

術前の11年間、胸部レントゲン写真で経過を 観察しえた良性縦隔奇形腫の一症例

天理よろづ相談所病院・胸部外科

カレッド・レシャード

関西電力病院・呼吸器科

人見 滋樹, 前里 和夫

同・小児科

金沢 治, 中島 幸治

同・病理

鈴木 康之, 奥田 正

(昭和55年12月31日受付)

はじめに

奇形腫は神経原性腫瘍や胸腺腫とともに縦隔腫瘍の大部分を占めている¹⁻⁴⁾。その治療は発見すれば可及的に早期摘出という方針が主流をなすため、発見後長期に観察された報告は極めて少ない^{5,6)}。

我々は摘出手術までの11年間という長期にわたり、他院でのレントゲン写真、および臨床経過を経時的に観察しえた良性縦隔奇形腫を経験した。奇形腫の発生原因、悪性化の要因、頻度、治療方針⁷⁻¹⁴⁾等を考察するのに貴重な症例であると考えられるので報告する。

症 例

患 者：13才，女性。

主 訴：発熱，気道感染の反復，胸部レントゲン上の異常陰影。

家族歴：特記すべきことなし。

既往歴：入院当時まで中耳炎，副鼻腔炎にて治療中。小児期より風邪をひ

きやすい。

現病歴：3才時風邪のため近医を受診し、そこで撮影した胸部レ線では、右中葉の肺炎像の他、心陰影の右縁がやや右方へ拡大し、縦隔腫瘍の存在を疑わせる(図1)。その後もこの腫瘍のためか、両側肺に肺炎を反復し、数回にわたり治療を受けている(図3～5)。図4、5でも示すように、その間の胸部レ線ではこの右縦隔の陰影が徐々に拡大している。

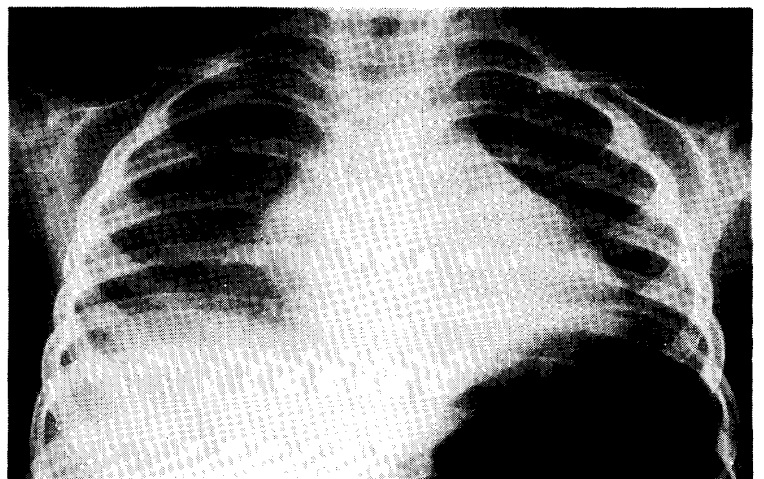


Fig 1. A round tumor shadow is seen in right mediastinum on chest X-P (PA), 3 years old. 9. 1. 1968.

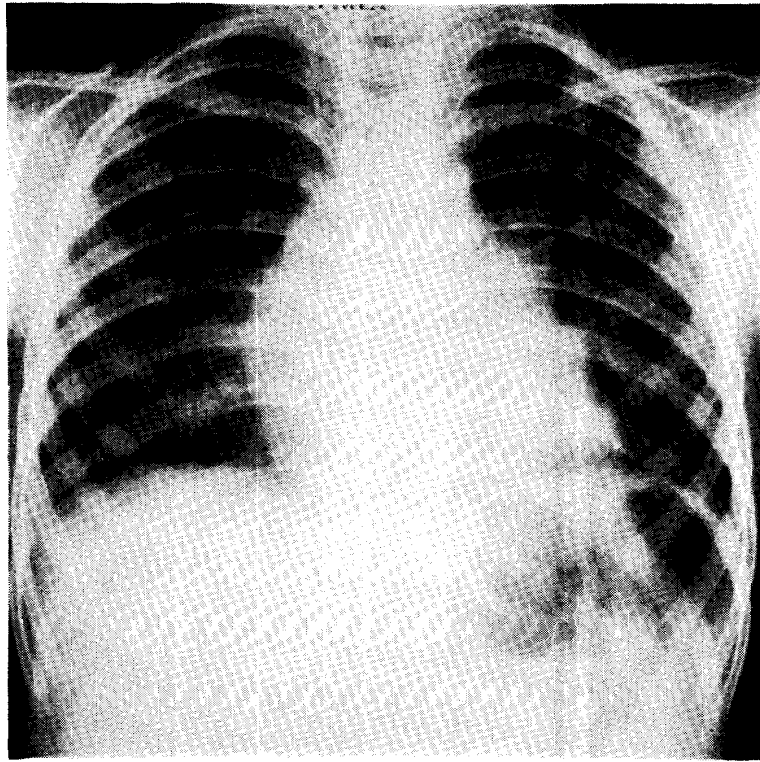


Fig 2. Chest X-P (PA), 3 years old. 3. 10. 1968.

