

7歳女児に発生した小児胸腺腫の1手術例

庄村 心¹・高尾仁二¹・藤永一弥¹・矢田 公¹

要旨 **背景** . 小児縦隔腫瘍の中で、胸腺腫は稀と言われているが、7歳女児に発生した小児胸腺腫を経験したので報告する。**症例** . 7歳女児 . 左下葉の肺炎を加療中に胸部レントゲン、CT、MRIを行い、横隔膜に接し左胸腔内に突出する6 cm大の腫瘤を指摘された。縦隔腫瘍の診断で左側方切開下に腫瘍切除術を施行した。病理組織検査で断端は陰性であったが、被膜浸潤を伴う胸腺腫(正岡分類; stage II, WHO分類; type B1)と診断された。術後2ヶ月後より放射線50 Gyの外照射を施行した。**結論** . 小児胸腺腫に対して外科的切除、外照射を施行した1例を経験した。小児期での胸腺腫は稀であり、今後の長期経過観察を必要とすると考えられた。(肺癌. 2004;44:189-192)

索引用語 胸腺腫, 小児, 外科治療

A Case of Pediatric Thymoma

Shin Shomura¹; Motoshi Takao¹; Kazuya Fujinaga¹; Isao Yada¹

ABSTRACT **Background.** We report a rare case of pediatric thymoma. **Case.** An incidental chest radiograph of a 7-year-old girl revealed an anterior mediastinal tumor during treatment of pneumonia. A 6-cm mass was identified on the left side of the diaphragm. The tumor originated from the lower portion of the left lobe of the thymus. Resection of the mass was performed successfully via a left lateral thoracotomy. Histological examination revealed an encapsulated thymoma (Masaoka stage II, WHO classification Type B1) The patient received full mediastinal irradiation (50 Gy) following surgery, and the patient is currently without any evidence of recurrence. **Conclusion.** A pediatric thymoma was treated with complete resection and post-operative mediastinal irradiation. Thymoma in children is rare, and careful follow-up is necessary.(*JJLC*. 2004;44:189-192)

KEY WORDS Thymoma, Child, Surgery

はじめに

小児における縦隔腫瘍の中で胸腺腫は稀である。今回我々は、7歳女児に発生した胸腺腫を経験したので文献的考察も踏まえて報告する。

症例

症例：7歳，女児。
主訴：胸部異常陰影。

既往歴：特記すべき事項なし。

現病歴：2003年4月より近医にて左下肺野の肺炎を加療されていたが、胸部X線上の肺炎像が消失した後に、左下肺野に巨大な腫瘤陰影を指摘された。胸部CTにて縦隔腫瘍の診断で当科へ紹介となった。

入院時現症：身長131 cm，体重28 kg，血圧112/70 mmHg，脈拍85回/分・整，SpO₂100%，心雑音は聴取せず，左下肺野の呼吸音は減弱していた。重症筋無力症の合併は認めなかった。

¹ 三重大学医学部胸部外科。

別刷請求先：庄村 心，三重大学医学部付属病院胸部外科，〒514-8507 三重県津市江戸橋2-174 (e-mail: takao@clin.medic.mie-u.ac.jp)。

¹Department of Thoracic Surgery, Mie University School of Medicine, Japan.

Reprints: Shin Shomura, Department of Thoracic Surgery, Mie University School of Medicine, 2-174 Edobashi, Tsu, Mie 514-8507, Japan (e-mail: takao@clin.medic.mie-u.ac.jp)

Received February 9, 2004; accepted May 13, 2004.

