

●症 例

肺癌と鑑別を要した placental transmogrification の1例

塚尾 仁一 堀江 秀行 堺 隆大
山口 航 中屋 順哉 小嶋 徹

要旨：Placental transmogrification of the lung (PTL) は非常に稀な肺の嚢胞性病変として、現在までに世界で38症例が報告されている。今回、肺癌との鑑別を要し手術標本で診断を確定したPTL症例を経験したので報告する。画像検査で嚢胞性病変と脂肪が豊富な結節を認めた場合にはPTLを積極的に疑うべきと考えられた。

キーワード：嚢胞性肺気腫, Placental transmogrification

Bullous emphysema

緒 言

Placental transmogrification of the lung (PTL) は非常に稀な肺の嚢胞性病変として、現在までに世界で38症例が報告されている¹⁾²⁾。今回、肺癌との鑑別を要し手術標本で診断を確定したPTL症例を経験したので報告する。症例は66歳男性で胸部異常陰影の精査目的に当院へ紹介となった。胸部CTでは左肺尖部に最大径3.5cmの腫瘤影を認め、最終的に胸腔鏡補助下左上葉部分切除術で診断に至った。予後良好な疾患であるが、今後の症例蓄積のため重要な疾患と考えられたため報告する。

症 例

患者：66歳，男性。

主訴：胸部異常陰影。

既往歴：特記事項なし。

服薬歴：なし。

嗜好歴：喫煙20本/日×50年間，飲酒なし。

家族歴：特記事項なし。

現病歴：20XX年5月17日の肺癌検診で左上肺野異常陰影を指摘され，7月4日に紹介医を受診した。胸部CTで左上葉に腫瘤影を認め，精査加療目的に当科へ紹介となり，気管支鏡検査目的に7月13日入院となった。

初診時身体所見：身長175cm，体重67kg，血圧118/65mmHg，脈拍68回/分・整，経皮的動脈血酸素飽

和度 (SpO₂) 98% (室内気)，体温36.2℃，表在リンパ節触知せず，肺野聴診異常なし，腹部は平坦・軟で圧痛なし，皮疹なし。

入院時検査所見：採血結果ではCEA 4.5ng/mL (基準値：5.0ng/mL以下)，NSE 11.6ng/mL (基準値：15.0ng/mL以下)，SLX 26.0U/mL (基準値：38.0U/mL以下)，SCC 1.5ng/mL (基準値：1.5ng/mL以下)，CYFRA₂₁₋₁ ≤ 1.0ng/mL (基準値：2.2ng/mL以下)，ProGRP 40.4pg/mL (基準値：81.0pg/mL未満)，カンジダ抗原陰性，β-D-グルカン < 5.0pg/mL，クリプトコッカス・ネオフォルマン抗原陰性，アスペルギルス抗原陰性であった。

胸部X線写真 (Fig. 1)：左肺尖部縦隔側に，辺縁不明瞭で内部に含気のある約2.5cmの結節影を認めた。



Fig. 1 Chest X-ray finding on admission. It shows an unclear marginal nodule (25 × 25 mm) in left upper lung field.

連絡先：塚尾 仁一

〒910-8526 福井県福井市四ツ井2-8-1

福井県立病院呼吸器内科

(E-mail: hitokazu.tsukao@gmail.com)

(Received 10 Jul 2018/Accepted 16 Aug 2018)

