

●症 例

穿破による胸膜炎を伴った成熟型縦隔奇形腫の1例

今泉 知里^a 小高 倫生^a 中野 千裕^a
 押尾 剛志^a 大原関利章^b 松瀬 厚人^a

要旨：症例は20歳女性。検診で縦隔腫大を指摘され、精査受診前に発熱と右胸痛を認め、近医を受診。胸部単純X線撮影で右胸水貯留を認め、精査目的に当科を受診した。胸部CTでは右胸腔内に前縦隔から発生する腫瘍性病変を認め、液体成分が充満し、内部に脂肪成分を伴う充実部分を認めた。また腫瘍性病変による無気肺と右胸水を認め、縦隔腫瘍の穿破および胸膜炎と診断し、ドレナージおよび抗菌薬投与により炎症の改善後、縦隔腫瘍摘出術を施行した。病理学的に皮膚組織、気管支組織、膵組織を認め、未熟な成分はなく、成熟型奇形腫と診断された。

キーワード：成熟型縦隔奇形腫、縦隔腫瘍、胸腔内穿破

Mature mediastinal teratoma, Mediastinal tumor, Rupture to thoracic cavity

緒 言

成熟型縦隔奇形腫は比較的稀な良性腫瘍であり、自覚症状を呈することは少ないが、時に穿破による胸膜炎を生じる。胸膜炎症状や胸水貯留を伴う縦隔腫瘍の場合、奇形腫およびその穿破に伴う胸膜炎の合併も疑う必要がある。今回我々は、発熱、右胸痛を主訴とし、穿破による胸膜炎を伴う成熟型縦隔奇形腫の1例を経験したため、文献的考察を加え報告する。

症 例

患者：20歳、女性。

主訴：発熱、右胸痛。

既往歴：特記すべき事項なし。

生活歴：喫煙なし、飲酒なし。

現病歴：20XX年4月の検診の胸部単純X線撮影で縦隔腫大を指摘されたが、精査はしていなかった。同年6月上旬から発熱、右胸痛が出現したため、近医を受診したところ、胸部単純X線撮影で右胸水貯留を認めたため、同日の午後、精査加療目的に当院へ紹介受診、入院となった。

身体所見：意識清明。体温37.0℃。血圧100/60mmHg。脈拍83回/分・整。呼吸数18回/分。SpO₂ 98%（室内気）。頸部リンパ節腫脹なし。胸部所見では、呼吸音は右下肺野で減弱、異常音の聴取なし。心音に異常なし。腹部所見に異常は認めず、神経学的所見も異常なし。下肢浮腫もなし。

検査所見（Table 1）：血液検査ではCRP、CEAの上昇を認めた。hCG、AFPの上昇は認められなかった。胸水所見では、肉眼的には淡い黄色で、軽度混濁し、LDH高値からLightの基準より滲出性胸水と考えられた。糖の低下を認め、LDH、Amy、CEAの上昇を認めた。胸水培養検査は陰性、胸水細胞診は未施行。

胸部単純X線写真：右側胸水貯留を認めた（Fig. 1）。

胸部造影CT：右胸腔内に前縦隔と連続する10×9×13cm大の腫瘍性病変を認めた。被膜に覆われ、境界は比較的明瞭。内部は液体成分が充満し、そのなかに隔壁や脂肪成分を伴う分葉状の充実成分（矢印）を認めた（Fig. 2）。石灰化は認めなかった。

胸部造影MRI：内部不均一な約10cm大の腫瘍を認めた。T1、T2強調像で、脂肪成分を示す高信号域（矢印）が腫瘍内部に確認され、右胸水貯留も認めた。また、腫瘍内部の大部分は均一にT1強調像では低信号、T2強調像では高信号であり、液体成分が考えられた（Fig. 3）。

臨床経過：胸水所見にて糖の低下を認め、細菌性胸膜炎を考え、第1病日よりタゾバクタム/ピペラシリン（tazobactam/piperacillin：TAZ/PIPC）による加療を開始するとともに、20Frのダブルルーメンチューブを右側前腋窩線第5肋間より挿入し、持続的胸腔ドレナージを

