

舌並びに廻盲部に腫瘍を形成した稀有な緑色腫の1例

吉田茂一 柴田茂雄 明珍好英

札幌医科大学内科学教室 (指導 滝本教授)

松原 徹

札幌医科大学病理学教室 (指導 新保教授・小野江教授)

A Case of a Rare Type of Chloroma with Tumor Formation in the Tongue and at the Ileocecal Portion of the Intestines

By

SHIGEICHI YOSHIDA, SHIGEO SHIBATA
and KOEI MYŌCHIN

Department of Internal Medicine (Directed by Prof. S. TAKIMOTO)

TŌRU MATSUBARA

Department of Pathology (Directed by Prof. K. SHIMPO & Prof. T. ONO)
Sapporo University of Medicine

Burns¹⁾により始めて記載され、King²⁾により命名された緑色腫、または、緑色白血病は Waldstein³⁾、Turk⁴⁾、Sternberg⁵⁾ 等により詳細に研究され、一般にはその大部分が骨髓性であるとされている。元来緑色腫は頭蓋 (特に眼窩) を始め、骨膜下組織より好発する腫瘍形成白血病である。しかるに最近われわれは、舌並びに廻盲部に腫瘍を形成した極めて稀有な1例を経験し幸い剖検に附することが出来たのでここに報告する。

症 例

村〇八〇子 25歳 家婦。[主訴] 歯痛。

家族歴、既往歴には特記するほどのことはない。

現病歴：昭和27年5月来歯痛があり、6月に入つて鼻出血、歯齦出血発熱が加わり、同月26日当内科を訪れ即日入院した。そのほか、これまで順調であつた月経が異常を呈し、5月5日より始り11日間持続している。

入院時所見：体格中等、皮下脂肪發育やや悪く、被動性仰臥位。体温39°C、脈搏108、整。顔貌憔悴し、顔色蒼白。皮膚は乾燥し、右上臍皮下に点状出血を認めた。意識明瞭。瞳孔左右同大、対光反射迅速、脛結膜は貧血性。舌は乾燥し、厚い舌苔を被っている。軟口蓋、歯齦に小潰瘍を認める。頸部淋巴節は僅かに腫脹する。心界正常、各瓣口に貧血性雑音を聴取。肺野には著変がない。腹部、平坦、肝、脾はふれぬ。腱反射減弱、腓腸筋痙攣があるが知覚異常はない。骨の叩打痛もない。

検査事項：ツ反応、ワ氏反応、血液培養何れも陰性。喀痰中結核菌陰性。胸部レ線にも著変がない。血圧、最高110、最低50 mmHg、尿は蛋白陽性、沈渣に顆粒円柱を認める。Bence-Jones 氏蛋白陰性。ウロビリノーゲン強陽性。ビリルビン、糖、デアブー反応何れも陰性。尿の潜血反応陽性。虫卵は認めない。血清蛋白4.5%、A/G比、46/54。血清ビリルビン指数5.5。肝機能検査成績は、ヘパトサルファレンによる色素排泄は30分で15.5%、45分で9.5%。高田氏反応弱陽性。コバルト反応R₁₀。ポーラログラフ癌反応陽性。赤沈、1時間値170 mm。出血時間8分30秒。ルンベル・レーデ氏現象陰性。ヘマトクリット値11.9%。血液凝固、開始3分、完結15分30秒。低張食塩水に対する抵抗、最小0.50、最大0.32。末梢血液像は第1表の如く赤血球数76万、血球素21%、色素係数1.4。白血球数2,200。白血球百分比は、骨髓芽球79.5、前骨髓球0、骨髓球1.5、後骨髓球2.0、桿状核細胞4.5、分葉核細胞3.5、好酸球0.5、淋巴球5.5、単球2.0、形質細胞1.0%。

