 (上10倍, 下50倍: H-E 染色)
紡錘形細胞を主体とした腫瘍細胞増殖を認める。
中: 腫瘍辺縁部 (上10倍, 下50倍: H-E 染色)
強い線維化を伴った紡錘形細胞増殖を認める。
右: サイトケラチン陽性像 (上10倍, 下50倍)

写真5 腫瘍中心部で下顎骨前額断のシェーマ
と同部位の病理組織像 (弱拡大: H-E 染色)

a: 腫瘍細胞を認めない歯肉と頬粘膜
b: 腫瘍細胞を認める歯肉
c: 腫瘍と腫瘍に置換された下顎骨
d: 舌下腺

投与し, 3週間の休薬後 MTX 12g/body/1day/week を3回投与した。これを1クールとし, 術前化学療法を2クール施行した。しかし, 腫瘍を縮小させることはできず術前化学療法の効果はなかった。7月■日, 全身麻酔下で下顎半側切除術, 左全顎部郭清術および大胸筋皮弁とチタンプレートによる即時再建術を施行した。腫瘍は下顎骨内に浸潤増殖し, 一部頬部皮質骨を破壊して頬部皮下脂肪組織にもおよんでいた。術後8か月目に左中顔面部の腫脹および自発痛が出現

し局所再発を認めた。再発部の根治療法は困難と判断し、平成7年4月■日腫瘍減量術を施行し、その後リニアックを30Gy施行した。しかし、腫瘍は制御不能で平成7月8日■日腫瘍死に至った。

病理組織学的所見：生検時の病理像では、膠原線維が不規則に錯綜し storiform pattern を示し、また紡錘形異形細胞が散見され、MFH を思わせる像がみられた(写真3)。手術時の切除標本では、腫瘍中心部は紡錘形細胞を主体とした紡錘細胞癌の像を呈していた。一方辺縁部では、紡錘形細胞増殖と強い線維化を伴っており、生検時のそれと類似していたが、中心部および辺縁部ともに免疫染色でサイトケラチンに陽性を示し、本腫瘍を紡錘細胞癌と確定診断した(写真4)。腫瘍中心部の弱拡大の病理像では、下顎骨は腫瘍により置換されていたが、腫瘍細胞が存在しない歯肉が腫瘍の上方に認められた(写真5)。

考 察

紡錘細胞癌は、紡錘形細胞を主体とする混合性の腫瘍細胞増殖からなり、肉腫様像を呈するまれな悪性腫瘍である。かつては carcino sarcoma (癌肉腫)²⁾, pseudosarcoma (偽肉腫)³⁾ と呼ばれていたが、電顕的検討の結果、紡錘形細胞は扁平上皮細胞から移行したものと推測され⁴⁾、現在では扁平上皮細胞由来の悪性腫瘍と考えられている¹⁾。本症例は、生検において強い線維化と紡錘形異形細胞が混在した像を認め MFH と診断されたが、切除標本にて紡錘細胞癌との確定診断を得た。

口腔領域における本腫瘍の統計は、海外では Ellis ら⁵⁾ は 59 例について検討し、その内 48 例(舌 12 例、歯肉 11 例、下唇 25 例)が口腔領域原発であったと報告している。本邦では、舌 2 例、歯肉 5 例、硬口蓋 1 例、下唇 1 例の 9 例の報告のみである。

顎骨中心性癌は、発症経過により、1. arising from ex-odontogenic cyst 2. arising from ex-ameloblastoma 3. arising de novo の 3 型に分類されるといわれている^{6, 7)}。本症例は①現病歴および X 線写真上、嚢胞やエナメル上皮腫の存在は否定定的であること、また②手術時の切除標本においても下顎骨は腫瘍により置換され、顎骨上の被覆歯肉には腫瘍細胞を認めなかったこと、さらに③他臓器に癌は認められなかったことより、arising de novo に分類される顎骨中心性癌ではないかと思われたが、確定には至らなかった。El-Mofty ら⁶⁾ は顎骨内の歯原性嚢胞から発生したものを、また Hill ら⁸⁾ は顎骨の骨髓炎から発生したものを報告しており、われわれが渉猟し得た範囲内では、口腔領域以外も含めて、骨内から発生したと確定された本腫瘍は 2 例のみである。

本腫瘍の治療法は、放射線単独あるいは手術と放射線併用療法より、手術単独の方がよい結果が得られた

との報告や⁵⁾、術後照射は必要であるとの報告があるが⁹⁾、一般的には手術療法が主とされている。化学療法に関しては、その治療効果は期待できないとの報告が多い^{5, 9)}。本症例は、生検において MFH の病理組織診断を得たため、悪性骨腫瘍の化学療法¹⁰⁾を参考に、ADM+MTX による化学療法を施行したが、その効果は認められなかった。

本腫瘍の予後は、不良とされ、Ellis ら⁵⁾によると平均存在期間は 2 年以下であり、遠隔転移は少なく局所再発により死の転帰をとることが多いとされている。本症例も、切除物断端には腫瘍細胞は認められなかったが、術後 8 か月に局所再発を来とし、初発症状から 3 年、初回手術後 12 か月、再発後 5 か月で腫瘍死した。

引用文献

- 1) 日本頭頸部腫瘍学会編：臨床・病理頭頸部癌取扱規程。改訂第二版，金原出版，東京，1991，15-54 頁。
- 2) Virchow, R.: Die krankhaften Geschwulste. Bd 2, August Hirschwald, Berlin, p182 1864.
- 3) Lane, N.: Pseudosarcoma (polypoid-sarcoma like masses) associated with squamous-cell carcinoma of the mouth, face, and larynx. Cancer 10: 1941 1957.
- 4) Battifora, H.A.: Spindle cell carcinoma. Ultrastructural evidence of squamous origin and collagen production by the tumor cells. Cancer 37: 2275-2282 1976.
- 5) Ellis, G.L., Corio, R.L.: Spindle cell carcinoma of the oral cavity. A clinico pathologic assessment of fifty-nine cases. Oral Surg 50: 523-534 1980.
- 6) El-Mofty, S.K., Shannon, M.T., et al.: Lymph node metastasis in spindle cell carcinoma arising in odontogenic cyst. Oral Surg Oral Med Oral Pathol 71 (2): 209-213 1991.
- 7) Elzay, R.P.: Primary intraosseous carcinoma of the jaws. Oral Surg Oral Med Oral Pathol 54: 299-303 1982.
- 8) Hill, J.A., Battifora, H.A., et al.: Spindle cell carcinoma arising in chronic osteomyelitis. A case report and re-assessment of the literature. Bull Hosp Joint Dis 39 (2): 187-195 1978.
- 9) Ampil, F.L.: The controversial role of radiotherapy in spindle cell carcinoma (pseudosarcoma) of the head and neck. Radiat Med 3: 225-229 1985.
- 10) 山脇慎也：悪性骨腫瘍化学療法の実験。J. Jpn Orthop Assoc 66: 126-136 1992.