

琉球大学学術リポジトリ

[原著] 小児縦隔奇形腫の1治験例

メタデータ	言語: Japanese 出版者: 琉球医学会 公開日: 2010-07-02 キーワード (Ja): キーワード (En): mediastinal tumor, teratoma, child 作成者: 金城, 僚, 砂川, 宏樹, 青木, 啓光, 武藤, 良弘, 百名, 伸之, 太田, 孝男, Kinjo, Tsukasa, Sunagawa, Hiroki, Aoki, Hiromitsu, Muto, Yoshihiro, Hyakuna, Nobuyuki, Ohta, Takao メールアドレス: 所属:
URL	http://hdl.handle.net/20.500.12000/0002016026

小児縦隔奇形腫の1治験例

金城 僚¹⁾, 砂川宏樹¹⁾, 青木啓光¹⁾, 武藤良弘¹⁾
百名伸之²⁾, 太田孝男²⁾

¹⁾ 琉球大学医学部外科学第一講座

²⁾ 同 小児科学講座

(1999年6月1日受付, 1999年10月6日受理)

Mediastinal teratoma in a child: A case report

Tsukasa Kinjo¹⁾, Hiroki Sunagawa¹⁾, Hiromitsu Aoki¹⁾, Yoshihiro Muto¹⁾
Nobuyuki Hyakuna²⁾ and Takao Ohta²⁾

¹⁾ First Department of Surgery, and ²⁾ Department of Pediatrics, Faculty of Medicine
University of the Ryukyus, Okinawa, Japan

ABSTRACT

A case of mediastinal teratoma in a 5-year-old girl is herein reported. She presented with chest pain and an abnormal shadow on the chest X-ray findings. CT and MRI demonstrated a right anterior mediastinal cystic tumor measuring 5cm in diameter with areas of calcification, solid lesions and fatty tissue, and right pleural effusion. Tumor markers such as AFP, h-CG, and urinary VMA and HVA were all within the normal limits. Tumor involvement to the adjacent organs was suspected based on the diagnostic imaging findings before operation. Subsequently, we performed a right thoracotomy with a possible diagnosis of potentially malignant teratoma. Fortunately, the tumor was localized with inflammatory adhesions to the lung, aorta, and pericardium. The tumor was completely resected. The tumor was oval shaped and measured 5cm in size. On cut section, the tumor contained a small amount of brown fluid. The tumor was cystic with intracystic polypoid projections. Histologically, the tumor was composed of pancreatic tissue, gastrointestinal tissue, bone tissue and fatty tissue. It was finally diagnosed to be a benign, mature teratoma. The patient showed an uneventful postoperative course and is presently doing well with no evidence of recurrence. This case and other similar reported cases suggest that it is difficult to differentiate inflammatory adhesions from tumor infiltration to adjacent organs based on the diagnostic imaging findings alone. *Ryukyu Med. J.*, 19(2)65~68, 2000

Key words: mediastinal tumor, teratoma, child

緒 言

縦隔奇形腫は臨床的に無症状でX線写真で偶然発見されることもあるが、約70%の症例は胸痛、呼吸難、咳嗽などの症状¹⁾を呈する。診断は各種画像検査の特徴的所見から比較的容易なことが多いが、良悪性の鑑別は画像所見からのみでは困難²⁾とされる。

著者らは胸痛を主訴に発見された縦隔腫瘍で、術前診断として悪性奇形腫を完全に否定できなかった成熟奇形腫症例を経験したので、縦隔腫瘍の術前鑑別診断に関して示唆に富む興味ある症例と考え、若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

症例：5歳4カ月、女児

主訴：胸痛

現病歴：平成10年7月、突然の胸痛が出現。胸痛は20~30分程度で自然軽快したが、胸痛発作が続くため、9月12日近医受診。同院にて胸部X線写真上、縦隔陰影の拡大を認めたため、9月14日当院小児科受診。同日胸部CTにて右前縦隔に一部充実性で、石灰化を有する径5cmの嚢胞性病変を認めたため、外科的治療目的に当科紹介入院となった。

