

術前診断が困難であった

横隔膜原発良性限局性線維性胸膜中皮腫の1例

大阪大学大学院病態制御外科学 (第2外科), 大阪市立大学病院病理部*

近藤 礎 永野 浩昭 左近 賢人 清水 潤三
南 有紀子 堂野 恵三 中森 正二 梅下 浩司
若狭 研一* 門田 守人

症例は47歳の女性で、右横隔膜の挙上を主訴に来院した。術前の画像検索にて、左右肝動脈、右横隔膜下動脈により栄養される肝原発の横隔膜下腫瘍を強く疑い手術を施行した。しかし、術中所見により、肝臓の圧迫と右肺下葉への癒着または浸潤を伴う横隔膜原発の胸腔内腫瘍と診断し、右肺下葉部分切除、横隔膜合併切除を伴う腫瘍摘出術を施行した。腫瘍の大きさは14×10cmで、重さは1,300gであった。術後の組織学的検索では、腫瘍は異型性のない線維芽様細胞が密に配列しており、免疫組織染色の結果、keratin 陰性、epithelial membrane marker 陰性、S 100陰性、vimentin 陽性で、横隔膜原発の良性限局性線維性胸膜中皮腫と診断された。術後経過は良好で、12か月経過した現在、再発の徴候を認めていない。

はじめに

限局性胸膜中皮腫は比較的古まな疾患とされている。最近、我々は健診による胸部異常陰影を契機に発見された横隔膜原発の良性限局性線維性胸膜中皮腫の1切除例を経験したので、若干の文献的考察を加えて報告する。

症例：47歳、女性

主訴：右横隔膜挙上の精査

家族歴：特記すべきことなし。

既往歴：アスベスト曝射の職業歴なし。

現病歴：平成10年10月上旬、急性上気道炎と診断され、近医で治療を受けていた。その際、胸部X線撮影で右横隔膜の挙上を指摘され、精査、加療目的で当科に入院となった。

入院時現症：身長163cm、体重48kg、血圧110/76 mmHg、脈拍69/分、呼吸苦なく、表在リンパ節を触知しなかった。また、腹部は平坦、軟で自発痛、圧痛を認めなかった。

入院時一般検査所見：WBC 9,200/mm³、RBC 455万、Hb 10.2g/dl、Ht 32.6%、CRP 1.5mg/dl、T. P 7.0 g/dl、Alb 3.1g/dl、AST 34IU/L、ALT 38IU/L、

< 1999年11月30日受理 > 別刷請求先：門田 守人
〒565 0871 吹田市山田丘2 2, E 2 大阪大学大学院病態制御外科学 (第2外科)

HBs Ag(-), HBs Ab(-), HCV Ab(-), また、CEA, CA19 9, NSE, SLX, AFP, PIVKII は 陰性であった。

入院時画像所見：胸部X線撮影で右横隔膜の挙上を認めた(Fig. 1)。単純CTでは、横隔膜から肝上方に径14cm大の腫瘤を認め、肝実質との境界部には石灰化を伴っていた(Fig. 2 A)。造影CTでは、内部は不均一に増強効果を認め、肝実質との境界は不明瞭になった(Fig. 2 B)。また、腹部血管造影からは、左右肝動脈、右横隔膜下動脈が栄養血管と診断された(Fig. 3 A, B)。

以上より、横隔膜下に存在する肝臓原発の巨大腫瘍 (hemangiopericytoma, 神経原性腫瘍など) を強く疑い、手術を施行した。

手術：右季肋下斜切開で開腹したところ、腫瘍が横隔膜原発で、腹腔内ではなく胸腔内へと進展していることが明らかになったため、右季肋部斜切開を追加し、第7肋間にて開胸した。腫瘍は肝臓を圧迫するも癒着、浸潤はなかった。しかし、右肺下葉への癒着または浸潤が疑われたため、十分な切除断端距離をとるために、右肺下葉の一部と、横隔膜を合併切除した (Fig. 4)。手術時間は3時間10分、出血量は800mlで無輸血手術を施行した。

切除標本肉眼所見：摘出した腫瘍は弾性軟で、大き

Fig. 1 Chest X-ray film on admission shows an elevated right hemidiaphragm.



