

胸壁から発生し胸腔内へ進展した脂肪肉腫の1例

小林 哲¹・澤端章好¹・苅部陽子¹・
吉井直子¹・本間浩一²・三好新一郎¹

要旨—— **背景**. 胸壁発生の胸腔内進展脂肪肉腫は自験例も含めて23例の報告を認めるのみで、非常に稀な疾患である。我々は本疾患の1切除例を経験した。**症例**. 患者は39歳女性。腰痛、右下肢痛にて近医を受診し、左胸壁腫瘍、腰部腫瘍、左腎腫瘍を指摘され紹介となった。胸部CTで左胸腔内に突出する胸壁腫瘍を認めた。胸壁の針生検で脂肪肉腫と診断した。胸壁腫瘍は急速に増大し、呼吸状態も悪化したため手術を施行した。病理組織検査で円形細胞型と混在した粘液型脂肪肉腫と診断した。胸壁と腰部にcisplatinを併用した同時化学放射線療法を施行し独歩可能となり退院した。4ヶ月後、肺・肝・大腿部筋組織・骨盤に転移を認め再入院。放射線治療と化学療法を施行し各転移巣の急速な増大は抑えられ、特に同時化学放射線療法を施行した大腿部は画像上増大を認めなかった。しかしながら術後1年2ヶ月目に腫瘍死した。剖検では胸壁の局所再発は認めなかった。**結論**. 脂肪肉腫に対して外科切除後に同時化学放射線療法を行い、局所再発を認めなかった。同時化学放射線療法は転移巣に対し有効と思われた。(肺癌. 2006;46:753-758)
索引用語—— 胸壁脂肪肉腫, 胸腔内脂肪肉腫, 胸腔, 外科切除, 同時化学放射線療法

Liposarcoma of the Chest Wall —Case Report and Review of Literature—

Satoru Kobayashi¹; Noriyoshi Sawabata¹; Yoko Karube¹;
Naoko Yoshii¹; Koichi Honma²; Shinichiro Miyoshi¹

ABSTRACT—— **Background**. Liposarcoma of the chest wall is extremely rare. To the best of our knowledge, only 23 cases have been reported, including the present case. **Case**. A 39-year-old woman complaining of lumbago and right leg pain visited a local clinic. Radiological studies demonstrated abnormal shadows in the left pleural cavity, right lumbar area, and left kidney and she was referred to our hospital. A CT-guided needle biopsy of the chest tumor revealed a liposarcoma. Thereafter, since the patient experienced dyspnea caused by a rapid growth of the chest tumor, it was resected. The pathological diagnosis of the tumor was a myxoid liposarcoma that included round cell neoplasm components. The patient was given an ambulatory discharge following concurrent chemoradiation therapy (CRT) including cisplatin to the chest wall and lumbar area. However, she was readmitted 4 months later, because of multiple metastases in the lung, liver, thigh, and pelvis. Radiation therapy and chemotherapy were effective to suppress the rapid growth of the metastatic lesions, and the metastatic lesion in the thigh was particularly well controlled. Although the patient died 1 year and 2 months after surgery, autopsy revealed no recurrence in the chest wall. **Conclusion**. Surgical resection and postoperative CRT were considered to be effective for local control of a liposarcoma of the chest wall. Furthermore, the CRT seemed to be also effective for control of the metastatic lesions. (*JJLC*. 2006;46:753-758)

獨協医科大学 ¹胸部外科, ²形態病理.

別刷請求先: 小林 哲, 獨協医科大学胸部外科, 〒321-0293 栃木県下都賀郡壬生町北小林880 (e-mail: kobayasi@dokkyomed.ac.jp).

¹Department of Cardiothoracic Surgery, ²Department of Pathology, Dokkyo Medical University School of Medicine, Japan.

Reprints: Satoru Kobayashi, Department of Cardiothoracic Surgery, Dokkyo Medical University School of Medicine, 880 Kitakobayashi, Mibu, Tochigi 321-0293, Japan (e-mail: kobayasi@dokkyomed.ac.jp).