既往歴・家族歴：特記事項なし。

入院時現症：身長104cm、体重16.8kgと成長発達は正常で、発熱を認めなかった。全身状態は良好、胸部理学所見に異常

Table 1 Laboratory data on admission

WBC 5800/mm ³ , Hb. 10.9g/dl, Hct. 34.5%, Plt. 34.8万/mm ³ ,
TP 6.7g/l, Alb 4.2g/dl, BUN 13mg/dl, Cre 0.20mg/dl,
Na 138mEq/l, K 3.9mEq/l, Cl 102mEq/l, Ca 9.5mg/dl,
IP 4.6mg/dl, T-bil 0.4mg/dl, GOT 24 IU/l, GPT 8 IU/l,
ALP 504 IU/l, LDH 236 IU/l, γ GTP 12 IU/l, LAP 144 IU/l,
CHE 622 IU/l, CPK 65 IU/l, TTT 1.7KU, ZTT 2.4KU,
TCHO 177mg/dl, TG 69mg/dl,
CRP 0.88mg/dl, AFP 1ng/ml, h-CG <0.5mIU/ml,

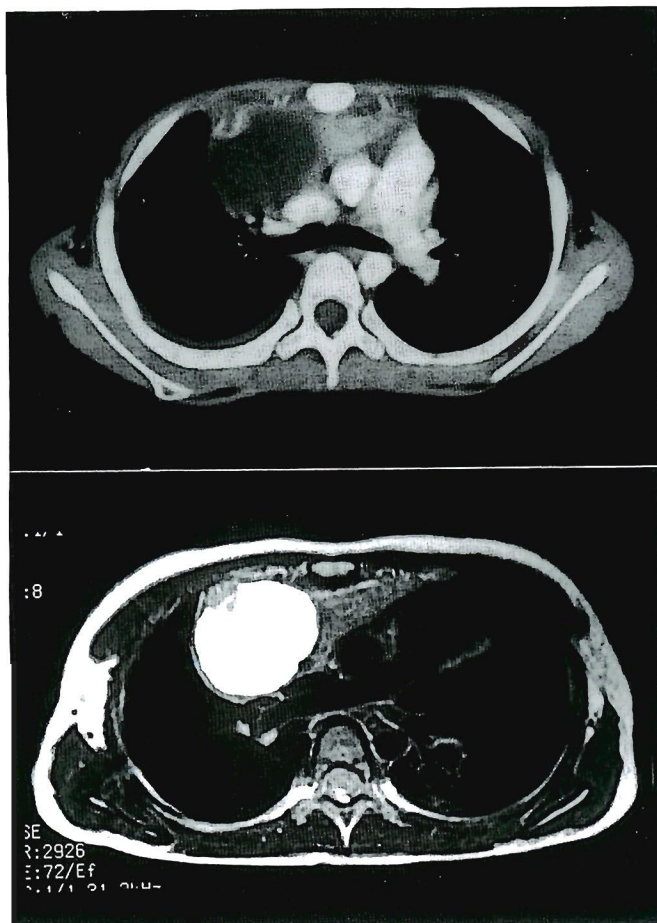


Fig. 1 CT scan of the tumor revealing a cystic tumor with calcification and intracystic solid lesions and possible invasion to the adjacent organs (top). MRI of the tumor demonstrating the cystic tumor with solid lesions composing of fat and soft tissues, showing a clearly circumscribed cystic tumor from the surrounding organs on T2-weighted MRI (bottom).

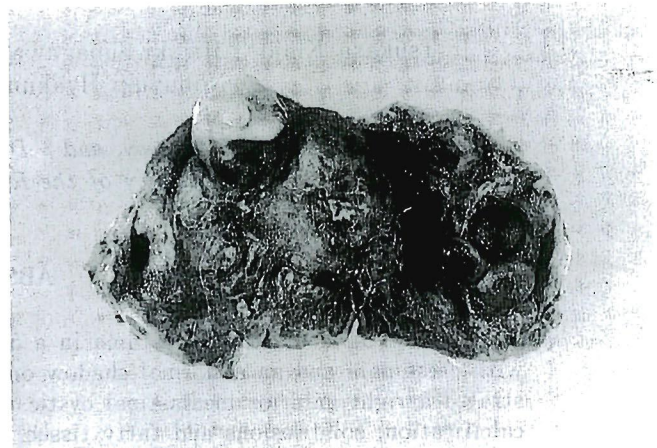


Fig. 2 Macrophotograph of the resected tumor. The tumor was oval in shape, 5 cm in size. On cut section, the tumor contained a small amount of brown fluid. The tumor was cystic with polypoid projection.