© 2004 The Japan Lung Cancer Society

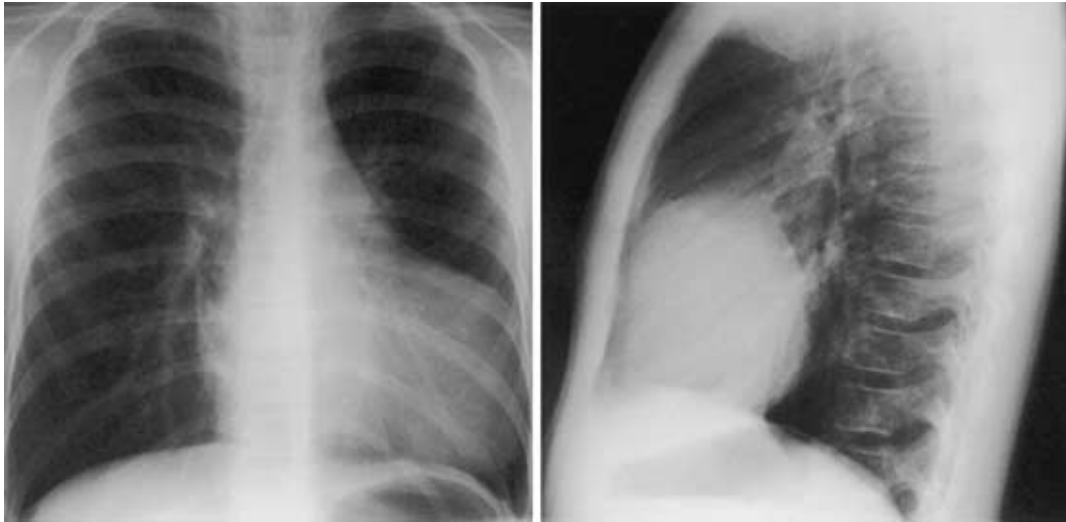


Figure 1. Chest X-ray film on admission shows a mass shadow in the left lower anterior lung field adjacent to the heart.



Figure 2. Enhanced chest CT shows a sharply demarcated inhomogenous huge mass in the left lower thorax.

入院時検査所見：末梢血検査，生化学検査に異常認めず，腫瘍マーカーは CEA 1.2 ng/ml，AFP 1 ng/ml，HCG 0.5 mIU/ml と正常範囲内であった。

胸部単純 X 線所見：左下肺野横隔膜上に径 6 cm 大の腫瘍陰影を認めた (Figure 1)。

胸部造影 CT 所見：辺縁整で内部は不均一に造影されていた (Figure 2)。

MRI 所見：腫瘍は T1，T2 強調像共に高信号域と低信号域が混在しており，脂肪と軟部組織の混在した病変が示唆された。横隔膜，胸壁，心膜への直接浸潤は，否定的であった (Figure 3)。

以上より良性縦隔腫瘍と診断し，手術を施行した。

手術所見：左側方切開，第 6 肋間開胸で手術を施行した。腫瘍は被膜に被われ表面平滑，弾性硬で，周囲との

癒着は認めなかった。腫瘍は胸腺左葉下端と連続しており，正常胸腺の一部と共に切除した。迅速病理学的検査で胸腺腫と診断し，断端の陰性を確認して手術を終了した。手術時間は 1 時間 10 分，無輸血であった。

切除標本：腫瘍径は 9 × 9 × 6 cm。断面の肉眼所見は淡黄色で，壊死等は認めなかった (Figure 4)。

病理組織学的所見：腫瘍内には，ハッセル小体を多数認め，一部に卵円形の核を持つ上皮細胞を混在するリンパ球優位型の胸腺腫と診断された。腫瘍は分葉状に区切られており，被膜の形成を認めたが一部では被膜への浸潤を認めた。以上より，invasive thymoma，lymphocyte predominant，polygonal-oval cell with slight atypia，正岡の分類 II 期，WHO 分類 type B1 と診断した (Figure 5)。

術後経過：術後経過は良好で，術後第 8 日目に退院となった。術後 2 ヶ月より，縦隔に 50 Gy の外照射を施行した。術後 10 ヶ月現在，再発なく外来にて経過観察中である。

考 察

成人における縦隔腫瘍の中では胸腺腫が最も多いが，小児では胸腺腫は稀である。Takeda ら¹は 1951 年から 2000 年までに経験した小児 (15 歳未満) 縦隔腫瘍 130 例を検討し，頻度順に神経原性腫瘍 46%，胚細胞性腫瘍 19%，リンパ腫 13%，先天性嚢胞 8%，胸腺腫 4% と報告している。