Received May 18, 2006; accepted August 23, 2006.

© 2006 The Japan Lung Cancer Society

KEY WORDS — Liposarcoma of the chest wall, Intrathoracic liposarcoma, Pleural cavity, Surgical resection, Concurrent chemoradiation therapy

はじめに

脂肪肉腫は軟部組織悪性腫瘍の中では比較的発生頻度が高く、四肢や臀部、後腹膜に好発するが、胸壁から発生することは稀である。胸壁から発生し胸腔内へ進展したと考えられた脂肪肉腫の1切除例を経験したので、文献的考察を加えて報告する。

症 例

患者：39歳，女性。

主訴：腰痛，右下肢痛，右下肢不全麻痺。

家族歴：特記すべきことなし。

既往歴：特記すべきことなし。

現病歴：2004年11月上旬頃から腰痛，右下肢痛，右下肢不全麻痺が出現したため，近医整形外科受診。諸検査にて左腎腫瘍，左胸壁腫瘍，右腰部腫瘤が認められ，当院紹介入院となった。

入院時現症：身長142cm，体重57kg，血圧・脈拍・体温に異常なし。眼球・眼瞼結膜，腹部に異常所見を認めず，表在リンパ節も触知しなかった。胸部聴診上，左上肺野領域で呼吸音の減弱を認めた。また右下肢不全麻痺による起立・歩行障害があり，車椅子での生活であった。

