

骨盤附近に発生せる血管肉腫の一剖検例

東京女子医科大学三神内科教室 (主任 三神美和教授)

元 山 清 子
モト ヤマ キヨ コ

(受付 昭和 34年 10月 28日)

緒 言

血管腫は皮膚、皮下組織、及び骨等のいたるところに発生するが、血管肉腫に悪性化することは極めて稀である。著者は最近、大腿部の皮膚、骨盤、及び下部椎体に発生した血管腫に長期間レントゲン照射をおこなつたところ、急速に全身状態が悪化し、著明の貧血をおこし死亡した一例に遭遇した。これは骨盤の深部組織、或は骨から発生したとおもわれる血管腫が血管肉腫に悪性化したと考えられ稀有な一例としてここに報告する。

症 例

患者, 17才, 女子, 学生

既往歴, 3才の時, O脚に対して1年6カ月間矯正及びマッサージをうけたほか, 特記すべき事はない。

家族歴, 悪性腫瘍, その他特別なことを認めない。

現病歴, 昭和31年2月, 右大腿部側面に瀰漫性腫

脹のあることに気附いたが, 発赤, 疼痛等は認めなかつた。5月初旬, 右鼠蹊部内側に小指大の赤紫色をおびた“あざ”を認め, さらに7月初旬その内側にも同様のものを認め某医により, 骨, 或は筋肉に異常があるのではないかといわれ, 7月29日某国立病院へ紹介され入院した。右股関節部のレントゲン撮影をおこなつたが, 骨には異常を認めなかつた。“あざ”の部分の皮膚の試験切除により血管腫と診断され, 8月21日退院した。退院一週間後, 突然はげしい腰痛を訴え, このため腰椎部のレ線撮影をおこなつたところ, (図1)第IV腰椎が高度に破壊されているのを認め9月18日再入院した。入院後, 腰部のレントゲン深部照射をうけ疼痛は漸次軽快してきた。12月初旬, 各大腿部の後面に, 赤紫色をおびた手掌大の腫瘍を認めたので, これを摘出した。12月15日軽快退院し, 自宅にてコルセットを着用し経過は良好であつた。昭和32年

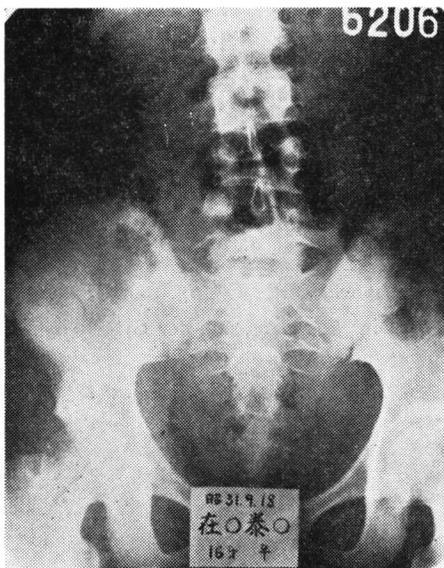


図 1

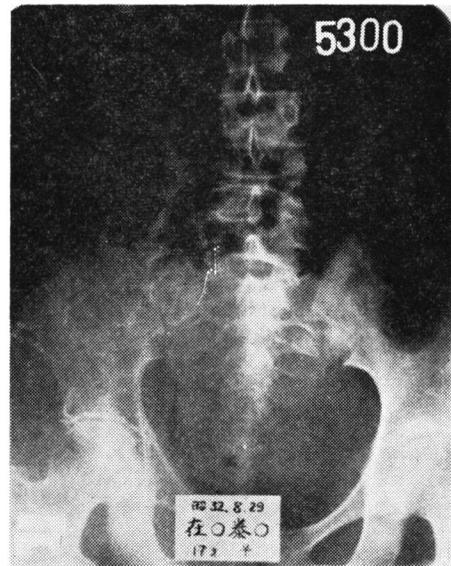


図 2

Kiyoko MOTOYAMA (Mikami Clinic, Department of Internal Medicine, Tokyo Women's Medical College) : A case of angiosarcoma on the pelvis.

