

骨の線維肉腫について

徳島大学医学部整形外科学教室（主任：山田 憲吾 教授）

松森 茂，北室 義人，近藤 俊夫，霜田 慶秋

（原稿受付 昭和33年4月21日）

FIBROSARCOMA OF BONE

by

SHIGERU MATSUMORI, YOSHITO KITAMURO,

TOSHIO KONDO and YOSHIKI SHIMODA

Department of Orthopaedic Surgery, School of Medicine, Tokushima University

(Director: Prof. Dr. KENGO YAMADA)

In this paper the authors reported the two cases of primary fibrosarcoma and one case of metastatic fibrosarcoma of bone experienced in our clinic, and discussed mainly about the primary fibrosarcoma of bone.

The first case of primary fibrosarcoma was male aged 16, and the second case was female aged 17; in both cases, distal meta-physis of tibia was invaded.

Metastatic fibrosarcoma of our case was female aged 67, with tumor in the frontal bone.

緒 言

最近日本整形外科学会に於て骨腫瘍の登録制が企画され、骨腫瘍に対する関心が漸く充まるにつれて、之に関する報告も数多く見られるに至つた。然し乍ら其の定義乃至名称、或は分類等々に関しては必ずしも意見の一致を見ず多くの問題を残しているようである。わけても骨に発生する肉腫に就いては一層此の感が深く、我が国に於ける従来の報告を見ても単に骨肉腫、或は外傷性骨肉腫等と記載するだけで、その臨床的、レ線学的、乃至は組織学的な総合的観点から之が如何なる種類の肉腫かを明記したものは甚だしい。

本論文に於ては我々の経験した骨の線維肉腫と思われる3例を簡単に報告し、主として骨に原発する線維肉腫について考察を試み度いが、茲に我々の云う骨の線維肉腫fibrosarcoma of boneとは、組織学的に紡錘形細胞或は線維芽細胞を主体とする悪性結合組織細胞からなり、線維形成を見るのみで造骨作用の認められないものを云い、Lichtenstein (1952) の分類に従つたものである。

症 例

個々の症例に就いて詳述することとを避け各々の要点を表1に掲示した。この中症例1及び2は骨に原発した線維肉腫であり、症例3は転移により二次的に骨に発生したものである。

名 称 並 び に 分 類

我々の線維肉腫 fibrosarcoma なる診断名は先述の如くLichtenstein (1952) の記載に拠つたものであるが、此の中二次的に骨に転移した線維肉腫は先づ問題ないとしても、骨に原発するものについては、之を独立した entity として認めるかどうかについて異論がない訳ではない。Hellner (1938) 及び Geschickter-Copeland (1949)等は骨の線維肉腫は骨膜又は parosteal tissue に源を発し、extensionによつて骨内部に侵入するもので、骨内部に原発する線維肉腫は存在しないと述べている。従つてLichtenstein の fibrosarcoma は Hellner によると osteolytisches osteogenes Sarkom であり、Geschickter-Copelandに従う

