

## 臨床報告

## 長期間経過した肺芽細胞腫の1症例

東京女子医科大学 第一外科学教室 (主任: 新田澄郎教授)

タドコロ	ヨシテル	イケダ	トヨヒデ	オオヌキ	ナオヨシ
田所	吉輝	池田	豊秀	大貫	尚好
カワシマ	マサユキ	ヨコヤマ	マサヨシ	ニツタ	スミオ
川島	雅之	横山	正義	新田	澄郎

(受付 平成元年6月28日)

## A Case of Pulmonary Blastoma Who Died after Long Asymptomatic Period

Yoshiteru TADOKORO, Toyohide IKEDA, Naoyoshi OHNUKI, Masayuki KAWASHIMA,  
Masayoshi YOKOYAMA and Sumio NITTADepartment of Surgery I (Director: Prof. Sumio NITTA)  
Tokyo Women's Medical College

Sixty one years old male had a long history of abnormal pulmonary shadow at the right lower field in spite of no subjective symptom. Six months prior to the admission, the patient began to complain of cough associated with frequent bloody sputum.

The surgical excision of the pulmonary tumor was carried out in December 1987, revealing pulmonary blastoma on the pathological examination. The patient died of recurrence about four and a half months after the surgical intervention.

## はじめに

1952年, Barnard<sup>1)</sup>は胎児性肺組織に類似する肺腫瘍を紹介した。1962年, Spencer<sup>2)</sup>は同様の組織構造をもつ肺腫瘍3例を報告し, pulmonary blastoma (肺芽細胞腫)と命名した。

本腫瘍は稀なものと考えられているが, 最近われわれは, 若年のころから肺異常陰影を指摘され, 61歳になってはじめて咳嗽・血痰を生じた肺芽細胞腫を経験したので, 文献的考察を含め報告する。

## 症 例

症例: 61歳, 男。

主訴: 咳嗽・血痰。

家族歴: 特になし。

既往歴: 生来身心強健で少年飛行兵の訓練を約1カ年受けて台湾屏東に待機中(17歳のとき)肺結核となり陸軍病院に入院した。このとき右肺尖部の結核病巣とともに右下肺野の異常陰影も指摘された。40歳のとき交通事故で顔面を強打し, それ

以来, 左眼は義眼である。右眼は正常である。タバコは1日10本を若いころから喫煙していた。

現病歴: 夫婦住込みで寮の管理人をしていたが, 年1回の定期検診を受けるたびに右下肺野の異常陰影を指摘され, これの精検をすすめられていた。しかし患者は若い頃から右下肺野陰影をいわれていても無症状のため精検をことわり続けてきた。1986年6月, 40℃の発熱があって入院した。このとき急性腎炎の他に右下肺腫瘍の除去手術をすすめられた。発熱は約10日間でおさまり退院した。1987年7月頃から1日10回くらい痰がでるようになり, ときに, 痰に血液を混じるようになった。痰の中に黒いかたまりが混っていたこともあった。1987年10月田所医院で注意され, 精査をすすめられた。痰の量も多くなってきた上, 労働時の軽い呼吸困難もあって同年11月20日, 患者は東京女子医科大学病院に入院した。

入院時現症: 身長166cm, 体重63kg, 血圧130/90



写真1 入院時胸部レ線像  
左：正面像，右：側面像

mmHg, 脈拍数75/分整, 体温36.5°C, 心電図は洞調律, ST・T正常, 皮膚に全身性の血管拡張症 telangiectasis がある, 右季肋部が手拳大に突出しているが, 自発痛, かゆみ, 圧痛などはない, 聴診で心雑音なく右下肺野に呼吸音減弱を認める, 鎖骨上窩と腋窩リンパ節は触知しない,

**検査成績:** 胸部レ線像(写真1)では右下肺野に10×11cmのほぼ境界明瞭, 均一濃度の腫瘤影を認める, 横隔膜との境界ははっきりしない, 胸部CTでは, 右S<sup>8</sup>, S<sup>9</sup>からS<sup>4</sup>にかけ, 10×11×9cmの腫瘍が側壁に接して認められる, S<sup>8</sup>, S<sup>9</sup>の一部が虚脱し, 横隔膜との癒着が疑われる, 縦隔・肺門リンパ節腫脹は認められず, 胸水貯溜もない, ツ反は40×36mmで陽性, Wasserman 反応陰性, 赤沈1時間65mm, 2時間103mm, 赤血球数430万/mm<sup>3</sup>, 白血球数4300/mm<sup>3</sup>, 血色素量12.6g/dl, ヘマトクリット値40.0%, 血小板数33.9万/mm<sup>3</sup>, リンパ球分画12%, 肺活量2.69l, %標準値の77.5%, 1秒量1.28l, 1秒率53.8%であった, 腎機能検査正常, 肝機能検査正常, CEA1.3, AFP 5以下, CA19-9は4, フェリチン275, NSEだけが20U/mlと上昇している, 尿検査で蛋白(+), 糖(-), 潜血反応(卅)であった, ASO32以下, RA陰性, CRP3.4, 喀痰細胞診でclass II, 気管支ファイバースコープでは右中間幹および底幹が, 上前方に圧排され, 内腔は狭窄像を示したが, 粘膜面に