6月初旬、階段をふみはずし、この後、右股関節部に疼痛を訴え跛行するようになった。このため8月に再び腰部、及び股関節部のレ線撮影をおこなったところ、(第2図)骨破壊は右骨盤にまで進行していた。照射療法のため8月29日、3回目の入院をした。しかし、5000レントゲン照射後、白血球数が減少したため治療を中止し、10月16日退院した。その後、著変を認めず経過は良好であつたが、本年6月初旬から時々全身倦怠感があり、軽度の顔面蒼白を認めるようになった。

6月15日朝、何となく、のどがつまるような気がしたが、翌日から胸部圧迫感、悪心嘔吐があり、腹部膨満感をおぼえるようになった。6月20日、全身状態はますます悪化し、大腿部皮膚の“あざ”も著しく拡がり色も濃厚となつてきたので、同日当科へ入院した。

入院時所見

体格中等度、栄養状態良、脈拍頻、整、顔貌苦悶状を呈し、顔面蒼白、眼瞼結膜は貧血著明、眼球結膜は僅に黄疸があり、舌は白苔で覆われ、頸部、鎖骨上窩、及び鼠蹊部等のリンパ腺は腫脹していない、肺肝境界第V肋間、胸部心濁音界正常、心尖部に収縮期雑音を聴くほか異常を認めず。腹部は緊張膨隆し、腹壁静脈は強く怒脹していた。右大腿部より下腹部にかけて瀰漫性の抵抗があ

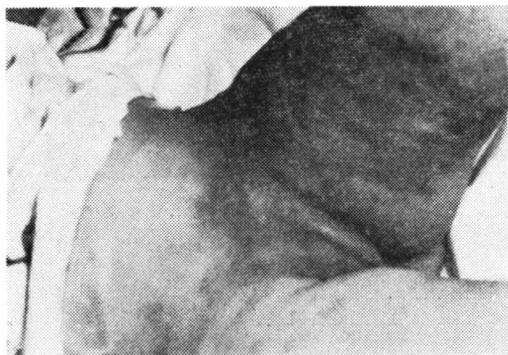


図 3



図 3'

り、暗赤紫色の出血斑(図 3, 3')を認めた。この部は所々膿瘍化し熱感があつた。しかし腰痛、下肢の重圧感、また運動時の疼痛等は全然訴えなかつた。肝臓は3横指触知し、脾臓は触れない。膝蓋腱反射、及びアキレス腱反射正常、病的反射はない。

入院時諸検査成績は表1、2のごとくである。すなわち末梢血液所見は、赤血球数216万、白血球数9800、血色素数53%、血色素係数1.2、網状赤血球11.2%、血小板129600、ヘマトクリット値21%で、血液像は好中球89%、リンパ球8%、単核球3.0%、有核赤血球0.5%であつた。肝機能検査はB. S. P. が30分で18%であり、高田氏反応は陰性であつた。尿所見はウロビリノーゲンが中等度陽性の他異常を認めない。

胸部レ線像。胸部は横隔膜が挙上されている他異常陰影は認められない。

表1 入院時臨床検査成績 I

赤血球数	216×10 ⁴
白血球数	(ザリー値) 9.800
血色素数	53%
血色素係数	1.2
血液像	好中球 89.0%
	リンパ球 8.0%
	好酸球 0
	単核球 3.0%
	有核赤血球 0.5%
網状赤血球	11.2%
血小板	129 600
ヘマトクリット	21.0%
総蛋白量	6.52g/dl
アルブミン	4.10 %
グロブリン	2.42 %
クンケル	9.50単位
ビリルビン	2.59
コレステロール	mg/dl 130 %
残余窒素	30 %
ナトリウム	290 %
カリウム	20.3 %
酸フオスファターゼ	0.57S-J-R単位
アルカリフオスファターゼ	3.32 %
出血時間	7分46秒
凝血時間	開始 46分
	完結 115分
赤沈	中等値 4.5mm