入院時検査所見：白血球 $13.6 \times 10^9/l$ と軽度の上昇を認める以外に血液・生化学検査に異常はなく，腫瘍マーカーも正常であった。

入院時胸部単純X線写真と胸部CT：入院時単純X

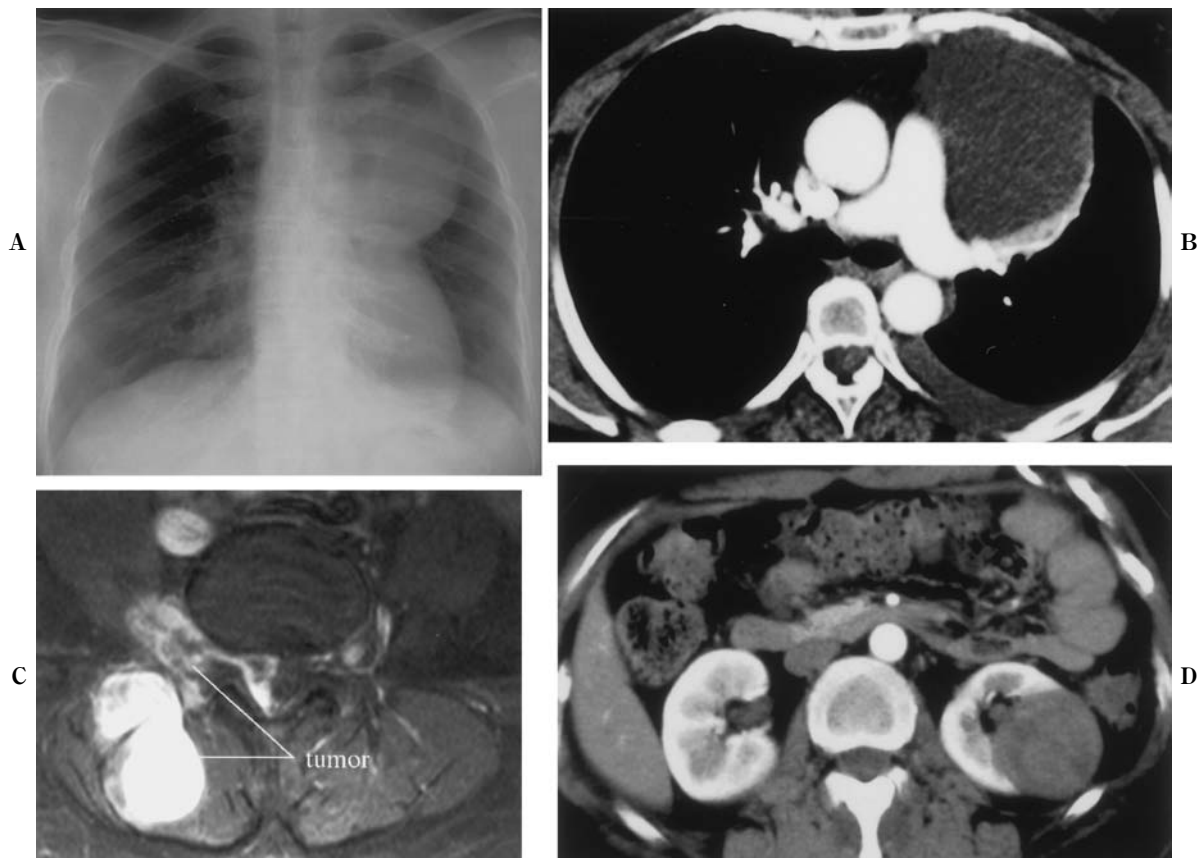


Figure 1. Radiological findings. Chest radiograph showing a homogeneous high-density shadow in the left upper lung field (A). Enhanced chest CT scan showing a large mass shadow originating from the intrathoracic chest wall, which compresses the hilum of the left lung (B). Hip MRI showing metastatic lesions in the L1 vertebra and soft tissue on the right side (C). Enhanced abdominal CT scan showing a metastatic lesion in the left kidney (D).