画像検査所見：入院時の胸部単純X線写真では、右縦隔陰影の拡大を認めた。肺野病変は認めなかった。CT検査では、右前縦隔に石灰化および充実性部分を有する径5 cm大の嚢胞状腫瘍を認め、右側胸水も認められた。さらに右前胸壁への浸潤様所見があり、腫瘍と肺との境界も毛羽だった様に描出された。加えて、造影CTでは腫瘍と大血管が接しており、その境界が不明瞭で明らかな脂肪層が指摘できず、大血管への腫瘍浸潤を否定できなかった。(Fig. 1)

MRIでは軟部組織、脂肪組織、嚢胞組織、石灰化組織の4つの構成成分が同定され、画像診断は奇形腫とされた。MRIでは、CTで指摘された前胸壁への浸潤は描出されず、腫瘍の大血管への浸潤に関して、T1強調画像ではCTと同様に大血管への浸潤を否定できなかったが、T2強調画像では大血管への明らかな浸潤を認めなかった。(Fig. 1)

以上の所見より、腫瘍マーカーは陰性であったが、画像検査により術前診断として完全に悪性腫瘍を否定できないまま、右前縦隔奇形腫として右開胸にて腫瘍全摘術を施行した。手術所見：開胸時少量の淡褐色胸水を少量認めた。腫瘍と肺は軽度の炎症性の癒着が認められ、剥離は容易であった。前胸壁への腫瘍の浸潤はなく、炎症性の癒着のみであった。腫瘍は胸腺原発であり、大血管への浸潤を認めなかったが、腫瘍と縦隔、とりわけ心膜、大血管との間の剥離層は明確でなく、剥離操作にやや難渋した。結局心膜の一部を切除して周

はなく、胸痛の訴えもなかった。呼吸状態、腹部理学所見にも異常はなかった。

血液検査：Hbが10.9g/dlとやや低値を示していたものの、肝機能障害、LDHの増加を認めなかった。なお、軽度CRPの上昇を認めていたが、AFP、hCGなどの腫瘍マーカーの上昇は認めなかった。(Table 1)

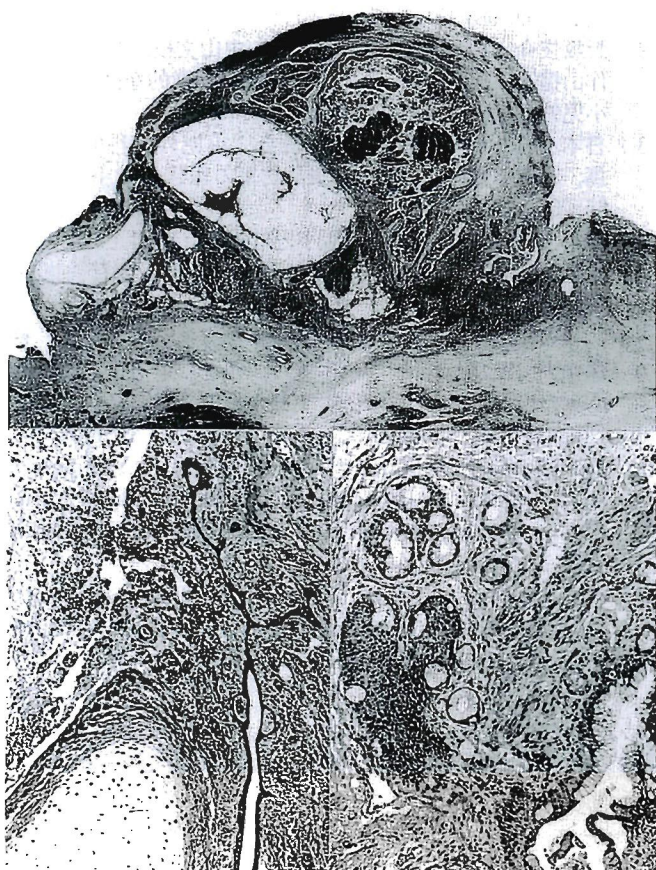


Fig. 3 Microphotographs of the tumor showing a solid lesion (top; HE, $\times 2.5$) and bone and gastrointestinal tissues (bottom; HE, $\times 25$).

