

Title	顎骨骨肉腫-13症例の分析-
Author(s)	奥山, 武雄; 堀内, 淳一; 澁谷, 均 他
Citation	日本医学放射線学会雑誌. 1982, 42(3), p. 281-287
Version Type	VoR
URL	<a href="https://hdl.handle.net/11094/19722">https://hdl.handle.net/11094/19722</a>
rights	
Note	

*Osaka University Knowledge Archive : OUKA*

<https://ir.library.osaka-u.ac.jp/>

Osaka University

# 顎 骨 骨 肉 腫

—13症例の分析—

東京医科歯科大学医学部附属病院放射線部 (部長: 鈴木宗治教授)

奥 山 武 雄

同 上 医学部放射線医学教室 (主任: 鈴木宗治教授)

堀内 淳一 渋谷 均 鈴木 宗治

同 上 歯学部放射線医学教室 (主任: 中村 正教授)

竹 田 正 宗

(昭和56年 6月 9日 受付)

## Osteosarcoma of the Jaws

— An analytical Study of 13 Cases —

Takeo Okuyama, Junichi Horiuchi, Hitoshi Shibuya and Soji Suzuki

Department of Radiology, School of Medicine, Tokyo Medical and Dental University

(Director: Prof. S. Suzuki)

Masamune Takeda

Department of Oral Radiology, School of Dentistry, Tokyo Medical and Dental University

(Director: Prof. T. Nakamura)

---

Research Code No.: 616

---

Key Words: Osteosarcoma of jaws, Bone tumor

---

Osteosarcoma of the jaws is uncommon; approximately 6 to 7% of all osteosarcomas in incidence. Several peculiarities of osteosarcoma of the jaws are noted.

In this report, the clinical features and roentgenographic findings were analyzed in a series of 13 cases of osteosarcoma of the jaws treated at Tokyo Medical and Dental University Hospital during a period of 14 years from 1962 to 1975.

1) In contrast with osteosarcomas located elsewhere, the ages in the present series were distributed from 23 to 59 years, with an average of 35.8 years. There seemed to be no predilection for sex distribution (7 males to 6 females), though osteosarcomas in other sites were known to occur predominantly in male patients.

2) Swelling or mass of the gums usually without pain was the most common initial symptom. Some patients had complaints of numbness in lips and odontalgia.

3) Metastatic spread was less common. Regional lymph node metastasis as well as lung metastasis could not be observed in 12 cases at the first visit to our hospital but metastasis to submandibular lymph node from osteosarcoma of mandible was noted in the remaining case.

4) Roentgenographic findings of osteosarcoma of jaws varied considerably. Three of 13 cases were classified as osteosclerotic, 6 osteolytic and 4 mixed type. Typical osteosclerotic type of sclerosing density as well

as periosteal new bone formation was infrequently encountered in our series.

5) Four among 13 cases were treated by surgical removal alone and the other 9 cases were treated by a combination of surgery and radiation therapy. Good results were obtained in the cases treated by surgery with or without preoperative irradiation. Two-year, 5-year and 10-year survival rates of all 13 cases were 69%, 69% and 44%, respectively.

Conclusively, local control may provide a reasonable chance of curing patients with osteosarcoma of jaws, since metastasis, especially hematogenous, is much less frequent in the group of jaws than other sites.

### まえがき

顎骨に発生する骨肉腫には一般の骨肉腫とは異ったいくつかの病態上の相違点が知られている。Mayo Clinic の Dahlin は彼の著書 Bone Tumors of Osteosarcoma の項の中に“osteogenic sarcoma of jaws”<sup>1)</sup> という subtitle を設けてその特性を簡潔にのべているが、この中には骨肉腫としての診断学的側面と口腔領域悪性腫瘍の治療の両面からみて大切に興味ある事項が含まれている。とは言え、顎骨骨肉腫はきわめてまれな疾患であり、本邦における従来の報告の多くは症例報告の域を出ない。1959年、本学口腔外科の塩田らによる4例の報告があるが<sup>2)</sup>、われわれもかつて上顎骨に線維性骨異形成 (fibrous dysplasia) をもつ症例に発

生した下顎骨骨肉腫の1例について報告し<sup>3)</sup>、この症例を含めて今日まで13症例の顎骨骨肉腫例(下顎11例、上顎2例)の経験を得た。本稿では、その分析を行ない、併せて病態について若干の考察を加えることにする。

### 対象

1962年から1975年の14年間に、東京医科歯科大学医学部放射線科で経験した顎骨骨肉腫13症例を対象とした。全例、本学口腔外科を初診とし、治療ないしは診断の consultation のために当科を受診した症例である。13症例の概要を Table 1 に示した。

### 結果

#### 1. 臨床的一般事項ならびに主要症状 (Table

Table 1 Summary of 13 cases of osteosarcoma of the jaws (1962—1975).