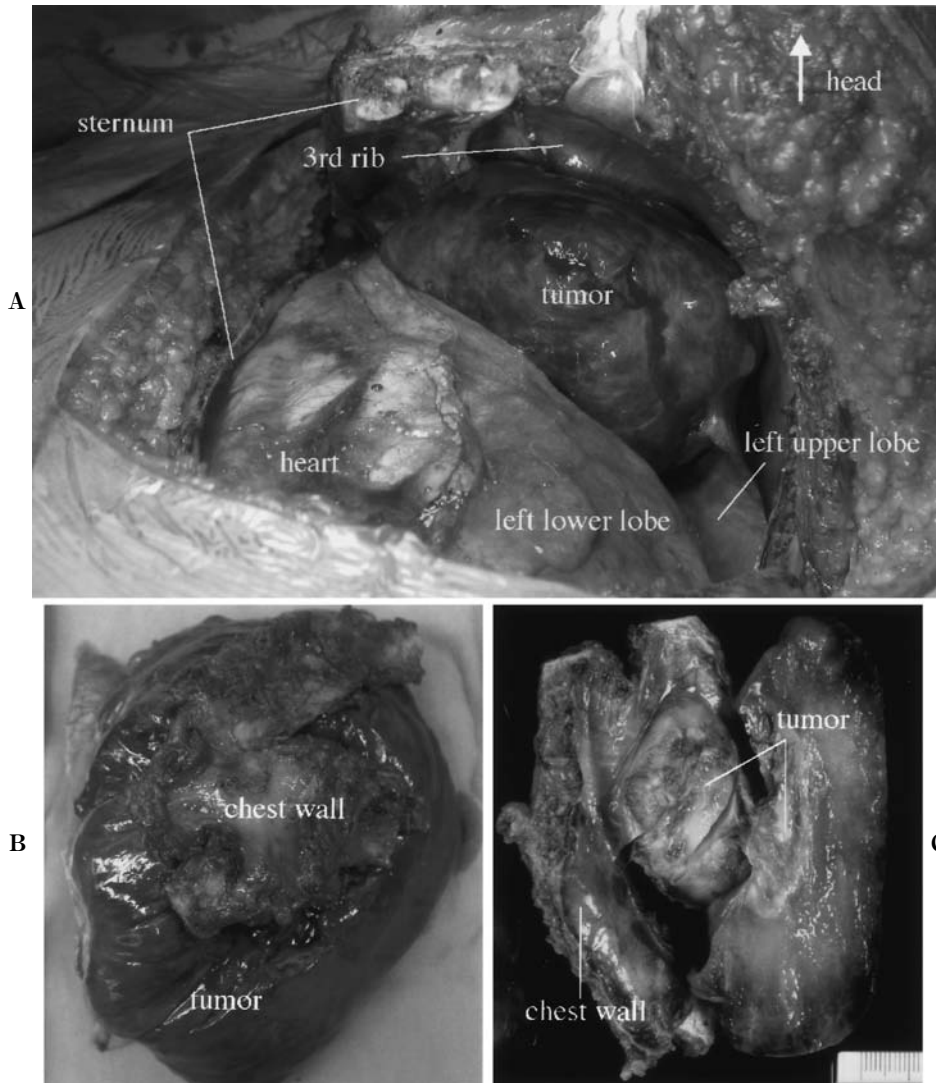


Figure 2. Operative field demonstrating a large tumor occupying the upper area of the chest cavity (A). Macroscopic photographs showing an extirpated tumor (B and C).

線写真では左上肺野に縦隔影と重なる腫瘤状陰影を認めた (Figure 1A)。胸部CTでは胸壁を基部とし、大動脈弓、肺動脈主幹部と接する腫瘤影を認めた。腫瘤影は辺縁整、内部は充実性で water density とほぼ同吸収域であった。また少量の胸水を認めた (Figure 1B)。

入院時腰部MRI (Figure 1C)：腰椎L1の異常影とその右側軟部組織内に3.5×2.5 cm大の腫瘤影を認めた。

入院時腹部CT (Figure 1D)：左腎に3×3 cmの辺縁整な円形腫瘤影を認めた。

CTガイド下に胸壁、腰部の各腫瘤の針生検を行い、いずれも脂肪肉腫の組織診断を得た。胸壁の腫瘤が最も大きいこと、腎および腰部腫瘤は画像上、転移性病変の可能性が高いと判断されたことより、全身転移を伴う胸壁原発の胸腔内進展脂肪肉腫と診断した。

入院後、胸壁腫瘍の急激な増大、胸水増加を認め、呼吸状態も悪化して来たことから救命目的で準緊急的に胸壁腫瘍摘出術を施行した。

手術所見 (Figure 2A)：胸骨正中切開と左第5肋間に沿う前側方切開を組み合わせたL字型切開で開胸した。胸腔内には約1000 mlの漿液性胸水を認めた。胸水の迅速細胞診はclass Vであった。腫瘍は第2肋間から発生し、胸腔内に大きく進展しており、弾性軟で一部で上葉浸潤を認めた。第2・3肋骨部分切除と左上葉部分切除を行い腫瘍を摘出した。欠損胸壁はマーレックスメッシュを用いて再建した。胸腔内を蒸留水で洗浄し閉胸した。

