淡明細胞肉腫と診断された一軟部腫瘍例の検討

九大整形外科

緒 方 孝 俊・平 宏 章

別 府 保 男・原 實 道

九大二病理

恒 吉 正 澄

A Discussion Study on A Soft Tumor Classified
as A Clear-cell Sarcoma of
Tendons & Aponeuroses

By

T. Ogata, H. Taira, Y. Beppu & H. Hara

Department of Orthopedic Surgery,
Faculty of Medicine, Kyushu University

M. Tsuneyoshi

Department of Pathology, Faculty of
Medicine, Kyushu University

A 26y-year-old man developed a sarcoma in his left adductor magnus with inguinal metastasis which classified as was a clear cell sarcoma of tendons and aponeuroses.

Conforming to the original description of clear cell sarcoma in many clinical and pathological points, electron microscopic examination from the excised material revealed ultrastructure of melanin.

Evidence for a cutaneous melanoma was, however, lacking. This kind of tumor, therefore, must be considered as provisionally named "malignant melanoma of soft parts".

緒 言 , 症 例

1965年, Enzinger²⁾ は主に四肢の大きな腱組織に生ずる肉腫で, 臨床病理学的に比較的特徴的な一群の疾患を報告し, 細胞学的な特徴から腱および腱鞘の淡明細胞肉腫と命名した. その後本腫瘍に関する報告が相次ぎ, その発生起源に関して電顕的な検索もみられるようになったが, その起源についてはまだ十分に解明されたとはいえない^{1) 4) 5) 6) 7)}.

われわれは, 最初淡明細胞肉腫と診断されて当院を紹介され, 摘出腫瘍の電顕的検索で細胞質内にメラノソームが認められた症例に遭遇し, これを治療する機会を得たので文献的な考察を加えて報告する.

26才, 男性, 船員.

主訴: 左坐骨部腫瘍形成.

家族歴, 既往歴: 特記すべきことなし.

現病歴: 昭和48年6月ごろ, 考えられる誘因もなく, 左坐骨結節部に生じた母指頭大の腫瘍に気づいていたが放置していた. その後昭和49年5月ごろに左そけい部の小指頭大の腫瘍に触れるようになり, 昭和49年6月1日市立戸畑病院整形外科を受診, そけい部腫瘍の試験切除を受けた. 組織学的検査で「腱および腱鞘の淡明細胞肉腫」の診断を与えられた. (九大病理組織診断 No. 71690)

同年6月17日に九大整形外科の外来を受診, 6月

19日に入院した。

入院時所見：体格中等，栄養状態良好，貧血その他全身状態の悪化を思わせる所見は認めない。左そけい部に試験切除の手術創が見られ，左坐骨結節部に近い軟部組織内に約 $10\text{ cm} \times 2\text{ cm}$ の腫瘍を認めた。腫瘍は皮膚との癒着はないが，基底部とは強く癒着して動かない。硬度は硬く，境界は比較的明瞭である。軽度の圧痛は認めるが，局所の発赤，熱感などの炎症所見は認めない。

術前の諸検査でも著変なく，血沈値も1時間値7，2時間値19で亢進をみない。

X線検査では，骨および胸部の異常影を認めない。選択的血管造影術で下大殿動脈分岐の腫瘍による圧排像が観察されるが，腫瘍性新生血管の増生はない（図1）。

手術所見：腫瘍は左側大内転筋内に存在し，内側で陰茎勃起筋，基底部で坐骨結節の骨膜と線維性の強い癒着を示したので電気メスで切放した。骨の侵襲は認めず，他の面は境界が明瞭で健常部と容易に分けられる。皮下および脂肪組織内への浸潤も認められない。

腫瘍の肉眼的所見：摘出した腫瘍は $7 \times 3.5 \times 3\text{ cm}$ で赤褐色を呈し，弾性硬で表面は軽い凹凸

図1. 血管造影所見：腫瘍による下大殿動脈分岐の圧排像が認められる。

を示す。明らかな被膜は見られない。断面は灰白または黄白色を呈し，均質で充実性の一見線維性腫瘍組織より成り，出血巣，壊死巣は部分的にも認められない。中心部は特に板状に硬い。