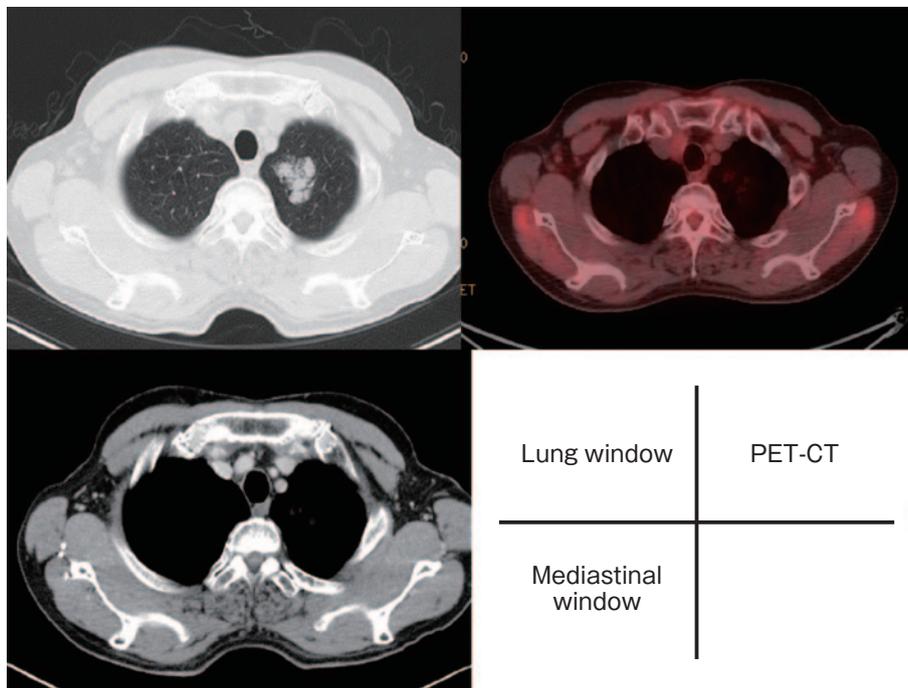


Fig. 2 Imaging findings. Chest computed tomography (CT) scan shows a tumor at the apex of the left lung. The tumor exists to crawl inside the emphysema. Under mediastinal conditions, tumors are rarely visible. ^{18}F -fluorodeoxyglucose (FDG)-positron emission tomography CT scan showed no FDG accumulation.

胸部CT (Fig. 2左) : 背景に気腫性変化を認め、左肺尖部に最大径3.5cmの腫瘤影を認めた。内部は分葉状で気腫内をうめるように進展していた。CT値は $-300\sim-50\text{HU}$ と幅があるが、おおむね脂肪成分に類似した値を呈していた。縦隔リンパ節腫脹は認めなかった。

臨床経過 : 診断確定のためガイドシース併用気管支腔内超音波断層法 (endobronchial ultrasonography with a guide sheath : EBUS-GS) を用いて気管支鏡検査を施行した。左B¹aの枝よりEBUS-GSを挿入した。Adjacent-toと考えられた部位で経気管支肺生検 (transbronchial lung biopsy : TBLB), ブラッシングを実施したが診断には至らなかった。その後positron emission tomography-computed tomography (PET-CT) (Fig. 2右上) を追加したが ^{18}F -fluorodeoxyglucose (FDG) の集積はなく、1ヶ月後の胸部CTでは変化なく、脂肪腫や過誤腫などの良性腫瘍や肺癌の可能性を考慮し、確定診断のため手術を行う方針とした。

20XX年10月26日に当院呼吸器外科で左肺上葉部分切除術を施行した。得られた手術標本 (Fig. 3) では、肉眼所見は内部充実性の黄色腫瘤で、病理学的には分葉状を呈する成熟脂肪組織を主体とし、その表層は扁平な肺胞上皮や、一部は気管支上皮様の細胞で覆われていた。また、脂肪細胞に混じって通常の脂肪腫とは異なる胎盤絨

毛様の間質細胞の増生が散在性に認められ、その間質細胞は泡沫状の淡明な胞体を持っていた。免疫・特殊染色結果 (Fig. 4) では、やや脂肪細胞が目立つがCD10陽性、PAS陽性の淡明細胞が増生し、あたかも胎盤絨毛組織のような形態をとるという特徴的な所見を有することから、PTLと診断した。現在、術後再発なく経過観察中である。

考 察

PTLは、1979年に嚢胞性肺気腫の稀な症例として初めて報告された良性腫瘍³⁾である。原因は未だ不明で慢性閉塞性肺疾患や気胸、気管支肺炎、呼吸不全の関与が示唆されており⁴⁾、本症例では背景に軽度の肺気腫が存在していた。2017年にMaらによってPTLの既報がまとめられ、計36症例について検討が行われた。年齢平均値は45.6歳 (45.6 ± 13.5 歳) で、男性に多かった (72.2%)。初発症状は胸部絞扼感 (45.7%) が最多だが、本症例のような無症状例も25.7%存在するとされている¹⁾。

PTLは脂肪と軟部組織で構成された腫瘍であり、大部分のPTLは片側性の気腫性病変に外接して存在すると報告されている。KimらはPTLの画像所見を、①bullous emphysema (嚢胞性肺気腫) pattern, ②mixed (薄壁嚢胞と結節) pattern, ③solitary nodule (孤立結節) patternの3つに分類し報告しており、嚢胞性肺気腫を示す