切除標本：腫瘍の大きさは10×10×5 cmで弾性軟 (Figure 2B)、断面は黄白色で胸壁に基部が確認できた (Figure 2C)。

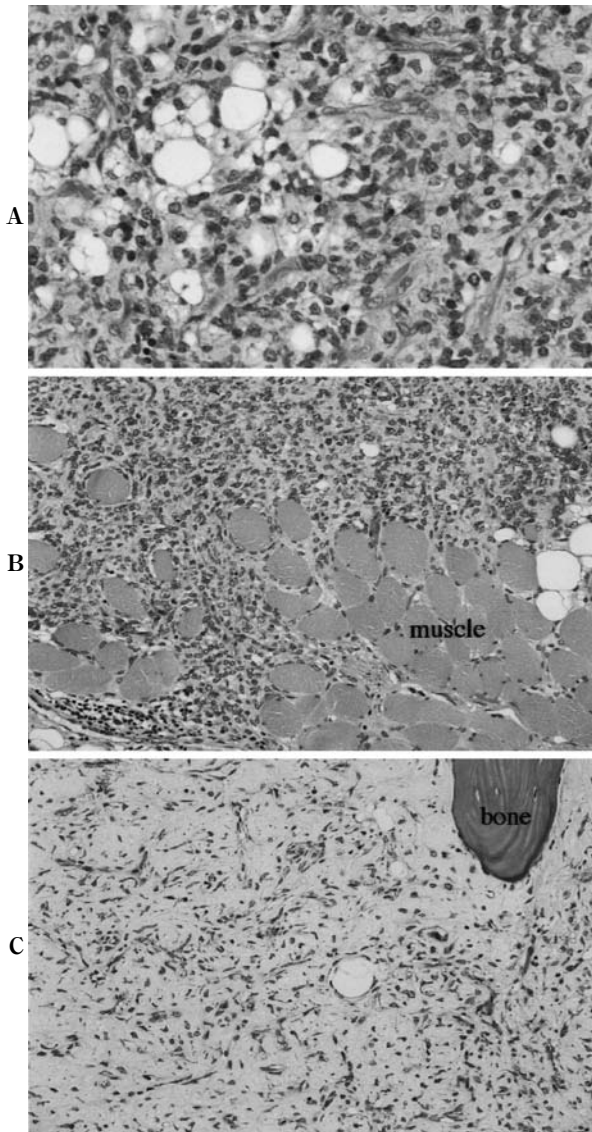


Figure 3. Microscopic photograph of the tumor, atypical lipoblasts in myxoid/round cell liposarcoma (A). Tumor cells infiltrating the skeletal muscle (B). Tumor cells infiltrating the bone marrow of the rib resected (C).

病理組織像：粘液基質の中に脂肪空胞を有し異型を示す脂肪芽細胞の増殖や、小円形細胞成分の増殖像 (Figure 3A) が認められ、円形細胞型の混在した粘液型脂肪肉腫と診断された。また腫瘍細胞の筋組織 (Figure 3B) や骨組織 (Figure 3C) への浸潤も認められた。

術後経過：術後 27 病日から胸壁と腰部へ放射線治療を開始し、それぞれに 3 Gy × 10 回の総量 30 Gy を照射した。また cisplatin (10 mg/日 × 10 日間) を併用投与した。腰部への治療が奏効し独歩可能となったため 48 病日に退院した。しかしながら退院 4 ヶ月後、肺・肝・右大腿

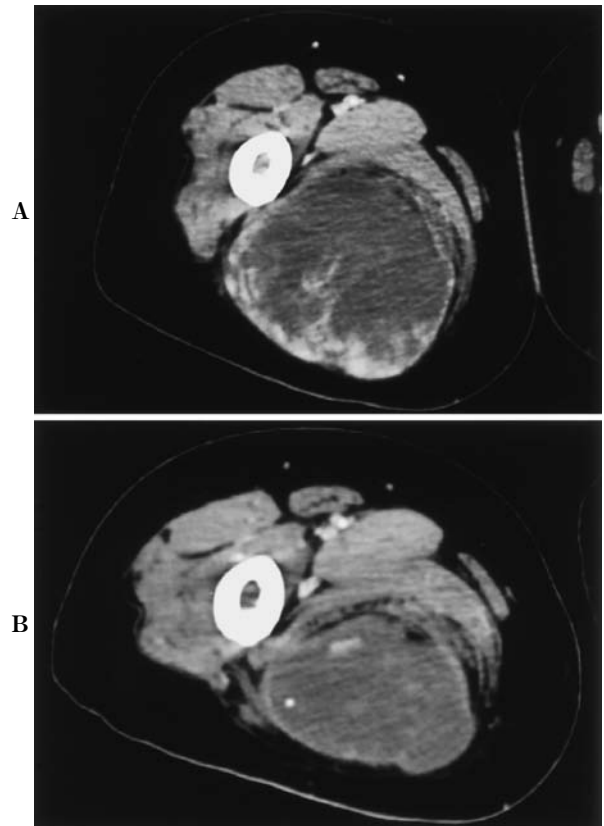


Figure 4. Leg CT scan showing a tumor of the thigh (A) which has not increased in size 5 months after concurrent chemoradiation therapy (CRT) (B).