Cases	Sex	Age	Location	Regional lymph node	Lung metastasis	Roentgen findings	Treatment*	Prognosis	
1	S. S.	male	59	mandible	(-)	(-)	mixed	R→mandibulectomy (after 3ys)	9ys, Dc
2	G. H.	male	24	mandible	(-)	(-)	lytic	R→hemimandibulectomy (after 2ys)	12ys, Ao
3	M. K.	female	27	mandible	(-)->(+) )	(-)->(+) )	lytic	R	1y1m, Dc
4	N. S.	female	26	mandible	(+)	(-)->(+) )	mixed	R	1y6ms, Dc
5	H. M.	male	23	mandible	(-)	(-)	sclerotic	hemimandibulectomy (preoperative R)	5ys, Ao
6	I. K.	female	56	mandible	(-)	(-)	mixed	resection (pre- and postoperative R)	16ys, Ao
7	S. O.	male	37	mandible	(-)	(-)	lytic	hemimandibulectomy (preoperative R)	7ys, Ao
8	K. T.	female	25	mandible	(-)	(-)	mixed	hemimandibulectomy	5ys, Lost
9	M. S.	female	27	mandible	(-)	(-)	sclerotic	hemimandibulectomy	5ys, Lost
10	F. D.	male	41	mandible	(-)	(-)	lytic	resection	10ys, Ao
11	S. N.	male	48	mandible	(-)	(-)->(+) )	sclerotic	hemimandibulectomy	1y6ms, Dc
12	Y. T.	female	40	maxilla	(-)	(-)->(+) )	lytic	resection→Rn seeds implantation	1y1m, Dc
13	R. N.	male	32	maxilla	(-)	(-)	lytic	R→resection→R	14ys, Ax

\* R: radiation therapy

Table 2 Main clinical features in this series.

Location:	mandible 11,	maxilla 2
Sex :	male 7,	female 6
Age :	23—59 (average 35.8 years)	
Lymph node metastasis:		
	(-) 11	(+) 1
		(-) → (+) 1
Lung metastasis:		
	(-) 9	(+) 0
		(-) → (+) 4
Roentgenographic findings:		
	sclerctic 3	lytic 6
		mixed 4

## 1 および 2)

13例中11例が下顎骨、2例が上顎骨発生であった。下顎骨優位の原因は、口腔外科の受診症例という限定によると思われる。

性別は男女それぞれ7例と6例であった。

初診時の年齢は23歳から59歳に亘り、10歳代に1例もなく、20歳代が6例で最も多かったが、平均が35.8歳と骨肉腫の概念からみると高齢への偏向があった。

初発症状に固有のものではなく、歯肉の粘膜下腫脹が8例で最も多く、他は口唇のしびれ3例と歯痛2例であった。

初診時、所属リンパ節に転移性腫脹を触知した症例は僅か1例にすぎなかった。他の1例が経過中に顎下リンパ節転移が出現したが、これら2症例は初診時からそれぞれ1年1カ月、1年6カ月で死の転帰をとった (case 3 および 4)。

初診時全例に胸部X線写真上、肺転移を認めなかった。その後の経過中に、上記リンパ節転移の2例を含む4例に肺転移が出現し、これら4例は初診時から2年以内に死亡した。残る9例は5年以上最大16年の経過観察で肺転移は認められていない。

## 2. X線所見 (Table 2 および Fig. 1)

すでに臨床的意義の乏しい分類であるとの見解もあるが、慣例にしたがって、硬化型 (sclerotic)、溶解型 (lytic)、混合型 (mixed) に分けると、各々3例、6例、4例であって硬化型が少ない傾向が示されていた。針状骨影 (spicula) が認められ

た症例は Fig. 1a および c の症例を含め、硬化型の2例と混合型の1例の計3例にすぎず、また解剖学的に鮮明な像が得にくい点からもX線診断は長管状骨骨肉腫よりもはるかに困難であると思われた。