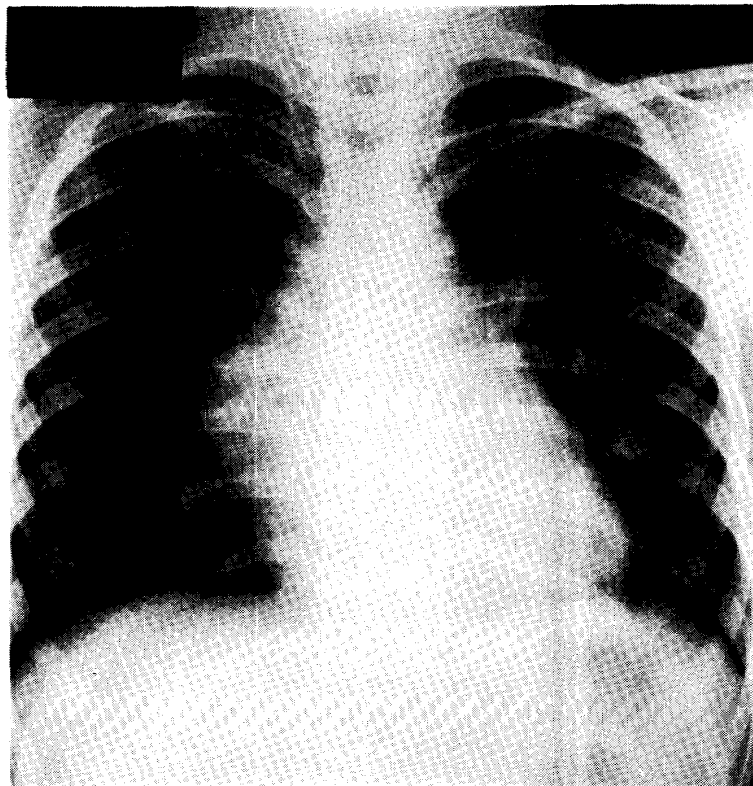


Fig 3. The tumor shadow is increased in size. Chest X-P (PA), 7 years old. 18. 4. 1972.

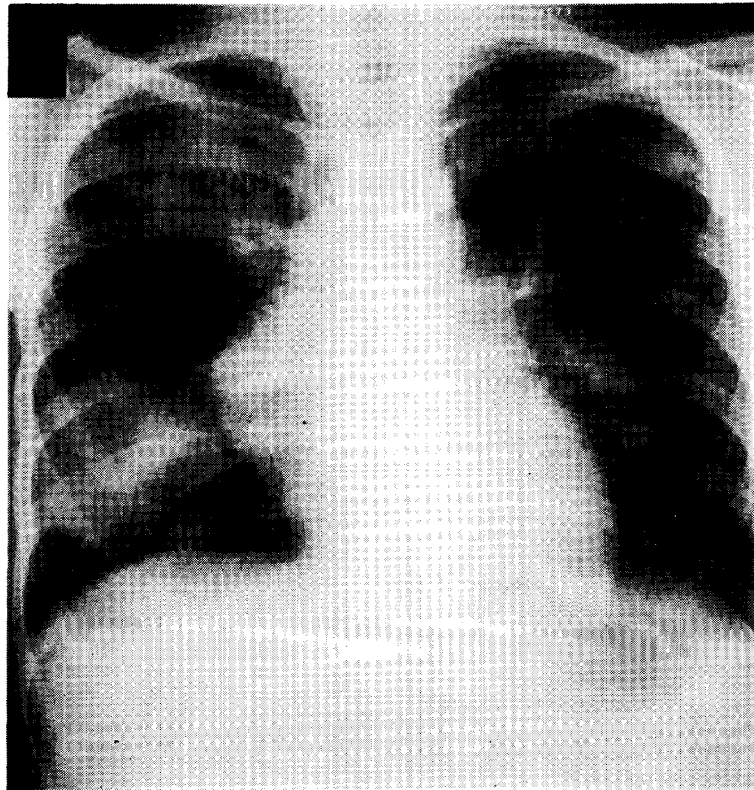


Fig 4. Pneumonia in the right lung are seen on chest X-P when she was 10 years old. 26. 5. 1975.

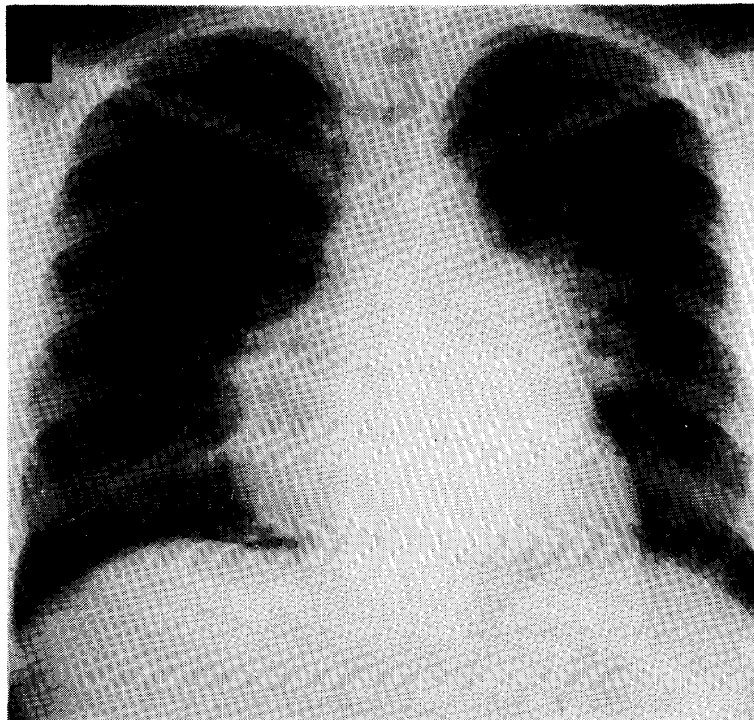


Fig 5. She admitted our hospital for fever, cough and the pneumonic shadow in the left middle area, seen in chest X-P of 24. 4. 1979. 13 years old. the tumor shadow increased in size in these 4 years.

