

症例報告

胸腔穿破による膿胸合併を認めた成熟型縦隔奇形腫の1例

大田原赤十字病院リウマチ科¹⁾

大田原赤十字病院呼吸器内科²⁾

独立行政法人国立病院機構栃木病院小児外科³⁾

聖路加国際病院小児外科⁴⁾

独立行政法人国立成育医療センター外科⁵⁾

獨協医科大学 内科学 (呼吸器・アレルギー)⁶⁾

獨協医科大学呼吸器内視鏡センター⁷⁾

池野 義彦¹⁾ 阿久津郁夫^{2,6)} 羽金 和彦³⁾ 眞塩 一樹²⁾

崎尾 浩由²⁾ 近江 史人²⁾ 平林 健⁴⁾ 藤野 明浩⁵⁾

平田 博国⁶⁾ 杉山公美弥⁶⁾ 福島 康次⁶⁾ 石井 芳樹^{6,7)} 福田 健⁶⁾

要 旨 症例は16歳女性、咳嗽、発熱、左前胸部痛を主訴に来院。胸部CTにて内部不均一な径7cmの前縦隔腫瘍及び左舌区・下葉の完全無気肺を確認、また、MRIにて前縦隔腫瘍内に脂肪組織と同一の吸収域を認め、成熟型奇形腫穿破による膿胸と診断。膿胸に対し胸腔内纖維素溶解療法、ドレナージ及び抗生剤にて加療、膿胸改善を確認した上で、前縦隔腫瘍摘出術施行、病理にて嚢胞性成熟型奇形腫と診断した。病理組織にて腺類似の腺組織を確認、穿破の原因として、腫瘍内酵素の存在が考えられた。成熟型縦隔奇形腫は穿破により重篤な合併症発生の危険性があり、また経過中悪性転化する可能性もあることから、早期の外科治療が重要と考えられた。

Key Words : 成熟型縦隔奇形腫, 穿破, 膿胸

緒 言

成熟型縦隔奇形腫は縦隔胚細胞性腫瘍の75%¹⁾、前縦隔腫瘍の16.6%²⁾を占める、比較的頻度の高い縦隔腫瘍である。多くは無症状で偶然発見されるが、隣接臓器への穿破により重大な合併症を引き起こすこと³⁾が知られている。今回我々は咳嗽、発熱、胸部違和感を主訴とし、左胸腔穿破により膿胸を合併した成熟型縦隔奇形腫を経験した。若干の文献的考察を加え報告する。

症 例

患者：16歳、女性。

主訴：左前胸部痛、発熱、喀痰、咳嗽。

既往歴：5歳よりてんかんにて加療中。

現病歴：2004年9月中旬頃より咳嗽、喀痰が出現、近医受診し抗生剤、総合感冒薬処方され内服するも症状遷延していた。10月下旬に入り39度台の発熱、左前胸部痛を自覚し近医再診。胸部単純写真にて左胸腔1/2を占める胸水貯留、浸潤影を確認し、精査加療目的にて芳賀赤十字病院に紹介入院となった。

入院時現症：体温38.4℃、血圧88/59mmHg、脈拍124回/分、整、SPO₂98% (経鼻酸素2L/min)。意識清明、結膜に貧血・黄疸なし。表在リンパ節触知せず。胸部聴診にて左肺の気管支肺音音減弱、Coarse Crackles聴取、心音異常なし。腹部平坦・軟、四肢浮腫なし。

