

症 例

肺門リンパ節のみに癌病巣を認めた原発不明扁平上皮癌の1例

金子 和彦 矢満田 健 羽生田正行 宮澤 正久
花岡 孝臣 近藤 竜一 牧内 明子 天野 純

要旨：肺門リンパ節のみに癌病巣を認めた稀な症例を経験した。症例は63歳の男性で胸部X線，CT，MRIにて右肺門に3.5 cm大のリンパ節腫大が認められた。経気管支鏡的穿刺吸引細胞診でも確定診断が得られなかったため，開胸生検を施行したところ低分化扁平上皮癌と診断された。このため右肺摘除術および縦隔リンパ節郭清を施行した。摘出肺をはじめ全身検索を行なったが原発巣と考えられる癌病巣を認めず，T0N1M0扁平上皮癌と考えられた。本症例は術後6年4カ月経過した現在，再発なく健在である。原発不明癌は一般的にその予後は不良とされているが，T0肺癌と考えられる症例では病変リンパ節の摘出および縦隔郭清が十分に施行されれば，比較的良好な予後が期待できる症例もあると考えられる。

キーワード：原発不明癌，肺門リンパ節転移，T0N1M0肺癌，扁平上皮癌

Cancer of unknown primary site, Hilar lymph node metastasis, T0N1M0 lung cancer, Squamous cell carcinoma

はじめに

肺門のリンパ節のみに癌病巣を認め原発巣が不明である症例に対し，病巣の摘出および右肺摘除術を施行し，術後6年4カ月経過した現在，再発や転移および新たな癌病巣の出現を認めず生存中の1例を経験した。本症例は稀なT0N1M0肺癌と考えられるので，文献的考察を加え報告する。

症 例

患者：63歳，男性，自動車部品製造業。

主訴：咳嗽，喀痰。

既往歴：53歳時肺炎。喫煙歴なし。

現病歴：平成4年2月頃より咳嗽，喀痰が出現し，次第に増強するため7月近医を受診した。上気道炎として投薬をうけたが軽快しないため胸部X線検査が施行され，右肺門部に異常陰影を指摘された。気管支鏡検査が2回施行されたが確定診断がつかず，精査加療目的で当科に紹介された。

現症：身長169 cm，体重65 kg，体温36.4℃，脈拍90回/分，血圧148/100 mmHg。肺音に異常なく，表在リンパ節は触知しなかった。

検査所見：一般血液生化学検査に異常は認めなかった。腫瘍マーカー(AFP, CEA, CA 19-9, SCC, NSE)

〒390 8621 長野県松本市旭3 1 1

信州大学第2外科

(受付日平成11年5月31日)

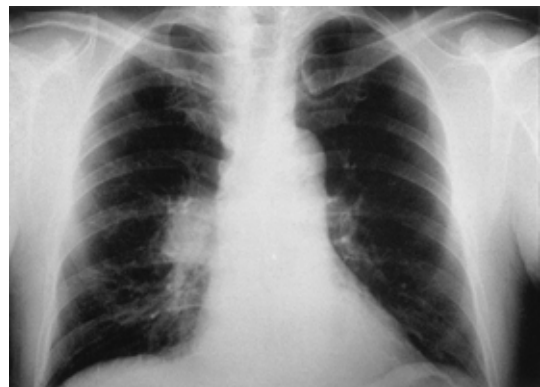


Fig. 1 Chest X-ray film shows a well-defined mass shadow in the right hilum.

