

●症 例

肺癌精査中に発見された気管支原発粘液腫の1例

今立 博子^a 平野 勝治^{a,b} 岸川 孝之^{a,c}
 久富 恵子^a 佐々木英祐^a 木下 明敏^{a,d}

要旨：症例は56歳男性。頸部腫瘍の精査目的にて来院。その際、頸胸部CTにて右上葉S¹に胸膜陥入像を伴う結節影を認め長崎医療センター呼吸器内科紹介となった。気管支鏡検査にて右B³b入口部に血管の怒張を伴う、表面平滑な淡紅色の腫瘍を認めた。右B¹bからの生検にて腺癌の診断、また右B³b入口部の腫瘍の生検にて粘液腫の診断となった。その後、右上葉切除術が施行されpT2aN1M0 Stage IIAの診断となり、術後補助化学療法を行った。粘液腫は成人に生じる比較的まれな腫瘍で、大腿、肩などの筋肉内、大関節近傍を好発部位とする。気管支原発の粘液腫はきわめてまれであるうえ、肺腺癌に合併した症例は我々が調べた限り過去の文献では認められなかった。

キーワード：気管支内、粘液腫、腺癌

Endobronchial, Myxoma, Adenocarcinoma

緒 言

粘液腫は、成熟胎児の臍帯を形成する粘液組織に近似した組織形態と生化学的性状を有する、良性の軟部腫瘍である。本疾患は一般に大腿、肩などの骨格筋内や大関節近傍に発生することが多く、気管支内に認めることはきわめてまれである。

今回、我々は右上葉の肺腺癌精査中に発見された気管支原発粘液腫の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

患者：56歳、男性。

主訴：頸部腫瘍。

既往歴：慢性肝炎。

喫煙歴：20本/日、30年間。

現病歴：2006年12月に左頸部に腫瘍を触知し、精査を希望し、長崎医療センター内科を受診した。その際の頸胸部CTにて右上葉に胸膜陥入像を伴う結節影を認め

Table 1 Laboratory data on initial examination

Hematology		Biochemistry		Serology	
WBC	6,200/ μ l	T-bil	1.4 mg/dl	CRP	<0.03 mg/dl
Neut	59.70%	AST	21 IU/L	CEA	10.1 ng/ml
Lym	35.40%	ALT	16 IU/L	SLX	34.5 U/ml
Mono	3.60%	LDH	154 IU/L	ProGRP	21.7 pg/ml
Eo	1.10%	TP	7.1 g/dl	CYFRA	1.8 ng/ml
Ba	0.20%	Alb	4.2 g/dl		
RBC	486 \times 10 ⁴ / μ l	BUN	22 mg/dl		
Hb	14.4 g/dl	Cre	0.7 mg/dl		
Ht	42.10%	Na	139 mEq/L		
PLT	20.7 \times 10 ⁴ / μ l	K	3.8 mEq/L		
		Cl	105 mEq/L		

たことから、呼吸器内科へ紹介となった。

初診時理学的所見：身長164cm、体重64.2kg、体温36.6°C、血圧136/81 mmHg、脈拍79/min、SpO₂ 97% (room air)。眼球結膜黄疸なし。眼瞼結膜貧血なし。胸部聴診上は心音、呼吸音とも正常。腹部に異常所見なし。表在リンパ節を触知せず。甲状腺左葉に約3cm大の腫瘍を触知した。

血液検査所見 (Table 1)：腫瘍マーカーCEAが10.1 ng/mlと高値を示す以外に血液学的検査、生化学検査では明らかな異常を認めなかった。

胸部X線写真 (Fig. 1)：右上肺野に縦隔に接するような境界明瞭な直径2cm大の結節影を認めた。

胸部CT：右上葉S¹に境界明瞭、辺縁整で分葉状の直径2cm大の結節影を認めた (Fig. 2A)。右B³入口部には、気管支内に突出する結節影を認めた (Fig. 2B)。縦隔・

連絡先：今立 博子

〒856-8562 長崎県大村市久原 2-1001-1

^a独立行政法人国立病院機構長崎医療センター呼吸器内科

^b長崎大学医学部附属病院第二内科

^c上五島病院内科

^d長崎県島原病院内科

(E-mail: imadachih@nmc.hosp.go.jp)

(Received 21 Jun 2011/Accepted 27 Dec 2011)



Fig. 1 Chest radiography on the first medical examination shows a nodular shadow in the right upper lung field.