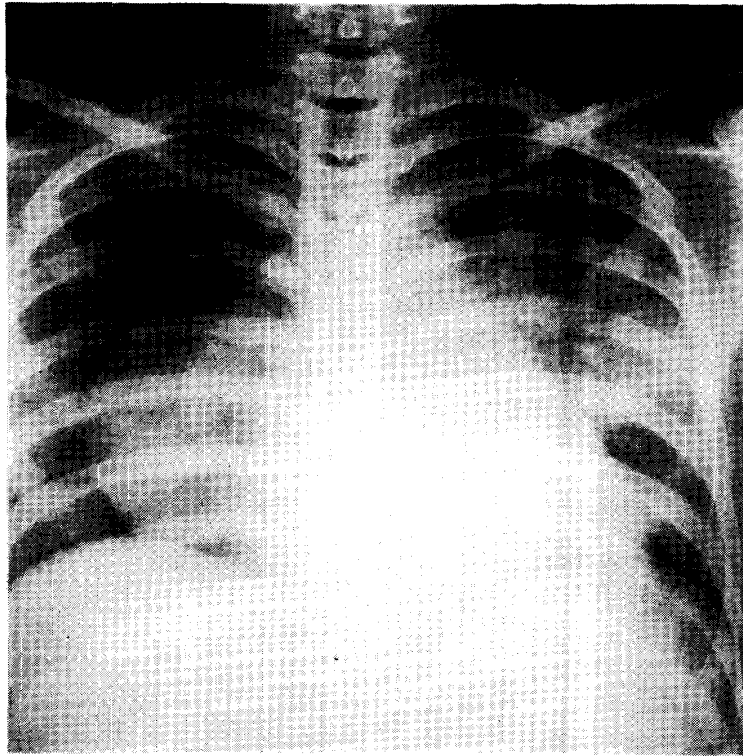


Fig 6. On admission to our section, after therapy for pneumonia, an egg sized tumor was seen in right of the cardiac shadow on postero-anterior chest X-P (supine position) 2.5.1979.

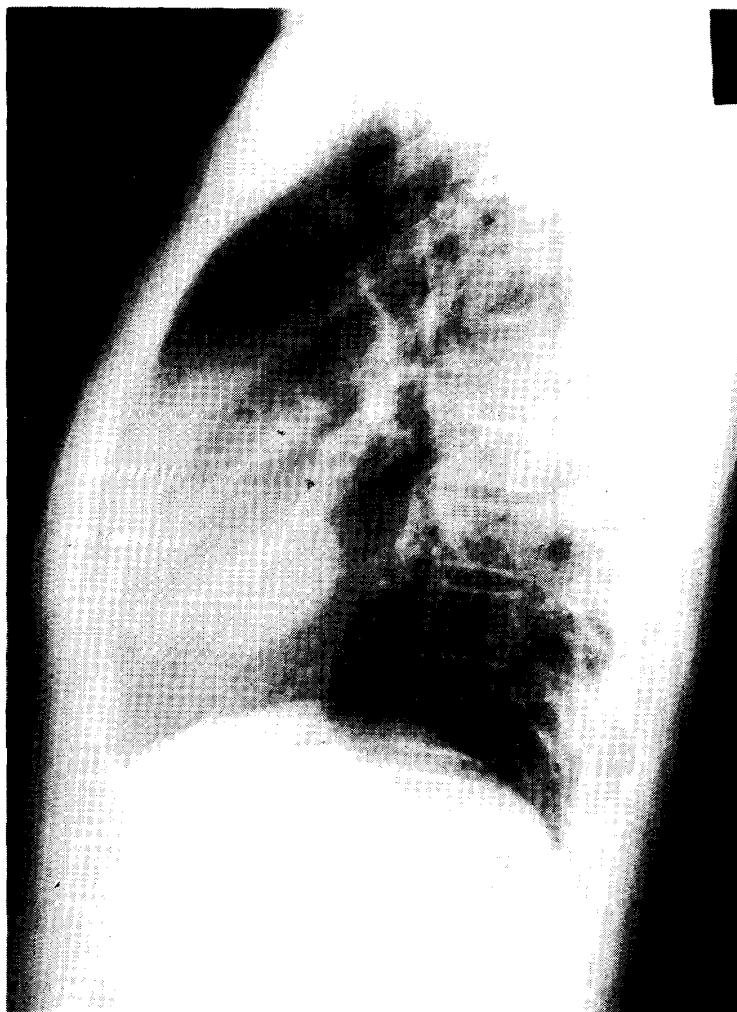


Fig 7. A right lateral chest film shows the tumor located in the anterior mediastinum. 2. 5. 1979.

