症 例

右肺下葉，肝右葉合併切除を行った，骨肉腫横隔膜転移の1手術例

京都府立医科大学第2外科（主任：岡 隆宏教授），同 整形外科*

西 山 勝 彦 川 田 雅 俊 島 田 順 一 佐 藤 伸 一
園 山 輝 久 村 山 祐 一郎 神 吉 豊 和 田 行 雄
大 賀 興 一 岡 隆 宏 楠 崎 克 之*

右横隔膜に転移を来した骨肉腫に対して浸潤した肺と肝臓を一塊に切除しえた症例を経験したので報告する。症例は19歳の女性で，12歳時に右大腿の骨肉腫と診断され切断術を受けている。13歳と16歳時に肺転移を認め，転移巣の切除術を受けた。今回背部痛が出現し，精査の結果右横隔膜に腫瘤があり，右肺下葉と肝右葉に浸潤していた。下大静脈にバイパスポンプを設けて，腫瘍を浸潤部位と一塊に切除できた。右の横隔膜の欠損に対しては Marlex mesh sheet を用いて再建した。他に転移巣がなく，切除可能であれば，肺転移と同様に積極的に外科治療を行うことで予後の向上が期待できると考えられた。

索引用語：骨肉腫，横隔膜，外科治療

はじめに

骨肉腫の治療成績については，近年目覚ましい改善がみられている。しかし，現在でも多くの患者が肺を中心とした転移で死亡している。教室では骨肉腫の肺転移は積極的に切除を行うことによって良好な成績を得ている。これまで骨肉腫は肺以外の臓器転移はまれとされてきたが¹⁾²⁾，その末期には肺外転移もかなり高率に認められている³⁾。系統的化学療法や肺転移巣切除がさかんに行われるようになって，予後の改善とともに肺外転移が臨床例にも見られるようになってきた^{4)~7)}。今回われわれは2回の肺転移巣切除後に，右横隔膜転移をきたした骨肉腫の患者に対して，右横隔膜腫瘍を右肺下葉と肝右葉を一塊にして切除しえたので，手術術式及び手術適応について若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

患者は19歳の女性で一児の母親である。右季肋部痛を主訴に近医を受診した。現病歴として，1983年7月，12歳時骨肉腫の診断で右大腿部切断術を受けたが，その1年後の1984年8月に左肺下葉に2個の転移巣を，4年後の1987年9月に右肺下葉に3カ所の転移を来し，それぞれ部分切除を受けている。今回右大腿部切断から8年後に季肋部痛を主訴に受診した。近医での

精査の結果，右横隔膜を中心とした右肺下葉から肝右葉に及ぶ腫瘤を指摘され，内部構造に石灰化を認めることから，骨肉腫の横隔膜転移と診断され1991年6月本院に紹介された。入院時現症では，体格，栄養状態は良好であり，軽度の貧血を認めたが黄疸はなかった。視診上右季肋部の軽度の膨隆を認めた。入院時の血液生化学検査で，赤沈値の亢進とCRP値が10.2mg/dl（正常値0.0~0.4mg/dl）と上昇し，血清アルカリフォスファターゼ値も513IU/l（81~266IU/l）と上昇していた以外は異常値はなかった。

画像診断

入院時の胸部レントゲン写真では右横隔膜の挙上を認めたが，肺野には転移を疑わせる異常陰影を認めなかった（図1）。

MRIによる胸腹部の横断面像では右横隔膜を中心とする巨大な腫瘤が認められた。腫瘤は右肺下葉及び肝右葉の浸潤が疑われ，その中心部には石灰化像が見られた（図2）。さらに前額断面像ではより明らかに後方で右肺下葉から右横隔膜，肝右葉にわたる一塊となった腫瘤を認め，前方では下大静脈を右房流入部で圧排，狭窄している所見が認められた（図3）。

腹部の選択的血管造影では，腫瘤は右横隔膜動脈から血液の供給を受けていた。MRIで認められた下大静脈の圧排は下大静脈造影にて右房への流入部で圧排狭窄されているのが確認された（図4）。

図1 入院時の胸部X線像：右横隔膜の挙上と前回手術のstaplerがみられる。

腹部超音波検査では、肝裏面で下大静脈内に腫瘤の突出が見られ、腫瘤は下大静脈に浸潤しているものと考えられた（図5）。

全身骨シンチ、ガリウム腫瘍シンチグラフィーやその他の精査にて他の部位に転移巣を認めず、画像診断から右横隔膜に転移した骨肉腫が右肺下葉と肝右葉に浸潤発育したものと診断した。腫瘤が大きく化学療法の効果が期待されないこと、これまでのドキソルビシンを中心とした化学療法の総量がほぼ極量に近いこと、症状として疼痛を伴ってきたことから、切除の適応とした。