骨髓像は第2表の如く、その大部分は骨髓芽球で、赤芽球は鏡下に点在するに過ぎない。また胞体の大きさが骨髓芽球のそれに数倍する細胞が見られた。この細胞の原形質は塩基嗜好性が骨髓芽球に比して弱く著明なアズール顆粒を認める。これはいわゆる Ferrata 細胞に一致するものとする。赤血球直径は平均7.6 μ。Price-Jones 曲線はほぼ正常。腫瘍細胞のペルオキシダーゼ反応は陽性。アウエル小体を認める。血小板数は5,540、網状赤血球は36%。

第 1 表 末梢血液像

種 類	日 附			
	30/VI	3/VII	8/VII	12/VII
赤血球総数 (万)	76	106	126	125
血 球 素 (%)	21	22	26	26
色 素 係 数	1.4	1.0	1.0	1.0
白 血 球 数	2200	2500	4300	2500

白血球百分比

	75.0	67.0	72.5	43.0
骨髓芽球 (大)	75.0	67.0	72.5	43.0
(小)	4.5	9.0	9.5	3.0
前 骨 髓 球	0	2.5	1.5	3.5
骨 髓 球	1.5	3.0	2.5	3.5
後 骨 髓 球	2.0	3.0	4.0	13.0
好中球桿状核	4.5	1.5	1.0	9.5
好中球分葉核	3.5	3.5	3.5	15.0
好 酸 球	0.5	0	0	0
リンパ球	5.5	7.5	3.0	4.0
単 球	2.0	2.0	2.0	4.5
好塩基球	0	0	0	0
形質細胞	1.0	1.0	0.5	0.5
有核赤血球 (白血球200に対し)	3	0	0	0
網状赤血球	36%			
血 小 板	5540			

第 2 表 骨 髓 像

種 類	日 附		種 類	日 附	
	30/VI			30/VI	
骨 髓 芽 球	91.99		単 球	0.04	
前 骨 髓 球	3.0		巨 大 赤 芽 球	0	
骨 髓 球	2.9		大 赤 芽 球	0	
後 骨 髓 球	1.9		青 染 正 常 赤 芽 球	0	
好中球桿状核	0.02			多 染	0.01
好中球分葉核	0.03			正 染	0.01
好 酸 球	0		網状織内被細胞	0.04	
リンパ球	0.05		フェラタ細胞	0.01	

病理学的事項

病理解剖学的診断： 1) 急性白血病 (緑色腫)。2) 舌、廻盲部の緑色腫瘍形成。3) 全身皮膚、心内外膜下、両腎外膜下、両肺、胃、腸、腎盂粘膜下の点状出血。4) 蛛膜下出血。5) 腎盂出血。6) 気管支肺炎。7) 心筋、腎、肝の実質度性。8) 左癒着肋膜炎。9) 子宮筋腫。

剖検所見： 全身の皮膚の粟粒大ないし手掌大の出血斑があり、口唇の左角に糜爛と痂皮形成を認める。外表より触れうるリンパ節腫脹はない。腹腔内には少量の血性液を認め、腸間膜リンパ節は拇指頭大に腫脹している。胸腔は左肺が胸廓と所々癒着している。肋骨胸膜に粟粒大の溢血斑を認める。

舌には舌背部の先端に近く鳩卵大及び小指頭大の2箇の硬い腫瘍を認めその断面は緑色を帯びていた。廻盲部には深く縦下掘さくし、その辺縁が鋸齒状をした潰瘍があり、4×3 cm 大のが3箇、小さいものは多数認められる。またこの部に小指頭大の腫瘍が1箇あり、暗緑色を呈している。骨髓は軟かく暗赤色で緑色を呈する部分がある。脾は100g、濾胞は著明でなく亜粟粒大の白斑が見られる。肺は両側とも上葉に鶏卵大の硬結部を触れ肺門部リンパ節は拇指頭大に腫脹している。

その他の各臓器については病理解剖学的診断に掲げたとおりで特に記すほどのことはない。

組織学的所見： 舌の腫瘍部は大部分は壊死物質よりなり表層部には菌叢も見られる。この壊死巣を取囲んで単核円形の核染色質に富む細胞の著明な浸潤があり、粘膜から筋層に及んでいる。この細胞はベルオキシダーゼ反応陽性で骨髓に見られる細胞と同一のものである。また時として核分割像も認められた。廻盲部の腫瘍状物も全く壊死に陥つていて粘膜は剝離し、その周辺の粘膜下から筋層間を通じ漿膜下に及ぶ白血病細胞の浸潤が見られる。