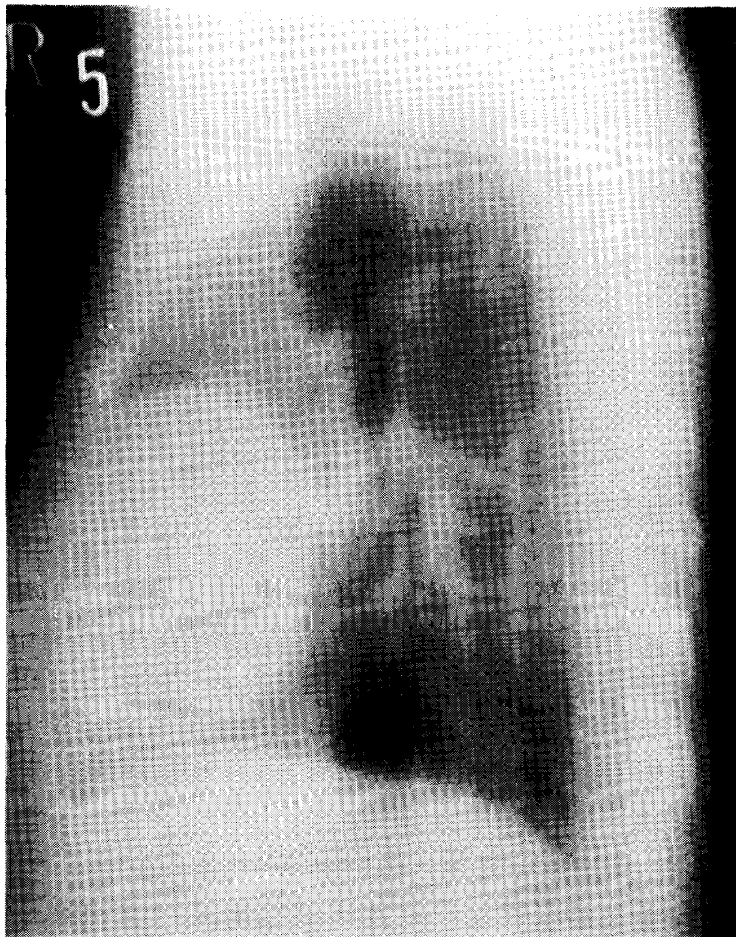


Fig 8. The right lateral tomograph (5 cm) shows the tumor in the anterior mediastinum. 18. 5. 1979.

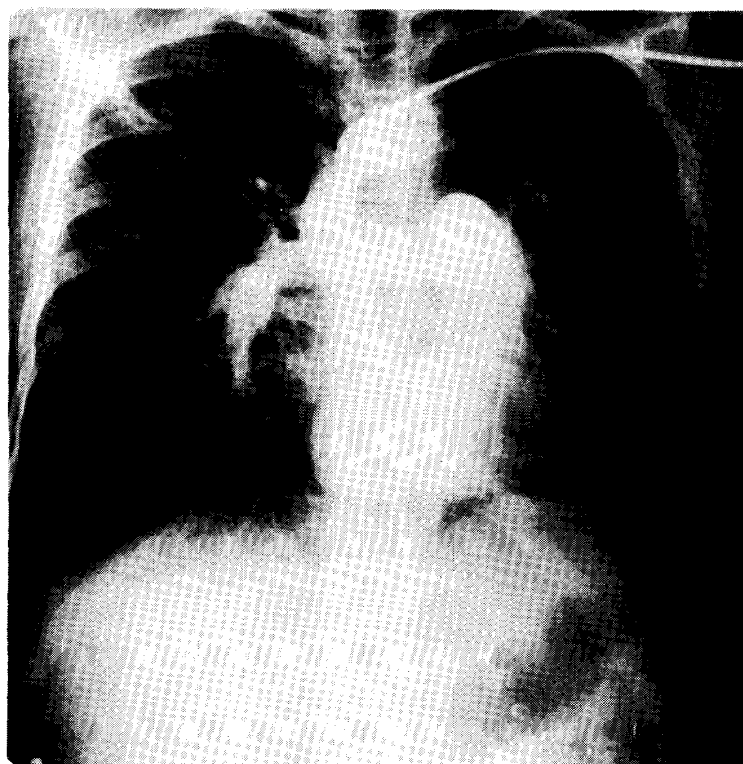


Fig 9. The tumor was located between right atrium and right lower pulmonary artery, and had no direct relation with these vessels in pulmonary angiographic examinations. (Arterial phase 18. 5. 1979)