連絡先：今泉 知里

〒153-8515 東京都目黒区大橋2-22-36

^a 東邦大学医療センター大橋病院呼吸器内科

^b 同 病理診断科

(E-mail: chisato.uozumi@med.toho-u.ac.jp)

(Received 3 Mar 2020/Accepted 19 Jun 2020)

Table 1 Laboratory findings

Blood count		Biochemistry		Immune serum	
WBC	7,610/ μ L	TP	7.8 g/dL	CEA	5.1 g/dL
Neut	59.9 %	AST	16 U/L	CA19-9	<2.00 g/dL
Lymph	22.8 %	ALT	28 U/L	AFP	2 ng/mL
Mono	14.8 %	LDH	264 U/L	sIL-2R	5.1 U/mL
Eosin	1.9 %	CK	77 U/L	hCG	<0.5 mIU/mL
Baso	0.6 %	BUN	5.1 mg/dL	T-SPOT	negative
RBC	436×10^4 / μ L	Cr	0.56 mg/dL	Pleural effusion	
Hb	12.8 g/dL	Na	140 mmol/L	Protein	0.9 g/dL
Ht	36.8 %	K	3.6 mmol/L	Glucose	8 mg/dL
Plt	34.2×10^4 / μ L	Cl	102 mmol/L	ADA	38 U/L
		CRP	8.08 mg/dL	LDH	2,449 U/L
		Glucose	87 mg/dL	Amy	367 U/L
				CEA	292 ng/dL
				Hyaluronic acid	21,800 ng/mL
				Bacterial culture	negative



Fig. 1 A right pleural effusion is seen on chest X-ray.



Fig. 2 A tumor lesion of 10×9×13cm, continuous with the anterior mediastinum, is seen in the right thoracic cavity on contrast-enhanced chest CT, mediastinal window. The lesion is covered with a capsule, and the border is relatively clear. The interior is filled with liquid, within which a heavy lobular component (arrow) with partitions and a fatty component are seen.

施行した。胸腔ドレーンからの排液量は初日で200mL程度が得られたが、第4病日以降は50mL程度のみとなった。第7病日に施行した胸部単純X線撮影にて少量の胸水貯留を認め、十分なドレナージは困難であったが、炎症所見では改善を認めたため、胸腔ドレーンを抜去した。胸腔ドレーン抜去後は、炎症反応の再燃は認めなかったが、胸部CTで胸水は残存していた。CT, MRI所見から前縦隔腫瘍、特に奇形腫の右側胸腔内穿破による胸膜炎と考え、診断および治療を目的として、第21病日に診断的治療を目的として縦隔腫瘍摘出術を施行した。腫瘍の大きさ、胸膜炎を併発していたことより、開胸を選択した。広背筋、前鋸筋を温存し、第5肋間後側方にて開胸した。右胸腔内は前縦隔から隆起する15cm大の軟らかく平滑な嚢胞性腫瘍により圧迫され、右中下葉の虚脱と全周性の癒着を認めた。癒着を丹念に剥離し、腫瘍を摘

出した。

摘出標本所見：肉眼的には13×10×4.5cm大の単房性嚢胞で、嚢胞内には液体成分が貯留していた。嚢胞壁の一部は肥厚が認められ、同部位には内腔に突出する6×4×3cm大の分葉状の充実成分があり、表面は黄白色で軟らかく、断面には脂肪組織が観察された (Fig. 4A)。病理所見は、表皮を模倣した重層扁平上皮、毛包、脂腺、汗腺、脂肪を認める皮膚組織を主体とした所見 (Fig. 4B) や、軟骨と軟骨の間に多列線毛円上皮で被覆された管、漿液腺や粘液腺を認める気管支組織を主体とした所見 (Fig. 4C)、腺房、導管、ランゲルハンス島を認める膵組織を主体とした所見を認めた (Fig. 4D)。未熟成分およ



Fig. 3 Contrast-enhanced chest MRI: An internally heterogeneous mass of about 10cm is seen. On T1- (A) and T2- (B) weighted images, regions of high signal intensity (arrows) showing a fatty component are confirmed inside the mass, and right pleural effusion is seen.