はいずれも正常範囲であった。喀痰細胞診も陰性であった。

画像所見：胸部X線検査(Fig. 1)では右肺門部に3.5×3.0 cm大の境界比較的明瞭な腫瘤影が認められた。肺野には異常陰影は認められなかった。胸部CT検査(Fig. 2)では右肺動脈に接して腫瘤陰影が認められた。肺野には腫瘍陰影や2次性変化を認めなかった。MRI検査(Fig. 3)でも腫瘤は右肺動脈上幹をとりまいており中幹にも接し，浸潤が疑われた。気管支鏡検査では，右上中間幹分岐部は開大していたが粘膜面には異常は認められなかった。同部より施行した穿刺吸引細胞診ではclass IIIaで，裸核状のやや異型な細胞が認められたが悪性の診断は得られなかった。Gaシンチグラムでは右

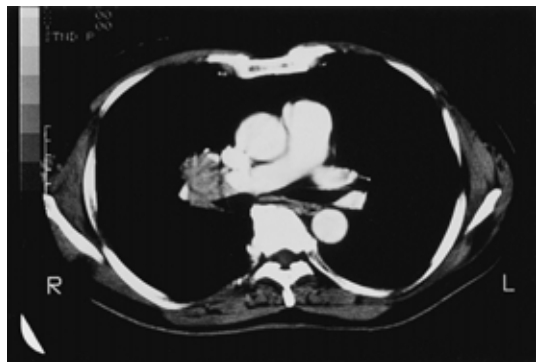


Fig. 2 Chest CT scan demonstrating a mass shadow adjacent to the right pulmonary artery.



Fig. 3 Chest MRI. Tumor surrounds truncus superior and area adjacent to truncus intermedius.

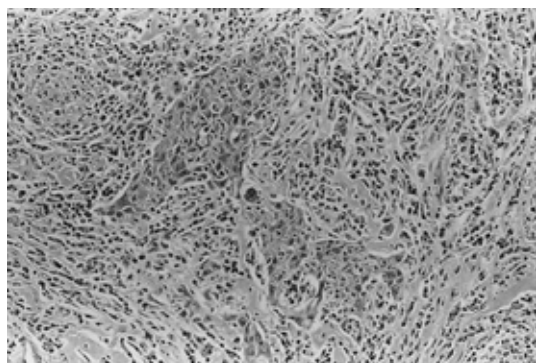


Fig. 4 Light microscopic appearance of the tumor: a poorly differentiated squamous cell carcinoma. (H.E. stain, 200 ×)

肺門のみに異常集積が認められ、また TI-SPECT では、右肺門部の腫瘍には early および delayed image とも著明な集積が認められ、悪性腫瘍が疑われた。他の部位には異常集積は認められなかった。以上の結果より、右肺癌・肺門リンパ節転移または悪性リンパ腫を疑い、1992年11月26日手術を施行した。

手術所見：右後側方切開，第5肋間にて開胸．胸膜播



Fig. 5 Histologic findings (H.E. stain, 20 ×) No carcinoma cells were seen in the right main bronchus or lung adjacent to the tumor.

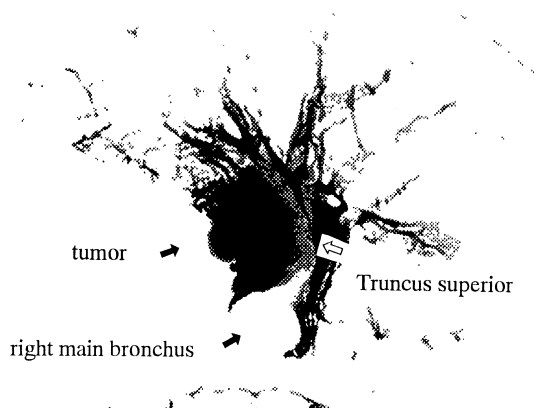


Fig. 6 Soft X-ray film of the resected right lung and # 11 lymph node.