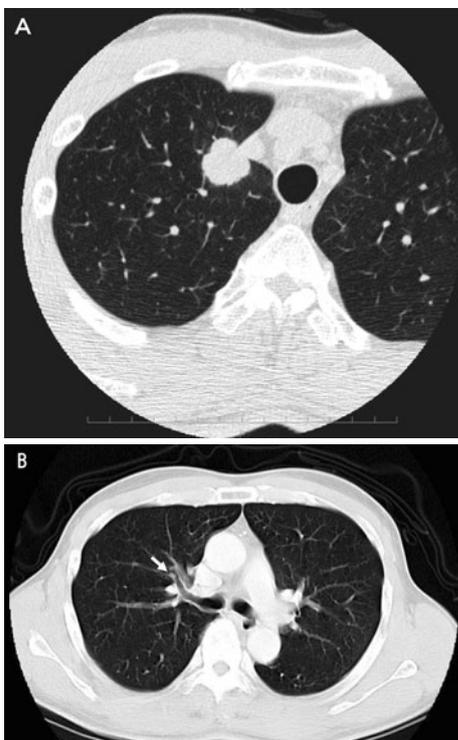


Fig. 2 (A) Serial high resolution CT (HRCT) on the first medical examination demonstrates a nodular opacity in S¹ of the right lung. (B) Chest CT shows a small nodule in the right upper bronchus.

肺門リンパ節腫大は認めなかった。

気管支鏡所見：右 B³b から肺野腫瘍に対して経気管支的生検を行い腺癌の診断を得た。右 B³b 入口部に表面平滑で淡紅色の軽度血管増生を伴う垂有茎性のポリープ様病変を認め (Fig. 3)、同部位からの生検結果は粘液腫様

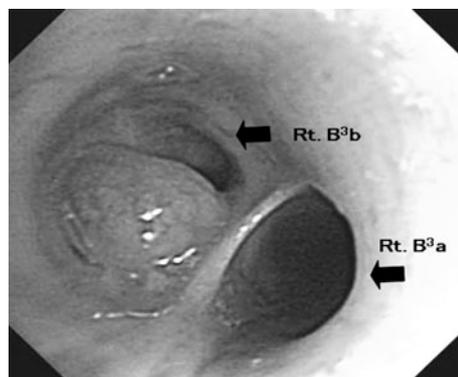


Fig. 3 On bronchoscopy, a smooth-surfaced polypoid lesion was identified at the orifice of the right B³b.

病変との診断であった。

病理所見：全身検索の結果から臨床病期は clinical T1aN0M0, Stage IA と判断し、2007年2月に右上葉切除術を施行した。切除標本 (Fig. 4A) では S¹ に 2.0×3.2 cm 大の灰白色で比較的境界明瞭な腫瘍を認めた。同部位の H-E 染色 (Fig. 4B) では異型細胞は充実性胞巣状で一部小腺腔形成性を呈した。さらに免疫組織学的検索では TTF-1 陽性、CK7+/CK20- であり、肺腺癌と診断した。右 B³b 入口部には 5×5 mm 大のポリープを認め、病変は粘膜下まで及び、気管支壁内にとどまっていた (Fig. 5A)。マスト細胞浸潤を散見する粘液様基質を背景に大小不同を伴わない紡錘形細胞の loose な増殖を認め、異型細胞は認めなかった (Fig. 5B)。免疫組織学的検索にて vimentin 陽性、TTF-1, CK7/CK20, Ki67, S-100, SMA, CD34 いずれも陰性であり、以上から気管支原発の粘液腫と診断した。