## 3. 病理組織学的分類

腫瘍の優勢な細胞構成にもとづく分類の結果はつぎのごとくであった。

osteoblastic type 7

chondroblastic type 2

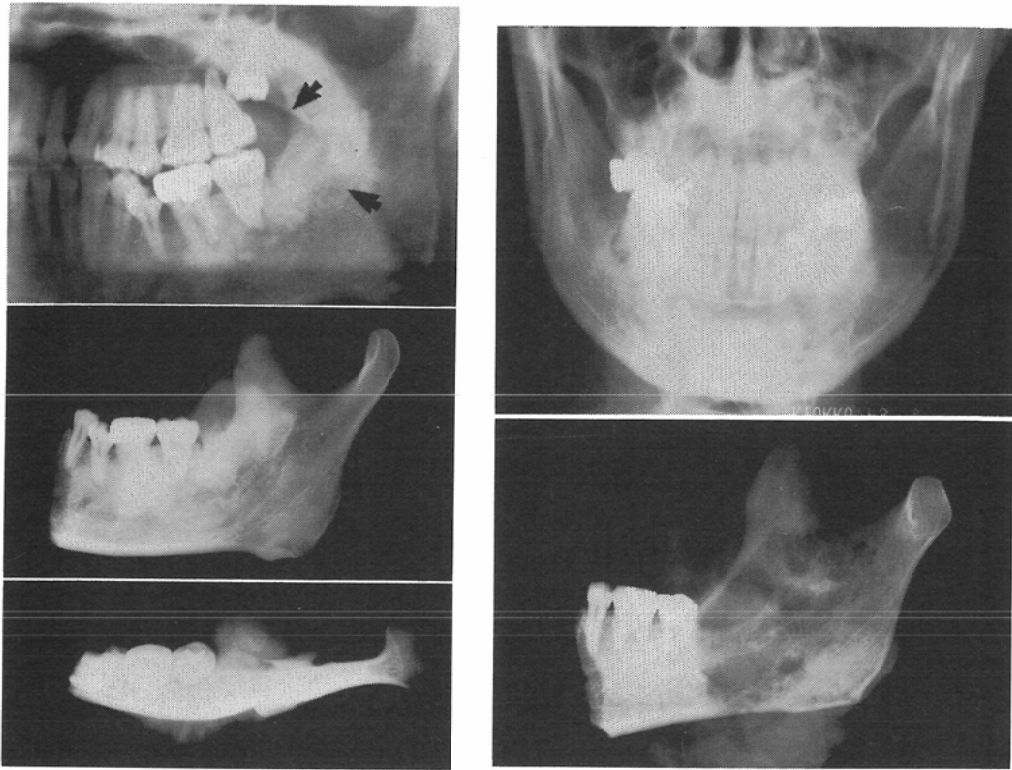
fibroblastic type 4

他疾患との合併については前記の上顎 fibrous dysplasia 症例に発生した下顎骨骨肉腫の1例 (case 1) があるが、両者に組織学的関連は見出されていない<sup>9)</sup>。

## 4. 治療法ならびに予後

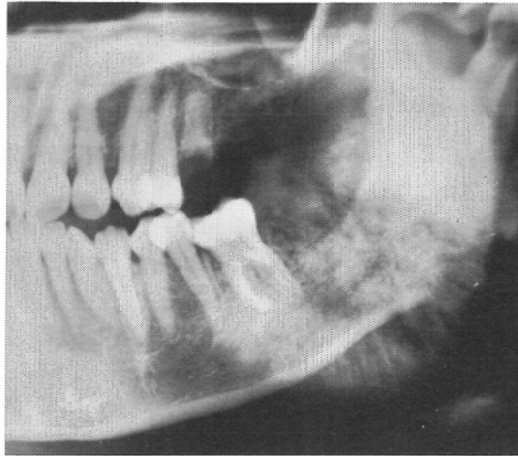
このシリーズの治療は計画的に行われたものではないので、個々にまちまちである。したがって治療方法の優劣や適否の比較検討はできないが、類別してのべるとつぎのごとくである。