さは14×10cm,重さは1,300gであった。腫瘍は薄い被膜に被われ,表面平滑で光沢があった。断面は黄白色,充実性で出血や壊死を認めなかった(Fig. 5)。

切除標本病理所見:腫瘍は紡錘型の異型性のない線維芽様細胞が密に配列しており(Fig. 6),肺との境界に中皮細胞を有することから,肺に癒着した横隔膜原発の良性限局性線維性胸膜中皮腫と診断された。免疫染色では,keratin陰性,epithelial membrane marker陰性,S 100陰性,vimentin陽性(Fig. 7)であり,間葉組織由来と診断された。

術後経過:術後19病日で退院となった。12か月経過した現在,再発の徴候を認めていない。

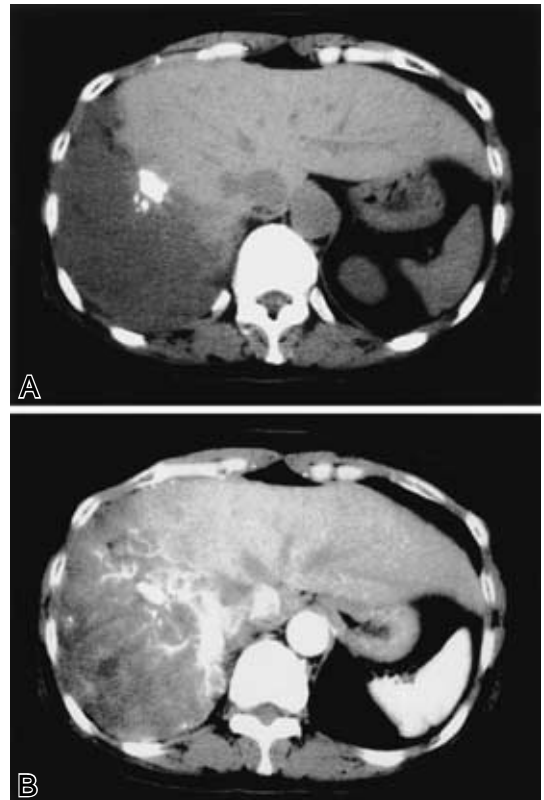
考 察

胸膜中皮腫は比較的古まれな疾患で^{1)~3)},1924年にZeckwer⁴⁾により命名され,発育形態からびまん性と限局性に分類された⁵⁾。その組織由来については中皮細胞由来説や間葉系細胞由来説などがあり,意見の一致をみていない⁶⁾⁷⁾。さて,その発生部位は今回,我々が検索しえた胸膜中皮腫208例のなかで,本症例のように,横隔膜より発生した症例は8例(3.8%)で,他の臓側胸膜144例,壁側胸膜52例(不明4例)由来に比してまれな病態と思われた。他の全国集計でも横隔膜原発は4.3%(2/46例)と同様の報告がある⁸⁾。

まず,これら横隔膜原発の胸膜中皮腫の診断につい

Fig. 2 A The tumor with calcification was recognized in the superior part of the liver.

Fig. 2 B Enhanced CT scan shows heterogeneous enhancement in the tumor.