術後経過：病理所見から肺原発腺癌、郭清したリンパ節 #12 に癌転移がみられ pathological T2aN1M0, Stage IIA と診断した。術後補助化学療法としてシスプラチン (cisplatin : 80 mg/m², day 1) + ビノレルビン (vinorelbine : 25 mg/m², day 1 および day 8) を 4 コース施行した。その後、外来で経過観察していたが、1年後に CEA 値が再上昇したため、胸部 CT を実施した。その結果、縦隔リンパ節、鎖骨上窩リンパ節、腹腔内リンパ節の腫大、FDG-PET-CT では同リンパ節腫大部位での異常集積を認めた。肺癌の再発として、以降再発のたびに化学療法を繰り返している。粘液腫に関しては術後、再発を認めていない。なお、主訴であった甲状腺の腫瘍は、精査の結果、甲状腺腫と診断し、長崎医療センター内分泌代謝科で経過観察している。

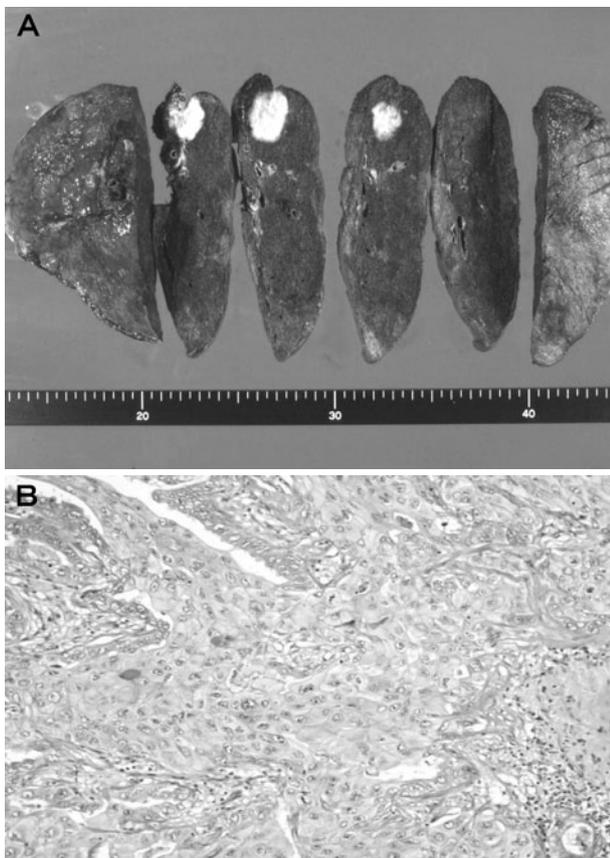


Fig. 4 (A) Cut surface of a right upper lobectomy specimen, showing a well-demarcated and grayish white tumor. (B) Pathological diagnosis of the tumor revealed adenocarcinoma of the lung (H.E. stain).