手術単独治療が4例 (case 8, 9, 10, 11)、他の9例は手術と放射線の種々の組み合わせであった。手術単独4例中の3例 (case 8, 9, 10) と、術前照射25~30Gy 後下顎骨半側切除を行った3例 (case 5, 6, 7) の予後は良好で、5年4月以上、最高16年の無病生存が得られている。以上の手術を主軸とした7例に対し、他の6例は放射線が主体といえる症例であるが、その原因は手術の拒否、不十分な切除術後の短期日での再発、手術不能による姑息的照射など多彩であった。しかしこの中にはテレコバルトによる74Gy/37fr/45日照射後局所に腐骨を生じ、2年後に下顎骨半側切除術を受けて12年経過した症例 (case 2)、それに60Gy/15fr/20日 および75Gy/15fr/20日 (case 1, 13) の強照射を行った2症例で長期生存が果された。もっともこの短期間強照射の2例は局所の再発と放射線壊死のために、以後3年余に亘って照射と手術 (腫瘍摘除あるいは壊死巣除去術) を再三再四繰り返し、前者は9年の経過で腫瘍死に至るまで、また後者は14年経過した現在に至るまで



1a

1b



1c

Fig. 1 Roentgenographic findings of the jaws.

- (a) Osteosclerotic type (Case 5). Ill-defined osteosclerotic process on orthopantomogram (arrows), though it is clearly visible on the roentgenograms of the resected material. Extraosseous extension with spicula formation is observed.
- (b) Osteolytic type (Case 7). Lobulated destruction without osteosclerotic tendency.
- (c) Mixed type (Case 4): Lytic destruction, sclerosis and "sunburst" effect.

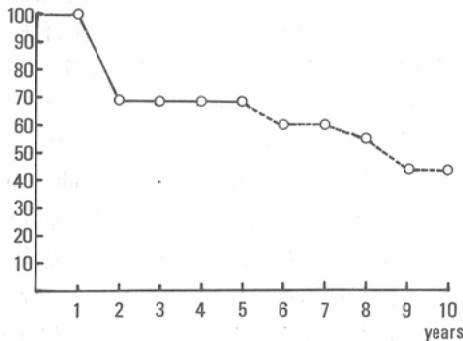


Fig. 2 Crude survival rate.  
13 cases of osteosarcoma of the jaws.

有病の状態におかれている。したがって、放射線の成功的治療例とはいえない。

他の照射主体の3例(case 3, 4, 12)は局所制御が果されず1年から1年半の経過で死亡した。

#### 5. 生存率

満5年経過後に追跡不能となった2症例を含め、生存例の観察期間は5年から16年に亘る。

粗生存率曲線は Fig. 2 に示すごとくで、1年100%、2年69.2%とこの間に4例の腫瘍死をみているが、以後5年まで死亡はない。以後徐々に下降して10年で44.4%となっているが、この間の死亡は8年6月での腫瘍死の1例のみであり、下降の主因は観察の期限切れによるものであった。

#### 考 察

発生頻度について：

骨肉腫は周知のごとくその約75%が長管状骨に発生し、なかでも膝関節を中心として大腿骨遠位および胫骨近位の骨幹端部で全体の半数近くを占める。顎骨の発生はきわめてまれと考えられ勝ちであるが、Dahlin<sup>1)</sup>のデータによると962例の骨肉腫のうち顎骨発生が66例(上顎36, 下顎30)あり、全体の6.9%に相当する。また Potdar<sup>4)</sup>によるインドの Tata Memorial Hospital のデータでは189例中14例(7.4%)が顎骨発生(上顎6, 下顎8)であり、さらに Garrington ら<sup>5)</sup>は諸家の報告を review して骨肉腫の約6.5%が顎骨に発生するとのべている。以上のごとく6~7%に相当する発生は、まれな部位といっても大腿骨と

胫骨を除いては上腕骨に次いで骨盤骨と同等の発生をみる部位であって決してあなどることはできない。もっとも本邦においてはこのような検討を行う資料が未だ不十分で、日本整形外科学会骨腫瘍委員会が骨腫瘍の登録制を実施し詳細な分析を試みているにもかかわらず、昭和47年から53年の間の骨肉腫登録症例711例のうち、顎骨は上顎、下顎各1例ずつをみるにすぎない<sup>6)</sup>。

われわれの症例では13例中11例と下顎骨に圧倒的高頻度の発生をみているが、これは口腔外科受診という特殊性に基因するもので、諸家の報告からは上顎・下顎の発生に関する有意差はなさそうである。