我々が Med Line (1950 年 1 月から 2003 年 12 月まで) にて Thymoma と Child，Pediatric または Infant にて検索し得た文献報告例は 12 例のみであった。内訳は男 9 例，女 3 例で invasive thymoma と記載があったものは 7

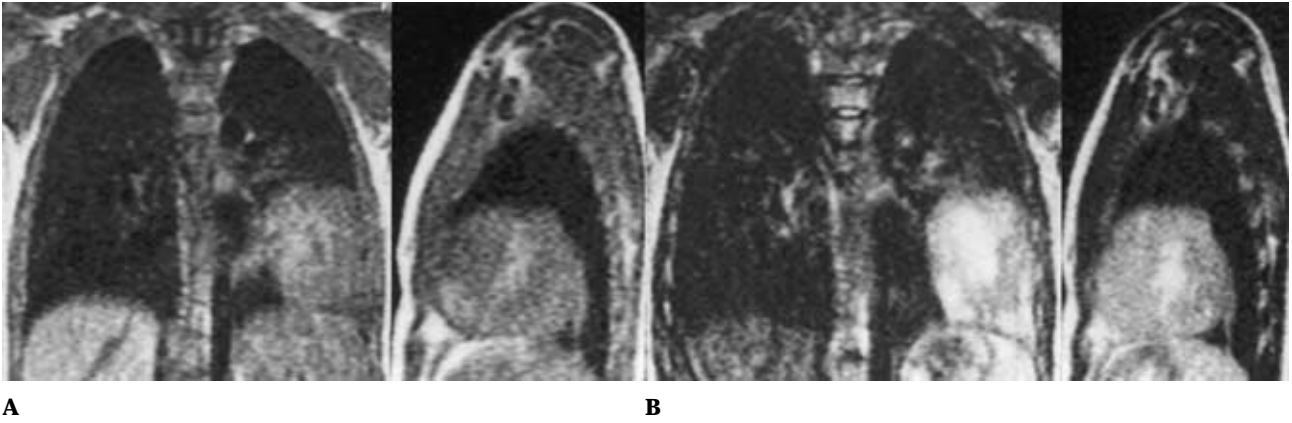


Figure 3. MR imaging (**A**: T1-weighted imaging, **B**: T2-weighted imaging) shows a mass shadow in the left lower lung field. The diaphragm, pericardium and thoracic wall are not invaded.

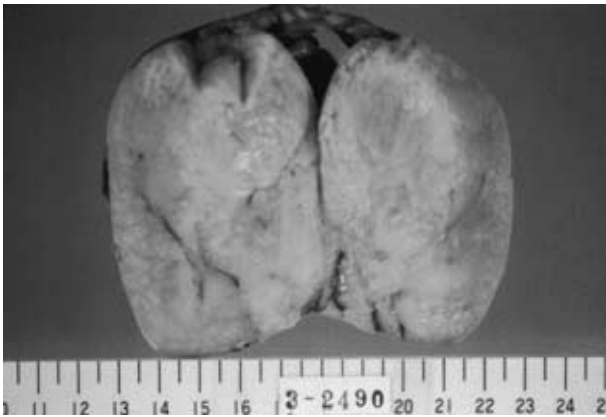


Figure 4. Macroscopic cross-sectional appearance of the tumor is well-defined and yellowish.

例と多かった^{2,8} 一方、本邦でも2003年にKondoら⁹が胸腺上皮性腫瘍の全国アンケート結果を報告しており、胸腺腫1082例中15歳以下の症例は3例(0.3%)と稀であった。この3例とも組織学的には本例と同じくリンパ球優位型で、胸腺胸腺腫摘出術、あるいは拡大胸腺摘出術が施行されていた。いずれも肉眼的遺残は認めず、術後補助療法は行われていなかった(徳島大学医学部第2外科:近藤和也先生私信)。