筋組織内・骨盤に新たな転移巣が出現したため再入院となった。右大腿部へは同時化学放射線療法を施行し、その後経過観察中に増大は認めなかった (Figure 4)。その他の全身転移に対しては ifosfamide, vincristine, cyclophosphamide を用いた化学療法を行った。しかし、10 ヶ月後には左眼窩頭蓋骨転移が出現したため放射線単独照射を行ったが顕著な効果は得られず、術後 1 年 2 ヶ月目に腫瘍死した。剖検では肺・肝・腎・骨盤・頭蓋骨など全身転移の進行を認めたが、胸壁の局所再発は認めなかった。

考察

胸壁発生で、特に胸腔内へ進展した脂肪肉腫は極めて稀で、自験例も含め海外と本邦合わせても 23 例の報告 (Table 1) しかなく、これらについて検討した。

年齢は 1 歳 5 ヶ月から 80 歳で平均 45.3 歳、性別は男性 13 例、女性 10 例であった。発生側は右側が 9 例、左側が 13 例、不明 1 例であった。無症状のものが 8 例で、そのうち 4 例が胸水貯留などの胸部異常影により発見されていた。症状を有するものは 15 例で、大部分は咳嗽、

Table 1. Liposarcomas of the Chest Wall: Clinical and Pathologic Features

Case	Author	Year	Age	Sex	Side	Symptoms	Size (cm) Weight (kg)	Histopathologic diagnosis	Therapy	Follow-up
1	Ackerman	1942	50	F	Lt	dyspnea	unknown	unknown	(-)	DOD 1 y
2	Gupta	1967	51	M	Rt	cough, dyspnea, (pleural effusion)	21×12×18	unknown	(-)	DOD 19 day
3	Masuda	1973	50	F	Lt	cough, sputum, fever up	2×2	round cell	SR, CT, RT	FOD at 11 mo
4	D'Ambrosio	1974	52	M	Lt	(-)	unknown	unknown	SR	FOD at 5.5 y
5	Omichi	1975	42	F	Rt	dyspnea	20×15×10	myxoid	SR, CT, RT	DOD 7 mo
6	Komoda	1980	1	M	Rt	cough, dyspnea, wheeze	18×12×8	well differentiated	SR	FOD at 3 y 3 mo
7	Wouters	1983	19	M	Lt	(-)	3.5×2×2	myxoid	SR, RT	local relapse at 4 y; FOD 4 y after salvage SR and RT
8	Evans	1985	61	M	Lt	chest pain, dyspnea, (pleural effusion)	unknown	myxoid	(-)	DOD 2 day
9	Taguchi	1986	68	M	Lt	(-)	8.7×5.6×3.4	well differentiated	unknown	unknown
10	McGregor	1987	54	M	Rt	cough, dyspnea	22×12×18	pleomorphic	SR	local relapse at 2 y; salvage SR failed;
11	Munk	1988	27	F	Lt	cough, dyspnea	unknown	unknown	SR	unknown
12	Carroll	1992	23	F	Lt	dyspnea	29×15×15	pleomorphic	SR, RT	FOD at 16 mo
13	Tamaoki	1993	21	M	Lt	(-), chest abnor- mal shadow (pleural effusion)	9.5×6.5×5.0	myxoid	SR	FOD at 1 y
14	Oinuma	1993	61	F	Lt	cough, sputum	15×21.5×10.5	myxoid → round cell	SR, CT, RT	local relapse at 3 y; salvage SR failed; DOD 7 y
15	Wong	1994	38	M	Rt	cough, dyspnea	24×18×9	myxoid	SR, RT	FOD at 5 mo
16	Nader & Travis	2000	45	F	unknown	cough, fever up	16×16×4	myxoid/ round cell	SR, CT	DOD 7 mo
17	Nader & Travis	2000	73	M	Rt	(-), chest abnor- mal shadow (pleural effusion)	unknown	myxoid	SR	DOD 9 mo
18	Nader & Travis	2000	67	M	Rt	(-)	18.5×12.5×5	well differentiated	unknown	died of unknown causes 16 mo
19	Nader & Travis	2000	80	M	Rt	(-), chest abnor- mal shadow (pleural effusion)	20×18×14	myxoid	SR	unknown
20	Arai	2003	43	F	Rt	chest pain	8.3×7.5×5.0	well differentiated	SR	FOD at 1 y
21	Abiko	2004	30	F	Lt	cough, dyspnea, chest pain	3.2 (kg)	pleomorphic	SR	DOD 5 mo
22	Fujiwara	2005	48	M	Lt	(-), chest abnor- mal shadow	10×10×8	well differentiated	SR	unknown
23	Kobayashi	2006	39	F	Lt	lumbago, Rt leg pain	10×10×4.5	myxoid/ round cell	SR, CT, RT	DOD 1 y 2 mo no local recurrence of the chest wall