表 1

症 例		1	2	3
年 令		16	17	67
性		♂	♀	♀
職 業		生 徒	工 員	な し
家 族 歴		特記すべきものなし	母親が肺結核で療養中、 他なし	特記すべきものなし
既 往 歴		特記する疾患なし	15才の時慢性副鼻腔炎 の手術。その他の著患 なし。	2年前、大網膜、腸間膜、 子宮周囲腹膜に発生した 線維肉腫の手術を受く。
外 傷 の 有 無		な し	な し	7ヵ年前頭部を打撲す。
主 訴		右膝関節の腫脹、疼痛	右下肢倦怠感及び右膝 関節部の腫脹、運動痛。	前額部の腫脹。
発病より初診迄の期間		4ヵ月	2ヵ月	7ヵ月
既往の治療		鎮痛、消炎剤の注射	関節穿刺1回	レントゲン照射5回
現 症	全 身 所 見	異常なし	少々貧血性、栄養不良	少々貧血性、腹部に手術 瘢痕
	局 所 所 見	右膝関節瀰漫性に腫脹。 局所熱感、圧痛、運動制限あり。 膝蓋骨跳動著明、25ccの 滲出液を証明。膝関節より 血性滲出液30ccを排除。 大腿骨脛側腓部皮下に硬 結を認める。	右下肢は少々萎縮性。 膝蓋骨上部内側は瀰漫性 に腫脹。 大腿骨脛側上腓部に圧痛。 膝関節機能は殆んど正常。	左前額部に下部組織と癒 着した鶏卵大の腫瘤を触 れ、軽い圧痛を認める。 波動なく、皮膚にも異常 なし。
一 般 検 査 成 績	赤 血 球 数	541×10^4	478×10^4	
	血色素量 (ザリー)	80 %	73 %	
	白 血 球 数	12400	6800	
	好 中 球	67%	49%	
	好 酸 球	5%	2%	
	好 塩 球	1%	0%	
一 般 検 査 成 績	リ ン パ 球	19%	42%	
	単 核 球	8%	7%	
	赤 沈 値 (中等価)	47 mm	40 mm	
	血清カルシウム	10.5 mg/dl	11.0 mg/dl	
	血 清 燐	4.8 mg/dl	5.2 mg/dl	
	血清アルカリフォスファターゼ (Bodansky) 2.9単位		8.2単位	
一 般 検 査 成 績	ツベルクリン反応	(-)	(+)	
	ワッセルマン反応	(-)	(-)	
	糞 便 所 見	異常なし	異常なし	
	尿 所 見	異常なし	異常なし	
発 生 部 位		右大腿骨遠位骨幹端	右大腿骨遠位骨幹端及 び遠位骨幹	前 頭 骨
レ 線 所 見		大腿骨遠位骨幹端に周囲 との境界不明な透明巣及 び骨破壊像あり。 骨膜反応及び一部に針骨 形成を見る。 (図1)	右大腿骨遠位骨幹端部は 萎縮性で骨幹中央部及び 末梢部に比較的明瞭に境 された透明像があり、広 範囲な骨硬化像を認める。 骨膜反応あり。 (図3)	前頭骨の左方に僅かなが ら骨萎縮像様の陰影を認 めるも明瞭ならず。 (図5)

組織学的所見	円形，楕円形，乃至は紡錘形の大小不同の腫瘍細胞が，索状若しくは不規則に並び，線維形成が旺んで，所により内皮系細胞の増殖を見る。多核巨大細胞を散見す (図2)。	楕円形乃至紡錘形の大小不同の結合組織細胞が多数認められ，之が索状，或は波状に走り，密な又は鬆粗な線維形成を認める (図4)。	長短種々の紡錘形細胞が索状乃至波状に密な線維形成を伴つて走る。線維形成は甚だ密で腫瘍細胞は症例2よりも分化が進んでいる (図6)。
治 療	試験切除。 ザルコマイシン注射。	試験切除。 ザルコマイシン注射。 レ線照射。	腫瘍摘出。 ナイトロミン注射。 レ線照射。
転 帰	死 亡 (発病後9ヵ月)	死 亡 (発病後9ヵ月)	死 亡 (発病後10ヵ月)

表 2

of cartilage-cell or cartilage-forming connective-tissue derivation	:	Chondrosarcoma
of osteoblastic derivation	:	Osteogenic Sarcoma
of nonosteoblastic connective-tissue derivation	:	{ Fibrosarcoma Frankly Malignant Giant-cell Tumors
of mesenchymal connective-tissue origin	:	Ewing's Sarcoma
of hematopoietic origin	:	{ Multiple Myeloma Chronic Myeloid Leukemia Acute Leukemias { Reticulum-cell Sarcoma Malignant Lymphoma { "Lymphosarcoma" Hodgkin's Disease
of nerve origin	:	
of vascular origin	:	Hemangioendothelioma
of fat-cell origin	:	Liposarcoma (?)
of notochordal derivation	:	Chordoma
of adamantine or possibly basal-cell derivation	:	So-Called Adamantinoma

と osteogenic sarcoma 中の osteolytic type に一致する。即ち之等の人々の主張は本症の腫瘍細胞である結合組織細胞は本来骨細胞へと分化するものであるが、造骨能力を発揮しなかつたものであるとの仮定に立脚しており、同様の意見はStout (1948)によつても述べられている。

然しながら今日各学者の分類基準により其の分類の方法は必ずしも一致しないとは云え、大方の意見では骨の線維肉腫なるものの多くは主として骨髓乃至は骨皮質等の骨内部から発生するものであると云われ、独立した entity として分離されている。

我々の準拠した Lichtenstein (1952) の記載では骨の悪性腫瘍を表2に掲示する如く分類し、fibrosarcoma は giant-cell tumor と共に non-osteoblastic connective-tissue derivation のものの中に含まれている。之と略々同様の見解をもつものに Calandruccio (1956)、小嶋(1957)等がある。又Scarff (1937)、Coley (1949)等も線維肉腫を osteogenic sarcoma と