表2 入院時臨床検査成績 II

肝機能	B. S. P. 高田氏反応	30分 18% 陰性
尿	外比 観重	黄色透明 1020
	性	酸性
	蛋白反応	(-)
	糖反応	(-)
	ウロビリノーゲン	++
	ウロビリリン ピリルビン	(-) (-)
沈渣	異常なし	
糞便	潜血反応	ベンチジン法(-) グアヤック法(-)
	虫卵	(-)

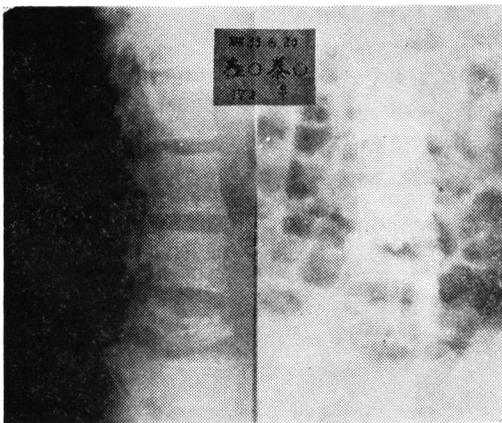


図 4

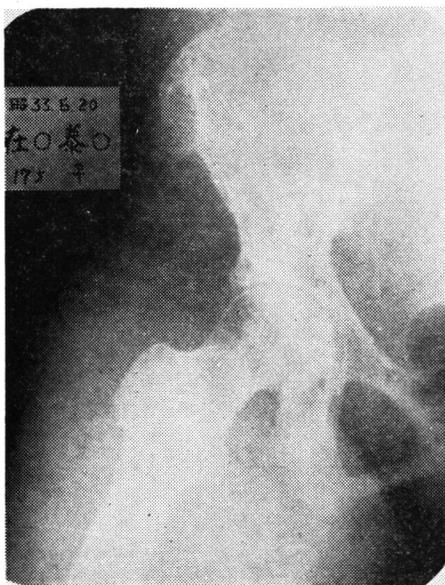


図 5

骨盤、腰椎、及び大腿部のレントゲン所見は第4、5図の如く広範囲に骨破壊像を認めた。

入院後の経過

入院後、下腹部、及び大腿部の皮下出血斑は急速に著明に増加した。またこの頃から右下肢の重症感、圧痛、及び運動時の疼痛を訴え、次第に激しくなった。腹部の膨隆も著しくなり、このため圧迫症状が強くなり嘔吐頻発し、食餌摂取は不能となり、貧血高度、全身衰弱も著明となつてきたので大量のブドウ糖、及びトロンボゲン、カチーフ等の止血剤と共に、連日100、乃至200ccの輸血をおこなつたが貧血は益々著明となつた。入院一週間後の血液所見は、末梢は赤血球数152万、白血球数10800、血色素数27%、ヘマトクリット値19%を示すようになった。骨髓では(表3)赤血

表3 骨 髄 像

骨髓母細胞	0.5%	前赤芽細胞	0.5%
前骨髓細胞	1.0	正染性小赤芽細胞	0
骨髓細胞	7.1	正	0.8
後骨髓細胞	8.2	大	0
桿状核白血球	9.8	多染性小	20.4
多核	10.4	正	22.3
エオジン嗜好性	1.0	大	3.4
リンパ球	1.0	塩基性小	0
単核球	0.5	正	4.8
細網細胞	1.2	大	5.9
プラスマ	0.2	メガロプラステン様細胞	1.2
有核細胞数	2180000	赤血球 白血球商	1.4:1