入院時画像所見 (図1)：胸部単純写真にて、左胸郭

平成23年3月1日受付、平成23年5月27日受理
別刷請求先：池野義彦

〒324-8686 栃木県大田原市住吉町2丁目7番3号
大田原赤十字病院 リウマチ科

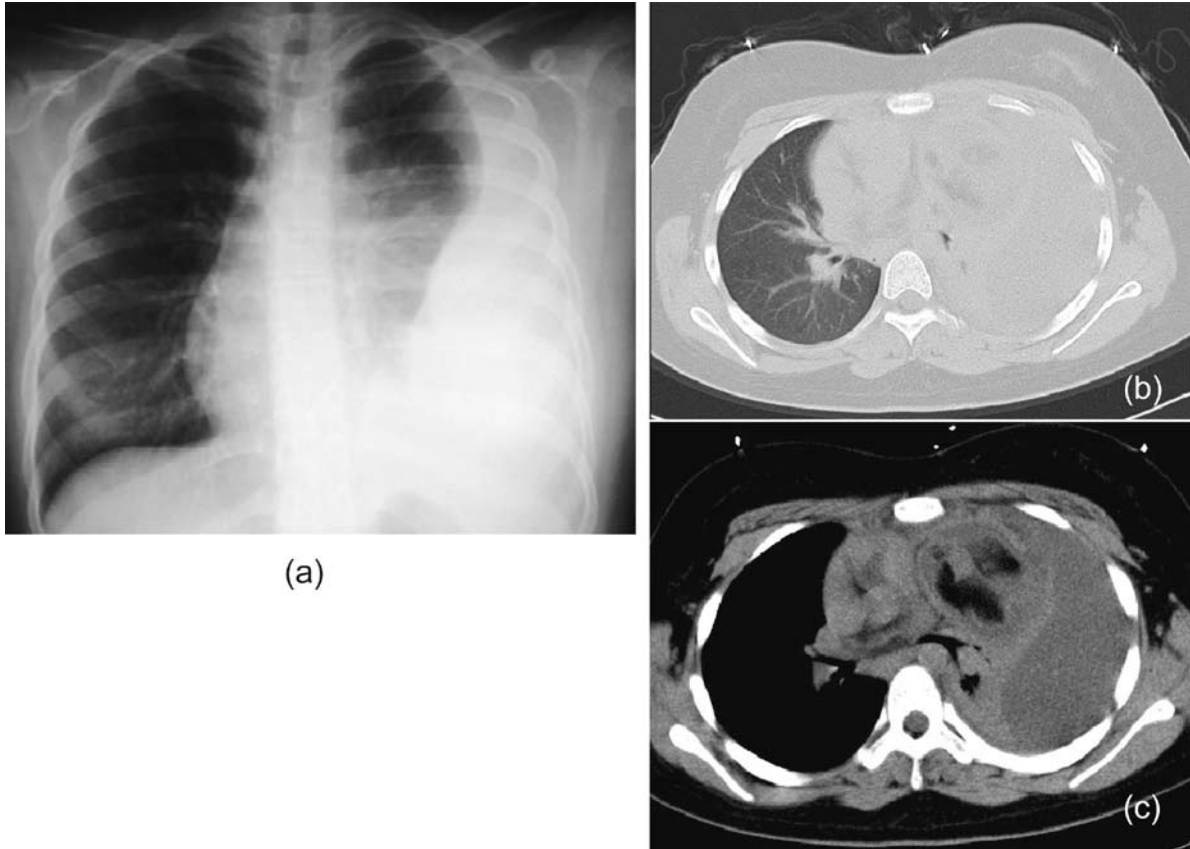


図1 入院時胸部画像所見

胸部単純写真：左中下肺野を占める内容物の貯留，無気肺及び軽度の健側への縦隔偏位を認める。
胸部CT：左前縦隔に内部不均一な7cm大の腫瘍を認める。内部に脂肪組織と同一の吸収域が存在し，奇形腫を示唆した。また，左舌区・左下葉の完全無気肺と膿胸，縦隔臓器の軽度健側偏位を認める。

表1

WBC	9300/ μ l	T-P	8.1 g/dl	Na	142 mEq/dl
RBC	398×10^4 / μ l	GOT	13 IU/l	K	3.9 mEq/dl
Hb	12.3 g/dl	GPT	12 IU/l	Cl	103 mEq/dl
Hct	36.5%	ALP	213 IU/l	Ca	9.2 mg/dl
Plt	38.2×10^4 / μ l	LDH	152 IU/l	P	4.5 mg/dl
		CPK	46 U/l	Glu	92 mg/dl
HBsAg	陰性	γ -GTP	49 IU/l	CRP	17.9 mg/dl
HCV	陰性	T-Bil	0.3 mg/dl		
RPR	陰性	T-Chol	114 mg/dl	α -FP	1.6 ng/ml
TPHA	陰性	TG	103 mg/dl	CA19-9	8 U/ml
		AMY	37 U/l	CA125	29.3 U/ml
		BUN	7 mg/dl	hCG β subunit	0.1 以下
		Cr	0.6 mg/dl		

