

症例報告

悪性リンパ腫との鑑別を要した慢性膿胸に合併した 横紋筋肉腫の1剖検例

太田 久宣 高橋 早織 高下 圭一
大井 伸治 田中 秀一 赤石 直之

はじめに

近年、長期間経過した人工気胸術を施行された慢性結核性膿胸患者に悪性腫瘍が合併するとの報告が多くみられる。慢性膿胸に合併する悪性腫瘍はその70%が悪性リンパ腫や扁平上皮癌であるといわれ、横紋筋肉腫の合併は比較的稀である。最近我々は慢性膿胸に合併した横紋筋肉腫の1剖検例を経験したので文献的考察を加え報告する。

症 例

症 例：77歳、男性

主 訴：呼吸困難、全身倦怠感、血痰

既往歴：昭和30年に肺結核のため両側人工気胸術を施行。

平成5年に腹部大動脈瘤のため人工血管置換術を施行。

家族歴：特記すべきことなし。

現病歴：平成10年6月下旬より微熱と全身倦怠感を自覚するようになった。同7月30日当科を受診、抗生剤の経口投与を受けたが改善しな

Key Words：慢性膿胸，横紋筋肉腫，悪性腫瘍

An Autopsy Case of Chronic Empyema Associated with Chest Wall Rhabdomyosarcoma

Hisanobu Ota, Saori Takahashi, Keiichi Kohge, Shinji Oi, Hideichi Tanaka, Tadayuki Akaishi

Department of Cardiovascular and Pulmonary Medicine, Nayoro City Hospital

名寄市立総合病院 循環器呼吸器内科

め精査目的で同8月14日当科に入院した。入院時の血液データ上白血球数 $7100/\mu\text{l}$ 、CRP 11.5mg/dl で胸部CT上左肩甲骨下を中心に低濃度域の存在を認めた。しかし発熱原因の特定には至らず対症療法にて退院し、再び外来通院していた。平成11年5月頃から左側胸部、腋窩の皮下腫瘤を自覚するようになり、左背部痛が生じるようになった。同9月初旬から血痰と呼吸困難、全身倦怠感がみられるようになり同9月5日当科を受診、肺炎、急性呼吸不全のため再入院した。入院時現症：身長 163cm 、体重 43kg 、血圧 $132/88\text{mmHg}$ 、脈拍 $108/\text{分}$ 、

体温 36.3°C 。全身のるいそうが著明で、左腋窩から左側胸部にかけて弾性軟、直径 10cm 大の皮下腫瘤を触知する。胸部聴診上、両側前胸部に fine crackle を聴取する。心雑音なし。腹部は陥凹し、軟。四肢に浮腫を認めない。

入院後の経過、検査所見：入院時検査所見（表）；好中球が主体の白血球増多と正球性正色素性貧血、胆道系酵素の上昇、軽度の低蛋白血症、CRPの上昇と血液ガス分析上著明な低酸素血症を認めた。腫瘍マーカーはCEA、SCC、NSEとも軽度の増加を認めた。

胸部X線像；二回目入院時（図1B）では両側の下葉に肺炎による浸潤影を認めた。左腋窩部の軟部組織陰影が初回入院時（図1A）に比べて拡大していた。

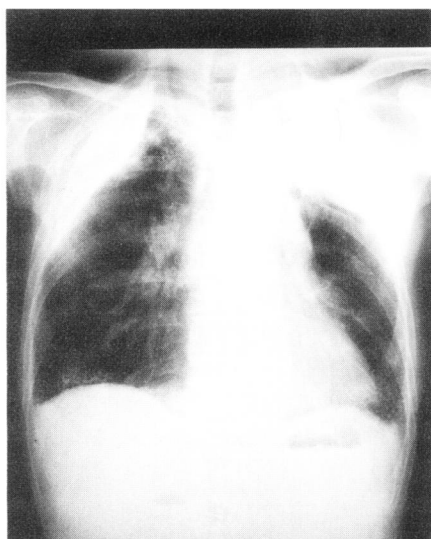
細菌性肺炎による急性呼吸不全と診断して抗生剤、ステロイド剤、気管支拡張剤などの点滴静注、人工呼吸管理を行ったが呼吸不全が進行し、同年9月24日死亡した。

初回入院時の胸部単純 CT 像 (図 2) :初回入院時の胸部 CT では、右胸腔内に石灰化した陳旧性胸膜炎を認めた。左胸腔内に下行大動脈に接して低濃度腫瘍陰影を認め、一部は肋骨を破壊し左肩甲骨下に広がっていた。