周囲臓器を損傷することなく全摘ができた。

病理所見：摘出標本は5 cm \times 5 cm。肉眼的に腫瘍は被膜を有し、内部には黒褐色の液体が貯溜していて、腫瘍内部にはさらに充実性の部分を認めた。なお、摘出標本表面に穿孔を示唆する所見はなかった。(Fig. 2)

組織学的に腫瘍被膜は線維性であり、内部の充実性部分は分化した腺組織、消化管上皮、軟骨、脂肪組織を認め、その他、扁平上皮組織、胸腺組織も認めた。病理診断は成熟奇形腫とされた。(Fig. 3)

術中採取した胸水の細胞診では悪性細胞を認めなかった。

術後経過は順調で、術後13日目に軽快退院した。術後6ヶ月経過しているが、腫瘍再発の兆候はなく、現在外来にて経過観察中である。

考 察

小児縦隔腫瘍の鑑別疾患を挙げると、その発生頻度から、神経原性腫瘍、前腸由来嚢腫、悪性リンパ腫、奇形腫、胸腺腫瘍、脈管系由来腫瘍などが列挙される。しかし小児奇形腫の頻度は年間100例前後³⁾であり、そのうち縦隔奇形腫は10例³⁾ほどで、決して多いわけではない。さらに、悪性の奇形腫群、すなわち胚細胞腫瘍は、ほとんどが性腺および仙尾部原発⁴⁾であり、縦隔原発は稀で、1997年1年間では1例³⁾し

か報告されていない。治療に関しては成熟および未熟奇形腫は、いわゆる良性腫瘍の治療に準じた外科的全摘が第一選択で容易に全摘ができることが多く⁴⁾、術後の治療は通常必要としない。一方で、胚細胞腫瘍に対しては術前後の化学療法・放射線治療が必要になる。縦隔奇形腫における悪性の頻度は非常に低いものの、良悪性の術前診断は治療方針の決定に重要であり、術前に良性の診断に至り、全摘が問題なく可能と判断されれば、手術術式は大きく変わり、開胸手術ではなく、内視鏡下手術という低侵襲の外科的手技を選択することも可能となる。しかし縦隔奇形腫はしばしば心膜や胸膜、肺、大血管、胸壁などの周囲臓器と炎症性に癒着があり、腫瘍の完全な切除が困難であったり、また切除の際に周囲臓器の合併切除が必要⁵⁾なことも多く経験される。

縦隔奇形腫は画像検査のみで診断がつくことが多く、通常前縦隔の嚢胞性病変として描出され、脂肪組織や石灰化、特に歯牙や骨を示す石灰化^{1,5)}がある場合には画像所見から比較的容易に診断が確定する。Moeller¹⁾らの検討によると、画像検査では腫瘍内部は不均一で、軟部組織、嚢胞組織、脂肪組織、石灰化組織の4つの構成成分が様々な組み合わせで混在した像を呈し、4つの成分全てが混在するものが全体の約4割¹⁾と最も多い。ほとんどの症例が嚢胞を有する腫瘍であるが、嚢胞成分を全く含まないものも1割¹⁾ほど存在し、必ずしも奇形腫は嚢胞性病変として描出されるわけではない。しかし嚢胞性病変が優位で皮膜または腫瘍内隔壁を有する腫瘍は奇形腫の可能性が高く、cystic thymoma, cystic lymphomaが画像検査上の鑑別疾患⁶⁾となる。

一方、奇形腫の悪性所見としては、急速な発育傾向および周囲臓器の圧迫症状、特に上大静脈症候群や血痰、発熱などの臨床症状が重要で、画像検査では内部が均一な腫瘍で特に周囲組織への浸潤傾向⁴⁾が重要視される。