1/2を占める，左下肺野の完全無気肺を伴う胸水貯留を確認。健側への軽度縦隔偏位を認める。

入院時検査所見（表1）：白血球増加，CRP亢進などの炎症性マーカーの上昇を認めた。血中の腫瘍マーカーは正常範囲内であった。

胸部CTでは左前縦隔に内部不均一，脂肪成分と同一の吸収域を持つ7cm大の腫瘍を確認，その性状から奇形腫が考えられた。また，舌区・左下葉の完全無気肺を伴う膿胸，縦隔臓器の軽度健側偏位を認めた。

術前MRI所見（図2）：第27病日に撮影，内部不均

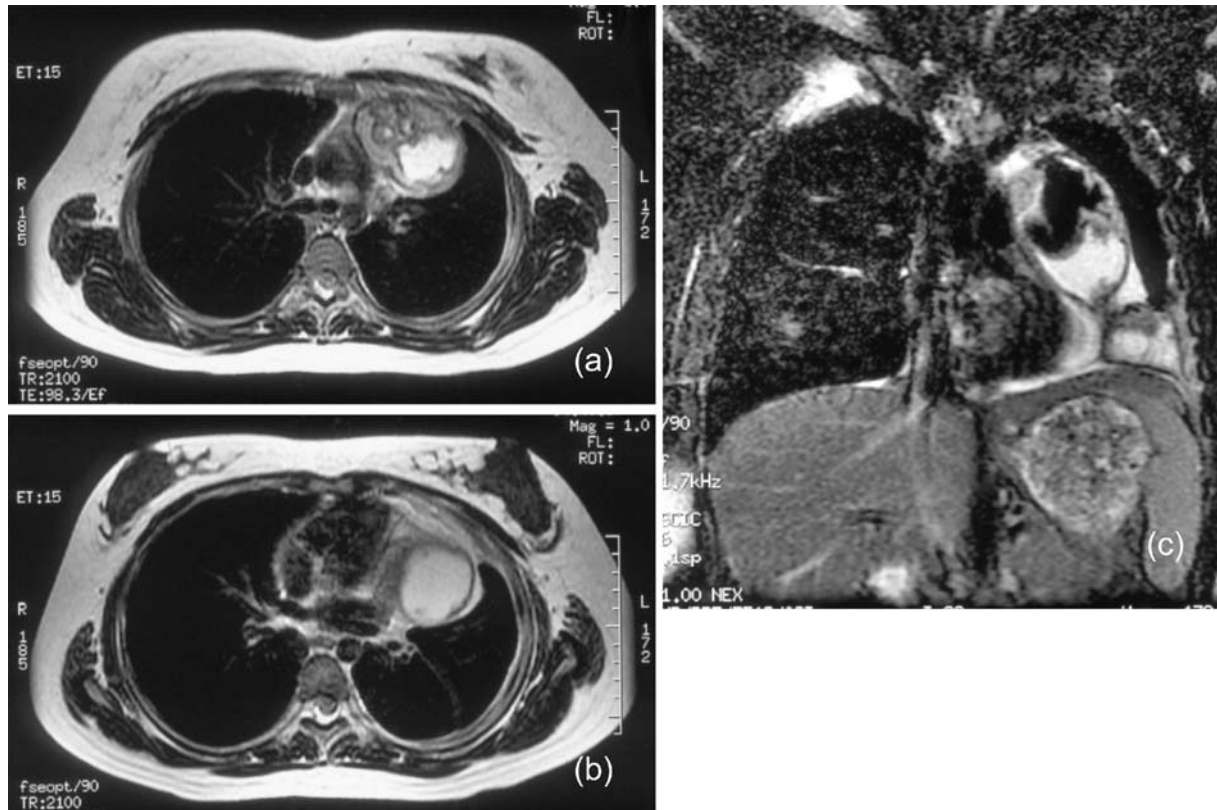


図2 術前胸部MRI画像所見

MRI T2強調像にて腫瘍内に嚢胞構造を思わせる高吸収域を認め、嚢胞性奇形腫を示唆した。腫瘍尾部より横隔膜にかけて膿胸病変の残存を認める。

一な7cm大の腫瘍を認める。T2強調像で嚢胞成分を示す高吸収域が腫瘍内部に確認され、嚢胞性奇形腫が疑われた。

入院経過：第1病日より抗生剤での加療を開始すると共に、20Fr胸腔ドレーンを留置、胸腔ドレナージを実施した。胸腔ドレーン挿入時内容物300mlを回収、内容物性状を(表2)に示す。淡黄・濁で膿性を示し、糖5mg/dlと著減、LDH 2353U/l、ADA 54.0IU/lと増加、胸水pH 7.15と低下、胸水中蛋白/血清蛋白比 0.74、胸水中LDH/血清LDH比 15.48、といずれも上昇を認めた。米国胸部内科専門医会肺炎随伴性胸水ガイドラインでのA2B2C1, Category4に相当⁴⁾し膿胸内容物と判断した。