間葉性軟骨肉腫 2 例について

九州大学医学部整形外科

浦田 正彦・岩本 幸英

小田 義直・杉岡 洋一

九州中央病院整形外科

増田 祥男

国立別府病院整形外科

直野 敬

Mesenchymal Chondrosarcoma : A Report of Two Cases

by

Masahiko Urata, Yukihide Iwamoto, Yoshinao Oda
and Yoichi SugiokaDepartment of Orthopaedic Surgery,
Faculty of Medicine, Kyushu University

Sachio Masuda

Department of Orthopaedic Surgery, Kyushu Central Hospital

Takashi Naono

Department of Orthopaedic Surgery, National Beppu Hospital

Mesenchymal chondrosarcoma is a rare chondroid tumor that was first reported in 1959 by Lichtenstein et. al. Twenty-seven cases with mesenchymal chondrosarcoma of bone and twenty-one cases with that of soft part have only been reported in Japan. We have treated both cases.

The first case, that was a mesenchymal chondrosarcoma of the sacrum, was treated with wide resection. Irradiation was performed as an adjuvant therapy after the surgery. However, the patient died of local recurrence, pulmonary and liver metastasis five years and eight months after the surgery.

The second case, that was a mesenchymal chondrosarcoma of the paravertebral muscle, was treated with the excision of the tumor and the hemilaminectomy of the second and third vertebrae. Local recurrence and distant metastasis were not observed ten months after the surgery.

はじめに

間葉性軟骨肉腫は稀な腫瘍であり、本邦では骨原発 27 例、軟部原発 21 例が報告されているにすぎない。今回、われわれは、軟部原発 1 例、骨原発 1 例の間葉性軟骨肉腫を経験したので若干の文献的考察を加えて報告する。

[症例 1] 36 才 男性

主訴：右背部腫瘍形成、疼痛

現病歴：1988 年より背部痛、右背部腫瘍形成し、1990 年 4 月腫瘍増大してきたため、九大整形外科初診となった。

入院時現在：右背部 Th 1～5 レベルに 10×6 cm 大の硬性腫瘍を触知した。

検査所見：単純 X 線および断層写真では、上位胸椎右側の軟部に斑状石灰化像を認めた (図 1, A, B)。

図1 軟部原発間葉性軟骨肉腫
単純X線 (A), 及び断層写真 (B) では斑状石灰化像を認める。CT (C) にて内部に斑状石灰化像を伴う腫瘍を認め、血管造影 (D) では hypervascularity を呈した。

CT にて Th 2 ～ 5 レベルの椎弓右後方の傍脊柱筋内に一部棘突起に近接し、内部に斑状石灰化像を伴う腫瘍像を認めた (図 1, C)。血管造影にて hyper vascularity が確認された (図 1, D)

経過：生検後、間葉性軟骨肉腫の診断のもとに、1990年6月20日、手術施行。傍脊椎筋で包み込む様に腫瘍を切除したが、Th 2 棘突起右側面で cortex が一部破壊されている所見がみられ、Th 3 棘突起右側には圧迫によると思われる陥凹所見もみられたので、Th 2, 3 半椎弓切除及び facet fusion を施行した。現在、術後1年であるが、局所再発、遠隔転移ともみられていない。

病理組織標本では、未分化な小円形の間葉系細胞群と軟骨組織の部分とから成っていて、その移行部は比較的境界明瞭であった (図 2, A)。未分化な小円形の間葉系細胞群の部分では、弱拡大で多結節状を示し、多数の血管が増生し、hemangio pericytomatous な像がみられた。また強拡大では、腫瘍細胞は小円形

図2 軟部原発間葉性軟骨肉腫組織所見
未分化な小円形間葉系細胞群を軟骨組織の部分からなり移行部は明瞭である (A, 200×)。間葉系細胞群の部分の強拡大 (B, 500×) では腫瘍細胞は小円形で、核はクロマチンに富み、胞体に乏しい。軟骨組織の部分 (C, 500×) では腫瘍細胞は1個又は2個のクロマチンに富む核を有していた。