ては,CT,MRI,血管造影などの画像により総合的に診断される。横隔膜原発の限局性胸膜中皮腫においては,CTやMRIで⁹⁾¹⁰⁾,術前の血管造影所見が記載されている良性の1例でも,自験例と同様に左右肝動脈と右横隔膜下動脈からの栄養をうけていた。また,これらの血管は腫瘍に流入する直前で合流しており,この点においても本症例と合致していた¹⁰⁾。15例に対して経皮的針生検がおこなわれ確定診断を得ていたが,経皮的針生検による播種の危険性を指摘し,早期の手術治療を推奨する報告¹¹⁾もあり注意を要する。

治療は,胸腔鏡下の切除術から開胸開腹術まで多様であり,腫瘍の大きさを考慮し,術中組織診断が良性で有茎性の場合には,横隔膜の修復も比較的容易であるため,胸腔鏡下切除術が有用とする報告もある。しかし,術前に有茎性が広基性かを明確にすることや術中組織診断で良性と確定診断することが困難である場

Fig. 3 Angiogram shows that hepatic artery (A) and right inferior phrenic artery (B) are main feeder of the tumor.

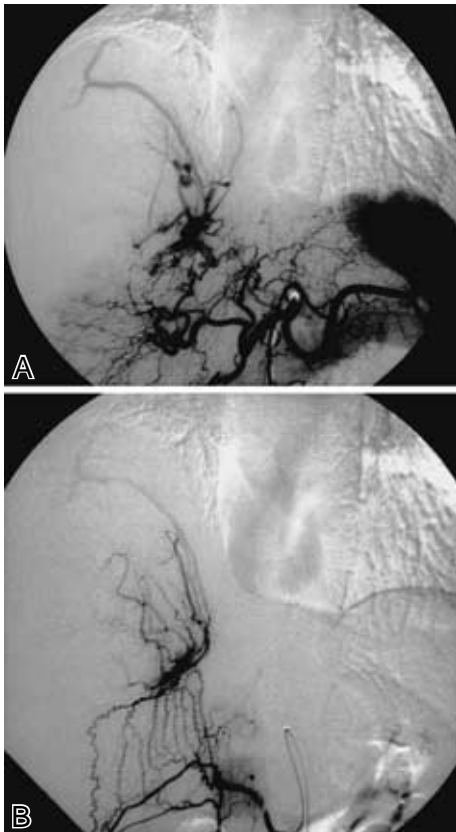


Fig. 4 The tumor was arising from the diaphragm (A) and attaches to the right lower lobe of the lung (B)

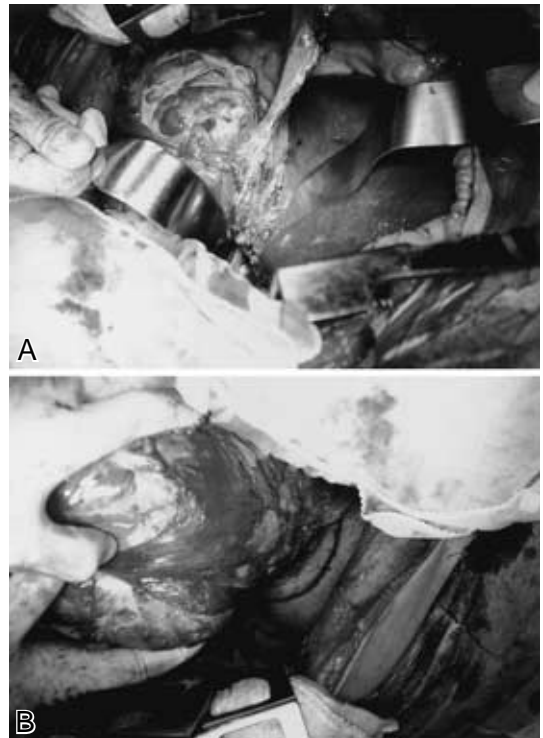
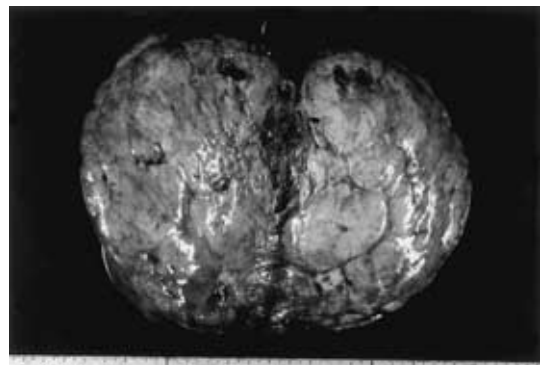


Fig. 5 Macroscopic findings : The tumor was encapsulated and measured 14 x 10 cm. Cut surface was yellowish white and lobulated.