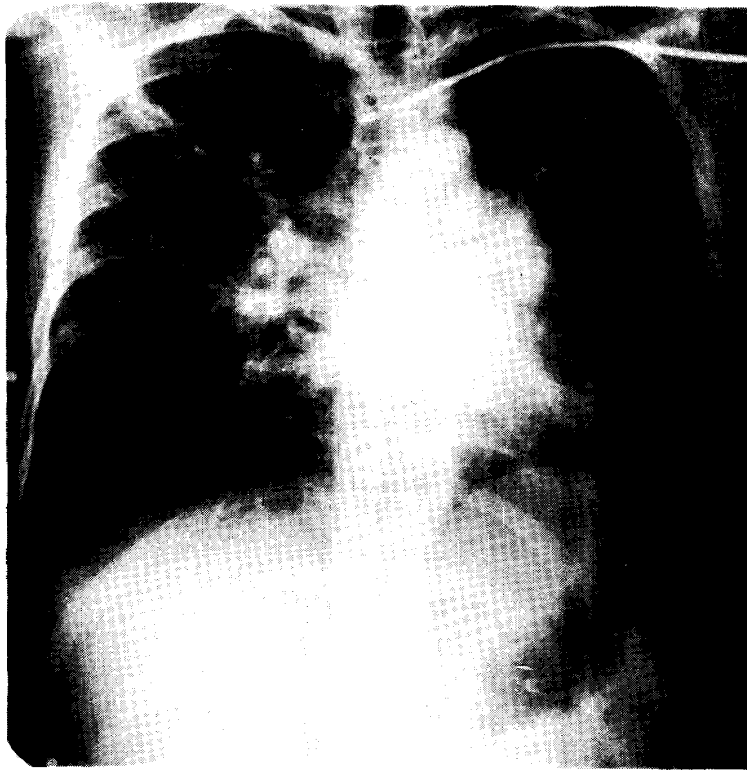


Fig 10. Venous phase of pulmonary angiographic examinations also shows no direct relation with large vessels. 18. 5. 1979.

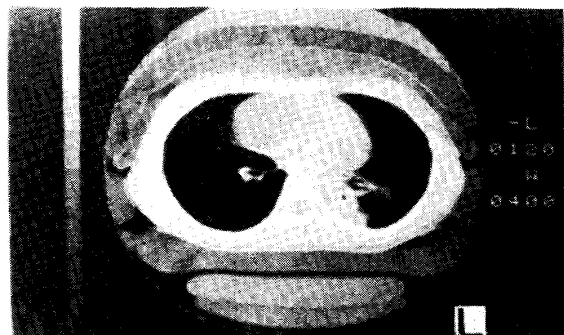


Fig 11. A cystic low density lesion was found in the anterior mediastinum in CT scan.

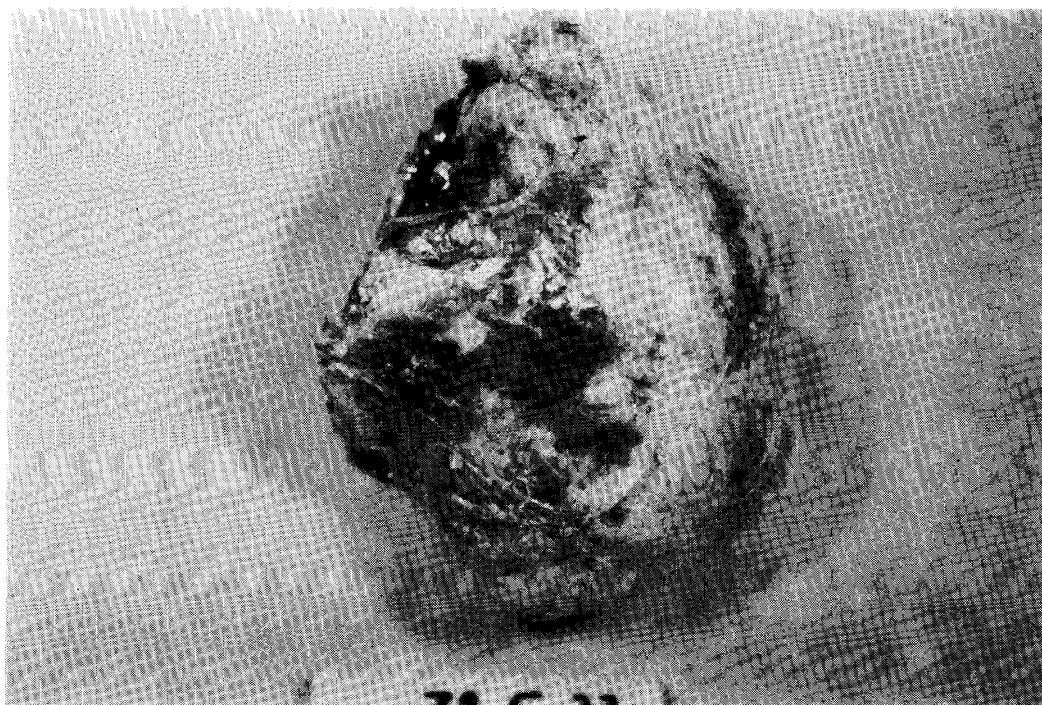


Fig 12. This picture shows, an egg sized resected tumor, which had a steel to the right lobe of the thymus.