骨髓では骨髓芽細胞がその大部分を占め、その間に胞体の大きい原形質内に著明なアズール顆粒をもつ、いわゆる Ferrata 細胞が点在する。時として胞体の変形が著明で空泡様構造の見られるものもあつた。肝では肝細胞の変性は著明であるが脂肪浸潤は著しくない。グリソン氏鞘には結合織が軽度増殖し白血病細胞の浸潤が見られる。肝細胞索間にも同様の細胞が浸潤している。脾は濾胞の著明な萎縮または消失が見られ、脾髄にはベルオキシダーゼ反応陽性の単核細胞が多数見られる。肺門部リンパ節及び腸間膜リンパ節の淋巴球性細胞は周辺部に見られるのみで、大部分が白血病性細胞におきかえられている。

肺は肺胞及び気管支内への出血が強くこれに少数の白血球及び白血病性細胞をまじえ、所々にフィブリンの滲出も

経過： 病初は歯痛に苦しみ、発熱に気付いたのは歯科を訪れてから1箇月後でこれは死亡まで続いた。出血傾向ははなはだ強く、時には鼻出血の止血不能のこともあつた。血液像は貧血、白血球減少、血小板減少に終始し、病状は入院当初より全く重篤で、輸血、ナイトロミン注射等を行ったが、入院15病日、発病よりほぼ2.5箇月で死の転帰をとつた。興味あることは死の数日前より舌の中央やや右よりに弾力性の硬い鳩卵大の腫瘍が現われた。

見られる。腎は尿管の変性以外著変なく、脳も蜘蛛膜下出血以外特記するほどのことはない。

総括並びに考按

上述の臨床、並びに病理学的所見より本症は綠色腫と診断される。前述したように綠色腫の発生部位はその殆ど大部分が骨組織であり、稀に軟部組織たる硬脳膜、肝、脾、淋巴節等をおかす⁹⁾。本例の如きも廻盲部並びに舌を侵襲した極めて稀な 1 例である。

綠色腫と白血病との関係については、一は Askanazy⁷⁾ を始め多くの学者により信ぜられている綠色腫続発説であり、一は天野⁸⁾ の提唱する綠色腫原発説である。即ち前者は綠色腫を骨髄性白血病の 1 特殊形と看做すもので、先づ白血病があつて二次的に腫瘍を形成するという説で、後者はこれに反し、先づ原発性の腫瘍があつて、この腫瘍細胞が血中に移行して、二次的に白血病を生ずるという説である。この点に関し先年著者等⁹⁾ は、骨髄に綠色調を呈し、しかも全身どこにも腫瘍を形成せず、入院 17 日で脳出血のため死亡した 59 歳の男子例を報告し、その際「本例の経過が余りにも急激のため、細胞自体は腫瘍状を呈し、且つ骨髄に綠色色素を産生しながら腫瘍を形成する暇なく、死の転帰をとつたものであろうか」と推論した。後に大根田¹⁰⁾ はこれと全く同様な経過をとつた 1 例を報告し、同様な推察を加えている。さて著者等は本例の血液細胞を鏡検した際、その形状より本細胞は綠色腫細胞ならんとの印象を強く受け、極力腫瘍の探索を行つたが容易に発見することが出来なかつた。しかるに死亡数日前、しばしば舌に腫瘍状物の新生を認め、剖検によりこれが綠色色素を有する綠色腫であることを確め得た。従つてこの点、本例は Askanazy の続発説に一致する。大根田はこのことについて、自家経験例、文献的考察を行い、綠色腫原発説、続発説何れもが正しい。即ち両者何れの発生並びに経過をもとと述べている。

