

症 例

薄壁空洞型肺転移による再発性気胸をきたした頭皮血管肉腫の1例

小林 哲 大本 恭裕* 井端 英憲* 油田 尚総
 安井 浩樹 畑地 治 吉田 正道 小林 裕康
 EC Gabazza 田口 修 足立 幸彦

要旨：症例は79歳，女性．頭皮血管肉腫の診断にて Interleukin 2 と放射線治療をうけ，寛解したが，その後，薄壁空洞型の多発肺転移による右気胸をきたした．加療にて軽快したがその後，再発性の気胸を認めた．自宅療養中に呼吸不全にて死亡した．再発性気胸の鑑別診断として悪性腫瘍の転移も考慮すべきである．

キーワード：血管肉腫，気胸，薄壁空洞

Angiosarcoma, Pneumothorax, Thin-walled cavitation

はじめに

血管肉腫は比較的まれな腫瘍であるとされている．今回，我々は薄壁空洞型肺転移による再発性気胸をきたした頭皮血管肉腫の1例を経験したので，若干の文献的考察を加えて報告する．

症 例

症例：79歳，女性．

主訴：呼吸困難．

既往歴：特記すべきことなし．

家族歴：兄 食道癌．

現病歴：1992年10月頃より，頭頂部に腫瘤が2個出現．1993年1月より同部位の出血を認めたため近医受診し，同年3月4日，三重大学病院皮膚科紹介入院となった．入院時の頭頂部腫瘤は不整形赤褐色で一部潰瘍化を認めた（Fig. 1）．同部の生検組織所見では真皮中下層を主として，立方状あるいは紡錘形の異型性を伴う内皮細胞の管腔状の増殖を認め膠原線維間の浸潤，管腔内及び間質の出血を認め（Fig. 2 A），さらに腫瘍部は第VIII因子関連抗原陽性であり（Fig. 2 B），頭皮血管肉腫と診断された．全身精査にて転移巣は認めず，3月15日より Interleukin 2（以下 IL-2）による全身および局所免疫療法と総照射量 60 Gy の放射線照射が施行され腫瘍は消失した．IL-2 の投与方法は当初 70 万単位の局注を週 5 回，4月19日よりは 35 万単位の局注と 35 万単位の点滴静注とし，総量 4,095 万単位を投与した．以後外来経



Fig. 1 Photograph of the skin tumors showing irregular erythematous plaques in the temporal region. Partial ulceration of the tumors can be observed.

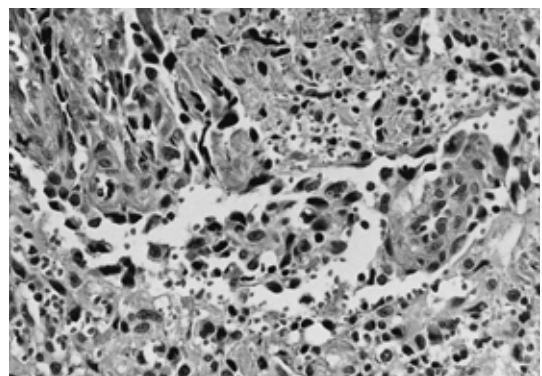


Fig. 2 A Micrograph of the tumor tissue showing vascular channels bordered by atypical cells. (H.E. x 400)

過観察されていたが，10月22日には胸部 XP 上，右下肺野の空洞性病変に同側肺尖部に気胸を認めた（Fig. 3）．また，胸部 CT 上，気胸の他，右肺 S4 に径 9 mm，S⁸

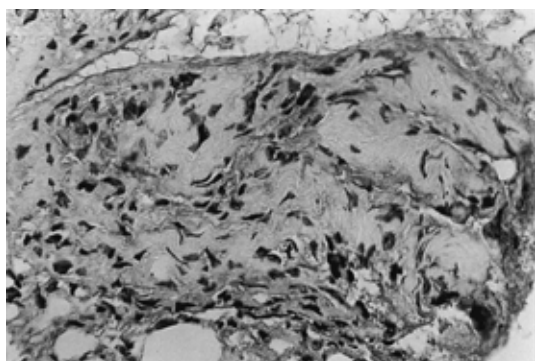


Fig. 2 B Immunostaining of the tumor tissue was positive for factor VIII-related antigen. (ABC method x 400)



Fig. 3 chest radiograph showing pneumothorax and cavitation in the right lower pulmonary fields.