合もあり，十分な患者説明が必要であることは言うまでもない⁹⁾。

一般的に間葉系腫瘍は腫瘍径と悪性度に相関があるとされる。全検索症例中，5cm 未満の症例は108例あり，このうち12例が悪性で，5cm 以上10cm 未満の症例は70例で，このうち11例が悪性，1例が低悪性であった。また，10cm 以上の症例は20例あり，このうち4例が悪性であり，不明例は10例であった。したがって，腫瘍径と悪性度の相関については明らかではなかった。一方，本症の組織型はWHOにより1)線維型，2)上皮型，3)混合型(二相型)に分類されている。これらと悪性度との関係は，線維型と診断された164例のうち1例が低悪性，3例が悪性で，上皮型の18例は16例が悪性で，混合型では16例のうち8例が悪性であった。また，不明例は10例であった。近年，細胞培養，電子顕微鏡，免疫染色などによる検討の結果，線維型は中皮下間葉

由来で良性がほとんどである一方，上皮型や混合型については，その発生が中皮細胞由来か，もしくは両者の移行型とされ，悪性度が線維型に比べてより高いとされている。これらの見解を考慮すると，組織型によ

Fig. 6 Microscopic findings : The tumor contained dense proliferation of spindle cells without mitosis. (Hematoxylin and eosin stain, $\times 50$)

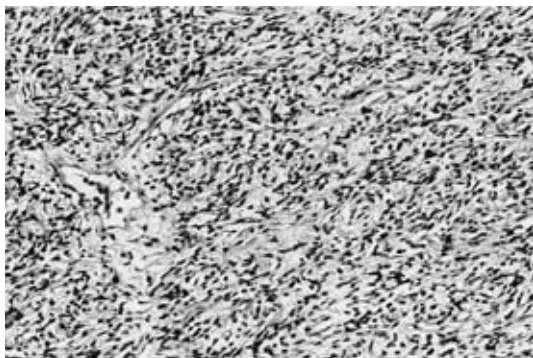
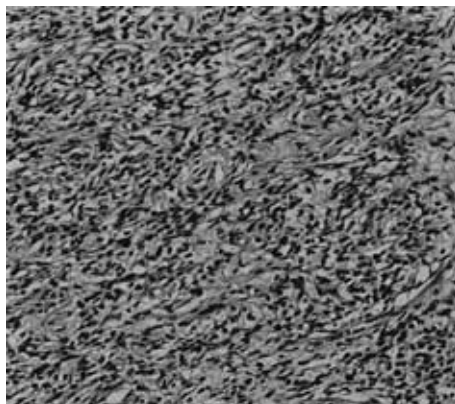


Fig. 7 Immunohistochemical staining showed vimentin positive.



て悪性度が規定されるため、腫瘍径は必ずしもその悪性度と相関しない一因と考えてもよいのかもしれない。また、興味深い知見としては、限局性胸膜中皮腫では約10%に胸水を認め、その45%が血性であるが、これらの症例は良性3例、悪性2例と血性胸水が必ずしも悪性の指標にはならないとしている¹²⁾。このことは、血管造影でみられた富血管性による易出血性なのか、それとも腫瘍の特性なのかは明らかではない。

最後に、再発、予後を見ると、良性と診断された症例でも再発例が4例あった。また、悪性再発が8例あり、初回手術時の診断も再発時の診断と同様であった。ただし、悪性の4例が原病死しているのに対し、良性例では原病死が1例もないことを考えると、良性と診断された症例は新発生なのかもしれない。今後、我々の症例においても良性、悪性の新発生を含めた再発の可能性があり、長期的な経過観察が必要と思われる。