異常所見はみられなかった, 擦過細胞診でもclass IIであった, 頭部CT, 腹部CTおよび骨シンチグラフィで転移像はなかった, 右下肺病巣の術前確定診断は得られなかったが, 悪性腫瘍(T<sub>3</sub> N<sub>0</sub> M<sub>0</sub>)を疑い, 1987年12月1日, 手術を施行した,

**手術所見:** 全身麻酔下で右後側方切開施行, 右第5肋間, 第10肋間の2カ所で開胸, 肺は全周性に線維性癒着を示し, 下葉から中下葉間面にかけ小児手拳大の腫瘤を認めた, 腫瘤内に多量の壊死塊があった, 術中迅速標本では病理学的にclass Vであった, 右下葉横隔膜面は厚い脂肪層を介し, 強度に横隔膜と癒着がみられた, 横隔膜と肝は線維性に癒着していたが, 肝への腫瘍浸潤はみられなかった, 横隔膜の一部とともに右下葉切除術を施行した, 手術後分類はT<sub>3</sub> N<sub>0</sub> M<sub>0</sub>, stage IIIであった,

**病理組織検査:** 切除標本は6×12×10cm(写真2)で剖面は黄色であった, 肉眼的には脂肪組織・出血・自壊面が混在していた, 腫瘍と気管支との交通はなかった, 腫瘍細胞は楕円形・紡錐形で多角形の濃染クロマチン核をもっていた(写真3, 4), わずかに紡錐形の細胞質をもつきわめて未分化な間葉系細胞に似た細胞が大部分を占めていた, 軟骨形成部分もある, 腫瘍細胞が密に集まっている部分に異形成の強い立方上皮が形成されている,

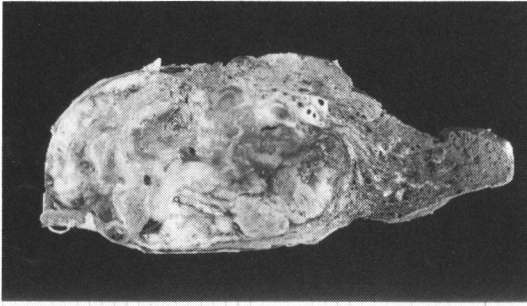


写真2 腫瘍断面

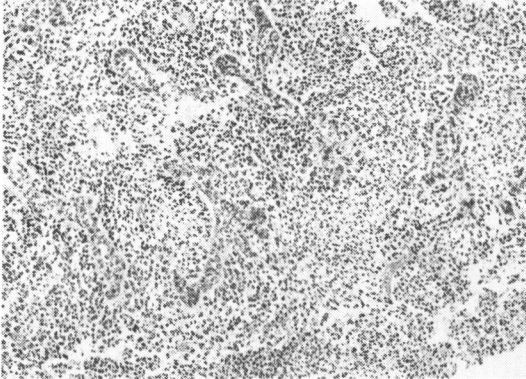


写真3 組織像 (H.E.×100)

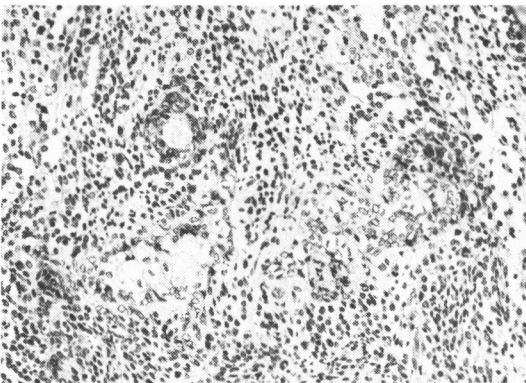


写真4 組織像 (H.E.×200)

一部では肺芽状に分岐するものも認められて、上皮はどれも、ケラチン陽性・KL-1陽性であった。これらの組織像から肺芽細胞腫と診断した。  
術後経過：良好で21日目に退院した。しかし術後23日頃より右季肋部腫脹が出現し、術後30日目、高熱、腹部膨満のため再入院となった。このとき