組織学的所見：紡錘形ないし類円形の淡明な腫瘍細胞が，不規則な胞巣状に配列している（図2）。腫瘍細胞の細胞質は明るく，あるものは弱好酸性を示し，細胞境界は明瞭である。核は細胞のほぼ中央にあり比較的大きい（図3）。核染色質は豊富であるが，やや大きな核小体が好塩基性に濃染し顕著である。全般を通じて細胞はほぼ均一であり，しかも密に存する。多核巨細胞はどこにも認められない。光顕レベルでは細胞質内に褐色の顆粒状色素は認められない。PAS染色は軽度陽性であるが，アルカリフォスファターゼ，

図2. 病理組織所見：淡明細胞が充実性胞巣状に配列している。
（九大 中検 51988，HE 染色，250×）

図3. 同上強拡大像：核は核膜が明瞭である。
（九大 中検 51988，HE 染色，660×）

図4. 電子顕微鏡所見：第2～4期のメラノソームがみられる。

(酢酸ウラニール・酢酸鉛二重染色，80,000×)

酸フォスファターゼ，Sudan III 等の酵素染色ではいずれも陰性である。

電子顕微鏡的所見：新鮮な手術材料を3%グルタルアルデヒドで3時間前後固定を行ない，カコジレート緩衝液で1時間洗浄し，1%オスミウム酸で1時間後固定して，エチルアルコールで脱水処理したのち，エポキシ樹脂に包埋した。トリジンブルー染色による厚切標本の結果，細切した薄切標本を酢酸ウラニール，酢酸鉛の二重染色をして，JEM 100Bで観察した。明調な細胞と暗調な細胞の混在がみられる。主として明調な細胞に高電子密度の顆粒がみられ，それらは第2期から第4期のメラノソームから成る(図4)。

術後経過：術後経口的に1日量100mgのエンドキサン投与を総計5,000mg続け，手術創の治癒を待って退院した。その後他院で局所のコバルト照射を総計5,000rads受けた。昭和49年12月現在，腫瘍の再発，転移は見られていない。

考 按

本例は，左坐骨結節部の軽部組織内に生じた腫瘤を放置するうちに，同側のそけい部に転移を来した時点で受診し，試験切除の結果，腱および腱鞘の淡明細胞肉腫が疑われ，原発巣の治療を目的として当科に入院，その後の電子顕微鏡的検索で悪性黒色腫とみた方がよいと考えられたものである。

Enzinger²⁾が淡明細胞肉腫として報告した21例はAFIPの過去におけるファイルの中から選ばれたもの

で，それまでは滑膜肉腫，線維肉腫，胞窩状軟部肉腫，悪性黒色腫などと診断されていたものである。そして彼は腫瘍の臨床病理学的な「わくづけ」を行なったものの，その組織起源はなお不明で電顕的な検索の必要性を強調している。久保(1969)⁵⁾は組織学的に淡明細胞肉腫と診断された1例を電顕的に観察して，(1)グリコゲンを多量に含む大型明調細胞とこれを含まない小型暗調細胞との2種類の細胞が存在すること，(2)基底膜と偽腺管構造の存在，(3)filopodia，(4)electron-dense bodiesの存在などから滑膜肉腫の範疇に属するものと考えた。この種の腫瘍に，光顕的に褐色の顆粒状色素を認めた報告には，今までにEnzinger²⁾，久保⁵⁾，Hoffman⁴⁾らの記述がある。しかしEnzinger²⁾はFontana-Masson染色で陽性であったがメラニン漂白試験で陰性であるとし，久保⁵⁾も電顕的にメラニンとは異なるものとしている。ただHoffman⁴⁾だけはFontana-Masson染色で陽性であったのを電顕的にメラノソームと同定している。彼の例は，淡明細胞肉腫と診断された腫瘍を摘出した2年後に再発した腫瘤を組織学的ならびに電顕的に観察したものであり，光顕的にすでに褐色色素が細胞質内に認められた。以上の事実から彼は淡明細胞肉腫の神経外胚葉起源を唱えている。この例は2回目手術後約4カ月で死亡し，経過中に多発性の皮下腫瘤を生じたり，著明なリンパ節の転移を来したりして，悪性黒色腫の経過と同一であったと記載されている。われわれの例は，臨床病理学的な面からみれば淡明細胞肉腫と異なるのである。しかし電顕的に明らかに各段階のメラノソームを証明することができた。われわれは久保の報告した例(大塚ら⁶⁾の報告と同一例)の光顕標本と電顕写真とを自ら観察することができたが，光顕像の類似性に反して，電顕像は今回の例と多くの点で明らかに異なっている。したがって，淡明細胞肉腫自身を黒色腫と共通の神経外胚葉起源に持って行くよりは，本例のごとくメラニンの証明される腫瘍は滑膜起源を示唆できるものとは区別して取り扱い，淡明細胞肉腫の中には入れずに軟部悪性黒色腫 malignant melanoma of soft parts として独立させるべきではないかと思う。そして淡明細胞肉腫とされたものを注意深く分析すればこの範疇に入るものはいくらか選出できるのではなかろうか。

