

症 例

肺外性進展を来し、縦隔腫瘍との鑑別が困難であった
巨大肺過誤腫の1例原 拓央*, 太田 安彦, 太田 尚宏, 平沼知加志
渡辺 俊一, 小田 誠, 渡辺 洋宇

要 旨

症例は45歳, 女性. 胸部単純写真で異常陰影を指摘されて当科受診した. 胸部 CT および MRI では左肺動脈本幹に接して石灰化を伴う長径約 6 cm 大の腫瘍性病変が認められた. 前縦隔腫瘍を疑い, 胸骨正中切開で摘出術を行なった. 組織学的には気管支上皮や脂肪織の混入を伴い, 分葉状の軟骨組織の増生からなる過誤腫と診断された. 左肺上葉に発生した過誤腫は, 肺外への特異な進展を呈していた.

索引用語: 肺良性腫瘍, 過誤腫, 肺外増生, 巨大
pulmonary benign tumor, hamartoma, extra-visceral pleural growth, giant

はじめに

肺に発生する過誤腫は, WHO 分類で Tumor-like lesion の 1 つに, また肺癌取り扱い規約では非上皮性良性腫瘍の 1 つに挙げられており, 肺に原発する良性腫瘍の 2 ~ 5 割を占める比較的頻度の高い疾患である¹⁻³⁾. 発生部位から肺実質型, 気管支内型, 多発型などに分類され, 肺実質型は通常肺組織に被覆されて増生する³⁾.

今回我々は左肺上葉に発生し肺外への進展を来したため, 縦隔腫瘍との鑑別が困難であった巨大肺過誤腫の 1 例を経験したので報告する.

症 例

症 例: 45歳, 女性.

主 訴: 胸部異常陰影.

既往歴, 家族歴: 特記すべきことなし.

現病歴: 1999年1月に感冒のため近医受診した際, 胸部単純写真にて異常陰影を指摘され,

同年2月4日当科紹介入院となった.

入院時現症: 眼瞼結膜がやや貧血様であった他は, 胸部・腹部を含め, 特に異常所見を認めなかった.

入院時検査成績: Hb 9.5 g/dl の貧血以外に, 血算および生化学検査所見に異常を認めなかった. 腫瘍マーカーは胚細胞性腫瘍を想定した CEA, AFP, HCG, および縦隔型肺癌を想定した SCC, NSE すべて正常範囲内であった.

胸部単純 X 線所見: 左肺門部前方に最大径 6 cm 大の腫瘍性病変を認めた (Fig. 1).

胸部 CT 所見: 上行大動脈の左方に, 左肺動脈本幹に接して, 内部に斑状石灰化を有する充実性病変を認めた.

左肺との境界は比較的明瞭であったが, 縦隔との境界は不整かつ不明瞭であり, 左肺動脈本幹への浸潤の可能性も否定できなかった (Fig. 2).

胸部 MRI 所見: 腫瘍内部はほぼ均一で, T1 強調でやや低, T2 強調で高信号を呈した (Fig. 3).