種，胸水は認めなかった。上下葉間より肺門部の腫瘍を剥離，観察したところ # 11s リンパ節の著しい腫大が認められた。悪性腫瘍が疑われたため腫大リンパ節の一部を切除し術中迅速診断に提出したが，石灰化を認めるのみで悪性所見を認めないとの報告であったため，そのまま閉胸した。しかし術後の永久標本による病理学的検査では未分化癌と診断されたため，同年12月7日再手術を施行した。リンパ節は右主気管支前壁側を半周以上囲む形で強固に癒着しており，上幹・中幹肺動脈への癒着

も著しく、剥離は困難と判断された。このため根治性を考慮し、右肺摘除術およびR2aの縦隔郭清を行なった。術後経過は良好で補助化学療法としてcarboplatin 500 mgを投与した後第22病日退院した。

病理組織学的所見：摘出されたリンパ節には低分化扁平上皮癌が認められたが（Fig. 4）、肺および気管支には癌病巣を認めなかった（Fig. 5）。

摘出標本の検索：摘出標本を膨張固定後、CTと同一断面にて切り出し、軟X線撮影を行ない、残存病変を検索した（Fig. 6）。しかし腫大した#11sリンパ節が右主気管支を半周以上囲む形で肺門部に存在する以外、他の病変は認められなかった。

全身検索：術後、頭頸部、食道および腹部等の検索を行なったが、他に新たな癌病巣は認められなかった。術後6年4カ月経過した現在、再発なく健在である。

考 察

原発不明癌の頻度はMuir¹⁾の100万例の癌患者の検討によると約2%であるが、リンパ節転移で発見されるものが30~40%^{2,3)}と多く、その大半は頸部リンパ節転移である。縦隔リンパ節転移で発見されることは比較的稀で、Holmesら⁴⁾の報告では686例の原発不明癌のうち9例認められたのみである。

術前原発不明肺門リンパ節転移と診断された症例の大部分は、画像上または気管支鏡的に病巣の指摘が不可能であっても最終的に病巣が証明されたTx肺癌症例がほとんどであり、本症例のように肺門縦隔リンパ節のみに癌病巣を認め、摘出標本および全身の検索にても原発巣が発見できない症例は比較的稀である。このような症例をT0肺癌と診断するには、他臓器からの転移やリンパ節原発の可能性などが厳密に鑑別されなければならない。

自験例の組織学的診断は低分化扁平上皮癌であり、肺以外の原発巣としては、食道、胸腺および耳鼻科領域などが考えられたが、術前および術後の精査ではこれらの臓器に癌病巣は発見されなかった。また肺外臓器を原発巣とする癌の縦隔へのリンパ行性転移は肺を介することが多く、病変発見時には肺転移を認める症例が多いとされる。肺を経由せず直接縦隔リンパ節に転移する経路としては、1)腹部大動脈周囲リンパ節から横隔膜リンパ節を経由するもの、2)後腹膜リンパ節から胸管を通じて逆行する経路、3)頸部リンパ節からの逆行性経路が推定されている⁵⁾。縦隔外の原発巣が判明した例では腎癌⁶⁾、肝細胞癌⁷⁾などの報告があるが、自験例では腹部臓器にも異常は認められなかった。

リンパ節原発、すなわち肺門リンパ節に迷入した異所性上皮組織が癌化した可能性も否定できない。しかしこ

の場合良性上皮組織がリンパ節内に残存すると言われていたが、殆どの場合上皮成分の遺残を確認できないためその証明は困難である⁸⁾。自験例でも病理所見上迷入上皮の成分は見い出せなかった。また自験例では転移リンパ節が肺門のみであり、術後6年経過しても他に新たな病変が認められないことより、T0肺癌の肺門リンパ節転移の可能性が高いと考えられた。