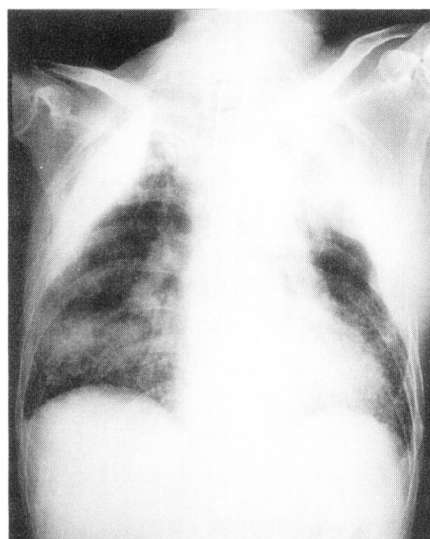
初回入院時の Ga シンチグラム像 (図 3) :初回入院時の Ga シンチグラムでは腫瘍に一致する部位に有為な集積増加は認めなかった。

剖検所見 (図 4) :皮下腫瘍の病理組織学的所見で

は細胞は多形性にとみ、大小不同、核異型、クロマチン不均一の細胞が一部粘液腫様、大部分は一定の構造を示さずに増生していた。免疫染色ではケラチンなどの上皮性マーカー、ミオグロビンなどの筋原性マーカー、組織球系のマーカーである PGM-1 はいずれも陰性だったが、phosphotungstic acid hematoxylin (PTAH) が弱陽性だった。以上より形態的特徴とあわせ多形型横紋筋肉腫と診断した。

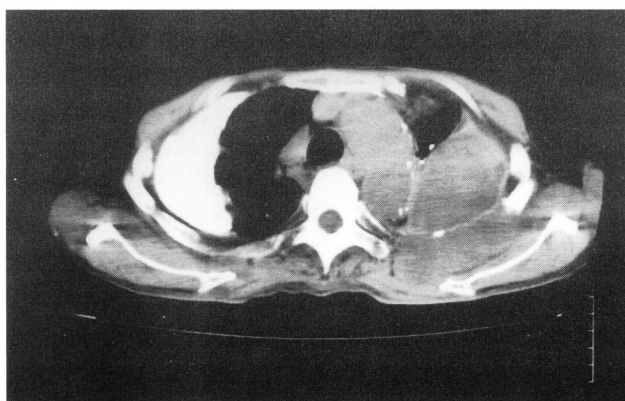


A 平成10年8月24日



B 平成11年9月6日

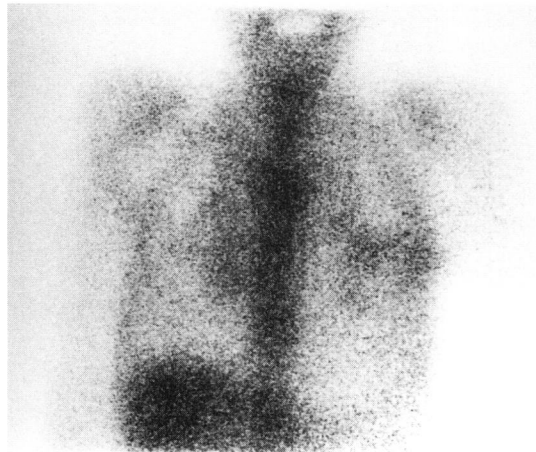
図 1 胸部 X 線像



平成10年8月28日
図 2 胸部単純 CT 像

表 入院時検査所見

CBC			Biochemistry			Tumor Marker		
WBC	13600	↑ /mm ³	GOT	17	IU/ ℓ	CEA	6.4 ↑	ng/ ml
Neu	89.4	↑ %	GPT	12	IU/ ℓ	SCC	2.9 ↑	ng/ ml
Lym	6.8	↓ %	LDH	249	↑ IU/ ℓ	NSE	18.4 ↑	ng/ dℓ
Mono	3.7	%	ALP	548	↑ IU/ ℓ			
Baso	0.1	%	γ GTP	259	↑ IU/ ℓ			
RBC	294 × 10 ⁴	↓ /mm ³	T.Bil	0.7	mg/ dℓ			
Hb	8.0	↓ g/ dℓ	TP	6.2	↓ g/ dℓ	EBV-antibody		
Ht	26.2	↓ %	BUN	26.5	↑ mg/ dℓ	anti-VCA		
Plt	25.6 × 10 ⁴	/mm ³	Cre	0.84	mg/ dℓ	IgG 160 ×		
			CRP	21.6	↑ mg/ dℓ	IgA <10 ×		
			Na	139	mEq/ ℓ	IgM <10 ×		
			K	4.3	mEq/ ℓ	anti-EBNA 20 ×		
			Cl	96	↓ mEq/ ℓ			
			BS	156	↑ mg/ dℓ			
BGA(O₂ 4 ℓ /min mask)								
pH	7.417							
Pco ₂	50.6	↑ Torr						
Po ₂	36.5	↓ Torr						
SaO ₂	69.5	↓ %						
HCO ₃	32.5	↑ mEq/ ℓ						