好発年齢について：

顎骨骨肉腫の発生年齢は一般の骨肉腫と比べて明らかに高い。われわれの症例では最小が23歳、平均年齢が35.8歳であった。Potdar<sup>4)</sup>の14例では平均が34歳(18~59歳) Garrington ら<sup>5)</sup>の集計では上顎が15歳から50歳、下顎が4歳から60歳に分布して全体の平均が27歳であった。Dahlin<sup>1)</sup>は平均年齢は明示していないが、10歳台後半から60歳台にかけて幅広い分布があるとのべている。以上より、顎骨骨肉腫は10歳台はむしろまれな疾患であって20歳以降、中高年に広く分布し、その平均年齢は通常の骨肉腫よりも10歳以上の遅れがあるといえる。

欧米における高年齢者の骨肉腫は Paget 病からの二次発生が重視されているが、上記の Garrington ならびに Dahlin の症例には Paget's sarcoma は1例もなく、高年齢への偏りは顎骨骨肉腫の固有の特質と理解される。

進展形式ならびに予後について：

顎骨骨肉腫の特性の1つに血行性転移が少ないことが挙げられる。Garrington ら<sup>5)</sup>は47例中、肺転移11例と比較的高い発生をのべているが、Schwarz ら<sup>7)</sup>は13%、Potdar<sup>4)</sup>は追跡できた10例の中には肺転移の確証は1例もなかったとのべている。われわれの13例でも初診時に肺転移を認めた症例は1例もなく、その後、局所の制御不能ないしは所属リンパ節転移に見舞われて2年以内に死亡した4

例に出現したにとどまった。他の13例中5年以上観察し得ている9例に肺転移が認められていないことは特筆に値すると共に、顎骨骨肉腫には局所も転移も進行が急激なグループと、すべてに良好な経過で進行するグループがあり、後者の方が数としてはむしろ多いように思われた。

骨肉腫の予後と病理組織学的形態との関係については古くから論議的となっているが、定説は見出し難い。Coventry および Dahlin<sup>8)</sup> は5年生存率を組織亜型別に osteoblastic 15.6%, chondroblastic 22.7%, fibroblastic 22.0%としているのに対し Price<sup>9)</sup> は、それぞれ37%, 8%, 33%と互いに異った見解を示している。また Lucas<sup>10)</sup> は teleangiectatic type を加えた4亜型に関して、予後との相関に乏しいこのような組織分類が果して意義があるものと疑問さえも投じている。われわれの症例の構成は、前記のごとく osteoblastic 7, chondroblastic 2, fibroblastic 4 であり、2年以内の死亡4例については、osteoblastic と fibroblastic の各1例、および chondroblastic の2例であって、chondroblastic type が不良のようであったが、以上の考察からみて偶然の結果に他ならないと理解すべきであろう。

顎骨骨肉腫は以前から25%以上の5年生存率が期待できるといわれているが<sup>7)11)</sup>、生存率を明示した報告は少い。Garrington ら<sup>5)</sup> は5年が35%, 10年30%, 15年22%とのべ、しかも下顎と上顎との間に差異があつて、例えば10年生存率では下顎の38%に対して上顎20%と下顎の方が有意に良いとのべている。われわれのシリーズでは腫瘍死の5例のうちの4例は1年～2年の間に起こり、以後2年から5年までの生存率は69%が保持されていた。この事実は、本疾患の予後のキポイントが局所の制御にかかわっていることを強く示唆している。

顎骨骨肉腫に対する治療法の第一選択は、上記の特性からも当然であるが、局所の広範囲切除である<sup>1)5)</sup>。放射線治療は術前照射の効果を期待する意見<sup>12)13)</sup>を除いては一般に有効な手段とは考えられていないが、われわれのシリーズの結果から

みると、遠隔転移形成を含めて予後不良例は2年以内に出つくす傾向が強いので、手術拒否あるいは不能例に対しては、躊躇なく局所制御の手段として放射線治療を行うべきと思われる。この際、一般の骨肉腫との病態の差異をわきまえて、近年骨肉腫の治療に効果が認められている adriamycin と methotrexate を中心にした制癌剤の併用については<sup>14)</sup>全く不要とはいえないまでも、基本的には極めて控え目であつてよいと思われる。反面、局所制御にためらいは許されないので、顎骨を含む周囲の健常組織の壊死は覚悟の上で少くとも70～80Gy以上の照射が必要である。放射線壊死の発生に対しては予測し得る事項であるから病悩期間を長びかせないように適切に対処しなければならない。結果的には、はじめからの局所切除術に類する手術にもなり得るが、遠隔転移の動向を観察しながら、手術の説得を続ける機会を得るのが放射線治療の大切な役割であるとも言える。

