

【症例】26歳,女性

【現病歴】2005年3月(20歳時),両下肢麻痺,背部痛を主訴に近院受診.第5胸椎椎体腫瘍を指摘された.同年4月に椎弓切除ならびに腫瘍部分切除術がなされた.病理組織診断は骨巨細胞腫であった.同年10月,局所再発のため,腫瘍部分切除が再度なされた.翌2006年12月に,再度の局所再発と下肢麻痺の進行を認めたため,2007年1-2月にかけて,3期的に罹患椎体の亜全摘手術が実施された(慶応標本1).2008年11月,3度目の局所再発と下肢麻痺の再燃,さらに多発肺転移が確認されたが,外科治療の適応外と判断され,以後,保存的加療となった.

2011年11月(26歳時),デノスマブ(AMG162)治験目的にて当院紹介となった.

【当院治療経過】初診時CTにて,第5-6椎体から骨外に膨隆する腫瘤と,両肺に石灰化を伴う多発性病変を認めた.その他の部位に病変を認めなかった.上記肺腫瘤に対し針生検を行い,骨巨細胞腫肺転移であることが確認された.(慶応標本2:5枚)

2011年12月よりデノスマブ投与を開始した.2012年3月(6回投与後)CTで,肺病変の縮小と症状の改善が認められ,治験終了時(2014年5月,合計33回投与)まで,新規病変の出現なく,病勢完全に制御された.治験終了後もデノスマブ投与を継続し,2016年1月(合計51回投与)まで,抗腫瘍効果が持続されていた.しかしながら,この頃より,下肢麻痺の再燃と,治療抵抗性の貧血を認め,同年4月のCTで,肺腫瘍の再増大と,脾,副腎,軟部へ転移病変が確認された.再増大した肺腫瘍の針生検で,紡錘形異型細胞密な増殖像を認め,骨巨細胞腫悪性転化と診断.(慶応標本3:13枚)アドリマイシン単剤療法と肺最大病変に対する放射線治療を行うも,腫瘍進行は抑制できず,2016年7月,悪性転化の診断から3ヵ月で腫瘍死した.