M: male, F: female, Rt: right, Lt: left, SR: surgical resection, CT: chemotherapy, RT: radiation therapy, DOD: died of disease, y: years, mo: months, FOD: free of disease.

呼吸困難などの呼吸器症状を呈し、その他、胸痛、腰痛が各1例であった。最大径は2~29 cmで、平均値は16 cmであった。

組織型が判明しているものは19例で、そのうち粘液型が7例と最も多く、次いで分化型が5例、多形型が3例、粘液型と円形細胞型の混在型が自験例を含め2例、円形細胞型が1例であった。また原発巣を切除後3年目に局

所再発した症例の組織型が、粘液型から円形細胞型に変化していたもの¹が1例であった。

治療法は外科切除単独10例、外科切除+化学療法+放射線治療4例、未治療3例、外科切除+化学療法1例、外科切除+放射線治療3例、不明2例であった。治療された18例中8例に化学療法や放射線治療が併用されていた。予後は観察期間にばらつきがあるものの死亡11

例(うち1例は他病死), 無再発生存7例, 切除4年後の局所再発に対し再切除+放射線治療で4年間再発を認めていないもの1例,² 不明4例であった。23例のうち術後局所再発を認めなかった9例中5例は放射線治療が加えられていた。放射線治療がされていなかった4例中2例が予後良好な分化型であったことなどを考慮すると, 外科切除に放射線治療を追加することが脂肪肉腫の局所療法として有効と思われた。

一般的に脂肪肉腫は軟部組織に由来する悪性腫瘍の中では15~20%を占め,³ 他に比し頻度の高い疾患とされている。^{4,5} 40~60歳代の中高年に多く, 好発部位は四肢, 大腿部, 後腹膜, 臀部とされる。組織型はWHO分類で①分化型 well differentiated, ②粘液型 myxoid, ③円形細胞型 round cell, ④多形型 pleomorphic, ⑤混合型 mixed の5型に分類されているが, 一般に粘液型が最も高頻度で胸壁発生の脂肪肉腫においても最多であった。また組織型は重要な予後因子の一つとされ, 5年生存率は分化型が最も良好で70~100%, 次いで粘液型60~77%, 円形細胞型23~33%, 多形型が最も不良で0~50%であり⁶ 組織型により違いが見られる。粘液型はときに円形細胞型に移行し発育が急進することがあり,⁷ 自験例において見られた急速な経過を裏付けるものと思われた。画像診断ではCTが腫瘍の内部構造の把握や浸潤範囲の決定に有用であり,⁸ Waligoreら⁹はCT所見と病理所見がよく相関すると指摘している。粘液型脂肪肉腫では細胞内にムチン成分を多く含むため脂肪成分より高いCT値を示し, myxoid部分ではwaterからmuscle densityを示すとされる。粘液型であった本例においても前述と同様の所見が認められた。