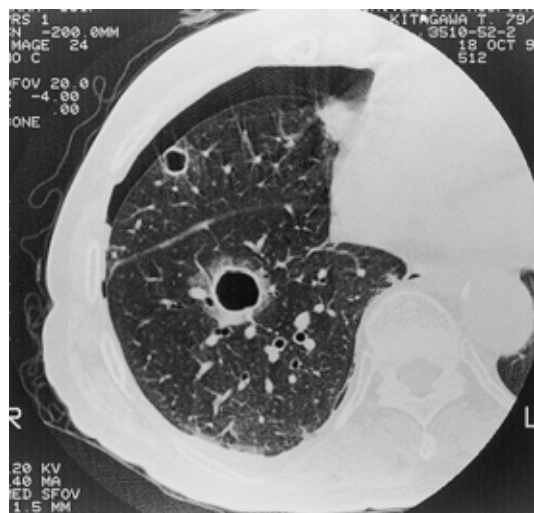


Fig. 4 CT scan of the chest showing pneumothorax and multiple thin-walled cavitory lesions in the right lung.



Fig. 5 Chest radiograph showing pneumothorax and massive effusion in the right hemithorax on readmission.

に径 18 mm の薄壁空洞形成性の腫瘍影を認めた。また下肺中心に数ミリ大の空洞を伴う腫瘍影を数個認めた。また、縦隔に接した腫瘍も認めた (Fig. 4)。いずれも同 7 月の CT では認めなかった病変であり頭皮血管肉腫の転移と考えられた。気胸は安静のみにて軽快した。12 月に再び気胸を認め、国立津病院内科に再入院となった。再入院時現症：身長 150 cm、体重 39 kg、体温 36.4℃、血圧 172/62 mmHg、貧血・黄疸なし。表在リンパ節触知せず。

再入院時検査所見および入院後経過：血液検査では好酸球 $670/\text{mm}^3$ と増加、赤沈 50 mm/1 hr と亢進している以外は特に異常を認めなかった。入院時胸部 XP 所見では右側胸水と気胸を認めた (Fig. 5)。胸腔ドレナージにより改善を認めたが、右下肺野の空洞性病変は以前と比べ増大していた (Fig. 6)。胸水は淡血性であり細胞診

では結合性の少ない atypical cell をみとめクラス IV であった。また、この頃より頭頂部腫瘍の再発を認めている。自宅療養希望にて退院され、近医にて経過観察されていたが平成 7 年 2 月 18 日呼吸不全にて死亡した。

考 察

頭皮血管肉腫は、皮膚悪性間葉系腫瘍のひとつで全肉腫の約 1% を占める¹⁾、比較のまれな疾患である。好発年齢は 70 歳以上で、やや男性に多く、予後不良であり、多くは 2 年以内に死亡する。症例の約半数に半年以内の外傷の既往がある²⁾。

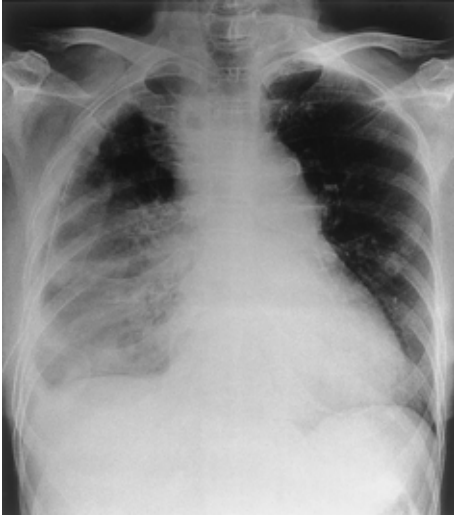


Fig. 6 Increased size of the cavitary lesions was visible after drainage.

一般に空洞型の転移性肺腫瘍は比較的稀である。Wright によると³⁾、空洞型の転移性肺腫瘍 93 例中 10 例は肉腫であった。また、肺転移により気胸をきたした 51 例中、肉腫は 39 例で、血管肉腫は 2 例であった。

血管肉腫に関しては、Kitagawa らによると、剖検 95 例中、発生部位では頭皮が 33 例で最も多く、頭皮群、非頭皮群に分けると、肺転移はそれぞれ 79%、61% と多かった。しかし、頭皮群の 11% に気胸の合併を認める一方、非頭皮群には認められなかった。また、大野らは⁵⁾、頭皮群の 69% に肺転移を認め、その 80% に気胸または血気胸の合併を認めたとしている。本例の様な、頭皮血管肉腫は肺転移をきたしやすく、気胸を合併しやすいといえる。