球白血球商が1.4:1で、赤芽球系統が著明に増加し、メガロプラステン様細胞も認められたが(図6)これらは臨床所見から血液疾患を否定し、反応性骨髓増生によるものと考えられた。尿閉のため導尿をおこなつたが外陰部の浮腫が高度のため採尿は不可能であつた。その後、腹水は著明となり腹腔穿刺をおこなつたところ、液は血性滲出液であつたが腫瘍細胞は認められなかつた。腹部の両側面に高度の浮腫があり、スーセ套管針を用いて相当量の滲出液を排出した。このため一時、圧迫感は軽減したようであつたが、その後、胸内苦悶、呼吸困難、腹部圧迫感は昼夜はげしくなり、

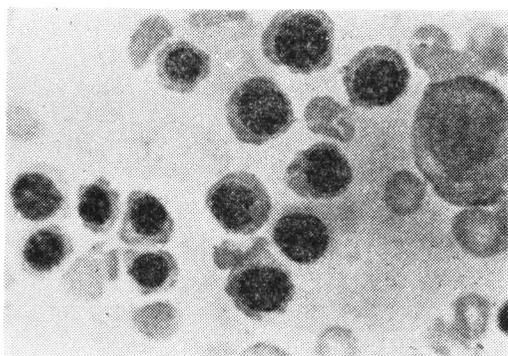


図 6

ウインタミン、麻酔剤使用によるも効なくついに入院第12日目に死の転機をとつた。

剖検所見

1) 右大腿部より外陰部を含め、皮膚面より筋肉、結合織、さらに右股関節部、骨盤、及び第IV腰椎附近の骨髓腔内に何れも連続的に浸潤せる広範な血管肉腫。

2) 腹腔内血液滯溜 3600 cc, 及びこれに伴う高度の横隔膜挙上(右第2肋骨)

3) 高度の貧血、並びに著しく淡い血液。

4) 脾における著明な髓外造血。

5) 大腿骨上部 $\frac{1}{2}$ における赤芽球増生の異常に強い細胞腫。

6) 両肺の局所的拡張不全、及び下葉の充血

7) 中等度の脂肪肝、並びに軽度黄疸。

8) 膀胱後壁粘膜の浮腫。

組織学的所見(第7, 8図)

腫瘍は血液を充した大小の腔から成つていて、その壁に被覆細胞がみとめられる。腔の壁或はこれと離れて間葉性細胞の性質をもつ異型細胞の集団がみられる。この異型細胞は特別の排列を示さないで浸潤性に増殖しているところもあるが、腔

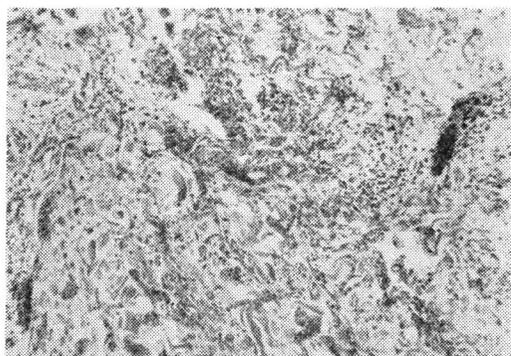


図 7

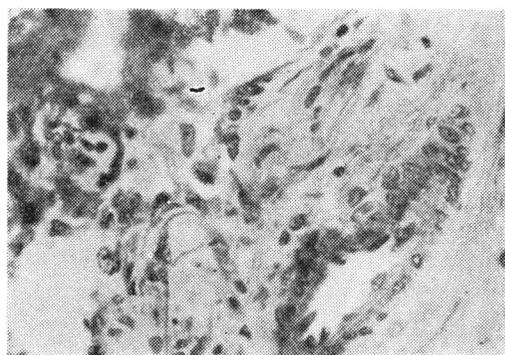


図 8

を囲むような排列をとり血管腔と連絡する傾向を示しているところもみられる。骨のような硬組織も腫瘍細胞浸潤により破壊と萎縮とおちいつている。

総括及び考案

血管肉腫は血管由来の悪性腫瘍であり、しばしば血管内皮腫と同義的に用いられている。血管内皮腫は1908年 F.B. Mallory¹⁾ によつて始めて Hemangioendothelioma という語が用いられ、1943年 Stout²⁾ はこれを "単層内皮を有する血管に並列するに必要以上に多数の内皮細胞が異型的に増殖し、そして繊細な網状線維と管腔が吻合しようとする傾向を有する血管の形成", と定義づけた。