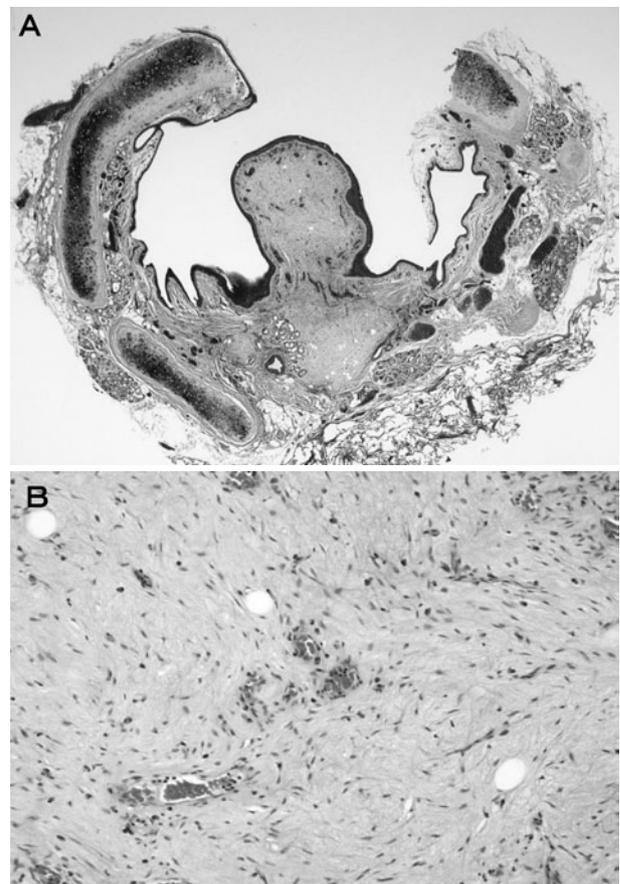


Fig. 5 Histopathological findings of the endobronchial polypoid tumor resection (H.E. stain). (A) A polypoid tumor was identified at the orifice of the right B³b, which invaded the submucosa of the bronchus (low-power view). (B) The tumor comprised loose spindle cells embedded in a myxoid matrix (high-power view).

考 察

本症例は肺癌精査中に発見された気管支原発粘液腫の1例である。粘液腫は比較のまれな良性軟部腫瘍であり、組織学的には紡錘形細胞または星状細胞と豊富な粘液様基質からなり、間質血管に乏しいことを特徴としている¹⁾。発生について線維性腫瘍の著しい粘液変性を示したものととの考えがあるが、いまだ母細胞が確定しておらずWHO分類では「分化未定腫瘍群」に属する²⁾。中高年女性に多く発症し、大腿、肩などの筋肉内や大関節近傍を好発部位とするため、筋肉内粘液腫 (intramuscular myxoma) や傍関節性粘液腫 (juxta-articular myxoma) と呼ばれることもある³⁾。診断においては線維腫、過誤腫、脂肪肉腫、横紋筋肉腫、平滑筋腫のほか、膠様腺癌、印環細胞癌などの粘液腫様間質を有する肺原発腫瘍あるいは胆管癌、胃癌といった粘液産生を伴う転移性腫瘍との鑑別が必要になってくる。本症例では免疫染色で間葉系マーカーである vimentin が陽性であるほかは TTF-1 陰性、さらに上皮系マーカーの CK7/CK20、細胞増殖マ-

ーカー Ki67、神経、脂肪細胞マーカーである S-100、平滑筋マーカーである SMA、血管系・間葉系マーカーの CD34 はいずれも陰性であり、以上から気管支原発の粘液腫と診断した。

肺・気管支といった呼吸器領域での粘液腫の発症例はきわめてまれで、我々が検索した範囲では1959年 Littlefieldら⁴⁾の報告以来、7例の報告があるにすぎない^{4)~9)}。さらに我が国においては2005年に松岡ら⁵⁾が報告した1例のみである。これら過去の報告例を Table 2 にまとめた。男性3例、女性4例で、年齢分布は26~70歳と幅広い世代でみられた。肺原発が3例、気管支原発が4例で、腫瘍サイズは1.3~2.5 cmであった。臨床症状は2症例が無症候性であったが、5例が咳嗽、胸痛、喘鳴、呼吸困難感、血痰など何らかの症状を訴えていた。いずれの症例も外科的切除が施されているが、うち1例で局所再発を認め、再手術が行われていた。粘液腫は良性腫

Table 2 Reported case of primary pulmonary myxoma

No.	Sex/age	Site	Size (cm)	Symptoms	Author
1	F/54	right upper lobe	2.5	(—)	Littlefield (1959) ⁵⁾
2	M/26	right lower bronchus	2.5	wheeze, hemoptysis	Abcarian (1973) ⁷⁾
3	M/33	left lower bronchus	1.5	chronic cough	Wang (1984) ⁸⁾
4	F/26	left main bronchus	2.0	chest pain	
5	F/59	trachea	1.8	wheeze, dyspnea, cough	Pollak (1985) ⁹⁾
6	M/69	right upper lobe	1.3	(—)	Matsuoka (2005) ⁶⁾
7	F/70	left upper lobe	1.8	dyspnea	Kalhor (2010) ¹⁰⁾
8	M/56	right upper bronchus	0.5	(—)	present case