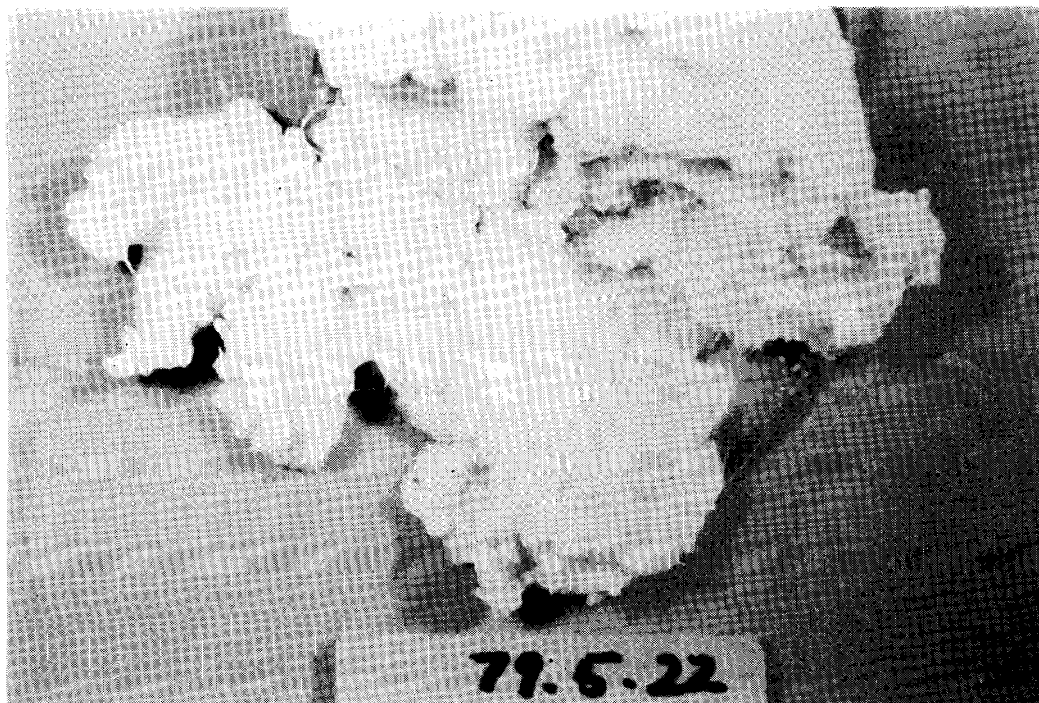


Fig 13. Yellow creamy materials with white hair were contained in the cyst with a thin capsule.

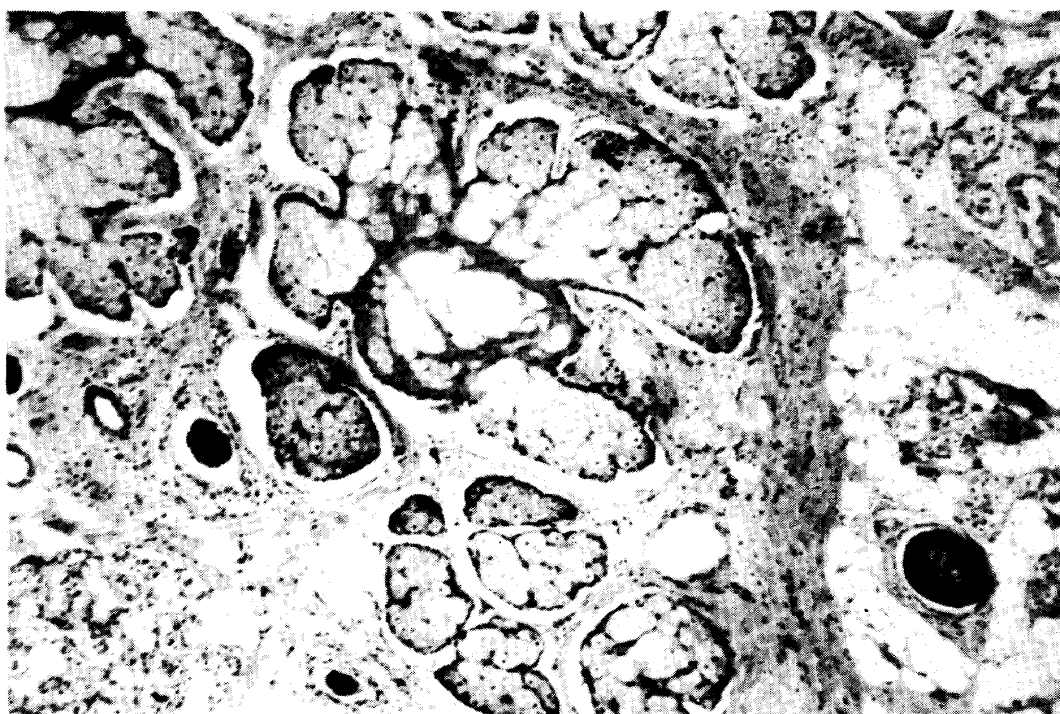


Fig 14. As seen in this picture, histologically, sebaceous glands, sweat glands and hair follicles are contained in the specimen, also epidermoid cell layers were seen in the wall of the capsule.



Fig 15. This picture shows the specimen of the steel of the tumor, with Hassal's body and thymic tissue.

表1 術前検査成績

RBC	369×10 ⁴	LDH	413 u.	EKG	normal
Hb	11.1 g/dl	γGTP	8 u.	Urinalysis	
Ht	33.1%	T.P.	7.4 g/dl	Prot	—
WBC	7800	A/G	1.2	Gluc.	—
Baso	1.0%	Bleed T.	1 min 30 sec.	Urobil.	±
Eosino	8.0%	Coagul. T.	9 min. 30 sec.	Sedm.	—
Neutro	57.5%	Proth. T.	11.0 sec.	Pulmonary function T.	
Lymph	25.5%	Contr.	10.9 sec.	VC	2200 ml
Mono	8.5%	CRP	—	FRC/TLC ×100	64.1%
Platelet	31.5×10 ⁴	Tuberculin	+	FEV _{1.0}	2040 ml
GOT	16 u.	BUN	18 mg/dl	FEV _{1.0} %	92.7%
GPT	13 u.	BSR	86/hr 105/2 hr.		
ALP	10 u.				