また内容物には異形の乏しい扁平上皮無核表層が多く含まれていた。低圧持続吸引を実施しドレナージを図るも、膿胸腔の多房化により十分なドレナージが困難であったため、第2~4病日の3日間、胸腔内繊維素溶解療法を実施した。ウロキナーゼ12万単位+生理食塩水100mlを胸腔内に注入、1時間のドレーンクランプの後解放し、その後生理食塩水1000mlを用いて胸腔洗浄を実施した。胸腔内繊維素溶解療法1回目に約700mlの内容物を回収、溶解療法後は低圧持続吸引併

表2

色調	淡黄	一般培養	陰性
混濁	濁	抗酸菌鏡検	陰性
pH	7.15	抗酸菌培養	陰性
比重	1.038	結核菌PCR	陰性
リバルタ反応	陽性		
糖	5mg/dl	細胞診 class II	
蛋白	6.0g/dl	異型の乏しい扁平上皮	
LDH	2353U/l	特に無核表層型が	
ヒアルロン酸	63200ng/ml	多数認められた。	
ADA	54.0IU/l		

用にて十分なドレナージを得ることが出来た。抗生剤投与と胸腔ドレナージの継続により、膿胸病変の大幅な縮小と無気肺の改善、発熱などの臨床症状及び炎症所見の改善を確認、第14病日にドレーンを抜去した。第27病日に奇形腫及び残存膿胸部の摘出目的で国立病院機構栃木病院小児外科に転院。第30病日に前縦隔腫瘍摘出及び左胸膜・肺癒着剥離術を施行した。9.0×5.5×6.0cm大、159gの厚い皮膜を有する腫瘍(図3)を摘出した。病理組織(図4)は脂腺、汗腺、毛嚢を含む皮膚組織が主体であり、また一部に気管支、腺、粘液腺、平滑