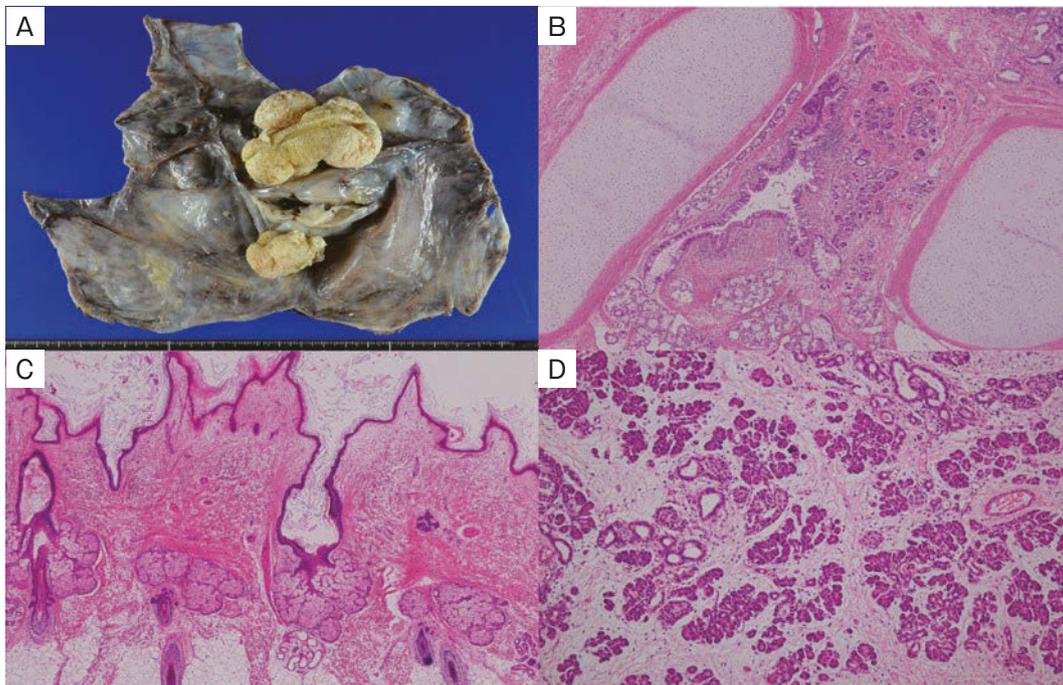


Fig. 4 Excised specimens. (A) Gross findings: in a unilocular cyst that was cut open; a soft, yellow-whitish nodular lesion of 6×4×3cm is seen in the cyst wall. (B) On histopathological examination centered on the skin, stratified squamous epithelium, hair follicles, sebaceous glands, sweat glands, and fat mimicking the epidermis are seen. (C) On histopathological examination centered on the bronchus, cartilage is seen, and ducts, serous glands, and mucous glands covered with pseudostratified ciliated columnar epithelium are seen between the cartilages. (D) On histopathological examination centered on pancreatic tissue, islets of Langerhans, acini, and vessels are seen. None of the specimens has any immature parts, leading to a diagnosis of mature teratoma.

び悪性所見を認めず、成熟型嚢胞性奇形腫と診断した。

腫瘍摘出術後は目立った症状はなく、1年おきに胸部CTを施行しているが、術後3年経過し、再発はない。

考 察

奇形腫は三胚葉組織の混合からなる混合腫瘍と定義さ

れ、さらに成熟型奇形腫、未熟型奇形腫、悪性変化を伴う奇形腫に分類される¹⁾。縦隔奇形腫の多くは無症状で経過し、検診などの画像検査で偶然発見されることが多いが、稀に腫瘍の穿破により、胸痛や咳嗽などの自覚症状の出現や、隣接臓器に重大な合併症を引き起こすことがある²⁾。Bradfordらは奇形腫の合併症として、周囲臓