T0肺癌と考えられる症例は本邦では自験例も含めてこれまで23例⁸⁾⁻¹⁷⁾（Table 1）の報告が認められる。6例がT0肺癌として、他の17例は原発不明癌として報告されている。これら23例を臨床的に検討すると、年齢は37~74歳平均59歳、男性18例女性5例と中高年の男性に多く、喫煙係数の平均は900以上であった。23例中9例は肺門のみに、9例は縦隔のみに病変が認められ、肺門および縦隔リンパ節ともに病変が認められた症例は5例であった。また左側6例に対し右側が17例と多かった。組織学的には腺癌（8例）小細胞癌（7例）が多く、大細胞癌が4例、腺扁平上皮癌が1例で、扁平上皮癌の報告は3例あり、自験例以外の2例は縦隔リンパ節に癌病巣を認めており、肺門リンパ節転移の扁平上皮癌の報告は自験例が初めてと考えられる。手術は、リンパ節の摘出のみ施行した症例が8例、リンパ節郭清を追加したもの3例、肺切除と郭清を施行したものが9例、生検のみが3例であった。肺切除を施行した9例ではいずれも切除肺に原発巣は証明されておらず、肺切除を施行しなかった14例と比べ、予後に差を認めなかった。我々の症例では右肺を温存してのリンパ節摘出が困難であったことより、やむなくリンパ節郭清とともに右肺摘除術を施行したが、画像診断が進んだ今日においては、術前診断で原発不明時には、手術は病変リンパ節の摘出およびリンパ節郭清がしっかり行なわれれば、必ずしも肺切除の必要はないと考えられた⁸⁾。化学療法は14例に行なわれ、診断時に遠隔転移のあった1例を除く13例中再発をきたした症例は2例であり、化学療法を施行しなかった9例中5例は原発不明のまま再発していることから、化学療法は再発予防に寄与している可能性がある³⁾と考えられる。

予後についてみると全死亡例は6例で、このうち癌死と思われるものが3例（No. 7, 9, 14）、担癌他病死（肺炎）が2例（No. 6, 13）、肺摘除術後5カ月での他病死（肺炎）が1例（No. 18）であった。担癌生存は3例あったが観察期間が6~12カ月と短かった。14例が4カ月から最長116カ月無再発生存中であり、平均生存期間は16カ月、5年生存率は49.6%と、一般的な原発不明癌の予後（平均生存期間2~7カ月、5年生存率2~6%^{2,3,18)}）と比べ明らかに良好であった。このため真崎ら⁹⁾は、縦隔は発生学的に鰓球原性臓器があり、胸腺腫や

Table 1 Reported cases of T0 lung cancer in Japan

No.	Reference	Age	Sex	B.I.	Location	LN Size(cm)	TNM stage	Histology	Treatment	Outcome	Comment
1	Suemasu	65	M	1,800	IHL	2.6 × 2.1 × 1.4	T0N1M0	small cell ca(oat cell)	R + L + MLND + CT	10M(DF)	
2	Iwabuchi	63	M	900	rHL(#11)	4.0 × 3.5	T0N1M0	P/D adenoca(or large)	R	26M(DF)	
3	Nanashima	59	F	?	rML	5 × 6	T0N2M0	adenosquamous	R + RT	18M(DF)	
4	Nanashima	62	F	?	rML	3 × 2	T0N2M0	adenoca(sig.)	R + CT	4M(DF)	
5	Masaki	44	M	620	rML	6.8 × 5.5 × 4.0	T0N2M0	P/D adenoca.	R + CT + RT	116M(DF)	
6	Katsura	74	M	3,000	rHK + rML	not resected	T0N2M1(brain)	small cell ca(oat cell)	biopsy + CT + RT	11M died	