しかし血管の悪性腫瘍の分類あるいはその組織学的発生については現在なお異論があるが、大西³⁾ は内皮腫に良性のものもある以上、悪性血管腫瘍に対しては血管内皮腫というよりも血管肉腫という方が適切であるとのべている。

血管肉腫は比較的稀な腫瘍で本邦においては昭和26年明榮⁴⁾ の67例の統計的観察以後、数例の報告例を散見するにすぎない。特に骨の血管肉腫は非常に稀であるとされている。

本例は血管腫と診断され、長期間レントゲン照射をうけていたものが何らかの原因によつて悪性化し組織学的に血管肉腫を呈した一例である。血管腫は中胚葉性起源の先天性のもものとされ、皮膚、皮下、及び深部組織のいたるところ、時には骨、肝、脾臓等に発生し、稀に悪性化するおそれがあるが、内臓に発生した以外は初期に適当な治療がおこなわれれば予後は良好である。

骨血管腫も本質的には良性で、慢性の経過をとり限局的に、または浸潤性に拡がってゆくが通常は臨床的症状がなく予後も良好といわれ、もつと

もしばしば若年者、とくに子供にみられるという。また好発部位は脊椎、及び頭蓋骨である。Schuz⁵⁾は脊椎血管腫は第3胸椎から第9胸椎に多く、つぎに第1、4及び第5腰椎にみられ、頸椎にはほとんどみられないといっているが、神中⁶⁾は剖検所見より脊椎血管腫は脊柱良性腫瘍中、最大頻度を示し、脊柱の下部へゆくほど発生率が高いといっている。骨血管腫はレントゲン感受性が大で、治療としてレ線深部照射が有効である。Anderson⁷⁾は骨血管腫の3例はレ線照射のみで治癒し、4例は部分的切除、及び3例は全剔出で治癒したとのべ、部分切除とレントゲン深部治療は良性のものに相当であり、全剔出は稀にみる悪性の場合に推奨されるが、又血管腫の中には自然治癒もあるので5才までは治療しない方がよいとのべている。しかし Sutton⁸⁾は成るものは急速に大きくなってしまふので早期治療をした方がよいと強調している。

Ogilvie⁹⁾は血管腫瘍の悪性化は、単純性血管腫→悪性血管腫→悪性血管肉腫の段階をたどるとのべ、悪性血管腫は組織学的には良性であるが転移を生ずるといふ。Robinson¹⁰⁾も良性の血管腫が肺、及び他の内臓に転移を生じ、転移巣は血管肉腫の像を呈した数例を報告している。

悪性血管腫瘍の発生の原因はまだ明らかでないが、しばしば外傷が原因とみとめられる場合がある。Stout²⁾は脊部打撲後8カ月を経て肩甲間筋に発生した1例、及び打撲後2カ月して左膝部に発生した一例を報告した。また McCarthy¹¹⁾は上腿部の血管腫がレ線照射後、15年目に肉腫化した一例、O. G. Lane¹²⁾は顔面の刺創に対しペニシリンで治癒せず、照射療法をおこなつたところ、血管肉腫に悪性化し頸部リンパ節、及び肺に転移をきたし死亡した例を報告している。斎藤¹³⁾も右顔面に発生した血管腫に、レ線、及びラジウム照射をおこない、後に悪性化した一例を報告し、本例はこれら理学的治療が腫瘍の悪性化に何らかの役割を果たしたことは否定出来ないとのべている。本例もまた、既往に長期間レントゲン照射をうけているが、この場合、この治療が本症の悪性化への原因となつたか否かは興味あるところである。