1979年4月24日、発熱、咳嗽にて関西電力病院小児科を受診し、肺炎と診断され、入院治療を受けた。胸部レ線上、肺炎像とともに右縦隔に異常陰影が認められ、肺炎の治癒後に、同年5月14日、手術目的で転科となった。

現症：身長 154.8 cm, 体重 41.6 kg, 栄養良好, 脈拍88回/分, 整, 緊張良好, 血圧114/90, 呼吸数 18回/分であった。眼瞼結膜には貧血や黄疸はなく, リンパ節腫脹もなかった。

聴診上呼吸音は正常で, 心音では第2肋間胸骨左縁に軽度の収縮期雑音が聴取された。

臨床検査成績：**表1**のごとく異常所見はなく, 肺機能検査ではVCが2200 ml, TLC 3120 ml, FRC/TLC×100 64.1%, FEV_{1.0} 2940 ml, FEV_{1.0}%は92.7%であった。

胸部レ線写真：背腹像では, 左中肺野に肺炎像と共に右縦隔に心陰影の右縁にシェルエットサイン陽性の陰影が認められ (**図5**), この異常陰影は仰臥位で撮影した胸部レ線ではより右方へ移動している (**図6**)。側面像では正中よりやや前方に腫瘤状の陰影が認められた (**図7**)。側面断層写真では正中より右方5 cm まで腫瘤陰影は認められるが, 正中より左方2 cm 以上では認められない (**図8**)。

肺血管造影では右心房と右下葉肺動脈間に腫瘤陰影が位置していて, 血管や右心房とは無関係なことが判る (**図9, 10**)。胸部 CT-Scan では前縦隔に壁の薄い嚢胞を思わせる low density lesion が見られた (**図11**)。

手術所見：右第4肋間腋窩法にて開胸した。開胸時胸水貯留はなく, 胸膜癒着もなかった。腫瘤は約8×6×4 cm の大きさで, 球形で, 表面に凹凸があり, 前縦隔に位置しており (**図12**), 右胸腔内へ突出していた。肺との癒着はなかったが, 上大静脈や右心房と線維性の癒着が存在していた。腫瘤の上方に約1 cm 幅の組織片が胸腺まで連なっていて, これとは別に胸腺の左葉が触知された。摘出された腫瘍は弾性硬で, 一部に乳頭様隆起が存在し, 硬い1枚の膜を破るとクリーム状の黄色の内容物に満たされていた。その一部に白色の毛髪が認められた (**図13**)。

病理組織学的には, 腫瘍内に角化扁平上皮, 皮脂腺, 毛嚢, 小汗腺がみられ, 壁の外側に胸腺組織が認められた (**図14**)。胸腺へ連続していた柄 (Steel) の部分ではかなり退化したハッサル小体がみられ, 正常な胸腺組織であった (**図15**)。病理学的には良性奇形腫と診断された。

手術後患者の状態は良好で, 手術後24日目に扁桃腺摘出術を受けるため, 耳鼻科へ転科となった。

考察：統計的に奇形腫は, 縦隔腫瘍のうち胸腺腫や神経原性腫瘍とともに多くみられ, 本邦の集計では24.4% (正岡ら³⁾) を占めている。しかし, その発生母地や発生機序については統一した見解はない。

奇形腫が胸腺と深い関連を有することは, 諸家の報告するところである^{8~11)}。

すなわち Schlumberger⁹⁾ は16例の奇形腫のうち4例に胸腺組織をみとめたため、奇形腫の発生は胸腺組織内における鰓弓の発育障害、または埋没遺残によるとし、稲田⁹⁾ らは15例中11例の腫瘍壁に胸腺遺残組織をみとめ、Schlumberger の説を支持している。

また、Holt ら¹⁰⁾ は肺の末梢にみとめられた肺内奇形腫1例の腫瘍壁に正常胸腺組織をみとめ、縦隔外の奇形腫の発生にも異所性胸腺組織が関連していると考え、Schlumberger 説を支持している。このようなことから、伊藤ら¹¹⁾ は奇形腫および奇形腫群腫瘍を胸腺関連腫瘍として位置づけている。

なお、われわれが経験した本症例の腫瘍壁にも正常胸腺組織がみとめられている。

奇形腫の発生機序に関しては、Willis⁷⁾ らの primary organizer 障害説、Ekehorn の胎児内胎児説、Friedman¹²⁾ の胚細胞説などがあり、germ cell tumor なる名称を好んで用いる研究者もある。わが国においては、発生母地や機序の問題をさけるために奇形腫群腫瘍なる名称を用いるのが一般的である¹³⁾。

悪性奇形腫発生率は報告者により6.5~19%と種々である。志村ら¹⁴⁾ が発表した奇形腫31例中、悪性奇形腫は6.5%、正岡ら³⁾ の集計では19%、Rusby⁵⁾ ら12.9%、そして Ringertz⁶⁾ が引用した Jacobs らの統計では10%を占めている。

そして悪性の奇形腫群腫瘍を考える場合には、teratocarcinoma, yolk sac tumor, choriocarcinoma など stem cell の関与する一次性的の場合と、mature teratoma 構成成分の二次的な悪性化の場合とが問題となってくるが、一次性的悪性奇形腫群腫瘍のほとんどすべてが思春期男性に生ずるものであるから¹⁶⁾、本症例では二次性的悪性化を来さないか否かが問題となる。

二次性的悪性化の症例として、Herlitzka¹⁶⁾ らは発見から12年後に手術を施行した、mature teratoma の悪性化と考えられる1例を報告している。症例は69才男子で、12年前に検診の胸部レ線上前縦隔に異常陰影が指摘されたが、自覚症状がないため放置していた。手術4カ月前