平成10年9月4日

図3 Gaシンチグラム像

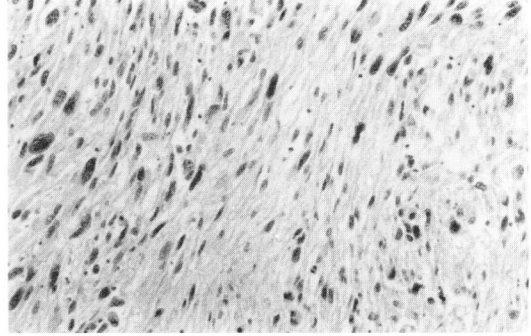
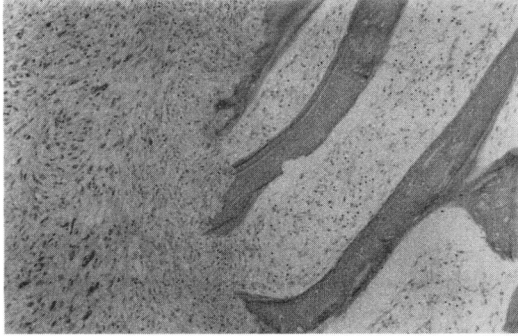


図4 病理組織像（左；×40，右；×400）

考 察

慢性膿胸、特に人工気胸術を施行された慢性結核性膿胸に合併する悪性腫瘍の報告が近年多く見られる。患者は平均60歳前後で男性に5～6倍多く発症し、初発症状は胸背部痛、胸壁腫瘍、咳嗽、血痰、呼吸困難、発熱などであり、特に痛みは通常の慢性膿胸ではあまり見られない症状である^{1) 2)}。

病理組織学的にはわが国では過半数が悪性リンパ腫といわれ、ついで扁平上皮癌が多く、両者をあわせて全体の70%を占めるとされている。こうした中で横紋筋肉腫の合併例の報告は少なく、虞ら³⁾は1968年から1991年までに報告された慢性膿胸合併悪性腫瘍122例を集計し、そのうち2例が横紋筋肉腫であったとしている。

慢性膿胸と悪性腫瘍の因果関係については不明な点が多いが、様々な検討がなされている。人工気胸術や胸郭形成術後に多く発生することから、手術が慢性刺激となることや、外科的処置後に肺結核が胸膜に広がり、結核性胸膜炎を合併する頻度が高くなることが一因といわれている¹⁾。また、慢性膿胸合併悪性リンパ腫はEBウイルスとの関連が指摘され、笹島ら⁴⁾は腫瘍に感染したEBウイルスのクローナリティを検索し、全例モノクローナルであったことからEBウイルスが細胞の腫瘍化に関わりがある可能性を示唆している。Roviaroら⁵⁾は結核性胸膜炎に合併した悪性胸膜中皮腫の発生について、病巣中のコレステロールが発癌物質と結合し、発癌性を高めるとしている。本例のような慢性膿胸に合併する横紋筋肉腫は、

症例数も少なく発生との因果関係を検討するまでには至っていないが、慢性化した炎症刺激が何らかの影響を与えているものと思われる。

慢性膿胸に合併する悪性腫瘍の診断に際しては胸部単純X線像での評価は困難であり、胸部CTやMRIの有効性が示されている^{6) 7)}。慢性膿胸に合併した悪性腫瘍のCTによる診断は70～80%で可能といわれている。所見としては膿胸周囲の異常な腫瘍影で、造影剤により腫瘍は造影される。しかし慢性結核性膿胸の再燃や胸壁流注膿瘍との鑑別は困難な場合が多い。MRIではその信号強度の差から膿胸と腫瘍の境界は明瞭に区別できるといわれる。また冠状断、矢状断の撮像が可能なおこともあり、周囲への浸潤の評価に有用性が高い。Gaシンチは特に悪性リンパ腫でその存在診断に有用と思われるが、慢性膿胸の再燃でも集積増加が見られる可能性があり、また本例の様に集積増加が見られない場合もあるため、補助診断にすぎないと思われる。腫瘍マーカーは悪性リンパ腫においてNSEの上昇が見られるため有用であるといわれる⁸⁾。本例のような横紋筋肉腫では特定の腫瘍マーカーの上昇についてはあまりいわれていないが、胸壁原発横紋筋肉腫の報告では白澤ら⁹⁾がCEA、渡辺ら¹⁰⁾がNSEの上昇をそれぞれ報告しており、これらの上昇が見られた場合には鑑別診断として考慮すべきであろう。上記のいずれもがそれだけでは確定診断には至らないため、最終的には組織学的な診断が必要である。