で、核はクロマチンに富み、胞体に乏しい (図 2, B)。

軟骨組織の部分では、腫瘍細胞は1個又は2個のクロマチンに富む核を有し (図 2, C)、軟骨内骨化の部分もみられた。

[症例 2]：20 才 男性

主訴：両側臀部痛、膀胱直腸障害

現病歴：1982年7月臀部痛出現、同年9月排尿排便障害が出現した。1983年5月近医受診し、X線にて仙骨部の異常陰影を指摘され、経直腸的 needle biopsy にて軟骨肉腫の診断をうけた。1985年6月九大整形外科初診、入院となった。

入院の現症：下腹部に圧痛があり、骨盤腔内に小児頭大の硬い腫瘤を触知した。S2 以下に知覚障害があり、便意尿意は消失していた。

検査所見：単純X線正面像で骨盤腔内に不規則な石

Plain XP, pre-op.

Plain Xp, post-op.

CT, pre-op.

図3 仙骨発生間葉性軟骨肉腫
術前単純X線 (A) では、骨盤腔内に石灰化を伴う腫瘍陰影を認めた。CT (B) では、直腸膀胱の圧排が見られた。
前方から内腸骨動脈を結紮、後方から高位仙骨離断による腫瘍切除 (C)。摘出腫瘍重量は1650 g (D)。

灰化を伴う腫瘍陰影を認めた (図3, A)。

CT で、仙骨より発生した腫瘍が、椎体前壁を破壊し、骨盤腔内殆どを占め、直腸、膀胱は前方に圧排されていた (図3, B)。

経過：1983年6月、手術施行。前方アプローチにて内腸骨動脈結紮を行なった後、後方から高位仙骨離断による腫瘍切除、さらに、人工肛門造設術を追加した (図3, C)。摘出腫瘍の重量は1650 gであった (図3, D)。

病理組織標本では、症例1と同様に未分化な小円形の間葉系細胞群と軟骨組織とから成る像がみられ、その移行部は境界明瞭であった。術後6ヵ月にて局所再

発し、Total 6000 rad の放射線治療施行した。術後1年9ヵ月にて肺転移出現し、術後5年8ヵ月にて肺及び肝への転移、局所再発による両側尿管狭窄のため死亡した。

考 察

間葉性軟骨肉腫は、過去の報告例として1959年 Lichtenstein らが骨原発2例について報告したのが最初である¹⁾。さらに、1973年、Guccion らが軟部原発のものがあると報告し、骨原発のものと区別した²⁾。

1983年 Huvos が自験35例について報告⁶⁾しており、

表1 間葉性軟骨肉腫の本邦報告例のまとめ

	骨 原 発	軟部原発
本邦報告例	27 (0.09%)	21 (0.15%)
性差 (♂:♀)	16:10	12:9
年 齢	73%が20~40歳	38%が20~40歳
発 生 部 位	脊椎9, 上顎骨7他	硬膜4, 大腿3 眼窩, 肺 各2他
治 療	外科的切除	外科的切除
予 後	severe	severe

最近では1986年中島らがMayo clinicの症例を含む111例について分析検討している¹⁵⁾。

本邦では、1965年九大の増田らの肩甲骨発生例の報告¹³⁾以来、骨原発^{7) 9) 14) 16) 18)}27例、軟部原発^{4) 8) 10) 12) 19)}21例、分類不能1例の計49例の報告がある(表1)。骨原発のものは、骨腫瘍全体の0.09%、軟部原発のものは軟部腫瘍全体の0.15%と極めて頻度が低い。

1. 性・年齢および発生部位

性差は、男子29例、女子19例、不明1例で骨原発、軟部原発ともやや男性に多い傾向がある。年齢は、骨原発のものは、73%が20~40才に集中しているが、軟部原発では38%であり、10才以下、70才以上も各々24%みられて、年齢的なばらつきがある。

2. 発生部位

骨原発のものは脊柱、上顎骨を始め軀幹の骨に多い。軟部原発のものは硬膜、次いで大腿の順であった。われわれの軟部原発例の様に傍脊柱筋内に発生したものは過去に報告がなかった。

