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-

tient had complained of rapidly progressive swelling and pain on the left foot for about three months, followed by the formation of two tumors at the medial aspect of the left foot.

Radiologically extensive osteolytic lesion of the tarsal bone was demonstrated. Chest radiograph showed no detectable tumorous shadow.

Amputation was performed 8 days after admission.

The diagnosis of leiomyosarcoma was histologically established.

The tumor is presumed to have arisen from the deep soft tissue attached to the tarsal bone, but the possibility of the tumor originated in bone cannot be ruled out.

She died of disseminated pulmonary metastases 7 months after her first admission.

平滑筋肉腫は消化管、子宮、後腹膜などに発生するものはそれほどまれではないが、皮下軟部組織のものは比較的まれとされる。特に高度の骨侵襲を示した例や骨原発の例は、きわめてまれである。

今回われわれは左足部に発生し、レ線学的に初期より高度の骨破壊像を示し、一見骨原発を疑わせた平滑筋肉腫の1例を経験したので報告する。

症 例

患 者：39才，女子，主婦。

主 訴：左足内側部の疼痛および腫瘍形成。

家族歴：母親が子宮癌にて死亡。

既往歴：36才の時，白内障罹患

現病歴：昭和48年5月，道路にて転倒し左足部を打撲したが，疼痛なく放置していた。同年7月初旬，左足部の腫脹と持続痛を訴えるようになり，某医にて2カ月間電法，局注などの治療を受けたが，症状は漸次増悪した。同年11月2日，鹿児島市立病院を受診，左足部の著明な炎症症状と血沈の亢進，レ線上，左足根骨の破壊像と距骨，踵骨の著明な萎縮像を指摘され，骨髓炎ないし骨腫瘍を疑われたが，経過観察するように指示された。1カ月後より，左足内側部に米粒大の腫瘍形成を2個認めるようになり，昭和49年1月11日この腫瘍の biopsy を行なった。組織学的に平滑筋肉腫と診断され，当科を紹介されて，同年2月6日入院した。

入院時所見：体格小，栄養状態不良，全身に腫瘍形成などの著変なく，頸部，腋窩，鼠径部の各リンパ節は触知しえなかった。左足部は発赤，腫脹が著明で浮腫状を呈しており，内・外側に拇指頭大から鶏卵大の球状，花野菜状の腫瘍を3～4個認めた。内側の花野菜状の2個の腫瘍間の皮膚は壊死に陥入り，一部は自潰し肉芽を形成していた（図1）。アキレス腱部にも小指頭大の腫瘍を触れ，下腿は全体的に軽度の腫脹が

図1. 肉眼所見

図2. X線所見

あり，静脈怒張も認めた。

臨床検査成績：赤血球：378万，白血球：6,100，H-b：73%，血沈値：70/1h，95/2h，電解質：正常，Al-ph：7.1 KA単位，GOT：22，GPT：14，LDH：334，血清蛋白：7.2 g/dl，A/G：1.2，蛋白分画：正常，検尿：正常，心電図：異常なし。

X線所見：市立病院初診時の所見で，左足の舟状骨，第1・2楔状骨の内下方および立方骨外側部の骨破壊像が認められ，舟状骨の中央部は骨硬化像が顕著で，周囲の中足骨，距骨，踵骨は著明な萎縮像を呈していた。当科入院時では，骨破壊，骨萎縮がさらに進行し，第1・2・3中足骨，距骨，踵骨，さらには脛骨，腓骨下端にも破壊像が認められた（図2）。胸部単純X線像には転移巣は認めなかった。

入院後経過：同年2月14日左大腿部中下 1/3 にて切断術を行ない、以後経過観察中であつたが2ヵ月後より両肺の中・下肺野に転移巣を認めるようになり、Adriamycin 10 mg を3日間2回投与したところで転医、同年9月16日死亡した。病理解剖は行ないえなかった。

切断肢の肉眼所見：左足の内・外側部、下腿の筋肉内、アキレス腱部などに、大豆大なら鶏卵大の腫瘤が多発性に認められる。腫瘤はほぼ球形、弾性硬であり周囲組織との境界は比較的明瞭で偽被膜を有しているが、周囲へ強く浸潤する傾向はない。腫瘤の断面は充実性で黄白色を呈している。下腿から足部への矢状断の断面の所見では、中足骨末梢部、距骨、踵骨の一部を除いて、中足骨、足根骨は広汎に腫瘍組織に置換されており、足根間関節、足根中足関節も不明瞭で、周囲の筋肉および皮下組織と骨との境界は区別しえない。腫瘍は舟状骨の内下方付近を中心に周囲に増殖しているように見え、一部は脛骨、腓骨下部も腫瘍組織に置換されている(図3)。最初に生じた花野菜状の2個の腫瘍は、この骨を侵襲している腫瘍とは intact である。