結 語

26才男子の左坐骨結節部の軟部組織内に発生した淡明細胞の像を示す腫瘍例を検討し、電顕的にメラノソームを検出した。この種の腫瘍は腱および腱鞘の淡明細胞肉腫とは区別し、軟部黒色腫として取り扱うべきと思われる。

稿を終るに臨み、終始ご指導、ご校閲の労をいとわず本論文の完成に御助力頂いた九州大学二病理遠城寺宗知教授に深謝いたします。なお本論文は厚生省軟部腫瘍研究班の助成金による研究の一環として九州大学整形外科西尾教授の援助を頂いた。

文 献

- 1) Dutra, F. R.: Clear cell sarcoma of tendons and aponeuroses. *Cancer*, 25: 942-946, 1970.
- 2) Enzinger, F. M.: Clear cell sarcoma of tendons and aponeuroses: An analysis of 21 cases. *Cancer*, 18: 1163-1174, 1965.
- 3) 福代良一・他: 悪性黒色腫の細胞学的分類. *西日皮膚*, 34: 87-101, 1972.
- 4) Hoffman, G. J.: Clear cell sarcoma of tendons and aponeuroses with melanin. *Arch.*

Pathol. 95: 22-25, 1973.

- 5) Kubo, T.: Clear cell sarcoma of patellar tendon studied by electron microscopy. *Cancer*, 24: 948-953, 1969.
- 6) 大塚久・山本喜昭: 膝蓋靱帯より発生した淡明細胞肉腫 (clear-cell sarcoma). *癌の臨床*, 12: 453-455, 1966.
- 7) 徳久俊雄・他: 淡明細胞肉腫 (clear-cell sarcoma) の1例. *整形外科と災害外科*, 22: 35-37, 1973.

質 問

鳥大整形 前山 巖

ブレメラノゾームまたはメラノゾールを見出されたのですが、その意義について御意見を伺いたい。

回 答

九州大学整形外科 緒方 孝俊

Hoffmann の報告では、初発時に clear cell sarcoma であった症例の再発部にメラニンを認めて、clear cell sarcoma の histogenesis に関して malignant melanoma と同じカテゴリーに属するものと考えた。

われわれの例も、これに近い例と考えるが、現在のところ、malignant melanoma であると考えざるを得ない。

高度の骨侵襲を示した平滑筋肉腫の1例

鹿児島大学整形外科

森 本 典 夫・東 成 昭

鹿児島大学第2病理

坂 江 清 弘

Leiomyosarcoma of Left Foot with Extensive Destruction of Tarsal Bone. Report of a Case

By

N. Morimoto and H. Higashi

Department of Orthopedic Surgery, Faculty of Medicine, Kagoshima University

K. Sakae

Second Department of Pathology, Faculty of Medicine, Kagoshima University

A house-wife, aged 39, with leiomyosarcoma involving the bone was reported. The pa-