転移性肺癌が薄壁空洞を来す機序として、腫瘍の中心性壊死、既存の嚢胞性病変への進展、腫瘍の自己融解等が考えられている^{6,7)}。

血管肉腫が薄壁空洞を形成する機序として、大野ら⁵⁾は管腔形成の強い腫瘍による気管支浸潤により、破壊された細気管支を通過した空気が腫瘍内にトラップされるチェックバルブ機構を推測した。笠松ら⁸⁾は、転移巣の中心性壊死、物質の喀出と空洞内の陽圧化による機序を推測している。

薄壁空洞出現から気胸発症まで 2 週間以内であったとの報告⁷⁾もあり、進行が速く、一度気胸が起こると難治性で、本例の如く、致命的となりうる事が予想される。

胸腔ドレナージにて対処する事が多いが、なかなかコントロールしにくい⁹⁾。OK 432 の投与が有効であった例¹⁰⁾や、内科的に難治性であった気胸に対し、外科的切除が有効であった例¹¹⁾も報告されている。しかしながら、早期発見例であればコントロール可能な例もあり、血管肉腫の既往がある場合は、肺に関して症状がなくとも、画像による定期的な経過観察が必要であると考えられた。

文 献

- 1) 江良幸三, 宮國 均, 中房淳司, 他: 老人頭皮の脈管肉腫の診断と治療. *Skin Cancer* 1993; 8: 224-233.
- 2) 今山修平, 堀 嘉昭: 悪性血管内皮細胞腫. *日本医事新報* 1988; 3357: 12-15.
- 3) Wright FW: Spontaneous Pneumothorax and pulmonary malignant disease: A syndrome sometimes associated with cavitating tumors. *Clin Radiol* 1976; 27: 211-222.
- 4) Kitagawa M, Tanaka I, Takemura T, et al: Angiosarcoma of the scalp: report of two cases with fatal pulmonary complications and a review of Japanese autopsy registry data. *Virchows Arch A* 1987; 412: 83-87.
- 5) 大野喜代志, 中原数也, 北川陽一郎, 他: 頭皮原発悪性血管内皮腫の肺転移により気胸を生じた 1 症例. *日胸外会誌* 1987; 35: 98-101.
- 6) Kader HA, Bolger JJ, Goepel JR: Bilateral pneumothorax secondary to metastatic angiosarcoma of the breast. *Clin Radiol* 1987; 38: 201-202.
- 7) 佐々木満, 加藤宗吉, 佐々木英忠, 他: 薄壁空洞転移に引き続き気胸を来した頭皮 angiosarcoma の 1 症例. *呼吸* 1990; 9(4): 474-478.
- 8) 笠松紀雄, 沢田晶夫, 海野広道, 他: 多発空洞形成性肺転移により死亡した皮膚悪性血管内皮腫の 1 剖検例. *日胸疾会誌* 1988; 26: 190-195.
- 9) 橋本圭司, 長崎二三夫, 金 英治: 多数の薄壁空洞型肺病変を認め両側気胸をきたした頭皮 angiosarcoma の 1 例. *日胸疾会誌* 1993; 31: 534-537.
- 10) 滝沢恒世, 小池輝明, 赤松秀樹: 皮膚血管肉腫肺転移による血気胸に対し OK 432 の胸腔内投与が奏功した 1 例. *日胸疾会誌* 1995; 33: 1334-1337.
- 11) 羽田 均, 小泉 真, 吉田哲憲, 他: 気胸で発見された頭皮血管肉腫肺転移の 1 例. *呼吸* 1997; 16: 1344-1347.

Abstract

Relapsing Pneumothorax Secondary to thin-walled Cavitory Pulmonary
Metastasis from Angiosarcoma of the Scalp

Tetsu Kobayashi, Yasuhiro Ohmoto, Hiroki Yasui, Osamu Hataji,
Masamichi Yoshida, Hiroyasu Kobayashi, EC Gabazza,
Osamu Taguchi and Yukihiro Adachi

The Third Department of Internal Medicine, Mie University School of Medicine,
and the National Tsu Hospital.

A 79-year-old woman was given a diagnosis of scalp angiosarcoma. Treatment with interleukin-2 and radiotherapy achieved a complete response. However, a few months later, the patient presented with multiple thin-walled cavitory metastases in the right lung and pneumothorax. The pneumothorax was successfully treated but soon relapsed. The patient died of respiratory failure at home. Lung metastasis of malignant tumors should be considered one cause of relapsing pneumothorax.