治療は外科的切除が第一選択とされ,¹⁰ 化学療法や放射線療法の有効性は確立されていない。しかしながら, doxorubicinを中心とした化学療法が有効であった遠隔転移例や¹⁰ ifosfamideやcarboplatinを主体とした治療により腫瘍影が消失した症例¹¹ など, 化学療法が有効であったとする報告が散見される。自験例においてもifosfamide中心の治療によって腫瘍の著明な縮小は得られなかったが急速増大は制御され一定の効果は得られたと思われる。一方放射線治療に関しては分化型や粘液型の豊富なものは感受性が高く, 腫瘍を縮小させたり, 長期間の寛解を見る例が報告されている。¹² 今回自験例では, 脂肪肉腫にプラチナ系薬剤のcarboplatinが有効であったとの報告⁹があったことと, 肺癌において放射線照射とcisplatinを含む化学療法を同時に併用した方が

有意に生存率が良好との報告^{13,14}があったことなどから, 腰部と大腿部の腫瘍に対してはcisplatin投与による同時化学放射線療法を施行し, 経過中は長期間増大もなく症状も改善した。

結 論

非常に稀な胸壁原発脂肪肉腫の1例を経験した。原発巣に対して外科切除後に同時化学放射線療法を行い局所再発を認めなかった。同時化学放射線療法は転移巣に対し有効と思われた。

REFERENCES

1. 生沼利倫, 田崎寧一, 山田 勉, 他. 胸壁原発と考えられた脂肪肉腫の1例. 日大医誌. 1993;52:483-489.
2. Wouters EF, Greve LH, Visser R, et al. Liposarcoma of the pleura. *Neth J Surg*. 1983;35:192-193.
3. O'Connor M, Snover DC. Liposarcoma. A review of factors influencing prognosis. *Am Surg*. 1983;49:379-384.
4. Teitelbaum SL. Twenty years' experience with soft tissue sarcomas of the chest wall at a large institution. *J Thorac Cardiovasc Surg*. 1972;63:585-586.
5. Russell WO, Cohen J, Enzinger F, et al. A clinical and pathological staging system for soft tissue sarcomas. *Cancer*. 1977;40:1562-1570.
6. 日置巖雄, 天白宏典, 木村 誠, 他. 胸壁原発脂肪肉腫の1例. 日呼外会誌. 1997;11:165-169.
7. 遠城寺宗知. 軟部腫瘍 III. 脂肪組織の腫瘍および腫瘍性病変, 外科病理学. 第2版. 東京: 文光堂; 1990:940-946.
8. 田口正人, 井上裕喜, 大久保幸一, 他. 胸腔内に発生した脂肪肉腫の2例. 臨床放射線. 1986;31:1049-1052.
9. Waligore MP, Stephens DH, Soule EH, et al. Lipomatous tumors of the abdominal cavity: CT appearance and pathologic correlation. *AJR Am J Roentgenol*. 1981;137:539-545.
10. 姥山勇二. 脂肪肉腫. 整外MOOK. 1985;38:215-226.
11. 寺門厚彦, 矢澤康男, 早乙女絏一. 化学療法が有効と思われた粘液型脂肪肉腫の1例. 関東整災誌. 2002;33:53-56.
12. Edland RW. Liposarcoma. A retrospective study of fifteen cases, a review of the literature and a discussion of radiosensitivity. *Am J Roentgenol Radium Ther Nucl Med*. 1968;103:778-791.
13. Pritchard RS, Anthony SP. Chemotherapy plus radiotherapy compared with radiotherapy alone in the treatment of locally advanced, unresectable, non-small-cell lung cancer. A meta-analysis. *Ann Intern Med*. 1996;125:723-729.
14. Furuse K, Fukuoka M, Kawahara M, et al. Phase III study of concurrent versus sequential thoracic radiotherapy in combination with mitomycin, vindesine, and cisplatin in unresectable stage III non-small-cell lung cancer. *J Clin Oncol*. 1999;17:2692-2699.