小児微小原発性肺癌を合併した骨肉腫の 1 例

熊本大学整形外科

西 田 公 明・米 村 憲 輔
薬師寺 俊 剛・加 藤 悌 二
梅 村 武 寛・高 木 克 公A Case Report of Simultaneous Occurrence of
Osteosarcoma and Small Lung CancerKimiaki Nishida, Kensuke Yonemura, Toshitake Yakushiji,
Teiji Kato, Takehiro Umemura, and Katsumasa TakagiDepartment of Orthopaedic Surgery, Kumamoto University School
of Medicine, Kumamoto, Japan

This paper presents a rare case of simultaneous malignant tumors of the femur and lung in a 14-year-old boy. He was referred to our department on April 1997, with swelling of the left thigh. X-ray findings revealed ill-defined bone destruction with periosteal reactive bone. MR image showed cortical destruction and extension of tumor into soft tissue with inhomogeneous signal. Simultaneously, a tumor of 5 mm in diameter was detected in the S⁶ of the left lung by chest CT. Biopsy was performed, and histologic study of the tissue resulted in a diagnosis of osteosarcoma. He underwent above knee amputation following pre-operative chemotherapy. After post-operative chemotherapy, however, lung shadow was still present. It was suspected as metastatic osteosarcoma, and thoracoscopic resection was performed. The lung tumor was diagnosed histopathologically to be a moderately differentiated papillary adenocarcinoma. To our knowledge, only a few cases have been previously reported. The combination, therefore, appears to be very rare.

Key words : Osteosarcoma (骨肉腫), lung cancer (肺癌), child (小児)

は じ め に

1889 年の Billroth による報告以来、重複癌の報告は多数みられるが、骨肉腫に合併した悪性腫瘍は比較的少ない。今回我々は、小児微小原発性癌を合併した骨肉腫の 1 例を経験したので報告する。

症 例

症例 : 14 歳, 男性.

既往歴 : 特記すべきことなし.

家族歴 : 父親が肺癌にて加療中である.

現病歴 : 平成 9 年 3 月頃より左大腿痛が出現し、さらに同部の腫瘍を触知するようになったため近医を受診した。X 線にて左大腿骨に異常陰影を指摘され同年 4 月当科を紹介された。

入院時現症 : 左大腿遠位に約 10 cm の弾性硬の腫瘍を触知した。また、同部の腫脹、圧痛が著明であった。左膝の可動域は疼痛のため 20° から 90° と制限されていた。

検査成績 : 血液検査にて ALP は 747 u/l と高値を

示していた。

画像所見：X線では左大腿骨遠位に不整な骨硬化像、骨皮質の破壊像がみられ、骨膜反応も認められた。また骨外にも不整な骨硬化像がみられた（図1）。

MRIでは、T1強調像にて低信号を呈し、T2強調像では低ないし高信号領域が不規則に混在する腫瘍像が認められた（図2）。

また胸部X線では異常を認めなかったが、CTにおいて左S⁶領域の肺表面より深さ2 cmの部位に直径5 mmの境界不明瞭な結節状陰影を認めた（図3）。

入院後施行した切開生検では、典型的な骨肉腫の組織像であった（図4）。

入院後経過：以上より Stage IIIの骨肉腫と診断し、

図1 X線。左大腿骨遠位に不整な骨硬化像、破壊像が認められ、骨外にも不規則な骨硬化像がみられた。

CDDP, ADMによる術前化学療法を行った。化学療法の効果は無効であり、MRIにても腫瘍の増大を認めたため、同年7月左大腿切断術を施行した。術後化学療法はIFOに変更し継続した。その間新病変の出現はなく、孤立性であったため、同年11月胸腔鏡視下に肺部分切除を行った。

肺病巣の組織像は、乳頭状腺腔形成を示し、核のクロマチンの増加や核小体の目立つ異型上皮の増殖性変化を認め、少数ながら核分裂像も確認された。しかしながら腫瘍性類骨や非上皮性の異型細胞はみられなかった（図5）。免疫染色においてはcytokeratin, EMAに陽性を示し、vimentinは陰性であった。以上より中分化型腺癌と診断された。その間他臓器癌の検索も行ったが異常を認めず、原発性肺癌と診断した。

化学療法は平成10年6月まで継続し、平成11年6月現在、無病生存中である。

図3 胸部CT像。左S⁶領域に直径5 mmの結節状陰影を認めた。

図2 MRI像。T1強調像にて低信号、T2強調像にて低ないし高信号領域が混在する腫瘍像が認められた。

図4 大腿骨の組織像。典型的な骨肉腫の組織像であった。

図5 肺病巣の組織像。乳頭状腺腔形成を示す異型上皮の増殖性変化を認めたが、腫瘍性類骨や非上皮性の異型細胞はみられなかった。

考 察

小児原発性肺癌は極めて稀であり、諸家の報告によれば15歳以下での発生例は全肺癌の0.1%に過ぎないとされ⁵⁾、奥蘭ら⁴⁾の報告でも、本邦の小児肺癌の報告は28例であったとされ極めて稀である。また大崎ら²⁾によれば、若年者肺癌の75%以上が進行例であり、そのほとんどは発見後1年以内に死亡したと報告しており、予後不良であるとされる。

本症例は骨肉腫の肺転移検索のため胸部CTにて小結節病変が発見された症例である。我々が渉猟しえたかぎりでは、肺癌を合併した骨肉腫の報告は、Ohyaら³⁾による32歳女性の下顎骨骨肉腫例、Nonomura

ら¹⁾による13歳女子の腓骨骨肉腫例の2例しかなく極めて稀である。

一方、上皮様成分を持つ骨肉腫の報告も散見され、鑑別として問題となる。しかしながらその組織像は、上皮性のmarkerに陽性を示す腫瘍細胞が胞巣状に増生し、腫瘍細胞間に類骨が認められる。本症例においては先に述べたように肺病巣の組織内に類骨あるいは骨形成が全く見られなかったことから原発性肺腺癌と診断した。

結 語

今回我々は、極めて稀な小児微小原発性肺癌を合併した骨肉腫の1例を経験したので若干の文献的考察を加えて報告した。

参 考 文 献

- 1) Nonomura, A., et al.; Simultaneous occurrence of lung adenocarcinoma and fibular osteosarcoma in a 13-year-old girl. *Thoracic Cardio. Surg.*, 42; 61-63, 1994.
- 2) 大崎敏弘ら; 若年者肺癌切除例の臨床的検討. *日胸*, 51; 559-563, 1992.
- 3) Ohya, T., et al.; A rare case of simultaneous malignant tumors; osteosarcoma of the mandible and lung cancer. *J. Oral Maxillofac. Surg.*, 45; 261-264, 1987.
- 4) 奥蘭真一ら; 小児原発性肺癌の1例. *小児がん*, 33; 436, 1996.
- 5) 酒井 聡ら; 15歳男子肺癌の1治験例, 一本邦小児肺癌報告19例の検討-. *日臨外会誌*, 48; 361-365, 1987.