胸腺腫の外科切除の予後に関しては、成人例では多く報告されている。Kondoら⁹の全国アンケート集計によると、正岡分類別にみた10年生存率はI期で100%、II期で98.3%、III期で89.2%、IVa期で73.1%、IVb期で63.5%(II期とIII期、III期とIV期には有意差あり。P<0.0001, P<0.0015)であった。また、藤永ら¹⁰はWHO分類別にみた10年生存率をtype A, AB, B1は100%で、

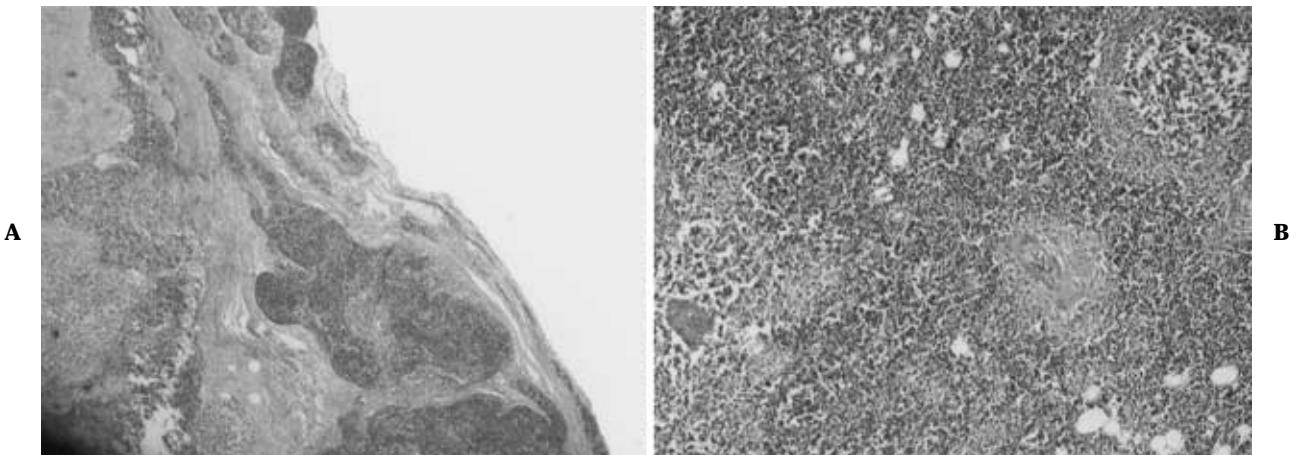


Figure 5. Microscopic findings show capsular invasion of the tumor cells (**A**: H.E. stain $\times 5$) and lymphocyte predominant morphology with Hassall's bodies (**B**: H.E. stain $\times 20$)

それ以外のものに比べて有意に予後良好であると報告している。Chen ら¹¹も、予後良好な I 期, II 期の胸腺腫においても WHO 分類の type B2, B3, C は A, AB, B1 に比べて有意に予後不良であると報告している。

発生年齢と予後について, Resbeut ら¹²は 30 歳以下の若年者は進行例が多く, 有意な予後不良因子 ($P < 0.006$) であると述べている。しかし本邦の集計では, 過去の文献的報告の集計とは異なり, 必ずしも小児胸腺腫において進行例が多い訳ではなかった。本例の場合も正岡 II 期, WHO 分類 B1 であり, 術後再発の可能性は低いと考えられた。しかし, 当科では正岡の II 期以上の症例に対しては, 術後に縦隔照射を施行する方針としていることより, 本例でも術後に 50 Gy の外照射を施行した。術後放射線治療の効果に関しては一定の見解は得られていないが, Ogawa ら¹³は胸腺腫完全切除後に縦隔照射を施行した 103 例の検討で, 胸膜浸潤を認めなかった症例では再発を認めなかったが, 胸膜浸潤があった症例では 38% に胸膜播種を主体とした再発を認めたと報告している。また, 正岡分類¹⁴の II 期は, a) 被膜内浸潤と b) 被膜を越えて周囲脂肪織へ達するもの及び縦隔胸膜浸潤例が含まれているが, Ogawa らの結果も被膜内浸潤の II 期 51 例には胸膜関連再発を認めていないが, 縦隔胸膜浸潤の II 期 10 例では 4 例の胸膜関連再発を認めており, 局所コントロールには放射線治療は有効である可能性があるが, 縦隔胸膜浸潤例においては, 胸膜播種の予防には不十分であると考えられ, 無作為比較試験などの検討の余地があると考えられる。