写真5 再入院時の胸部および上腹部 CT 像



写真6 化学療法後の胸部および上腹部 CT 像

の腹部CT(写真5)では腫大した肝内に腫瘤病変をみ、横隔膜を貫いて胸腔内の腫瘤と連続する病変がみられた。再入院時のNSE値は100.3で高値を示した。原発巣の肝転移および再発を考へ、1988年3月1日、下横隔動脈からマイトマイシン6mg、リビオドール、スポンゼルを注入し塞栓術を施行したが効果はみられなかった。腹水が貯溜するので、ときどき穿刺排液を繰り返した。腹水細胞診はclass Vであった。3月5日ビンデシン4mg、サイクロフォスファミド500mgを点滴注射した。この薬剤が奏効し、腫瘤は一部壊死状(写真6)となりperformance statusも4から2へと改善した。患者は歩行器を用いて歩くまでに回復した。NSE値も20.6と減少した。しかし、その後腹部膨隆および黄疸が増強し、NSEも31.7と上昇した。4月20日ころから呼吸困難が次第に増強し、1988年4月22日、呼吸不全で死亡した。

### 考 察

肺芽細胞腫は肺に発生する極めてまれな腫瘍であり、発生年齢は1~80歳代までさまざま<sup>3)~5)</sup>で、発症は男性に多い<sup>5)</sup>。本邦でこれまでに22例の報告があり、本例は文献上23例目となる。発生部位は一般に末梢性で、組織所見は胎児肺組織類似の構造を呈する上皮性成分と間葉系成分とから成る。本組織はrhabdomyosarcomatous, chondrosarcomatous, liposarcomatousのようにみえる<sup>5)</sup>。一般に内胚葉由来と考えられている<sup>6)</sup>。組織学上、悪性像を示すものも<sup>7)</sup>、良性像を示すものもある<sup>8)</sup>。

肺芽細胞腫の術前確定診断は困難といわれているが、その理由は腫瘍が末梢から気管や血管を圧排性に増大するためである。気管支鏡検査や細胞診が陽性になりにくい。Fungら<sup>4)</sup>の総説では19例中1例だけに、喀痰または気管支の細胞診が陽性だったという。

本症の治療として、早期の外科的完全摘出がのぞまれる。悪性度も症例により異なるが、本例では症状が悪化するまでかなり長期間経過したので、事情がゆるせばもっと早期の摘出も可能であったと考へる。

手術後の転移・再発も約2/3にみられ<sup>5)</sup>、手術後

の補助療法も重要である。一般には化学療法や放射線療法が施行されている<sup>9)</sup>が、その有効例の報告は少ない<sup>10)</sup>。われわれはマイトマイシンによる塞栓術とサイクロフォスファミド、ビンデシンによる全身化学療法を行なって、一時的症状改善を得た。またこれに伴ってNSE腫瘍マーカー値の減少を認めたことは興味深い<sup>11)</sup>。

### 結 語

61歳・男性の右下葉に発生した肺芽細胞腫を経験した。本症例では症状が悪化するまでかなり長期間を経過した(40年以上)。腫瘍と共に右下葉切除を施行したが、術後再発をきたし、術後約4カ月半で呼吸不全のために死亡した。

本報告を終るに当り御指導を頂いた新田・横山両教授をはじめ永年に亘り生涯教育を継続して下さいた名誉教授和田寿郎先生および教室の凡ての方々の御好意御援助に深く御礼を申し上げます。

### 文 献

- 1) **Barnard WG**: Embryoma of lung. Thorax 7: 299-301, 1952
- 2) **Spencer H**: Pulmonary blastomas. J Pathol Bacteriol 82: 161-165, 1961
- 3) **Karcioglu ZA, Someren AO**: Pulmonary blastoma. Am J Clin Pathol 61: 287-295, 1974
- 4) **Fung CH, Lo JW, Yonan TN et al**: Pulmonary blastoma. Cancer 39: 153-163, 1977
- 5) **Manivel JC, Priest JR, Watterson J et al**: Pleuropulmonary blastoma. Cancer 62: 1516-1526, 1988
- 6) 永井完治, 佐藤昭俊, 鬼頭隆尚ほか: 肉腫様成分を伴わない肺芽細胞腫の1例. 胸部外科 40: 687-690, 1987
- 7) 清水興一: 嚢胞性副肺に原発し胸腔に転移した肺芽細胞腫の1例. 小児がん 22: 273-274, 1987
- 8) 清水興一: 良性肺芽細胞腫の1例. 小児がん 22: 272, 1987
- 9) 金子 隆, 猪子佳代, 岡田典子ほか: 集学的治療が効を奏したと思われる pulmonary blastoma の1例. 小児がん 22: 258-260, 1987
- 10) **Kummet TD, Doll DC**: Chemotherapy of pulmonary blastoma: A case report and review of the literature. Med Pediatr Oncol 10: 27-33, 1982
- 11) 阿部正和: 症状からみた臨床検査. 日医師会誌 98: 254, 1987