より、嗄声、太鼓撥指、頸部静脈怒張などの症状が出現したため受診し、手術をうけたところ、前縦隔に切除不能の腫瘍がみとめられ、切除標本の病理組織には扁平上皮由来の悪性細胞がみられ、mature teratoma が長期経過により悪性変化した症例と思われる。

治療に関しては、外科的に摘出することが望ましいとするのが一般的である。その理由としては、気道感染の反復の原因となりうること、腫瘍内感染、腫瘍の肺への穿孔の危険があること、さらには mature teratoma でも前述のごとく悪性化するおそれがあることがあげられており、発見されてから手術までの長期間の経過を観察された症例は少ない。

われわれが経験した本症例は、思春期に達していない女子ではあるが、約11年間の経過後も悪性化の徴候はみとめられなかった。しかし、mature teratoma の場合でも、腫瘍の増大や肺炎の反復の他に、悪性化の可能性も常に考慮に入れる必要があり、A.F.P., H.C.G.などを産生する一次性的奇形腫群腫瘍は別として、良性奇形腫の二次性的悪性化の場合には、手術以外には現在のところ確定診断が困難なことなどから考え、早期に摘出する方針には誤りはないものと思われる。

結 論

胸部レ線上、11年間経過を観察できた良性奇形腫の1例を手術により治療した。このように長期間の経過を観察された症例は、文献的にも少ないので、奇形腫の発生要因、悪性化の要因や頻度、手術適応などについて、文献的考察を加えて報告した。

文 献

- 1) 桂 重次他：本邦縦隔腫瘍の集計，日胸外科誌，5:285，1957.
- 2) 葛西森夫他：縦隔腫瘍の発生頻度と病理，胸部疾患学会誌，8:281~290，1964.
- 3) 正岡 昭他：縦隔腫瘍全国集計，日胸外会誌，19:1289~1300，1971.
- 4) 寺松 孝他：縦隔腫瘍に関する全国集計，日胸外会誌，24:264~269，1976.

- 5) Rusby, N. L.: Dermoid cysts and teratoma of the mediastinum. *J. Thoracic Surg.*, 13, 169-222, 1944.
- 6) Ringertz, N. et al. Mediastinal tumor and cysts. *J. Thoracic Surg.*, 31: 458-487, 1956.
- 7) Willis, R. A.: Teratoma, Atlas of tumor pathology. Sec. 3, Fasc. 9, Armed Force Inst. of Path., 1951.
- 8) Schlumberger, H. G.: Teratoma of the anterior mediastinum in the group of military age. *Arch. Path.* 41: 398-444, 1946.
- 9 稲田 潔他: 縦隔奇形腫の構造とその発生, 胸外, 11:211-218, 1958.
- 10) Holt, S. et al.: A teratoma of the lung containing thymic tissue. *J. Path.*, 126: 85-89, 1978.
- 11) 伊藤元彦他: “胸腺関連腫瘍の分類と治療”胸外, 33:567-575, 1980.
- 12) Friedman, B. N.: The comparative morphogenesis of extragenital gonadal teratoid tumors *Cancer*, 4: 265-275, 1951.
- 13) 小児腫瘍組織分類図譜 第3篇 奇形腫群腫瘍, 日本病理学会, 金原出版, 1978.
- 14) 志村秀彦他: 小児縦隔腫瘍の特徴と診断について, 臨床外科, 22:229-238, 1967.
- 15) 遠藤英利他: 前縦隔 germ cell tumor の分類と治療について 日胸, 38:245-259, 1979.
- 16) Herlitzka, A. J. et al.: Tumors and cysts of the mediastinum. *J. Arch. Surg.*, 76: 697-703, 1958.

A CASE OF BENIGN MEDIASTINAL TERATOMA OPERATED AFTER ELEVEN YEARS OBSERVATION

K. RESHAD, S. HITOMI, K. MAEZATO, *Dep. of Chest Diseases.*

O. KANASAWA, K. NAKAJIMA, *Dep. of Pediatrics.*

Y. SUZUKI, T. OKADA *Dep. of Pathology.*

(Kansai Denryoku Hospital.)

A case of benign mediastinal teratoma which was operated after eleven years observation on chest X-P was reported with literature of genesis and origin of mediastinal teratoma. An abnormal shadow was seen in the right mediastinum on chest X-P of a 13 years old girl, who treated in pediatric section for pneumonia. She has complained cough, sputum, and fever with an abnormal pneumonic shadow on lung area, several times from 1968 to 1979. In each of these roentgenograms an abnormal shadow is seen on the right side of the cardiac shadow, which is gradually increased in size.

After the treatment of pneumonia she admitted to our department for the operation of the tumor. The tumor was located between right atrium and right lower pulmonary artery, and had no direct relation with these vessels in pulmonary angiographic examinations. A cystic low density lesion was found in the anterior mediastinum in CT scan.

At thoractomy in the right 4th intercostal space we found an egg sized encapsulated mass at the right side of vena cava superior, having a steel to the right lobe of thymus. No infiltration was present to the lung or right atrium. Yellow creamy materials with white hair was contained in the cyst with a thin capsule.

Histologically, epidermoid cell layer, sebaceous glands, sweat glands and hair follicles were contained in the cyst wall, and diagnosed as a benign teratoma. Hassal's bodies with thymic tissue was found in the steel of the tumor. No malignancy was obtained even after eleven years follow up in this case, however high possibility of malignant change of benign teratoma is a common opinion.