は分離せしめている。The Bone Sarcoma Registry of the American College of Surgeons (1939) 及び Macdonald & Budd (1943) 等の報告では fibrosarcoma を osteogenic sarcoma 中に含めて分類しているが、之は osteogenic なる言葉を骨原性即ち骨組織に関係あるものと解釈しているもので、骨形成性の所謂 osteogenic sarcoma と fibrosarcoma とを区別している点に於ては前者と変らない。即ち組織発生学的な立場から Lichtenstein, Calandruccio, 或は小嶋等の如く線維肉腫を巨細胞腫瘍と同列に見做すことには尚多くの疑問があるとしても、骨内部の非骨形成性結合組織から発生するもので osteogenic sarcoma とは区別すべきものであると考える点は何れも一致している。

我々の症例1及び2に於ても其のレ線並びに試験切除時の所見から少くとも骨内部から発生したものと考えられ、之等に賛意を表するものである。そして骨に発生する線維肉腫は次の如くに分類し得るかと考え

る。

1. Primary Fibrosarcoma of Bone

a. Central Fibrosarcoma

b. Periosteal Fibrosarcoma

2. Metastatic Fibrosarcoma of Bone

之等の中 Central Fibrosarcoma は Ewing (1939), Phemister (1948) 等の云う如く骨髓組織から発生するものか、或は又 Macdonald & Budd の唱えるように骨皮質からも発現するものかに就いては確答し得ないが、骨組織の解剖学的見地からすれば、何れから発生し得るものと考えてよいのではあるまいか。

考 察

本項に於ては前項に述べた骨に発生する線維肉腫の中、特に骨に原発するものについて若干の考察を加え度い。

1) 年齢：小児から高令者に至る迄あらゆる年齢層に見られるが所謂 osteogenic sarcoma 等に比して比較的高令者に多く、Schinz (1952) は 25~45 才に最も多いと云い、Ritvo (1955) は平均年齢 35 才と称している。我々の 2 例は夫々 16 才、17 才で何れも若年者に見られた。

2) 好発部位：central fibrosarcoma は通常四肢長管骨の骨幹端乃至骨端に頻発し、特に大腿骨遠位、脛骨近位及び上腕骨近位部に多いと言われ、其の他肋骨、脛骨遠位部にも比較的多く見られるとされている。我々の 2 例は何れも大腿骨遠位部に認められた。

一方 periosteal fibrosarcoma は短、扁平骨にも可成り多いと言われており、Stout (1948) は 13 例中 8 例は肩胛骨、顎骨、仙骨、尾骨等に認めたと述べている。

尚 Paget 氏病を有する骨、及びレ線照射を受けた骨には線維肉腫が発生し易いと云われ、更に Steiner (1944) 及び小嶋 (1957) 等は多中心性に多くの骨に発生した甚だ稀な例を報告している。

3) 症状：通常罹患肢の倦怠感、腫脹、疼痛等を訴えるが一般に軽く、病勢進行して医治を乞う者が多い。我々の症例も自覚症状はさして強くなかった。

骨破壊が進行し、腫瘍が骨周囲組織にも及ぶと患肢の筋萎縮並びに局所の腫脹が著明となり、病的骨折も屢々見られる。

4) レ線所見：原則として骨溶解性変化が主体をなす。中心性のものでは骨髓部に不規則な、時には比較的明瞭に境された透明巣が見られ、骨皮質の破壊像を

認める。骨破壊部に於てもその辺縁は不定で不規則な moth-eaten 様を呈するものもあり、又明瞭に境された部分も証明される。時には又骨破壊部周辺に反応性硬化像を認める場合もある。骨膜性反応は一般に少いとされ、腫瘍部には骨新生像を認めないが、時には隣接骨幹部に骨膜性骨新生像を見る。

我々の症例に於ても透明像並びに骨破壊像を認めたが、更に 2 例共軽度乍ら骨膜反応が見られ、症例 2 に於ては比較的広範囲な骨硬化像をも証明した。

之に対して periosteal fibrosarcoma では常に骨外性の濃厚な腫瘍性陰影が認められ、浸潤が骨組織に及ぶ時は、中心性のものと同様に、種々の骨破壊像を呈する。