図2 胸部腹部MRI横断像：右肺下葉から横隔膜を越えて肝右葉に浸潤した腫瘤が認められる。中心部に石灰化像がある。

手術

切除に際して下大静脈の遮断と肝静脈の血流遮断に

図3 前額断面MRI像：椎体の付近の後腹膜から前方に発育した腫瘤が下大静脈を偏位圧排している。

図4 選択的横隔膜動脈造影(右): 腫瘍は右横隔膜動脈より栄養されている。下大静脈造影(左): 右房流入部で狭窄と右に偏位している。

図5 腹部超音波エコー: 肝下面の腫瘍は下大静脈内に突出している。

対応するために bio-pump を左大腿静脈—左腋窩静脈間に補助手段としてあらかじめ設けることとした。この回路には必要に応じて門脈脱血をつけ加えられるようにしておいた(図6)。手術は胸骨正中切開を上腹部まで伸ばし、右第7肋間開胸を追加して術野を確保した。まず肺門部の血管と気管支を処理し、右肺下葉切除を進めた。ついで腹部に移り、肝門部の血管処理を行い、肝右葉切除を進めて下大静脈を露出した。腫瘍は短肝静脈から一部で下大静脈に浸潤していたため、前述の補助手段下で下大静脈の血流を遮断し下大静脈を切開して静脈内の腫瘍塊を摘出した。下大静脈の欠損部は直接縫合で閉鎖した。左肝静脈の血流は遮断することなく肝右葉切除が行えた。最後に横隔膜の付着部で切離し、腫瘍は一塊として摘出された。右横隔膜はほぼ全欠損となっていたので Marlex mesh sheet

図6 補助手段のシェーマ: 大腿静脈から脱血しポンプで腋窩静脈に送血を行う肝静脈の遮断に備えて門脈脱血をも用意した。

を用いて横隔膜を再建した。手術時間は15時間に及び、術中の出血量は延べ15,100mlであったが、術中出血に対して血液回収装置の Cell-Saver を使用し回収血液を患者に返納することにより総輸血量は20単位(4,000 ml)と節減することができた。

切除標本の総重量は約2kgであり、病理組織学的診断でも横隔膜転移をきたした骨肉腫が肺と肝臓へ浸潤したものと確認された(図7)。

術後経過

右横隔膜全欠損による呼吸抑制が懸念されたが、気管内挿管チューブは術後2日目に抜管することができ、抜管後の肺の膨張も良好であった。肝切除断面に

図7 切除標本と病理組織像：断面では横隔膜の腫瘍が肺と肝に浸潤していた。部分的に軟骨様の構築を示す。chondroblastic type の骨肉腫であった。

留置したドレーンから MRSA が検出されたが、洗浄と抗生剤（ミノサイクリン400mg/day）の投与により軽快治癒した。術直後から術前に高値を示した血清アルカリフォスファターゼ値は166IU/lと正常値に復した。患者は術後53日目に退院した。退院後整形外科で多剤併用（イホスファミド3g、エトポシド150mg、ビンデシン6mg）化学療法を3クール行った後、社会生活に復帰した。

考 察

骨肉腫は血行性転移を来しやすく、その転移標的臓器としては従来から肺がもっとも多いとされてきた。肺転移は Thomford らの原則⁸⁾に基づいて積極的な転移巣切除と強力な化学療法を併用することで予後の向上が期待できるようになった⁹⁾¹⁰⁾。しかし近年、肺転移切除後や化学療法後の延命症例において、転移様式に変化が見られ、骨、後腹膜、肝、腎、心筋などへの肺外転移が増加してきているとの報告が見られる。さらに矢部らの骨肉腫患者10例の剖検例の検討で肺転移以

外には骨転移が6例ともっとも多く、次いで横隔膜転移が3例に見られている¹¹⁾。このような肺以外への転移を来した症例では転移巣が他臓器に多発することが多く手術適応から除外されることがほとんどである。しかし最近肺以外の転移巣に対しても肺転移巣と同様に他に転移巣を認めず、切除が可能であれば積極的に切除することで延命効果が得られるとの報告もみられる¹²⁾¹³⁾。本症例では2回の肺転移巣切除後でもあり、抗癌剤の動注療法も考慮されたが、右横隔膜の転移巣以外には検査上他に転移を認めず、手術侵襲は大きい患者は19歳と若く耐術能に問題はなく、すでに1児の母親となり本人及びその家族が延命治療を強く希望していることから外科的切除術の適応とした。術前の検査から右横隔膜の全切除に加えて右肺下葉と肝右葉切除は余儀なくされると考えられ、また下大静脈内に腫瘍浸潤を認めたため前述の補助手段を用いて良好な結果が得られた。下大静脈の減圧と術中出血の回収は出血量の抑制と輸血量の節約に有効であった。また、Marlex mesh sheet による右横隔膜の再建は術後早期の人工呼吸器からの離脱と呼吸機能の温存に有用と考えられた¹⁴⁾。患者は退院後外来で経過観察を行っていたが術後11カ月目の腹部のCTで後腹膜に局所再発が認められている。術後約1年を経過し担癌状態ではあるが生存中である。肺以外の骨肉腫の転移に対しても、切除により根治性があると判断されれば、肺転移巣切除術と同様に良好な予後が期待され、長期生存の可能性も生まれてくることから、今後も積極的な切除を行っていきたいと考えている。