Table 2 Reported cases of perforated mediastinal teratoma

Author* Reporting year	Age/Sex	Symptoms at consultation	Pleural effusion	Fatty tissue, calcification at CT	Pancreatic tissue
Matsushima ⁹⁾ 2000	23/F	Fever, Chest pain	Yes	No	Yes
Fukushima ¹⁰⁾ 2003	12/F	Back pain	Yes	No	Yes
Asada ¹¹⁾ 2004	23/F	Chest pain	No	No	Yes
Ikeno ¹²⁾ 2011	16/F	Fever, Chest pain	Yes	Fatty tissue	Yes
Horiuchi ¹³⁾ 2017	40/M	Fever, Chest pain	Yes	Calcification	Yes

*: references, F: female, M: male.

器への圧迫、腫瘍内容物への感染、気管支・血管および胸腔への穿破、悪性化を挙げている³⁾。肺・気管支への穿破がほとんどだが、なかには胸腔・縦隔、心嚢・大血管に穿破し、膿胸、胸膜炎、心タンポナーデなどの重篤な合併症が報告されている²⁾。

縦隔奇形腫の穿破の原因としては、腫瘍内の皮脂腺や汗腺の分泌亢進による腫瘍内圧の上昇、嚢腫の増大に伴う周囲組織との炎症性癒着、腫瘍内容物に細菌感染を合併して嚢腫壁を損傷、腫瘍内に含まれる膵管・腸管組織から分泌される消化酵素による自家消化作用などが報告されている⁴⁾。同じ奇形腫でも、膵酵素をほぼ含まない卵巣原発の奇形腫はほとんど穿破しないが、病理所見にて、膵組織の発生頻度が高いことが報告されている縦隔発生成熟型奇形腫は他部位に生じた奇形腫と比べて穿破の頻度が高く、主な穿破の原因として、腫瘍内で産生された膵酵素が影響していると考えられている⁵⁾。本症例でも、摘出した腫瘍にランゲルハンス島や腺房などの膵組織を認めており、また胸水中のAmyも高値であったことから、膵酵素による自己融解が腫瘍の破裂に起因していると考えられた。

また、縦隔奇形腫では血中腫瘍マーカーの上昇を認める症例が報告され、主にCA19-9, SCC, SLX, CEA, CA125などの上昇を示すことが知られており⁶⁾、機序としては、奇形腫内の膵組織、扁平上皮細胞などより産生され、嚢胞内液に蓄積し、穿破によって胸腔内に貯留し、胸膜より血中へ移行すると考えられている⁵⁾。腫瘍マーカーに関しての報告が少なく、今後、症例の蓄積による検討が必要と思われる。

縦隔奇形腫の画像診断は、CTで肥厚した隔壁を有する嚢胞性腫瘍として描写されることが多く、石灰化や脂肪成分を伴うことが特徴と言われている⁷⁾。未破裂の状態では、CTによる画像診断が容易であるが、いったん破裂すると、周囲に炎症反応や出血がみられ、石灰化や脂

肪成分が不明瞭となり、画像診断は困難となるため、そのような場合は、MRIを行うことによって、周囲の炎症反応との区別に役立つと言われている。

小暮らの報告⁸⁾によると穿破した縦隔奇形腫の報告は12例で、そのうち、胸腔へ穿破した例は9例であった。小暮らの報告以外に、我々が検索しえた限りで、胸腔に穿破した縦隔奇形腫の5例の報告をTable 2に示す^{9)~13)}。性別は女性に多く、年齢は若年者の報告が多かった。胸痛の主訴が多く認められ、胸膜炎を伴う症例では主訴に発熱を伴っている報告が多かった。画像検査において、縦隔奇形腫の特徴である石灰化や脂肪成分を伴う所見に関しては、いずれかを伴う報告は2例で認められた。病理検体での膵組織は全例で認めた。しかし、Carr¹⁴⁾らの報告では膵組織の含まれる縦隔奇形腫は非常に稀であり、文献で報告されているのは5例であった。