本例における原発部位は剖検時腫瘍が大腿部、及び下腹部の皮膚、深部組織、又骨と広範囲に、

しかも連続的に拡がっているもので、ただ推定にとどまるが、初発症状が大腿部の腫脹で始まり、ついで皮膚への異常着色が現われたことから恐らく深部組織、あるいは骨が原発の様に思われる。転移については、本例では遠隔転移は認められなかつたが明楽⁴⁾の67例の統計的報告では10.4%に転移を認め、若井¹⁴⁾は大腿骨折を伴つた血管内皮腫の一例において剖検上広範囲な内臓諸器官、並びに頭蓋骨、及び腰椎内に転移をみたと述べ、若林¹⁵⁾も肺、副腎、肝臓頭部に転移した一例を報告している。Anderson⁷⁾は40才の女子で両肺、肋膜下、及び肝、肝臓の近くの後腹膜リンパ線へ転移した血管肉腫の患者が右肋膜腔への大出血のため死亡した例を報告している。貧血に関しては本例は腫瘍の腹腔内浸潤よりの出血により著明な貧血を生じ、生前、及び死後の骨髓に反応性骨髓增生、及び脾臓の骨髓外造血等がみられた。島田¹⁶⁾も高度の貧血を伴つた血管肉腫の一例を発表している。つぎに血管肉腫の悪性度、及び予後に関しては色々であり、或るものは緩慢に發育して徐々に転移し、あるものは急速に發育し血行性に転移をきたすといふ。明楽⁴⁾は前胸部皮膚に生じた血管内皮腫の臨床的経過をとつた一例を報告し血管肉腫は組織学的には悪性であるにかかわらず予後は比較的良性であると述べている。しかし一般には内臓に発生したものは予後不良であり骨のものは極めて悪性であるといふ。

結 語

本例は17才の女子で骨盤附近から発生した血管腫が血管肉腫に悪性化し、急性、かつ大量の腹腔内出血による高度の貧血、及び腹部臓器の圧迫により入院後、第12日目に死亡した例で、剖検により、右大腿部より外陰部、及び下腹部にかけての皮膚、及び軟組織、右股関節部、骨盤、下部椎体等の骨髓内に浸潤した広範な血管肉腫をみとめた症例である。

本稿の要は第109回日本内科学会関東地方会に発表した。

摺筆に当り御指導、御校閲戴きました三神教授、小山助教授、並びに病理学教室の今井教授に深謝致します。

参 考 文 献

- 1) Mallory, F.B. : J. Exp. Med. 10 575 (1908)
- 2) Stout, A.P. : Ann. Surg. 118 445~464 (1943)

- 3) 大西義久；瘡の臨 4 224 (1958)
- 4) 明樂勇他；綜医学 8 82~86 (1951)
- 5) **Schutz, H.R. et al** : Lehrbuch der Röntgen Diagnostik. G. Thieme, Stuttgart (1952)
- 6) 神中正一；整形外科 8版 南山堂 東京 (1943) 485
- 7) **Anderson, W.A.D. ed.** : Pathologie, 2nd Mosby Co. St. Louis (1953)
- 8) **Sutton, R.L.** : Diseases of the skin 11 ed Mosby Co. St Louis 1939
- 9) **Ogilvie, R.E. et al.** : J. path. Bact. Lond. 43 429~430 (1936)
- 10) **Robinson, J.M. et al.** : Ann. Surg. 104 453~459 (1936)
- 11) **McCarthy, W.D.** : Surg. Gyn. Obst, 91 465~482 (1950)
- 12) **Lane, O.G.** : Brit. J. Cancer. 6 230~235 (1952)
- 13) 斎藤佐内；瘡の臨 3 829 (1957)
- 14) 若井喜久哉・他；札幌医誌 3 356 (1952)
- 15) 若林 修・他；東医事新誌 67 47 (1950)
- 16) 島田 博；綜医学 7 29 (1950)