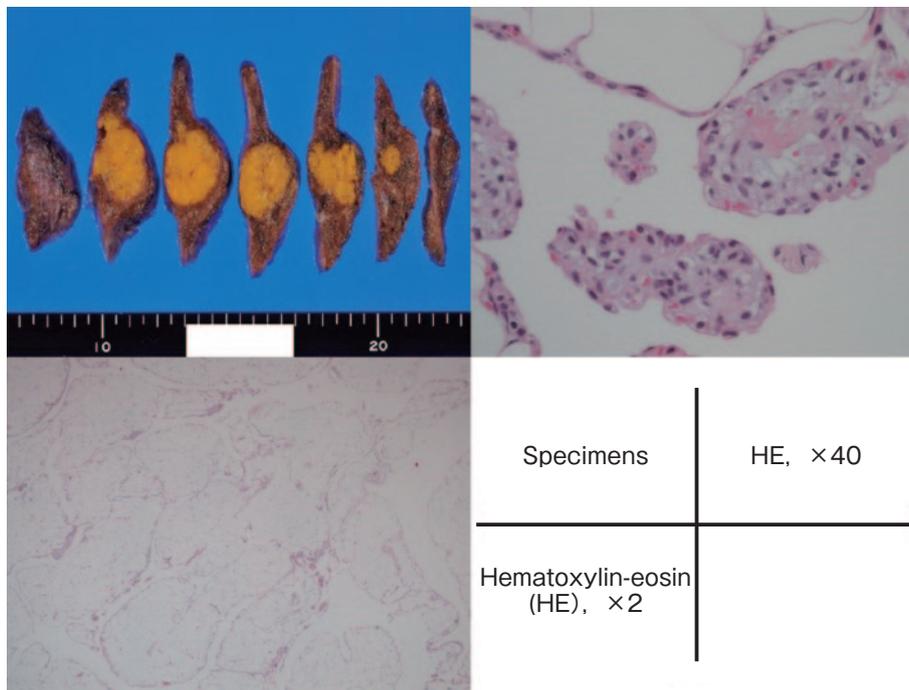


Fig. 3 The image shows the tissue from the partial resection of the left upper lobe. Histological findings were significant for the preservation of a lobular tumor with matured adipose tissue. Admixed with adipocytes, interstitial cell proliferation seen in the placental villi, different from normal lipoma, is observed to be scattered.

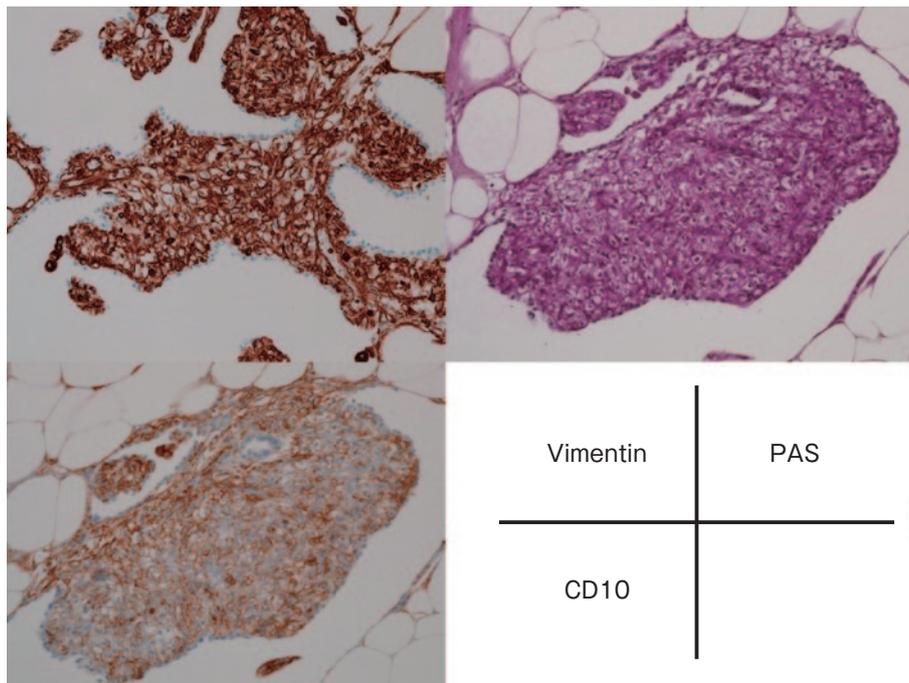


Fig. 4 Pathological findings. Superficial layers of adipocytes with lobule-like structures, or cells with clear cellularity were positive for EMA, TTF-1, vimentin, CD10, and PAS. However, they were negative for Melan-A, HMB-45, synaptophysin, chromogranin A, estrogen receptor (ER), and progesterone receptor (PgR).

bullous emphysema patternが最も多く、次いでmixed patternとなり、solitary nodule patternはわずか3例のみであった²⁾⁴⁾。本症例はmixed patternを呈しており、画像上の結節は豊富な脂肪を反映していた。

PTLの画像上の鑑別診断を考えるうえで、bullous emphysema patternであれば嚢胞性肺気腫が鑑別に挙がる。一般的にPTLは片側性の巨大嚢胞性変化を伴うが、嚢胞性肺気腫ではびまん性かつ両側性に病変を生ずる点が異なる。巨大肺嚢胞が片側性で生じ、周囲に結節を伴っている場合にはPTLを鑑別に挙げるべきと考えられる。次にmixed pattern/solitary nodule patternであれば原発性肺癌に加え、肺硬化性血管腫や肺乳頭腫、肺カルチノイドが鑑別に挙がるが、PET-CTを含めた画像検査のみでは鑑別困難であり、外科的切除による診断が望ましいと考えられる。