以上より左肺原発を示唆する所見に乏しいと考え, 縦隔に原発した胸腺腫瘍 (特に浸潤性胸

金沢大学 第1外科

*現 富山赤十字病院 外科

原稿受付 2001年1月22日

原稿採択 2001年3月28日

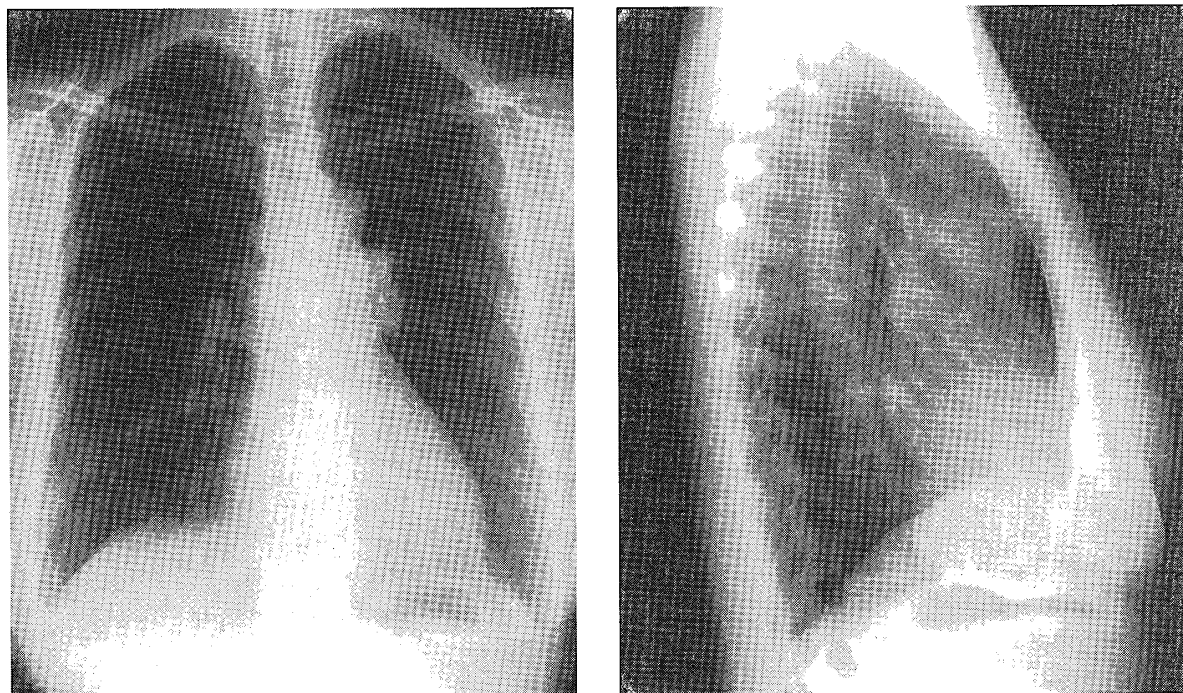


Fig. 1 Chest X-ray films showing a huge round mass shadow in front of the left hilum.

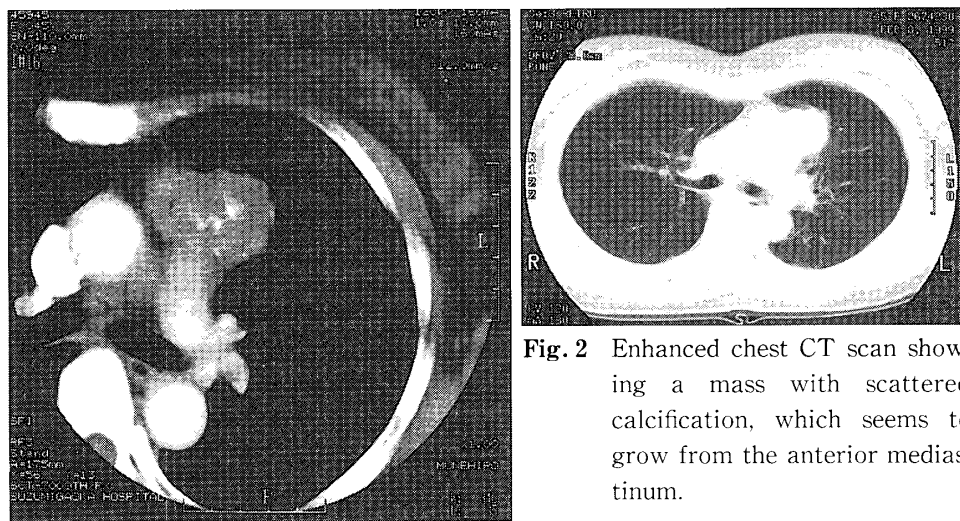


Fig. 2 Enhanced chest CT scan showing a mass with scattered calcification, which seems to grow from the anterior mediastinum.

腺腫), または胚細胞性腫瘍を疑った. 術中組織診断の結果によっては肺動脈を含めた拡大切除となる可能性に備えた上で, 1999年2月17日に手術を行なった.

手術所見: 右半側臥位で胸骨正中切開を行ない, 左開胸により腫瘍が露見された. 結節分葉状の腫瘍は硬性の滑沢白色調を呈し, 左肺原発と考えられた (Fig. 4). 心膜を切開したが心・大血管への浸潤はなく, 縦隔胸膜・心膜上部および胸腺と強く癒着していたため, 胸腺および左肺上葉の一部とともに腫瘍を摘出した (Fig.