7	Morita	56	M	520	rML	4.0 × 3.0 × 2.7	T0N2M0	M/D squamous cell ca.	R + L + MLND	27M died	rec(+)
8	Kasashima	41	M	?	rML	8 × 4.5 × 2.7	T0N2M0	large cell ca(giant.)	R + CT	47M(DF)	
9	Isobe	45	M	750	rHL(#11)	2.5 × 3.3	T0N1M0	small cell ca.	R + CT	21M died	16M brain meta.
10	Nakamura	51	M	750	IHL(#11)	2.8 × 1.5 × 1.5	T0N1M0	small cell ca.	R + HLND + CT	24M(DF)	
11	Sawada	67	F	0	rML	3	T0N2M0	P/D adenoca.	R + MLND + CT	23M(DF)	
12	Sakao	53	M	?	rHL + rML	5 × 4 , 10 × 5	T0N2M0	P/D adenoca.	R + L + MLND + CT	13M(DF)	
13	Morita	74	M	1,060	IHL	7.0 × 5.8 × 3.5	T0N1M0	adenoca.	R	10M died	rtS2, S8 PM appeared
14	Kohdono	67	M	> 400	IMH	6.5 × 6.0 × 3.5	T0N2M0	large cell ca.	R + RT	9M died	multiple meta.
15	Kohdono	58	F	> 400	IML	5.0 × 4.0 × 3.5	T0N2M0	large cell ca.	R + L + MLND + RT	6M(rec)	rec. in mediastinum
16	Kohdono	56	M	> 400	rHL	2.4 × 1.4 × 1.0	T0N1M0	small cell ca.	R + L + LND	16M(DF)	
17	Kuroya	37	M	?	rHL	3.5 × 3.2 × 3.0	T0N2M0	adenoca.	R + L + MLND + CT	6M(rec)	#3LN meta(+)
18	Kita	61	M	?	rHL + rML	7 × 5 × 4	T0N2M0	P/D adenoca.	R + L + MLND + CT	23M died	18M primary appeared
19	Yodonawa	65	F	?	rML(#3)	4.7 × 2.8 × 2.6	T0N2M0	squamous cell ca.	R + MLND + RT	12M(rec)	# 2 # 7LN meta(+)
20	Takemoto	65	M	1,800	rHL + rML	not resected	T0N2M0	small cell ca.	biopsy + CT + RT	11M(DF)	Eaton-Lambert synd.
21	Wataya	52	M	1,400	IHL + IML	not resected	T0N2M0	small cell ca.	biopsy + CT + RT	11M(DF)	Eaton-Lambert synd.
22	Kawasaki	69	M	960	rHL	4.2 × 3.0 × 2.4	T0N1M0	large cell ca.	R + L + MLND	20M(DF)	
23	Kaneko	63	M	0	rHL(#11)	3.4 × 2.8 × 3.5	T0N1M0	squamous cell ca.	R + P + MLND + CT	76M(DF)	