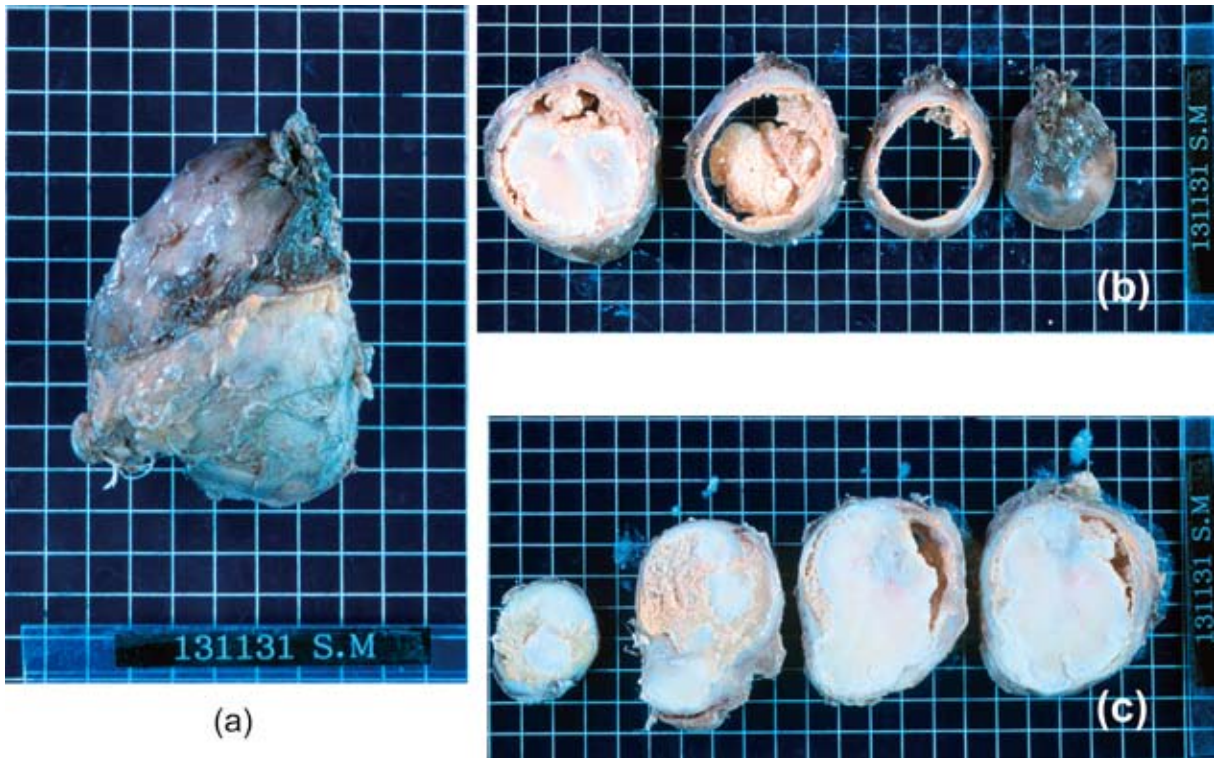


図3 摘出標本

9.0×5.5×6cm, 159gの厚い皮膜を有する腫瘍, 内部に脂肪組織及び嚢胞構造を認める。

筋, 軟骨組織を認めた。嚢胞壁は癍痕様線維化を伴い, 一部に萎縮した胸腺組織も認めた。壁内及び壁表面に毛や角化剥離物が見られ, 壁破綻が示唆された。未熟成分及び腫瘍成分を認めず, 成熟型嚢胞性奇形腫と診断した。術後の経過は良好で, 術後14日にて退院, 左胸腔にごく軽度の胸水貯留, 胸膜肥厚が残存するのみで順調な回復を示した。

考 察

奇形腫は三胚葉組織の混在からなる混合腫瘍⁵⁾と定義される。その多くは卵巣や精巣などの性腺から発生するが, 仙尾骨部や縦隔などの性腺外からも発生し, 発生部位によって好発年齢, 性差, 臨床像及び組織像に違い⁶⁾があることが知られている。Moran & Susterらは縦隔発生奇形腫を病理学的に成熟型奇形腫, 未熟型奇形腫, 悪性部分を伴う奇形腫に分類⁷⁾した。成熟型縦隔奇形腫は縦隔胚細胞性腫瘍の75%を占め, 前縦隔腫瘍の16.6%を占める。後発年齢は10歳代後半からの40歳頃であり, 比較的女性に多い⁶⁾とされる。その多くは無症状で経過し, 健診などの画像検査で偶然発見されることが多いが, 一方で, 腫瘍の穿破により, 胸痛や咳嗽などの自覚症状出現や, 隣接臓器に重大な合併症を引き起こす事が知られている。穿破の頻度は約10~36%⁸⁾といわ

れており, その多くは肺内・気管支への穿破だが, 中には胸腔・縦隔⁹⁾・心嚢・大血管¹⁰⁾に穿破し, 膿胸, 縦隔炎・血栓性静脈炎⁹⁾, 心膜炎・心タンポナーゼ¹⁰⁾などの重篤な合併症が認められた報告がある。穿破の原因としては, 腫瘍内産生の腓酵素による組織融解, 腫瘍増大による隣接臓器との炎症性癒着, 腫瘍内容の急激な増大による虚血変化・内圧亢進, 嚢腫内感染による影響¹¹⁾が知られている。特に縦隔発生の成熟奇形腫の病理学的特徴として, 腓組織の出現頻度が46%~54%¹²⁾と高いことが知られており, 一方, 他部位に生じた奇形腫の穿破の頻度は, 縦隔に生じた場合と比して低いことから, 主な穿破の原因として, 腫瘍内で産生された腓酵素が影響していると考えられる。本症例でも, 病理組織にて腓類似の腺組織の存在が確認された。