図3. 左足の矢状断剖面

組織学的には、渦状あるいは束状に交錯する紡錘形細胞が密に配列している。腫瘍細胞の胞体は一般に少なく、核が濃染して両端が鈍に終っている。核は細長く、柵状配列を示す部分も散見される。エオジンに濃染する胞体が比較的多く、しばしば大型の核や核分割像を示す腫瘍細胞が観察される(図4)。Azan 染色

図4. H.E. 染色, 中拡大 図5. 鍍銀染色

では青染した膠原線維の間に紫赤色の胞体が認められ、Gomori 銀染色では好銀線維が細胞索に沿って走向し、またこれに直行ないし腫瘍細胞を圍繞する好銀線維があり、いわゆるすだれ状紋理または箱入像を示す(図5)。電顕的には、細胞質内に併走および錯走する 60 Å, 100 Å の2種類の細糸が認められ、ところどころに暗斑を伴っている。また散在性にグリコーゲン顆粒が観察される(図6)。

図6. 電顕像

考 按

軟部組織の平滑筋肉腫の報告は比較的まれであるが、1958年 Stout and Hill¹⁰⁾ が36例の詳細な報告

を行なって以来、報告例についてはしばしば相違するようになった。しかし高度に骨侵襲を示した報告はなく、骨原発の本腫瘍に関してはきわめてまれで、1965年 Evans³⁾らの報告した脛骨発生例にすぎず、本邦で報告された例はない。骨侵襲の例については、Ackerman¹⁾が原発は不明であるが大腿骨の破壊を示す1例、Jaffe⁶⁾は皮下組織発生の平滑筋肉腫が脛骨皮質を圧迫した1例を記載している。

本例に関しては、皮下の腫瘍を触知しない比較的早期よりX線上すでに骨破壊を認め、しかも急速かつ広汎に骨破壊が進行したことや、最初に左足内側部皮下に生じた2個の腫瘍が、足根骨を侵襲した腫瘍と intact であり、この腫瘍が転移性のものと考えられること、また足部の矢状断の剖面所見で、骨を広汎に侵襲した腫瘍塊の中心と足根骨の中心とがほぼ一致していることなどから、骨原発の可能性も十分示唆されるが、切断肢にみられる高度の骨破壊を伴った広汎な腫瘍増殖のため、足部を矢状断に slice し、各剖面について骨と腫瘍との関係、腫瘍と血管、周囲軟部組織との関係を詳細に検討したにもかかわらず、その原発の把握はなしえなかった。しかし初診時のX線所見でまず舟状骨、第1・2楔状骨の内縁が破壊されはじめていることと、その部位に接して壊死を伴った比較的古い腫瘍が認められることから、深部軟部組織の、おそらく小・中血管壁の中膜に原発した平滑筋肉腫が、まず隣接の骨を侵襲し、広汎に骨を破壊していったものとするのが妥当と思われる。Evansの骨原発の症例では、脛骨骨内に腫瘍塊があり骨外発育も限局性であったと述べており、本例とは大いに趣を異にしている。彼は骨原発の場合、その組織発生を骨内の血管の中膜から、直接に、あるいは既存の血管筋腫の悪性化によるものと推論している。本例は解剖を行ないえなかったが、術前、後腹膜を含めて各臓器の精査を行なったが、すべて正常であった。

紡錘形細胞肉腫は、他に線維肉腫、横紋筋肉腫、悪性神経鞘腫、血管肉腫などがあり、組織発生学的に分類することは必ずしも容易でないが、本例は鈍端の核を有する紡錘形細胞、細胞索の束状、交叉状配列、核の柵状配列、鍍銀染色による特有の箱入り像などの特徴を備え、電顕的に胞体内に 60 Å, 100 Å の2種類の細糸が証明され⁷⁾、平滑筋細胞に特有とされる暗斑を伴った細糸も存在したことで(図6)、平滑筋肉腫と診断しうる。

平滑筋肉腫の予後は、腫瘍の大きさ、組織学的態度、部位などにより左右される傾向にある。特に核分割の多寡、腫瘍の大きさに関係が深いとされ、核分割については、Stoutらは200倍視野で2～5視野に1個程度では再発、転移の可能性が強く、毎視野1個以上では極めて悪性とし、大きさに関しては、Stoutら、牛込¹⁰⁾も大きい程予後不良と述べている。本例は毎視野1個以上の核分割を認め、予後不良はある程度予知しえた。転移は多くは血行性で、肺転移が主であり、Stoutらは33例中19例に、牛込は19例中10例に転移をみている。切除後の局所再発も高率にみられ、Stoutらは33例中20例に、牛込は19例中10例に、古屋⁹⁾は18例中16例に再発を認めたと報告している。