Abbreviations : B.I. ; Bricksman Index, LN. ; Lymph Node, rHL. ; right Hilar Lymph node, IHL. ; left Hilar Lymph node, rML ; right Mediastinal Lymph node, IML ; left Mediastinal Lymph node, M/D ; Moderately Differentiated, P/D ; Poorly Differentiated, R ; resection, L ; lobectomy, P ; pneumonectomy, HLND ; Hilar LN dissection, MLND ; Mediastinal LN dissection, CT ; Chemotherapy, RT ; Radiotherapy, M ; month, DF ; disease free, rec ; recurrence, PM ; pulmonary metastasis, meta ; metastasis

Warthin 腫瘍のように上皮とリンパ組織が一体となった腫瘍が多く発生しており，原発巣不明の肺門縦隔リンパ節癌を転移ではなく，リンパ節に癌が原発したと考え「原発性肺門縦隔リンパ節癌」という腫瘍と捉え直すべきであると提唱しているが，今後の症例の蓄積と検討が必要と思われる。

文 献

- 1) Muir C: Cancer of Unknown Primary Site. *Cancer*, 1995; 75: 1 Suppl, 353-358.
- 2) Didolkar MS, Fanous N, Elias EG, et al: Metastatic Carcinomas from Occult Primary Tumors. *Ann Surg*, 1977; 186: 625-630.
- 3) Greager JA, Wood D, Das Gupta TK: Metastatic cancer from an undetermined primary site. *J Surg Oncol*, 1983; 23: 73-76.
- 4) Holmes FF, Fouts TL: Metastatic cancer of unknown primary site. *Cancer*, 1970; 26: 816-820.
- 5) 加藤 収, 松島敏晴, 安達倫文, 他: 胸郭外悪性腫瘍の縦隔・肺門リンパ節転移について. *川崎医学会誌* 1984; 10: 27-32.
- 6) 宮元秀昭, 林田良三, 早川和志, 他: 腎癌縦隔リンパ節転移の切除経験. *日胸* 1990; 49: 670-675.
- 7) 西浦和男, 大村健二, 清水淳三, 他: 孤立性に縦隔転移を認めた肝細胞癌の1例. *日消外会誌* 1991; 24: 1071-1075.
- 8) 森田祐二, 吉田和浩, 原田尚雄, 他: 摘出術後も血清CEA・CA 19-9値の持続上昇を認めた原発巣不明肺門リンパ節内腺癌の1例. *肺癌* 1995; 35: 209-214.
- 9) 真崎義隆, 五味淵誠, 田中茂男, 他: 原発巣不明肺門縦隔リンパ節癌の本邦報告例の検討. *胸外* 1997; 50: 743-747.
- 10) 淀縄 聡, 三井清文, 赤萩栄一, 他: 原発不明扁平上皮癌縦隔リンパ節転移の1例. *日胸疾会誌* 1996; 34: 1364-68.
- 11) Eaton-Lambert 症候群を合併した T0N2M0 肺小細胞癌の1例. *日胸* 1996; 55: 374-377.
- 12) 綿屋 洋, 緒方賢一, 諸岡三之, 他: Lambert-Eaton myasthenic syndrome を合併した T0N2M0 肺小細胞癌の1例. *日呼吸会誌* 1998; 36: 389-93.
- 13) Kawasaki H, Yosida J, Yokose T, et al: Primary Unknown Cancer in Pulmonary Hilar Lymph Node with Spontaneous Transient Regression: Report of a case. *Jpn J Clin Oncol* 1998; 28(6): 405-409.
- 14) Kohdono S, Ishida T, Fukuyama Y, et al: Lymph Node Cancer of the Mediastinal or Hilar Region With an Unknown Primary Site. *J Surg Oncol* 1995; 58: 196-200.
- 15) 磯辺 真, 山内祥弘, 枝国節夫, 他: 肺門リンパ節切除により発見された原発不明小細胞癌の1例. *肺癌* 1993; 33: 269-273.
- 16) 桂 幸一, 上部泰秀, 北村英之, 他: T0N2M1の肺小細胞癌と思われる1例. *肺癌* 1992; 32: 1059-1064.
- 17) 北 雄介, 近藤大造: サルコイドーシス合併, 原発不明縦隔リンパ節癌切除後18カ月目に発見された肺癌の1例. *日呼外会誌* 1996; 10: 488-493.
- 18) Hamilton CS, Langland AO: Adenocarcinoma of unknown primary site. A clinical and cost benefit analysis. *Int J Radiation Oncol Biol Phys*, 1987; 13: 1497-1503.

Abstract

Metastatic Squamous Cell Carcinoma of Hilar Lymph Node with Unknown Primary Site

Kazuhiko Kaneko, Takeshi Yamanda, Masayuki Han ūda, Masahisa Miyazawa,
Takaomi Hanaoka, Ryoichi Kondo, Akiko Makiuchi and Jun Amano

Second Department of Surgery, Shinshuu University School of Medicine

An abnormal shadow was observed on chest X-ray films of a 63-year-old man presenting with cough and sputum. Chest computed tomographic scans disclosed enlargement of the right hilar lymph nodes, but no obvious primary lesion was found in the lung field. Bronchoscopic examination revealed a slightly widened second carina, but no malignant cells were detected by transbronchial aspiration cytology. At surgery, a tumor was found between the truncus superior and the truncus intermedius. The pathologic diagnosis was a metastatic lymph node of poorly differentiated squamous cell carcinoma. Because the tumor severely adhered to the bronchus and pulmonary arteries, we performed a right pneumonectomy with mediastinal node dissection. Pre- and postoperative examinations did not detect the primary lesion, and no recurrence had been observed 76 months after surgery. This was thought to be a very rare case of T 0 N 1 M 0 lung cancer. In general, the prognosis is poor for patients with metastatic carcinoma of unknown primary site. However, patients with T 0 lung cancer, as in this case, might enjoy a better prognosis if complete resection and dissection of metastatic lymph nodes are performed.