横紋筋肉腫は全固形悪性腫瘍の1%を占め、胸壁原発のものは稀である⁹⁾。胎児型、胞巣型、多

形型、混合型に分類され、本例で見られた多形型は高齢者の四肢に発生することが多い。組織学的には悪性線維性組織球腫との鑑別が問題となり、腫瘍細胞に横紋を認めるか、免疫染色でミオグロビンなどの筋原線維を証明する必要がある。本症例では組織球系のマーカーが陰性である一方、横紋の染色を示すPTAHが弱陽性であり、形態的特徴とあわせ最終的に多形型横紋筋肉腫と診断した。

横紋筋肉腫の治療は一般に外科治療、化学療法、放射線療法の併用である。化学療法ではCYVADIC療法（Cyclophosphamide、Vincristine、Adriamycin、Dacarbazine）やVAC-ADM療法（Vincristine、Actinomycin D、Cyclophosphamide、Adriamycin）が選択されることが多い。横紋筋肉腫のうちでも多形型は化学療法、放射線療法の感受性が低いといわれている。一般に慢性膿胸に合併した悪性腫瘍の予後は不良とされており、入院後1年以内に大多数が死亡するといわれる。一方慢性膿胸に対し膿胸腔の除去や清浄化のための手術を行ったものには腫瘍発生の報告が少ない⁸⁾。これらのことから腫瘍の早期診断はいうまでもないが、腫瘍発生の予防のため可能な限り慢性膿胸に対する手術は検討されるべきと思われる。

本症例は初診時ですでに全身状態があまり良好ではなく、この時点で確定診断されていたとしても長期予後の改善は望めなかったと思われる。しかし慢性膿胸に合併する悪性腫瘍にはしばしば疼痛が見られ、本例でも早い時点で確定診断されれば疼痛管理の面で患者のQuality of Lifeを改善できた可能性がある。

おわりに

慢性膿胸に合併した横紋筋肉腫の1剖検例を報告した。慢性膿胸合併悪性腫瘍の診断は困難な場合が多いが、CTやMRIなどの画像所見や組織学的所見から可能な限り早期に確定診断することが患者の予後の改善やQuality of Lifeの改善という点で重要である。なお、本件の要旨は第214回日本内科学会北海道地方会（於札幌、平成12年2月5日）で発表した。

謝 辞

本症例の剖検、病理組織診断に際し快く応じて下さった旭川医科大学第二病理佐藤啓介先生に心より感謝の意を表します。

文 献

- 1) 櫛橋民生, 森谷聡男, 高場利博, ほか: 慢性膿胸に合併する悪性腫瘍. 臨床画像 14: No.10 増刊 66 - 74, 1998.
- 2) 横井香平, 宮沢直人: 胸膜悪性リンパ腫. 別冊日本臨床 呼吸器症候群 (上巻): 778 - 780, 1994.
- 3) 虞善康, 丹羽宏, 山川洋右, ほか: 慢性膿胸に合併した肺癌の1例. 胸部外科 47: 336 - 339, 1994.
- 4) 笹島ゆう子, 森茂郎: 膿胸後リンパ腫. 最新医学 49: 1962 - 1965, 1994.
- 5) Roviario GC, Sartori F, Calabro F et al: The Association of Pleural Mesothelioma and Tuberculosis. Am Rev Respir Dis 126: 569 - 571, 1982.
- 6) 櫛橋民生, 清野哲孝, 小平泰永, ほか: 慢性結核性膿胸に合併した悪性腫瘍 CT及びMRIの役割. 臨放 41: 111 - 118, 1996.
- 7) 上村良一, 高島力, 小林健, ほか: 慢性膿胸に合併した悪性腫瘍のMRI. 日磁医誌 13: 197 - 203, 1993.
- 8) 井内敬二: 膿胸と悪性腫瘍. 医学のあゆみ 161: 980, 1992.
- 9) 白澤文吾, 杉和郎, 瀬山厚司, ほか: 成人胸壁原発横紋筋肉腫の1手術例. 日胸外会誌 44: 2187 - 2190, 1996.
- 10) 渡辺好明, 金山均, 加藤活大, ほか: 胸壁より発生した横紋筋肉腫の1例. 日胸疾会誌 29: 1311 - 1316, 1991.