#### まとめ

1) 顎骨に発生した骨肉腫13例(下顎11, 上顎2)について、一般の骨肉腫との病態の相違点に着目して分析した。

2) 男女比は7:6であるが、発生年齢が23歳から59歳、平均35.8歳と高齢に偏っていた。

3) 初診時肺転移は全例に認めず、その後2年以内に死亡した4例に出現したが、他の9例は5年から16年の経過で認められていない。

4) 局所X線所見は骨硬化型3例と少く、溶骨型6例、混合型4例でX線診断の困難さが窺われた。

5) 病理組織型の分類は osteoblastic type 7, fibroblastic type 4, chondroblastic type 2 であつた。

6) 治療法は手術単独4例、種々の内容をもつ手術と放射線の組合せが9例であつた。全体の粗生存率は1年100%, 2年から5年までが69%, 10年44%と良好であつた。治療法別の検討はできないが、手術単独ならびに術前照射の症例でとくによい結果が得られるように思われた。

7) 局所の広範囲切除が治療の第一選択である

が、直ちに手術が施行し得ないような場合には、局所制御に果す放射線治療の役割は十分評価されてよいと思われた。

稿を終るに当り、症例を御提供下さいました本学第一口腔外科学教室の各位（主任、上野正名誉教授、塩田重利教授）及び第二口腔外科学教室の各位（主任、伊藤秀夫名誉教授、榎本昭二教授）に深く感謝致します。また、病理組織学的所見に関する記述は徳島大学歯学部口腔病理学教室小守昭教授（元・東京医科歯科大学歯学部口腔病理学教室）の御指導によるものであり、深甚なる感謝の意を表します。

### 文 献

- 1) Dahlin, D.C.: Bone Tumors. Third Edition. pp. 243—244, 1978, Charles C Thomas Publisher, Springfield, Illinois.
- 2) 塩田重利, 永井和男, 小幡幸男, 大橋 靖, 河野 斉: 骨肉腫 (osteogenic sarcoma) の4例. 口腔外科学会雑誌, 5: 186—193, 1959
- 3) 奥山武雄, 神田重信, 足立 忠, 清水正嗣, 石橋克礼, 上野 正, 鎌田力三郎: Fibrous dysplasia の患者にみられた下顎骨骨肉腫の1例. 臨床放射線, 16: 802—813, 1971
- 4) Potdar, G.G.: Osteogenic sarcoma of the jaws. O.S., O.M., O.P., 30: 381—389, 1970
- 5) Garrington, G.E., Scofield, H.H., Cornyn, J. and Hooker, S.P.: Osteosarcoma of the jaws. Analysis of 56 cases. Cancer, 20: 377—391, 1967
- 6) 日本整形外科学会 骨腫瘍委員会: 全骨骨腫瘍患者登録一覽表 (昭和53年) pp. 126—127, 1980, 国立がんセンター, 東京
- 7) Schwartz, D.T. and Alpert, M.: The clinical course of mandibular osteogenic sarcoma. Oral Surg., 16: 769—776, 1963
- 8) Coventry, M.B. and Dahlin, D.C.: Osteogenic sarcoma. J. Bone & Joint Surg., 39A: 741—757, 1957
- 9) Price, C.H.G.: The prognosis of osteosarcoma. An analytical study. Br. J. Radiol., 39: 181—188, 1966
- 10) Lucas, R.B.: Pathology of tumours of the oral tissues. Third Edition. pp. 203—207, 1976, Churchill Livingstone, New York
- 11) Kragh, L.V., Dahlin, D.C. and Erich, J.B.: Osteogenic sarcoma of the jaws and facial bones. Am. J. Surg., 96: 496—505, 1958
- 12) Boyer, C.W., Brickner, T.J. and Wratten, G.P.: The treatment of osteogenic sarcoma of the mandible. Am. J. Roentgenol., 99: 326—332, 1967
- 13) Suit, H.D.: Radiotherapy in osteosarcoma. Clin. Orthop., 111: 71—75, 1975
- 14) 昭和53年小児悪性腫瘍研究会記録: 小児がん (骨肉腫の治療, 制癌剤治療について), 13: 96—123, 1979, 財団法人がんの子供を守る会, 東京