5). 術中迅速病理診断で軟骨性過誤腫と判明した. 術後経過は良好で, 第22病日に退院とした.

組織学的所見: 腫瘍は $6.0 \times 5.5 \times 4.7$ cm大で, 組織学的には気管支上皮や脂肪織の混在する軟骨組織の分葉状増生からなり, 全体に石灰化を伴っていた (Fig. 6).

考 察

肺過誤腫は上皮性成分と間葉系成分の局所的増殖からなる腫瘍類似病変と考えられているが, 遺伝子異常を伴った真の腫瘍性病変とする報告

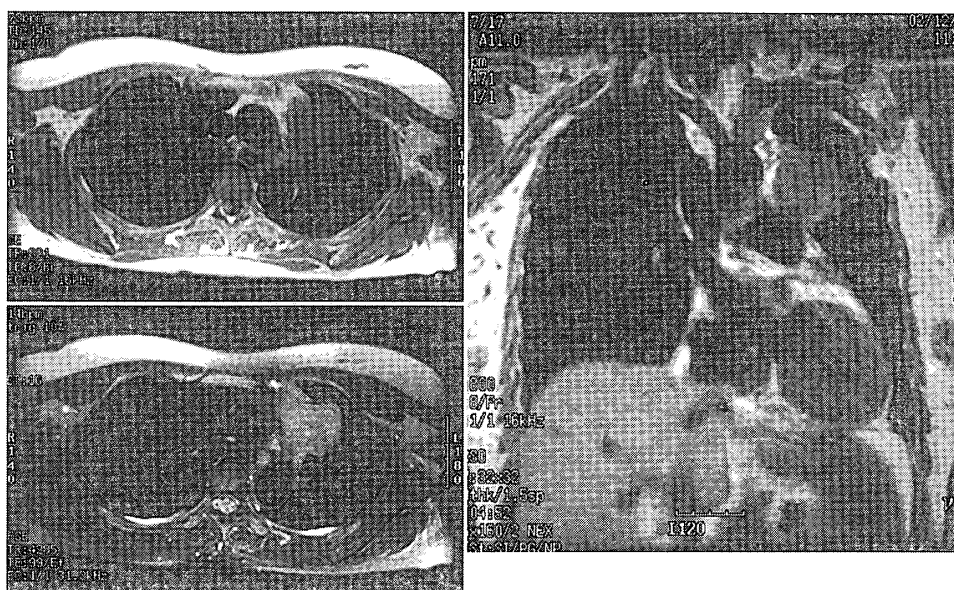


Fig. 3 Chest MRI showing same mass as CT. It displays a little low intensity in T-1 weighted image, and high in T-2.

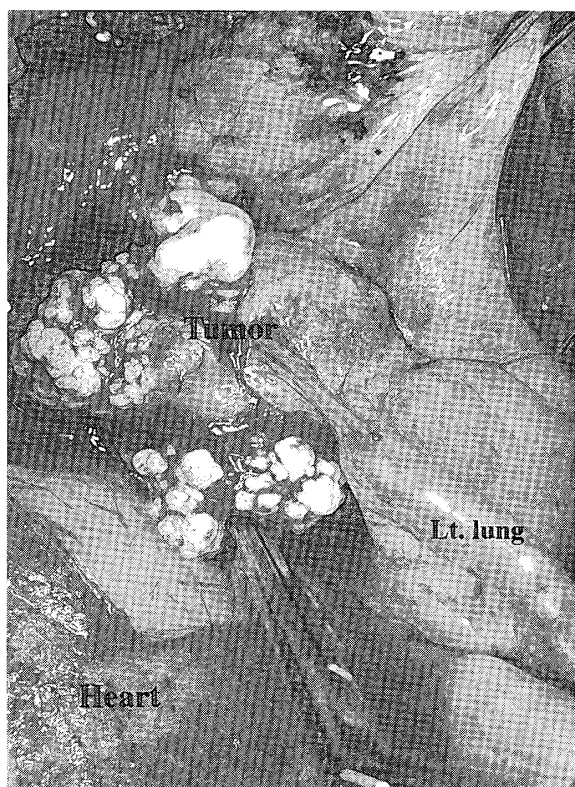


Fig. 4 Operative photograph demonstrating a solid tumor expanding from the left upper lobe.