5) 組織学的所見：腫瘍細胞は主として紡錘形細胞、円形細胞、乃至は線維芽細胞から成る。基質に於ては線状、索状、或は渦巻状の線維形成が盛んであるが、骨組織或は類骨組織の形成は見られない。又腫瘍組織中には硝子様化、石灰沈着、或は壊死が通常見られると云う。腫瘍細胞が分化の進んだ成熟細胞からなる腫瘍は未熟な細胞に富むものよりも悪性度が低いことは他の腫瘍と同様であるが、此の点に關して小嶋 (1957) は、腫瘍細胞が oat-cell 型 → spindle 型 → fibro-spindle 型になるにつれて悪性度が減少すると述べ、更に間質の線維形成が増強し、渦巻をつくる傾向が目立つに従つて悪性度が少くなるように思われると称している。又 Calandruccio (1956) は多核巨大細胞の存在、cellularity 及び anaplasia の程度は mitosis 像の多寡と同等若しくはそれ以上に悪性度を評価するに大切であると云う。

我々の症例に於ては 1, 2 例共に円形細胞を比較的多く認めたが、特に症例 1 では此の傾向が強く、又多核巨大細胞をも証明し、悪性度の強いことが予測された。

6) 診断：本症の診断は、症状、経過、並びにレ線学的所見から臨牀的に或程度は可能であるが、確定的な診断は組織学的検索に俟たなければならない。此の際留意すべきことは所謂 osteogenic sarcoma との鑑別で、腫瘍組織の可及的全領域から慎重に検索し、骨或は類骨組織の形成のないことを確かめる必要がある。

7) 予後：全般に osteogenic sarcoma などに較べ予後は比較的可良と云われ、組織学的な悪性度によつて多少異なるが、適切な治療による 5 年以上の生存率は 30~40% とされている。然しながら放置する時は数ヵ

月～数年後には致命的となる。

periosteal fibrosarcoma は中心性のものに比して悪性度の少いことは多くの認めるところで Stout (1948)は13例中1例だけに転移をみたとう。

一方中心性のものはその悪性度がまちまちで、骨膜性のものに比して、より aggressive であり早期に肺転移を起す。小嶋(1957)は予後不良例は若年者に多いと述べている。我々の症例に於ては組織学的に悪性度が比較的強いことが予想され、何れも発病後1年以内に死亡したが、試験切除と云う外科的侵襲が多少其の死期を早めたのではないかと考えられる。

尚Ewing(1940)はperiosteal fibrosarcoma のあるものは他の骨の骨膜に多発性転移を起す傾向があることを強調した。

8) 治療：組織学的に悪性度の少いことが明瞭なものは健康部をも含めた切除術でよいと云われるが、諸家の報告によると姑息的な手術による再発例は50～60%にも及んでおり、骨膜性たると中心性たるとを問わず原則としては切断術を施行すべきである。

我々の例は不幸にして患者が切断術を拒んだ為に試験切除に終つたが、斯かる外科的侵襲が却つて予後を悪くすることは日常屢々経験するところで、出来得るならば試験切除と根絶的手術を同時に行うことが望ましい。

レ線照射或は薬物的療法等には殆んど希望が持てない。

結 論

16才男子及び17才女子の大腿骨遠位骨幹端部に発生した原発性線維肉腫の2例、並びに67才女子の前頭骨に発現した転移性線維肉腫の1例について報告し、併せて骨の原発性線維肉腫に関し、其の名称、分類、乃至は一般事項に就いて考察を試みた。