次に綠色腫の細胞学については Turk, Sternberg 等により骨髄性、淋巴性の 2 者が存するとされ、1910 年 Lehdorf¹¹⁾ は淋巴性綠色腫 50 例に対し、骨髄性綠色腫 17 例としているが、これには疑義を挟むものもあり、その後 Burgness, Askanazy, Brannan, Kandel¹²⁾ 等は何れも骨髄性であると報告している。本邦でも鴨脚¹³⁾ によれば 64 例中、骨髄性 46、淋巴性 8、不明 10 となつている。その他 Seemann¹⁴⁾ は好酸球性白血病において綠色腫を、Aubertin¹⁵⁾ おお幹細胞による綠色腫を、Howard¹⁶⁾ は有核赤血球と骨髄性細胞とよりなる綠色腫を報告している。他方天野は 20 数例の自家経験例と、白血病細胞の核型、貪食性、超生体染色所見等より綠色腫細胞の単球所屬を強調してい

る。さて本例の腫瘍細胞を視察するに、これ等の点で、特に或る時期には全く天野の説に一致し、単球と断じ得ないでもない。しかしこうした際にもなお小宮¹⁷⁾ のいう如く「かかる腫瘍細胞を或る学者 (例えば Naegeli, Rohr) はこれを骨髄芽球とし、或る学者 (例えば天野) はこれを単芽球と呼称している」との説に従い、本例においても敢て単球白血球と断案を下さなかつた。その上本例には定型的成熟単球が少なく骨髄芽球とする方が穩当のように思われたからでもある。しかし何れにせよ本例もまた骨髄性であることには異論がない。

最後に Ferrata 細胞についての所見であるがこれは元來 Ferrata¹⁸⁾ により骨髄芽球の母細胞として報告されたものではあるが、その後骨髄芽細胞、前骨髄球の変形または人工的に出来たものとするものもある。本例では生前の骨髄穿刺標本にも時折認められたが、死後の大腿骨髄標本ではかなり増加して認められ、その細胞形態より受ける印象は細胞が膨化、或は壊死に陥つて出来たものとの印象が強かつたことを附記したい。

結 論

以上われわれは舌並びに廻盲部に腫瘍を形成した極めて稀有な綠色腫の 1 例を報告した。

(昭和 31. 2. 25 受付)

文 献

- 1) Burns: Observations on the Surgical Anatomy of the Head & Neck. (Glasgow, 1824).
- 2) King: Mouth. J. Med. Sci. 浜口・永野: 白血病 107 (昭 21).
- 3) Waldstein: Virchow's Arch. 91, 12 (1883).
- 4) Türk: Dtsch. med. Wschr. 29, 176 (1903).
- 5) Sternberg: Beitr. Path. Amat. u. allg. Path. 61, 75 (1916).
- 6) 浜口・永野: 白血病 109 (昭 21).
- 7) Askanazy: Dtsch. med. Wschr. 63, 22 (1916).
- 8) 天野: 血液学の基礎 上, 310 (昭 23).
- 9) 吉田・明珍: 札医紀要 2, 327 (昭 27).
- 10) 大根田: 医事新報 1574, 107 (昭 29).
- 11) Lehdorf: Erg. inn. Med. Kinderh. 6, 221 (1910).
- 12) Kandel: Arch. Int. Med. 59, 691 (1937).
- 13) 鴨脚・塚田: 京都府立医大雑誌 18, 1173 (昭 11).
- 14) Seemann: Centble. allg. Path. 48, 212 (1930).
- 15) Aubertin: 永野・浜口 白血病 108 (昭 21).
- 16) Howard & McNaught: Arch. Path. 13, 56 (1932).
- 17) 小宮: 血液図説 3, 111 (昭 25).
- 18) Ferrata: Handbuch inneren Medizin 4, 472 (1951).

Summary

An autopsy case of chloroma developing in a 25-year old female was presented, in which tumor formation was found only in the tongue and at the ileocecal portion of the intestines.

The blood pictures showed a pattern of myeloid leucemia rather than that of monocytic one.

As for the origin of chloroma, this case may possibly support the secondary origination as asserted by Askanazy.

The nature of Ferrata cells found in the bone marrows was further discussed.

(Received Feb. 25, 1956)