奇形腫では, 血中腫瘍マーカーの上昇を認める症例が報告¹³⁾されている。機序としては, 奇形腫内の腓組織, 扁平上皮細胞, 汗腺などより産生され, 嚢胞内液に蓄積されたものが, 穿破により胸腔内に貯留, 胸膜より血中に移行する¹³⁾と考えられている。CA19-9, SCC, NSE, SLX, CEA, CA125などの上昇を示すことが知られているが, 本症例では明らかな上昇を認めなかった。

他の縦隔腫瘍との鑑別としては画像診断が最も重要である。CTでは境界明瞭, 嚢胞性腫瘍で肥厚した隔壁を

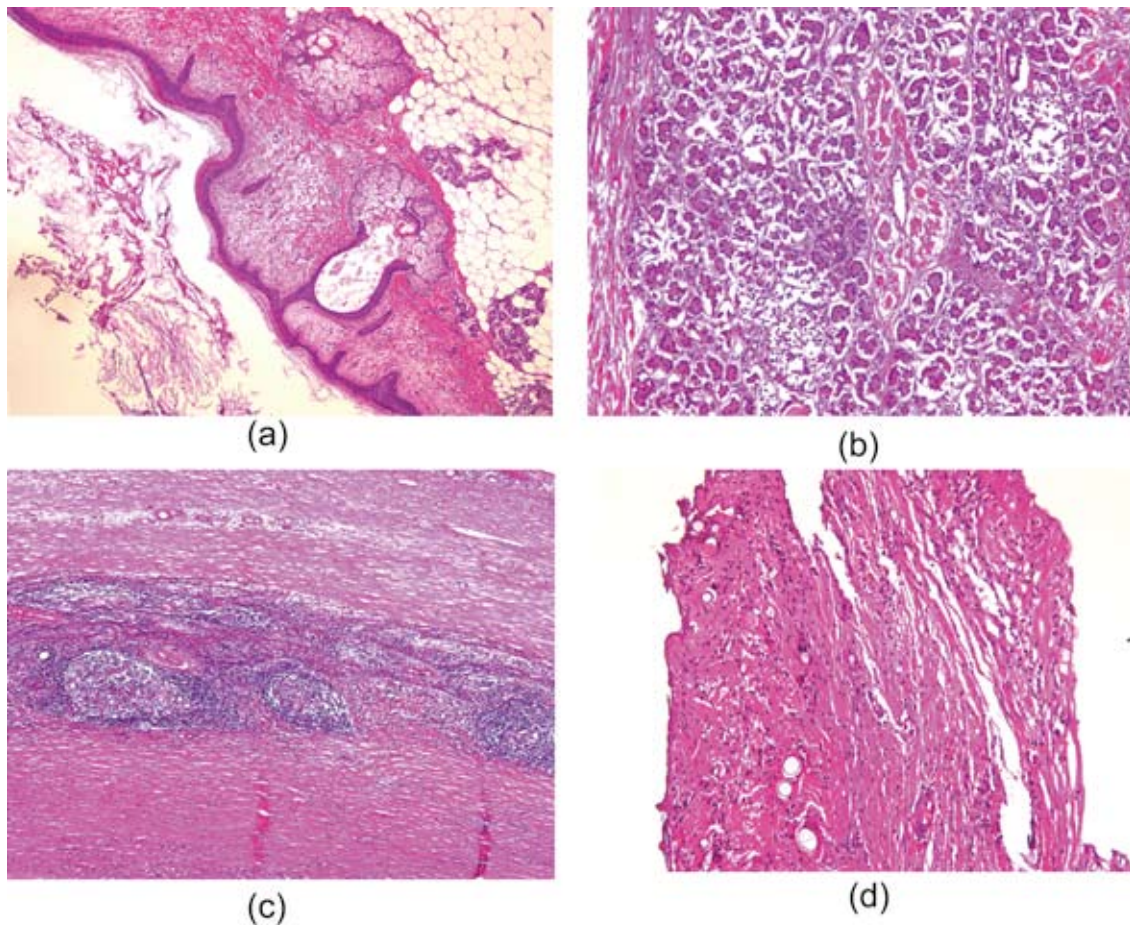


図4 病理所見

脂腺・汗腺・毛嚢を含む皮膚組織が主体 (a)。一部に腺を疑わせる腺組織 (b) も認める。嚢胞壁は瘢痕様線維化を伴っており、その一部には、萎縮した胸腺組織 (c) も認める。穿孔を疑わせる部分では、壁内及び壁表面に毛や角化剥離物が見られ、壁の破綻があったことが示唆された (d)。悪性細胞は認めない。

有し、内部不均一な内容を伴う腫瘍と描出されることが多い。石灰化や脂肪成分を伴うことが特徴の一つであり、奇形腫の約20~43%に石灰化、約30~50%に脂肪成分を認める¹⁴⁾とされる。MRIはT1強調像にて嚢胞成分の低信号及び脂肪成分の高信号、T2強調像にて嚢胞成分の高信号として描出され、診断に有用¹⁵⁾である。