本症例では上記の臨床症状を認めず、画像検査上、奇形腫特有の4つの構成成分を認め、奇形腫の診断は容易であった。しかしAFP値は正常であったにもかかわらず、CTにて、周囲臓器、とりわけ肺、前胸壁、大血管への浸潤様所見ならびに右側胸水を認め、画像検査だけでは良悪性の鑑別は困難であった。

近年のMRI所見の検討によると、CTとMRIは奇形腫の診断のみでは同等の精度であるが、炎症や浸潤などの悪性所見の鑑別にはMRIの方が有用⁶⁾で、MRIでは10例中全て正診であったがCTでは8例中1例(12.5%)の誤診を認めた。本症例のMRI検査ではT2強調画像でのみ全ての浸潤所見を否定することができた。

本症例の胸水の存在は悪性所見と考えられたが、Moeller¹⁾らは17%の症例に胸水を認め、心嚢液のみは5%、胸水・心嚢液の両方を伴ったものは6%であったと報告し、その原因は血管透過性の亢進とリンパのうっ滞としている。Choiら⁷⁾は内部不均一の縦隔奇形腫、すなわち成熟奇形腫と考えられる奇形腫で肺癒着、胸水、心嚢液貯留などの隣接臓器間の変化は腫瘍被膜破綻の所見として有用であるとし、癒着、胸水など、悪性を疑わせる所見を有していても腫瘍自体が良性の画像所見を呈していれば、術前診断として良性と判断し得ることを示唆している。しかし本症例では摘出標本に穿孔を示唆する所見はなく、胸水の原因は不明であり、腫瘍嚢胞の内容が褐色を帯び、嚢胞内出血を疑わせ、周囲組織と炎症性の癒着が認められた。

これまでの報告をもとに本症例をretrospectiveに考察する

と、腫瘍マーカーが正常であり、腫瘍自体は画像上良性腫瘍であるため、隣接臓器への浸潤を疑わせる所見と胸水を認めるものの良性奇形腫の術前診断が妥当であったと考える。しかし手術による全摘は困難である可能性が指摘でき、実際、腫瘍は心膜の一部を切除する形でしか全摘ができなかった。今後、本症例のように臨床所見、腫瘍マーカーと画像検査から良悪性の鑑別が困難な縦隔腫瘍症例では、できる限りの画像検査を多用し、これらを慎重に評価したうえで手術方法を含めた治療方針の決定につとめなければならない。

結 語

我々は胸痛を主訴に発見された小児縦隔奇形腫を経験した。術前画像検査で悪性腫瘍を完全に否定できなかったが、結果的には成熟奇形腫で腫瘍全摘は可能であった。本症例は縦隔腫瘍の術前鑑別診断に関して興味ある症例であった。

文 献

- 1) Moeller K.H., Rosado-de-Christenson M.L. and. Templeton P.A.: Mediastinal mature teratoma: imaging features.

AJR, 169: 985-990, 1997.

- 2) 野坂俊介, 宮坂実木子, 大西 毅, 中山文枝, 中田幸之介, 作山攜子, 石川 徹: 奇形腫群腫瘍に特徴的な画像所見. 小児外科, 27: 886-893, 1995.
- 3) 日本小児外科学会悪性腫瘍委員会: 小児の外科的悪性腫瘍, 1997年登録症例の全国集計結果の報告. 日小外会誌, 35: 67-89, 1999.
- 4) 橋都浩平: 縦隔腫瘍. 新版小児外科学, 石田正統, 中條俊夫, 土田嘉昭 編, PP.150-153, 診断と治療社, 東京, 1994.
- 5) 高橋康二, 谷村慶一, 神島 保, 古瀬 信, 藤井丈士, 蘇原泰則: 縦隔奇形腫の臨床診断, 画像, 手術および病理所見の検討. 臨床放射線, 43: 163-170, 1998.
- 6) Ikezoe J., Takeuchi N., Johkoh T., Kohno N., Takashima S., Tomiyama N., Arisawa J., Yamagami H., Yoshioka H., Higashihara T. and Kozuka T.: MRI of anterior mediastinal tumors. Radiation Medicine. 10: 176-183, 1992.
- 7) Choi S.J., Lee J.S., Song K.S. and Lim T.H.: mediastinal teratoma: CT differentiation of ruptured and unruptured tumor. AJR.171:591-594, 1997.