もある⁴⁾。予後は極めて良好で、術前に確認のついた場合、無症状例で増大傾向の認められない小さな病変であれば手術適応外とする意見もある^{3,4)}。しかし悪性化の報告があること、また外科的に完全切除された場合で、組織学的に過誤

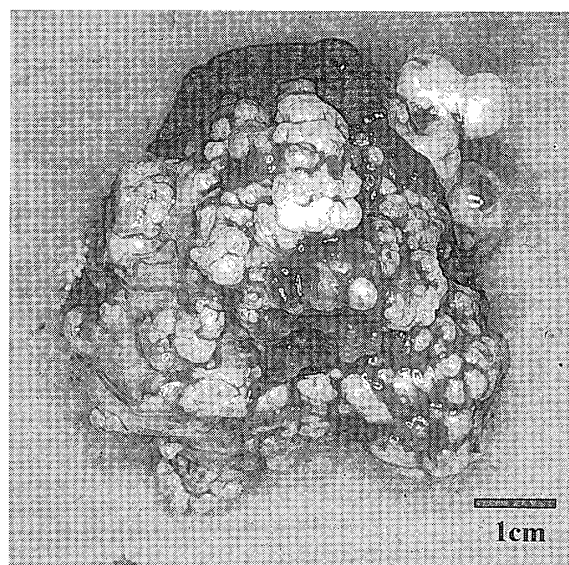


Fig. 5 Macroscopic view of the resected tumor, 6.0×5.5×4.7 cm in size, white, cartilaginously hard and lobulated with nodular regions.

腫と診断された症例に局所再発の報告はないことから選択的に外科的治療の必要性も考慮される^{5,6)}。

文献的には、50-60代の男性に好発し (57-66%)、発見時の大きさは平均2 cm 前後、多発例の占める頻度は3%以下、1年に数ミリの速度で成長するとされ、8割以上が肺実質型の軟骨性過誤腫とされる。このため有症状例が多いとされる気管支内型の症例をあわせても何らかの

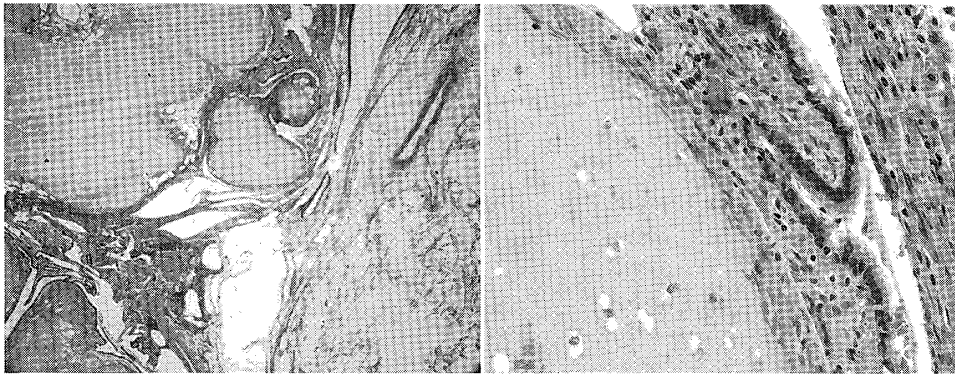


Fig. 6 Histological examination revealing that the tumor is chondromatous hamartoma without any malignant component (H-E stain 40 \times , 400 \times).