稿を終るに当り御懇篤なる御指導と御校閲を忝うした恩師山田憲吾教授に衷心より厚く御礼申し上げる次

第である。

本論文の要旨は昭和32年11月10日第7回四国臨床外科医会に於て口述した。

主 要 文 献

- 1) Lichtenstein, L. : Fibrosarcoma of Bone. Bone Tumors, 180, St. Louis, C. V. Mosby Company, 1952.
- 2) Geschickter, C. F. and Copeland, M. M. : Tumors of Bone, ed. 3, Philadelphia, J. B. Lippincott Comp., 1949.
- 3) Stout, A. P. : Fibrosarcoma (The Malignant Tumor of Fibroblasts). Cancer, **1**, 30, 1948.
- 4) Calandruccio, R. A. : Campbell's Operative Orthopaedics. 1500, St. Louis, C. V. Mosby Company, 1956.
- 5) 小嶋伊三郎, 石川哲夫 : 我教室の線維肉腫に関する研究. 日整会誌, **31**, 301, 1957.
- 6) Coley, B. L. : Neoplasms of Bone and Related Conditions. Their Etiology, Pathogenesis, Diagnosis, and Treatment. New York, Paul B. Hoeber, Inc., 1949.
- 7) Macdonald, I. and Budd, J. W. : Osteogenic Sarcoma (I. A Modified Nomenclature and A Review of 118 Five Year Cures). Surgery, Gynecology, and Obstetrics, **77**, 413, 1943.
- 8) Ewing, J. : A Review of the Classification of Bone Tumors. Surgery, Gynecology, and Obstetrics, **68**, 971, 1939.
- 9) Phemister, D. B. : Cancer of the bone and joint. J. Am. Med. Ass., **136**, 545, 1948.
- 10) Schinz, H. R., Baensch, W. E., Friedl, E., u. Uehlinger, E. : Lehrbuch der Röntgendiagnostik. Skelett Teil 1, 879, Georg Thieme Verlag. Stuttgart, 1952.
- 11) Ritvo, M. : Bone and Joint X-Ray Diagnosis. 608, Philadelphia, Lea & Febiger, 1955.
- 12) Steiner, P. E. : Multiple Diffuse Fibrosarcoma of Bone. Am. J. Path., **20**, 877, 1944.
- 13) Robb-Smith, A. H. T. : The Classification of Bone Tumours. J. Bone and Joint Surg., **37-B**, 179, 1955.
- 14) Geschickter, C. F. : So-Called Fibrosarcoma of Bone (Bone Involvement by Sarcoma of Neighboring Soft Parts). Arch. Surg., **24**, 231, 1932.

図

1

a

b

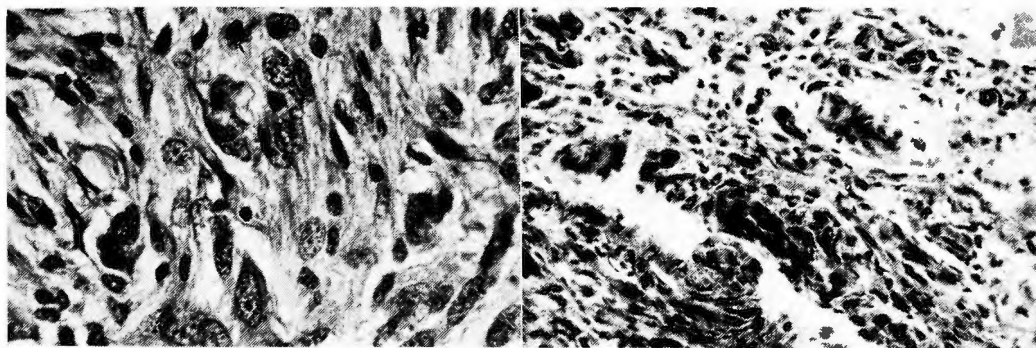


図

2

a

b



c

図

3

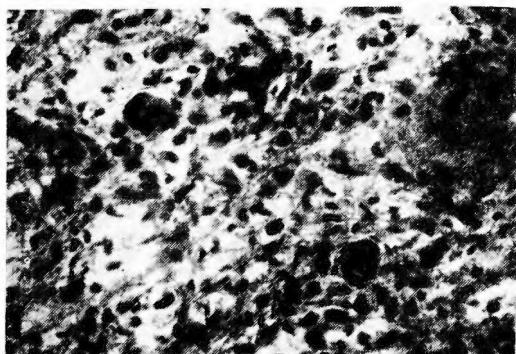


図 4

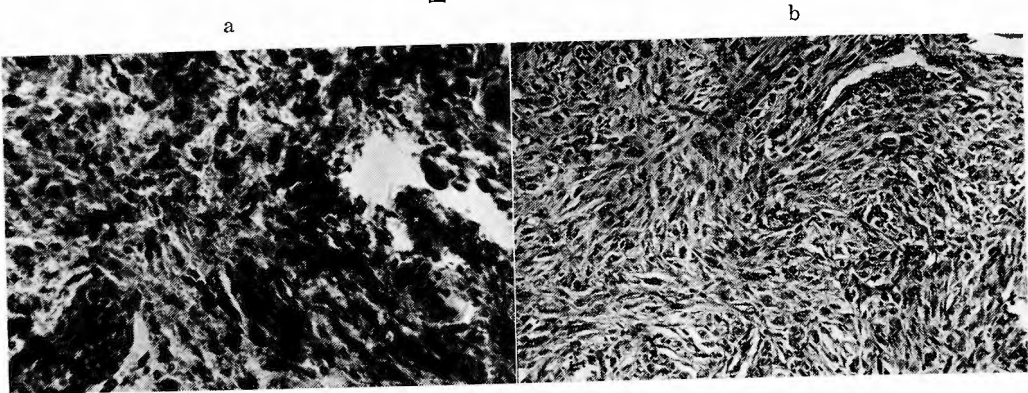


図 5



図 6