文 献

- 1) Johnson MR, Bonfiglio M, Cooper RR: Osteosarcoma. Clin Orthop 78: 314—322, 1971
- 2) McKenna RJ, Schwinn CP, Soong KY, et al: Sarcoma of osteogenic series (Osteosarcoma, Fibrosarcoma, Chondrosarcoma, Parosteal osteogenic sarcoma, and Sarcomata arising abnormal bone). J Bone Joint Surg 48: 1—26, 1966
- 3) 山脇慎也, 後藤 守, 嵯山勇二他: 骨肉腫剖検例の検討. 臨整外 17: 23—31, 1982
- 4) 石田俊武, 大河孝良, 田中治和他: 骨肉腫の皮下組織への転移について. 臨整外 18: 997—1002, 1983
- 5) Jeffree GM, Price CHG, Sissons HA: The metastatic patterns of osteosarcoma. Br J Can-

- cer 32: 87—107, 1975
- 6) Huth JF, Eilber FR: Patterns of recurrence after resection of osteosarcoma of the extremity. *Arch Surg* 124: 122—126, 1989
 - 7) Giuliano AE, Feig S, Eilber FR: Changing metastatic patterns of osteosarcoma. *Cancer* 54: 2160—2164, 1984
 - 8) Thomford NR, Woolner LB, Clagett OT: The surgical treatment of metastatic tumors in the lung. *J Thorac Cardiovasc Surg* 49: 357—363, 1965
 - 9) 前田 元, 中原数也, 大野喜代志他: 骨肉腫肺転移に対する外科治療成績の検討. *日胸外会誌* 37: 344—349, 1989
 - 10) Pastorino U, Gasparini M, Tavecchio L, et al: The contribution of salvage surgery to the management of childhood osteosarcoma. *J Clinical Oncology* 9: 1357—1362, 1991
 - 11) 矢部啓夫, 文 博史, 花岡英弥: 骨肉腫転移についての検討. *整形外科* 43: 272—277, 1992
 - 12) 和久宗明, 小山 明, 安野 博他: 骨シンテグラフィが転移巣の検索に有用であり拡大切除術を行って得た転移性骨肉腫の1治験例. *肺癌* 28: 877—882, 1988
 - 13) 鳥飼秀久, 守屋秀繁, 頭正士他: 腸間膜に初発転移した大腿骨骨肉腫の1例. *関東整外会誌* 21: 324—328, 1990
 - 14) Tanaka F, Sawada K, Ishida I, et al: Prosthetic replacement of entire left hemidiaphragm in malignant fibrous histiocytoma of the diaphragm. *J Thorac Cardiovasc Surg* 83: 278—284, 1982

A CASE REPORT OF METASTATIC OSTEOSARCOMA —SUCCESSFUL EXTENDED RESECTION OF THE RIGHT HEMIDIAPHRAGM WITH RIGHT LOWER PULMONARY LOBE AND RIGHT LOBE OF THE LIVER—

Katsuhiko NISHIYAMA, Masatoshi KAWATA, Junichi SHIMADA, Shinichi SATOH,
Teruhisa SONOYAMA, Yuichirou MURAYAMA, Yutaka KANKI,
Yukio WADA, Koichi OHOGA, Takahiro OKA
and Katsuyuki KUSUZAKI*

Second Department of Surgery, Kyoto Prefectural University of Medicine

*Department of Orthopaedic Surgery, Kyoto Prefectural University of Medicine

A case of metastatic osteosarcoma to the right diaphragm which was successfully resected on bloc is reported. The patient was a 19-year-old girl. There were previous histories of undergoing amputation of the right thigh for osteosarcoma at 12 years old, and excision of pulmonary metastasis two times at 13 and 16 years old.

At this time, 9 years after the first operation, the patient developed back pain, and was diagnosed as having a metastatic diaphragmal tumor of osteosarcoma involving the right lower lung and liver. Using veno-veno bypass-pump, the metastatic tumor together with right lower pulmonary lobe and right hepatic lobe was successfully removed en bloc. Defect of the right hemi-diaphragm was reconstructed with Marlex mesh sheet. Thus, aggressive surgical resection should be applied to extrapulmonary metastatic lesions of osteosarcoma, when there is no other metastasis. This attitude would promise to have a better prognosis.