稿を終えるにあたり、画像診断などのご指導を賜りました、大阪大学医学部放射線科の高橋 哲先生、中村仁信教授に深謝致します。

文 献

- 1) Okike N, Bernatz PE, Woolner LB : Localized mesothelioma of the pleura. Benign and malignant variants. J Thorac Cardiovasc Surg 75 : 369-372, 1978
- 2) 森永謙二, 横山邦彦, 瀬良好澄ほか : 悪性胸膜中皮腫 . 現代医療 16 : 286-293, 1984
- 3) 篠井金吾 : 原発性肋膜腫瘍の外科経験 . 臨外 2 : 6-9, 1947
- 4) Zecker IT : Mesothelioma of pleura. Arch Intern Med 34 : 191-205, 1924
- 5) Klemperer P, Rabin CB : Primary neoplasms of the pleura. A report of five cases. Arch Pathol Lab Med 11 : 385-412, 1931
- 6) Sout AP, Murray MP : Localized pleural mesothelioma investigation of its characteristic and histogenesis of tissue culture. Arch Pathol 34 : 951-954, 1942
- 7) Dalton WT, Zolliker AS, McCaughey WTE : Localized primary tumors of the pleura : an analysis of 40 cases. Cancer 44 : 1465-1475, 1979
- 8) 高木啓吾, 尾形利郎, 増田秀雄ほか : わが国における胸膜中皮腫に対する外科治療の現状 . 日胸 43 : 999-1002, 1984
- 9) 中村広繁, 田中宜之, 谷口雄司ほか : 限局性良性胸膜中皮腫に対する胸腔鏡下摘出術の1例 . 日胸 55 : 333-336, 1996
- 10) 川島健司, 横井香平, 松隈治久ほか : 17歳女性の横隔膜に発生した巨大限局性胸膜中皮腫 腫瘍倍加時間を算出できた1例 . 日胸外会誌 46 : 225-230, 1998
- 11) 坪田紀明, 八田 健, 吉村雅裕ほか : 胸膜中皮腫の診断と外科治療上の問題点 . 日胸外会誌 37 : 1493-1498, 1989
- 12) 知久信明, 大森一光, 北村一雄ほか : 血性胸水を伴う限局性胸膜中皮腫の1例 . 日胸外会誌 43 : 111-115, 1995

A Case of Benign Localized Fibrous Mesothelioma of the Diaphragm,
Which was Difficult to Diagnose Preoperably

Motoi Kondo, Hiroaki Nagano, Masato Sakon, Junzo Shimizu, Yukiko Minami, Keizo Dono,
Shoji Nakamori, Koji Umeshita, Kenichi Wakasa* and Morito Monden
Department of Surgery, Osaka University Graduate School of Medicine
Department of Pathology, Osaka City University Hospital*

A 47 year-old woman was referred to our hospital with an elevated right hemidiaphragm on a chest X-ray. Preoperative angiography showed a huge tumor with feeding arteries branching off the right and left hepatic and right subphrenic arteries, and surgery was performed with a preoperative diagnosis of subdiaphragmatic liver tumor. The intraoperative diagnosis was diaphragmatic tumor with liver compression and right lung invasion, and complete extirpation of the tumor with partial resection of the right diaphragm and right lower lung was performed. The tumor was 14 × 10 cm in size and weighed 1,300 g. Microscopically, fibroblastic tissue was tightly arranged with no evidence of dysplasia. Immunohistochemical staining showed keratin(-), epithelial membrane marker(-), S 100(-), and vimentin(+), and the final pathological diagnosis was benign localized fibrous mesothelioma of the diaphragm. The patient's postoperative course has been good, with no evidence of recurrence after 12 months.

Key words : diaphragm, benign tumor, localized fibrous mesothelioma

[Jpn J Gastroenterol Surg 33 : 367 - 371, 2000]

Reprint requests : Morito Monden Department of Surgery, Osaka University Graduate School of Medicine
2-2 Yamadaoka, E-2, Suita, 565-0871 JAPAN