縦隔奇形腫は良性であっても、穿破などの合併症により、多彩な症状が引き起こされる可能性がある。穿破による隣接臓器への重大な合併症や、悪性部分が混在することもあり、早期に外科的治療を検討することが重要と考えられた。

謝辞：本症例に対し、縦隔腫瘍摘出術を行っていただきました東邦大学医療センター大橋病院外科学講座 西牟田浩伸先生、桐林孝治先生、草地信也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申告なし。

引用文献

- 1) Duwe BV, et al. Tumors of the mediastinum. Chest 2005; 128: 2893-909.
- 2) 吉田和夫, 他. 心嚢内穿破を来した縦隔成熟型奇形腫の1例. 日胸外会誌 1997; 45: 1107-10.
- 3) Bradford ML, et al. Mediastinal cysts and tumors.

- Surg Gynecol Obstet 1947; 85: 467-91.
- 4) 森野茂行, 他. 右肺に穿破した成熟型奇形腫の2手術例. 日呼外会誌 2007; 21: 139-43.
 - 5) 太田安彦, 他. 肺へ穿破し気腫化した前縦隔成熟型奇形腫の1例. 日胸外会誌 1993; 41: 1114-8.
 - 6) 岩田 勝, 他. 嚢胞液の脲酵素および腫瘍マーカーが異常高値を示した成熟型奇形腫の1例. 日胸臨 1994; 53: 1033-8.
 - 7) Drevelegas A, et al. Mediastinal germ cell tumors: a radiologic-pathologic review. Eur Radiol 2001; 11: 1925-32.
 - 8) 小暮啓人, 他. 突然の胸痛を主訴とした成熟型縦隔奇形腫の2例. 日呼吸会誌 2005; 43: 365-9.
 - 9) 松島和子, 他. 発熱, 胸痛, 胸水貯留で発症した縦隔奇形腫の1例. 日胸臨 2000; 59: 225-9.
 - 10) 福島光浩, 他. 右胸腔内に穿孔した縦隔発生成熟奇形腫の1例. 日呼外会誌 2003; 17: 666-71.
 - 11) 麻田博輝, 他. 穿破を伴った縦隔奇形腫の2症例. 日呼外会誌 2004; 18: 114-9.
 - 12) 池野義彦, 他. 胸腔穿破による膿胸合併を認めた成熟型縦隔奇形腫の1例. Dokkyo J Med Sci 2011; 38: 171-7.
 - 13) 堀内 翔, 他. 成熟型縦隔奇形腫左胸腔内穿破の1切除例. 日呼外会誌 2017; 31: 784-8.
 - 14) Carr MJT, et al. Mediastinal cyst containing mural pancreatic tissue. Thorax 1977; 32: 512-6.

Abstract

A case of mature mediastinal teratoma with pleurisy due to perforation

Chisato Imaizumi^a, Norio Kodaka^a, Chihiro Nakano^a, Takeshi Oshio^a,
Toshiaki Ooharazeki^b and Hiroto Matsuse^a

^aDivision of Respiratory Medicine, Department of Internal Medicine, Toho University Ohashi Medical Center

^bDepartment of Pathology, Toho University Ohashi Medical Center

A 20-year-old woman with mediastinal enlargement discovered during a routine health check visited a clinic due to fever and right chest pain. Since chest X-ray revealed right pleural effusion, she was referred to our department. Contrast-enhanced chest computed tomography (CT) scan showed a 10×9×13cm encapsulated tumor in the right thorax that had developed from the anterior mediastinum. The tumor contained lobulated solid parts with fatty components in serous contents. Atelectasis due to the tumor and right pleural effusion were also observed. She was diagnosed with perforation of the mediastinal tumor and pleurisy. After inflammation improved with drainage and antibiotics, mediastinal tumor resection was performed. Pathological examination of the resected tumor exhibited a mature mediastinal teratoma.