本症例でも、CTの腫瘍内不均一構造及び脂肪組織と同一の吸収域、MRI T2強調像にて腫瘍内に嚢胞構造を思わせる高吸収域を確認し、術前に嚢胞性奇形腫が最も疑われた。

奇形腫の悪性転化は化学療法、放射線治療に引き続いて起こるものと、自然経過で生じるものと2つのタイプ¹⁶⁾がある。前者は若年者、後者は高齢者に多いとされる。縦隔発生の奇形腫は悪性転化が比較的多いことが特徴とされ、約12~13%の割合で悪性化する報告¹⁷⁾もある。穿孔による周辺臓器への重篤な合併症の発生や、悪性転化のリスクもあることから、縦隔発生の成熟奇形

腫は早期に外科的治療を検討することが重要と考えられた。

結 語

胸腔穿孔による左膿胸を合併した左縦隔成熟型奇形腫の1例を経験した。本症例は膿胸を併発していたが適切なドレナージ、溶解療法により合併症などが重篤、遷延化することなく比較的早期に外科手術が可能であった。成熟型縦隔奇形腫は穿孔による周辺臓器への重篤な合併症の危険性や悪性化の懸念があるため、診断時から早期に外科治療を実施することが重要であると考えられた。

謝 辞 本症例の病理診断にあたり、御高診、御教示下さいました元独立行政法人国立病院機構栃木病院臨床検査科長（現亀田総合病院臨床病理科部長）星和英先生に深謝申し上げます。