瘍であり、発育速度も緩徐で遠隔転移を来すことはない¹⁰⁾。ただし局所浸潤性を示すことがあり、Wangらが報告した33歳男性、左下葉の粘液腫の1切除例では術後4年に局所再発を認めている⁷⁾。特に不完全切除例では局所再発をきたすことがあるため、治療に関しては初回手術時に十分に切除することが望まれている¹¹⁾。本症例も経過観察が必要と思われた。今回の症例のように、肺腺癌に合併した粘液腫の報告例は、我々が調べた範囲内では認められなかった。肺癌と粘液腫の合併が単に偶然であったと考えるのが、より自然と思われる。

今回我々は肺癌精査中に気管支原発粘液腫というまれな症例を経験した。貴重な症例と思われたためその概要を報告した。

本論文の趣旨は第48回日本呼吸器学会学術講演会(神戸市)において発表した。

謝辞：本症例の病理診断に関し、ご協力をいただきました長崎医療センター臨床検査科の伊東正博先生に深謝いたします。

引用文献

- 1) 飯島宗一, 藍澤茂雄, 菊池昌弘, 他. 組織病理アトラス. 東京: 文光堂. 1995; 355.
- 2) 上野万理, 向井万起男. 分化未定腫瘍群について.

病理と臨床 2004; 22 (2): 166-173.

- 3) Kempson RL, Fletcher CD. Tumors of the Soft Tissues. Atlas of Tumor Pathology. 3rd series. Washington, DC: Armed Forces Institute of Pathology. 2001; 420-423.
- 4) Stout AP. Myxomas, the tumor of primitive mesenchyme. Ann Surg 1948; 127: 706-719.
- 5) Littlefield JB, Drash EC. Myxoma of the lung. J Thorac Surg 1959; 37 (6): 745-749.
- 6) Matsuoka H, Takata Y, Maeda S. Primary pulmonary myxoma. Ann Thorac Surg 2005; 79: 329-330.
- 7) Abcarian H, Lee HT. Primary endobronchial myxoma. Ann Thorac Surg 1973; 15: 287-290.
- 8) Wang NS, Morin J. Recurrent endobronchial soft tissue tumors. Chest 1984; 85: 787-791.
- 9) Pollak ER, Naunheim KS, Little AZ. Fibromyxoma of the trachea. Arch Pathol Lab Med 1985; 109: 926-929.
- 10) Kalhor N, Marom EM, Moran CA. Primary myxoma of the lung. Ann Diagn Pathol 2010; 14 (3): 178-181.
- 11) 神楽岡治彦, 新田澄郎. 肺粘液腫. 領域別症候群シリーズ 呼吸器症候群 下巻. 大阪: 日本臨牀社. 1994; 155.

Abstract**A case of primary endobronchial myxoma detected under examination of lung cancer**

Hiroko Imadachi ^a, Katsuji Hirano ^{a,b}, Takayuki Kishikawa ^{a,c}, Keiko Hisatomi ^a,
Eisuke Sasaki ^a and Akitoshi Kinoshita ^{a,d}

^a Department of Respiratory Medicine, National Hospital Organization Nagasaki Medical Center

^b Second Department of Internal Medicine, Nagasaki University Hospital

^c Department of Internal Medicine, Kamigoto Hospital

^d Department of Internal Medicine, Nagasaki Prefecture Shimabara Hospital

A 56-year-old man was coincidentally found to have a nodule in S¹ of the right lung on chest computed tomography. On bronchoscopy, a smooth-surfaced polypoid lesion was identified at the orifice of the right B³b. Histopathological findings of transbronchial lung biopsy (TBLB) from right B¹b indicated adenocarcinoma, and biopsy of the polypoid tumor indicated myxoma. A right upper lobectomy was therefore performed. Postoperatively, we diagnosed adenocarcinoma of the lung (pathological T2aN1M0, Stage IIA), and the patient received adjuvant chemotherapy. Myxoma is relatively uncommon and usually occurs in muscle or juxta-articularly. Endobronchial myxoma is exceptionally rare. To the best of our knowledge, this represents the first report of primary endobronchial myxoma accompanying adenocarcinoma of the lung.