本腫瘍は転移、再発が高率にみられるため死亡率も高く、牛込、古屋らの報告では60%を越える。牛込は死亡までの平均生存日数は1年11カ月、古屋は3年2カ月と述べているが、本例も症状発現から死亡まで1年2カ月で、早期に肺転移を起こし比較的経過の早かった例である。

治療に関しては未だ確立された方法はなく、抗癌剤、放射線療法、局所摘出術、広汎切除術などが行なわれているが、放射線照射、抗癌剤の効果は疑わしく⁴⁾⁹⁾、局所摘出術は再発が多いといわれる。檜沢ら⁷⁾は、右膝関節部に発生した本腫瘍で、10回の摘出、再発を繰り返してついに死亡した例を報告している。このような高率の局所再発は、表在性軟部組織肉腫に共通した特徴で、その原因は腫瘍表面に腫瘍細胞の layer out による偽被膜が形成され、腫瘍の不完全摘出のためといわれている²⁾。局所摘出術と周囲の筋肉、骨を含めた広汎摘除術とを比較すると、局所再発率は後者が抜群に良い成績を示したと報告されている²⁾。

したがって本腫瘍については、腫瘍の大きさ、組織学的に核分割の多寡、核の異型性なども十分考慮しながら、安易な局所摘出術を行なうことなく、広汎切除術を行ない、特に本例のように骨破壊を示した例や、腫瘍が大きく、周囲組織に浸潤を認めた場合は、早期に切断すべきものとする。

む す び

左足部に生じ、高度に骨侵襲を示した平滑筋肉腫について、その起源の検索と予後、治療について若干の文献的考察を加えて報告した。

参 考 文 献

- 1) Ackerman, L. V. et al.: Tumors of Bone and Cartilage, A. F. I. P., Washington, D. C. 1970.
- 2) Clard, R. L. Jr. et al.: Arch. Surg., 74: 859, 1957.
- 3) Evans, D. M. D., et al.: J. Path. Bact., 90: 348, 1965.
- 4) 淵本悞・他: 癌の臨床. 17: 644, 1971.
- 5) 古屋光太郎: 癌の臨床. 19: 568, 1973.
- 6) Jaffe: Tumor and Tumorous Condition of Bone, Lea & Febiger, Philadelphia, 1958.
- 7) 松沢一夫・他: 癌の臨床. 11: 279, 1965.
- 8) 中島啓雅: 福岡医誌, 65: 228, 1974.
- 9) Phelan, J. T. et al.: New Engl. J. Med. 266: 1027, 1964.
- 10) Stout, A. P. & W. T. Hill.: Cancer. 11: 844, 1958.
- 11) 牛込新一郎: 癌の臨床, 19: 543, 1973.

線維性骨異形成の再発例の検討

鳥取大学整形外科教室

大 月 健 二・前 山 巖
林 正 郎

The follow-up Study of Fibrous Dysplasia of Bone

By

K. Ohtsuki, I. Maeyama and M. Hayashi

From the Department of Orthopedic Surgery, Tottori
University School of Medicine

1. For the past seventeen years, thirteen cases of fibrous dysplasia of bone which have done the surgical treatment were reviewed.
2. In our thirteen cases, eight was monostotic type, five was polyostotic type, and four cases among the latter were Albright's syndrome.
3. Our follow-up period was from one year to six years.
4. Recurrence of the lesions was seen four cases in monostotic type and three cases in polyostotic type.

骨に透明巣を示す疾患として数多くのものが知られている。これらのうち線維性骨異形成は、病巣の拡大からしばしば力学的に弱体化し、変形や病的骨折を起こすため手術を必要とするものである。教室で昭和31年より48年までの約17年間に、エックス線像ならびに臨床所見から、線維性骨異形成と診断されたものは19例であった。今回これらのうち、手術を行ない予後を調査し得た13例について治療成績を検討し、再発変形などをきたした症例を中心に報告する。

線維性骨異形成の手術例

過去17年間に手術を行ない、病理組織学的に線維

性骨異形成と診断された13例の手術時年齢は2才より35才にわたっている。病型別にみると、monostotic type 8例、polyostotic type 5例、このうち4例が albright's syndrome であった。性別は男4例、女9例、初回手術よりの観察期間は全例12カ月以上で最長6年3カ月であった。病巣の再発、病的骨折などのため再手術を要したものは6例で、再発症例はいずれも1年以内に再手術を行なっている。手術部位別にみると、脛骨、大腿骨が5例ずつ、上腕骨、橈骨、腓骨および肋骨がそれぞれ1例で、術式は大部分が掻爬骨移植であり、移植骨には自家骨をおもに使用し、同種保存骨、Kiel bone などを利用した例もあ