一方, 小児期における胸腺全摘の適否に関しても明確な解答は得られていない。Wells ら¹⁵は, 小児開心術時の胸腺摘除例を検討し, 新生児期での胸腺全摘除では細胞性免疫能の低下を認めると報告しているが, 明確な年齢基準は示していなかった。周囲への浸潤も認めず, 切除断端も陰性であったことより, 本例では胸腺全摘除を施行しなかったが, 術後の縦隔への外照射と胸腺全摘除の適否に関しては不明な点が多い。従って, 今後長期にわたる経過観察は肝要と考えられる。

以上, 小児期に発見された胸腺腫の 1 例を報告した。

REFERENCES

1. Takeda S, Miyoshi S, Akashi A, et al. Clinical spectrum of primary mediastinal tumors: a comparison of adult and pediatric population at a single Japanese institution. *J Surg Oncol.* 2003;83:24-30.
2. Furman WL, Buckley PJ, Green AA, et al. Thymoma and myasthenia gravis in a 4-year-old child. Case report and review of the literature. *Cancer.* 1985;56:2703-2706.
3. Shibata K, Koga Y, Onitsuka T, et al. Primary malignant thymoma in a 6-year-old boy. *Jpn J Surg.* 1986;16:439-442.
4. Van Haelst UJ, Holland R. A malignant mediastinal tumor, unclassified, most consist with thymoma in a 9-year-old girl. *Ultrastruct Pathol.* 1987;11:793-799.
5. Aghaji MA, Uzuegbunam C. Invasive thymoma and myasthenia gravis in a three-and-a-half-year-old boy: case report and literature review. *Cent Afr J Med.* 1990;36:263-266.
6. Lam WW, Chan FL, Lau YL, et al. Paediatric thymoma: unusual occurrence in two siblings. *Pediatr Radiol.* 1993; 23:124-126.
7. Groisman GM, Ben-Izhak, Best LA. Thymoma with foci of medullary differentiation in an 11-year-old-boy. *Arch Pathol Lab Med.* 1994;118:653-655.
8. Ocal T, Turken A, Ciftci AO, et al. Thymic enlargement in childhood. *Turk J Pediatr.* 2000;42:298-303.
9. Kondo K, Monden Y. Therapy for thymic epithelial tumors: a clinical study of 1,320 patients from Japan. *Ann Thorac Surg.* 2003;76:878-884.
10. 藤永一弥, 高尾仁二, 蔡 銘, 他. 胸腺上皮性腫瘍外科治療成績の検討 臨床における WHO 分類の位置付け. 胸部外科. 2002;55:921-925.
11. Chen G, Marx A, Wen-Hu C, et al. New WHO histologic classification predicts prognosis of thymic epithelial tumors: a clinicopathologic study of 200 thymoma cases from China. *Cancer.* 2002;95:420-429.
12. Resbeut M, Mornex F, Richaud P, et al. Radiotherapy of thymoma. Study of the literature apropos of a retrospective and multicenter series of 149 cases. *Bull Cancer Radiother.* 1995;82:9-19.
13. Ogawa K, Uno T, Toita T, et al. Postoperative radiotherapy for patients with completely resected thymoma: a multi-institutional, retrospective review of 103 patients. *Cancer.* 2002;94:1405-1413.
14. Masaoka A, Monden Y, Nakahara K, et al. Follow-up study of thymomas with special reference to their clinical stage. *Cancer.* 1981;48:2485-2492.
15. Wells WJ, Parkman R, Smogorzewska E, et al. Neonatal thymectomy: dose it affect immune function? *J Thorac Cardiovasc Surg.* 1998;115:1041-1046.