CORE
Metadata, citation and similar papers at core.ac.uk
Provided by Saitama Medical University Repository

氏　　名	今西 淳悟
学位の種類	博士（医学）
学位記番号	乙第 1328 号
学位授与の日付	平成 29 年 1 月 27 日
学位授与の要件	学位規則第 3 条第 1 項第 4 号に該当

学位申請論文タイトル及び掲載誌

Atypical and malignant granular cell tumors in Japan: a Japanese Musculoskeletal Oncology Group study.

日本における悪性顆粒細胞腫：骨軟部肉腫治療研究会の多施設共同研究

International Journal of Clinical Oncology 21 巻 4 号 808 頁-816 頁 2016 年 8 月 掲載

学位審査委員（主査）教授 畝川 芳彦

（副査）教授 税田 和夫、教授 髙橋 健夫、教授 新井 栄一

論文内容の要旨

【目的】骨・軟部組織に発生する異型あるいは悪性顆粒細胞腫は非常に稀であり、まとまった症例を検討した研究は、1999 年の Fanburg-Smith らの報告が唯一である。本研究の目的は、多施設共同研究により、本疾患の臨床病理学的特徴を明らかにすることである。

【方法】本研究は、中央病理診断を伴う多施設後ろ向き観察研究である。日本骨軟部肉腫治療究会（JMOG）を通して、9 施設から 20 例の悪性顆粒細胞腫あるいは異型顆粒細胞腫と診断された症例が登録された。この 20 例のうち、中央病理診断にて悪性または異型顆粒細胞腫と確定診断された 18 例を本研究の対象とした。

患者の年齢、性別、腫瘍最大径、初診時転移の有無、初診時以降の再発・転移の有無と時期、経過観察期間、最終腫瘍学的転帰、手術症例については切除縁評価、化学療法や放射線照射の治療の有無および詳細を、各施設にて質問表を埋める形で収集した。また、中央病理診断にて、Fanburg-Smith らの診断基準に含まれる 6 項目（壊死の有無、腫瘍細胞の紡錘性、大きな核小体を伴う小胞性の核の有無、細胞分裂像、N/C 比、多形性）を評価した。腫瘍学的治療成績は、局所制御、遠隔転移制御、患者生存に関して Kaplan-Meier 法により生存曲線を予測し計算した。

患者因子および Fanburg-Smith らの診断基準に含まれる 6 項目と、生命予後および局所制御との相関の有無を、Kaplan-Meier 法および Log-Rank テストを用いて統計学的に調べた。

【結果】Fanburg-Smith の診断基準によると、18 例中 3 例が異型、15 例が悪性顆粒細胞腫と診断された。4 例（1 例は異型的）は初診時にリンパ節転移あるいは遠隔転移を有していた。全経過中、4 例においてリンパ節転移が観察された。18 例の最終腫瘍転帰は、無病生存が 9 例（経過観察期間：16–122 ヶ月）、腫瘍死（DOD）が 9 例であった。

広範切除を行った 10 例のうち 3 例において局所再発を認めた。化学療法は転移あるいは再発を生じた 7 例に行われ、4 例では 1 年以上の腫瘍不変期間が得られたが、再発あるいは転移を生じた症例（2 例の異型顆粒細胞腫を含む）の転帰は全て DOD であった。初診時転移のない症例（14

例）の 5 年生存率は 69.2%、10 年生存率は 34.6%だった。

初診時転移のない 14 例における単変量解析では、壊死の有無のみが局所制御との有意な相関を示した（$P = 0.03$）。

【結論】異型または悪性顆粒細胞腫は高率に再発・転移し、より広い切除縁を確保した手術が推奨される。軟部肉腫は通常リンパ節転移は稀であるが、異型あるいは悪性顆粒細胞腫においてはリンパ節転移の頻度は少なくない。これまでに異型顆粒細胞腫の転移や腫瘍死は報告されていないが、本研究により病理組織学的に悪性と診断されない場合も転移能を持つことが示唆された。異型顆粒細胞腫と診断された場合も、慎重に経過観察する必要がある。腫瘍死に至った異型顆粒細胞腫 2 例はいずれも 10cm を超えており、初診時の悪性度の評価として、既存の診断基準に加え腫瘍の大きさも考慮するのがよい。