さらに本症例のように脂肪が豊富なPTLの場合は、その他の脂肪を含有する肺腫瘍の鑑別も必要となる。臨床頻度の高いものとして奇形腫と過誤腫が挙げられる。成熟型奇形腫はCT、MRIで肥厚した隔壁を有する嚢胞性腫瘤として描出され、石灰化や脂肪などが内部に認められ、2~3胚葉の成分を併せ持つが、画像上ほぼ脂肪のみで形成された奇形腫の報告は検索しうる限り認めなかった。一方、過誤腫も通常は軟骨成分や液体を含有するが、肺脂肪腫性過誤腫の場合、画像のみではPTLとの鑑別は困難と考えられる⁵⁾。画像検査で肺野に気腫性変化と脂肪が豊富な結節を認めた場合は、過誤腫だけではなく、PTLも鑑別に挙げる必要があり、確定診断のためには積極的に外科的切除を実施し、病理検査・免疫染色を追加することが望ましいと考えられる。

免疫染色はvimentin (focally), CD10 (diffusely), PASが陽性を示すが、cytokeratin, chromogranin A, TTF-1, HMB-45, MART-1 (Melan-A), desmin, SMA, Bcl-2, S-100蛋白, CD68, CD34, CD117, estrogen受容体, progesterone受容体は陰性を示すと報告されている⁶⁾。本症例も既報に合致した染色結果を示し、矛盾はないと考えられた。

手術については既報と本症例をまとめると計30症例で

実施され、10症例が肺葉切除術、7症例で片肺切除、本症例を含めた残り13症例で肺部分切除術が実施された。既報ではいずれも再発は認めず予後は良好な疾患と考えられ、可能な限りの縮小手術が望ましい。MaらもPTLを積極的に疑う症例ではリンパ節郭清も不要と提唱している¹⁾。

今回、我々は非常に稀な肺の嚢胞性病変であるPTLの1例を経験した。原因は未だはっきりしないが現在のところ術後再発は認めない良性腫瘍であり、画像検査で嚢胞性病変と脂肪が豊富な結節を認めた場合にはPTLを積極的に疑うべきと考えられた。

謝辞：本症例の診断にあたり福井県立病院呼吸器外科 清水陽介先生、また病理組織学的所見についてご指導いただきました病理診断科 小上瑛也先生、海崎泰治先生、千葉大学診断病理学 中谷行雄先生に深謝いたします。

著者のCOI (conflicts of interest) 開示：本論文発表内容に関して特に申告なし。

引用文献

- 1) Ma DJ, et al. Placental transmogrification of the lung: case report and systematic review of the literature. *Medicine (Baltimore)* 2017; 96: e7733.
- 2) Yang M, et al. Placental transmogrification of the lung presenting as a peripheral solitary nodule in a male with the history of trauma: a case report. *Medicine (Baltimore)* 2018; 97: e0661.
- 3) McChesney T. Placental transmogrification of the lung: a unique case with remarkable histopathologic features. *Lab Invest* 1979; 40: 245-6.
- 4) Kim JW, et al. Placental transmogrification of the lung. *Korean J Radiol* 2013; 14: 977-80.
- 5) 椎野王久, 他. 嚢胞性変化を伴う肺脂肪腫性過誤腫の1切除例. *日呼外会誌* 2014; 28: 521-5.
- 6) Ferretti GR, et al. Placental transmogrification of the lung: CT-pathologic correlation of a rare pulmonary nodule. *AJR Am J Roentgenol* 2004; 183: 99-101.

Abstract**A case of placental transmogrification of the lung**

Hitokazu Tsukao, Hideyuki Horie, Takahiro Sakai,
Wataru Yamaguchi, Junya Nakaya and Toru Kojima
Department of Respiratory Medicine, Fukui Prefectural Hospital

Background: Placental transmogrification of the lung (PTL) is a very rare cystic lung lesion with 38 cases reported in the world to date. We report a case of PTL that required differentiation from lung cancer, with the diagnosis being confirmed using surgical specimens.

Case: A 66-year-old man presented with an abnormal upper left lung field shadow on chest X-ray. Computed tomography showed a tumor shadow with a maximum diameter of 3.5 cm at the apex of the left lung. Following a partial left upper lobe resection, we diagnosed the patient with PTL.

Conclusion: This was a case of PTL with mass lesion that required differentiation from lung cancer. PTL is a disease with a good prognosis, and knowledge regarding this disease is important for future cases.