文 献

- 1) Drevelegas A, Palladas P, Scordalaki A : Mediastinal germ-cell tumors : a radiologic-pathologic review. *Eur Radiol* **11** : 1925-1932, 2001.
- 2) 和田洋巳, 寺松 孝 : 縦隔腫瘍全国集計, 日本胸部外科学会雑誌 **30** : 374-379, 1982.
- 3) Takeda S, Miyoshi S, Ohta M, et al : Primary germ cell tumors in the mediastinum. *Cancer* **97** : 367-376, 2003.
- 4) Colice GL, Curtis A, Deslauriers J, et al : Medical and surgical treatment of parapneumonic effusions : an evidence-based guideline. *Chest* **118** : 1158-1171, 2000.
- 5) Duwe BV, Sterman DH, Musani AI : Tumor of the mediastinum. *Chest* **128** : 2893-2909, 2005.
- 6) 森永正二郎 : ヒト奇形腫とはどのようなものか. *医学のあゆみ* **9** : 868-875, 2009.
- 7) Moran CA, Suster, S : Primary germ cell tumors of the mediastinum. I. Analysis of 322 cases with special emphasis on teratomatous lesions and a proposal for histologic classification and clinical staging. *Cancer* **80** : 681-690, 1997.
- 8) 生井克美, 竹内敦郎, 入江義明, 他 : 縦隔 Teratoid Tumor の 2 例. *胸部外科* **11** : 880-884, 1958.
- 9) 三崎伯幸, 住友伸一, 松岡勝成, 他 : 縦隔炎および血栓性静脈炎を合併した成熟奇形腫の 1 例. *日本胸部外科学会雑誌* **2** : 170-173, 2007.
- 10) 吉田和夫, 矢満田健, 青木孝學, 他 : 心嚢内に穿破を来した縦隔成熟型奇形腫の 1 例. *日本胸部外科学会雑誌* **45** : 1107-1110, 1997.
- 11) 森野茂行, 田川 努, 中村昭博, 他 : 右肺に穿破した成熟型奇形腫の 2 手術例. *日本胸部外科学会雑誌* **2** : 139-143, 2007.
- 12) 手島伸一, 下里幸雄, 岸 紀代三, 他 : 胚細胞性腫瘍 : 臓器別臨床病理学的特異性, *病理と臨床* **1** : 472-482, 1983.
- 13) 永田一洋, 岩崎吉伸, 中西雅樹, 他 : 血中腫瘍マーカーの上昇を認めた前縦隔奇形腫の 1 例. *日本呼吸器学会雑誌* **1** : 50-54, 2002.
- 14) Drevelegas A, Palladas P, Scordalaki A : Mediastinal germ-cell tumors : a radiologic-pathologic review. *Eur Radiol* **11** : 1925-1932, 2001.
- 15) 松尾周也, 酒井文和, 鎌田憲子, 他 : 縦隔腫瘍の画像診断. *病理と臨床* **11** : 1155-1161, 2007.
- 16) Morinaga S, Nomori H, Kobayashi R, et al : Well-differentiated adenocarcinoma arising from mature cystic teratoma of the mediastinum (teratoma with malignant transformation) report of a surgical case. *Am J Clin Pathol* **101** : 531-534, 1994.
- 17) 小暮啓人, 上村光弘, 野村友清, 他 : 突然の胸痛を主訴とした成熟型縦隔奇形腫の 2 例. *日本呼吸器学会雑誌* **43** : 365-369, 2005.

A case of Mediastinal Mature Teratoma Complicated by Empyema Due to Rupture into the Pleural Cavity

Yoshihiko Ikeno¹, Ikuo Akutsu^{2,6}, Kazuhiko Hagane³, Kazuki Mashio², Hiroyuki Sakio²,
Fumito Omi², Takeshi Hirabayashi⁴, Akihiro Fujino⁵, Kumiya Sugiyama⁶,
Yasutugu Fukushima⁶, Yoshiki Ishii^{6,7}, Takeshi Fukuda⁶

¹*Department of Rheumatology, Ohtawara Red Cross Hospital, Sumiyoshityo, Ohtawara, Tochigi 324-8686, Japan*

²*Department of Respiratory Medicine, Ohtawara Red Cross Hospital*

³*Department of Pediatric Surgery, Tochigi National Hospital*

⁴*Department of Pediatric Surgery, St.Luke's International Hospital*

⁵*Department of Surgery, National Center for Child Health and Development*

⁶*Department of Pulmonary Medicine and Clinical Immunology, Dokkyo Medical University School of Medicine*

⁷*Dokkyo Medical University School of Medicine Respiratory Endoscopy Center*

A 16-year-old female visited our hospital, complaining of cough, fever, and left precordial pain. Chest computed tomography showed a heterogeneous anterior mediastinal tumor measuring 7 cm in diameter and complete atelectasis in the lingula and lower lobe of the left lung. Magnetic resonance imaging also showed an area of intensity identical to that of adipose tissue in the anterior mediastinal tumor. Thus, empyema due to rupture of a mature teratoma was diagnosed. The empyema was treated with intra-pleural fibrinolytic therapy, drainage, and antibiotics. After confirming resolution of the empyema, we resected the anterior

mediastinal tumor and pathologically diagnosed it as cystic mature teratoma. Histopathological examination showed glandular tissue resembling the pancreas, suggesting that the rupture had been caused by pancreatic enzymes in the tumor. Mediastinal mature teratoma carries a risk of serious complications developing due to rupture and the possibility of malignant transformation during the disease course. Thus, early surgical treatment is important.

Key words : mediastinal mature teratoma, rupture, empyema