症状を呈する症例の頻度は全体の10%以下にすぎず、ほとんどが無症状の偶然発見例である^{4,6-9)}。

特殊な症例として長径30 cmに及ぶ巨大なもの、比較的急速に増大したもの、多発する非軟骨性病変で術前に転移性腫瘍との鑑別が困難であったもの、CA19-9産生能を有するものなどが報告されている^{7,10,11)}。

肺過誤腫は通常肺組織に被覆されて存在するが、自験例は臓側胸膜から肺外へ増生するという極めて特異な進展形式のため、術前に縦隔腫瘍との鑑別が困難であった³⁾。穿刺吸引細胞診が診断確定に有効との意見もあるが、本例の場合は到達経路、散布の危険などを鑑み適応外と考えた⁶⁾。このような症例では術中迅速病理診断による組織診の確定が必須と考えられる。本例は拡大切除となる可能性を想定して胸骨正中切開を行なったが、終始良好な視野の確保が可能であった。また過誤腫が縦隔側胸膜、心膜および胸腺と強く癒着しており完全摘出に際してこれらの合併切除を必要としたが、解剖学的制約がなければその大きさによらず核出術が必要かつ十分な術式と考えられた¹²⁾。

結 語

肺外への増生を主体とし、術前に縦隔腫瘍との鑑別が困難であった巨大な軟骨性過誤腫の1例を経験した。極めて稀な進展形式と思われる、若干の文献的考察を加え報告した。

文 献

- 1) WHO: Histological typing of lung tumors. *Am J Clin Pathol* **77**: 123-136, 1982.
- 2) 日本肺癌学会: 臨床・病理 肺癌取り扱い規約, 第5版, 107-109, 金原出版, 東京, 1999.
- 3) 渡辺洋宇, 藤村重文, 加藤治文: 臨床呼吸器外科, 第1版, 260-262, 医学書院, 東京, 1995.
- 4) Gjevre JA, Myers JL, Prakash UB: Pulmonary hamartoma. *Mayo Clin Proc* **71**: 14-20, 1996.
- 5) Basile A, Gregoris A, Antoci B, et al: Malignant change in a benign pulmonary hamartoma. *Thorax* **44**: 232-233, 1989.
- 6) Hansen CP, Holtveg H, Francis D, et al: Pulmonary hamartoma. *J Thorac Cardiovasc Surg* **104**: 674-678, 1992.
- 7) Ribet M, Jaillard-Thery S, Nuttens MC: Pulmonary hamartoma and malignancy. *J Thorac Cardiovasc Surg* **107**: 611-614, 1994.
- 8) Salminen US: Pulmonary hamartoma, A clinical study of 77 cases in a 21-year period and review of literature. *Eur J Cardio-thorac Surg* **4**: 15-18, 1990.
- 9) Colby TV, Koss MN, Travis WD: Tumor of the lower respiratory tract. In: *Atlas of tumor pathology, Third series, Fascicle 13*, 319-325, Armed Forces Institute of Pathology, Washington DC, 1995.
- 10) 永松和恵, 岩崎昭憲, 松添大助, 他: 肺過誤腫—比較的特異と考えられる症例を中心に—. *臨床胸部外科* **14**: 535-539, 1994.
- 11) Okabayashi K, Hiratsuka M, Noda Y, et al: Giant hamartoma of lung with a high production of carbohydrate antigen 19-9. *Ann Thorac Surg* **55**: 511-513, 1993.
- 12) Fujino S, Tezuka N, Sawai S, et al: Giant hamartoma of the lung. *Jpn J Thorac Cardiovasc Surg* **46**: 1229-1231, 1998.

A case of giant pulmonary hamartoma with extra-visceral pleural growth

*Takuo Hara, Yasuhiko Ohta, Naohiro Ohta, Chikashi Hiranuma
Shun-ichi Watanabe, Makoto Oda, Yoh Watanabe*

First Department of Surgery, Kanazawa University, School of Medicine

A rare case of giant pulmonary hamartoma with extra-visceral pleural growth is presented. A 45-year-old woman consulted us because of an abnormal shadow on chest roentgenogram. Chest CT and MRI showed a solid tumor (6 cm in diameter) with scattered calcifications between the anterior mediastinum and left lung, but it was quite difficult to confirm the tumor origin and to evaluate the relation with the left pulmonary artery. A thoracotomy revealed an extra-pulmonary mass rising out of left upper lobe, and it had to be excised and the surrounding tissue removed, with intraoperative histological diagnosis of cartilaginous hamartoma. It was concluded that, in such cases, intraoperative histological examination was essential to determine the optimum operative procedure.