3. 治療・予後

治療は、外科的切除が第一であり、化学療法、放射線療法の効果については定説はない。星野ら⁵⁾は未分化間葉系細胞に限ってはradiosensitiveであったと報告しており、またHarwoodら³⁾の述べる如くmarginが十分に追えない場合や摘出不可能例においてはirradiationとchemotherapyのadjuvant therapyが導入されるべきと考えられる。また、Dowling¹⁾、Salvador¹⁷⁾らの晩期再発例を多く経験したという報告もあり、長期にわたる慎重な経過観察の必要性がある。

予後は、骨原発、軟部原発とも不良であり、Huvosらの報告⁶⁾によれば、10年存在率は30%以下である。

われわれの仙骨発生例も術後5年8ヵ月で死亡しており、軟部原発例においても長期の経過観察が必要と思われる。

ま と め

過去10年間に経験した骨原発1例、軟部原発1例の間葉性軟骨肉腫について文献的考察を加え報告した。

参 考 文 献

- 1) Dowling, E.A.: Mesenchymal chondrosarcoma. J. Bone Joint Surg. 46-A: 747, 1964.
- 2) Guccion JG, et al.: Extrasketal mesenchymal chondrosarcoma, Arch Pathol 95: 336-340, 1973.
- 3) Harwood, A.R. et al.: Mesenchymal chondrosarcoma: a report of 17 cases. Clin. Orthop. 158: 144, 1981.
- 4) 堀田哲夫ほか: 骨盤部のmesenchymal chondrosarcomaの1例. 新潟整外研会誌, 4. 2: 15-19, 1988.
- 5) 星野正美ほか: Intracranial mesenchymal chondrosarcoma. 脳外, 9: 881, 1980.
- 6) Huvos AG, et al.: Mesenchymal chondrosarcoma, Cancer 51: 1230-1237, 1983.
- 7) 木村 悟ほか: 上顎に生じた間葉性軟骨肉腫の1例. 日本口腔外科学会誌, 32. 9: 1716, 1986.
- 8) 工藤俊男ほか: 前腕に発生したextrasketal mesenchymal chondrosarcomaの1例. 整形外科, 41. 3: 383-386, 1990.
- 9) 九鬼良行ほか: 第2腰椎に発生した間葉性軟骨肉腫の1例. 日癌治療会誌, 24. 7: 1503, 1989.
- 10) 櫛田和義ほか: 大腿部に発生した骨外性間葉性軟骨肉腫の1例. 日癌治療会誌, 24. 10: 2468, 1989.
- 11) Lichtenstein L., Bernstein D.: Unusual benign and malignant chondroid tumors of bone. Cancer 12: 1142-1157, 1959.
- 12) 前川保雄ほか: 骨外性間葉性軟骨肉腫の1例. 日臨外医会誌, 50. 9: 2023, 1989.
- 13) 増田元彦ほか: Mesenchymal chondrosarcomaについて. 整形外科, 16: 537-541, 1965.
- 14) 中川清昌ほか: 上顎に発生した間葉性軟骨肉腫の1例. 日本口腔外科学会誌, 33. 6: 1162-1166 1987.
- 15) Y.Nakashima, et al.: Mesenchymal chondrosarcoma of bone and soft tissue. Cancer 57: 2444-2453, 1986.
- 16) 斉藤浩哉ほか: 左胫骨に発生したMesenchymal chondrosarcomaの1例. 日整外会誌, 63. 6: 733. 1989.
- 17) Salvador, A.H.: Mesenchymal chondrosarcoma: observation on 30 new cases. ibid, 28: 605, 1971.
- 18) 白石 稔ほか: 仙骨に発生したmesenchymal chondrosarcomaの1症例. 日癌治療会誌, 22. 6: 1276, 1987.
- 19) 鈴木勝美ほか: 胸髄硬膜から発生した間葉性軟骨肉腫の1例. 臨床整形外科, 21. 9: 1043-1046, 1986.