

CASE REPORT

原発性肺癌に併発した多発性後縦隔骨髄脂肪腫の1例

藤原隆行<sup>1</sup>・朝戸裕二<sup>1</sup>・清嶋護之<sup>1</sup>・  
佐藤始広<sup>2</sup>・飯嶋達生<sup>3</sup>・雨宮隆太<sup>1</sup>

A Case of Concurrent of Primary Lung Cancer and Multiple Posterior Mediastinal Myelolipoma

Takayuki Fujiwara<sup>1</sup>; Yuji Asato<sup>1</sup>; Moriyuki Kiyoshima<sup>1</sup>;  
Motohiro Satoh<sup>2</sup>; Tatsuo Iijima<sup>3</sup>; Ryuta Amemiya<sup>1</sup>

<sup>1</sup>Department of Thoracic Surgery, <sup>2</sup>Department of Radiology, <sup>3</sup>Department of Pathology, Ibaraki Prefectural Hospital, Japan.

**ABSTRACT** — **Background.** Myelolipoma is a rare, benign tumor composed of adipose and myeloid tissue. Most myelolipomas develop in the adrenal gland, and few cases of primary mediastinal myelolipoma have been reported. **Case.** A 71-year-old man with a history of polycythemia, hypertension, and diabetes mellitus was found to have an abnormal shadow on radiography and computed tomography (CT) images of the lung and mediastinum, and was referred to our hospital. A CT scan of the chest revealed a 15-mm nodule in the right S<sup>1</sup> area, and posterior mediastinal masses on both sides of the third thoracic vertebra. Fluorodeoxyglucose-positron emission tomography (FDG-PET) showed FDG uptake in a nodule in the right S<sup>1</sup>, which suggested lung cancer. T1- and T2-weighted magnetic resonance imaging (MRI) revealed high-intensity lesions on both sides of the third vertebra, and fat-suppressed T1-weighted imaging showed low-intensity lesions in the same areas. We treated by right upper lobectomy with mediastinal lymph node dissection, and performed extirpation of the right posterior mediastinal nodules to make a definitive diagnosis. The pathological findings revealed the right S<sup>1</sup> nodule to be adenocarcinoma (pT1aN1M0, stage IIA), and the right posterior mediastinal nodule to be myelolipoma. **Conclusion.** We reported a case of concurrent primary lung cancer and posterior mediastinal myelolipoma. Myelolipoma should be considered in the differential diagnosis of tumors in the mediastinum which contain adipose tissue. It is difficult to distinguish myelolipoma from extramedullary hematopoiesis by image examination alone, and investigating the clinical condition of the patient and obtaining a pathological diagnosis are useful in confirming a diagnosis of myelolipoma.

(JJLC. 2011;51:207-211)

**KEY WORDS** — Myelolipoma, Primary lung carcinoma, Mediastinum

Reprints: Takayuki Fujiwara, Department of Thoracic Surgery, Ibaraki Prefectural Hospital, 6528 Koibuchi, Kasama-shi, Ibaraki 309-1793, Japan.

Received January 28, 2011; accepted March 29, 2011.

**要旨** — **背景.** 骨髄脂肪腫は骨髄成分と成熟脂肪組織からなる稀な良性腫瘍である。副腎原発が多く、後縦隔原発例は稀である。**症例.** 既往に多血症、高血圧症、糖尿病を有する71歳男性である。食欲不振を主訴に近医受診し、胸部X線および胸部CTにおいて肺および縦隔の異常陰影を指摘され、当院を紹介受診した。胸部CTにおいて、右肺S<sup>1</sup>に15mm大の結節影、両側後縦隔の第3胸椎に接し腫瘤性病変を認めた。FDG-PETでは右肺S<sup>1</sup>

結節にFDG集積を認めた。両側の後縦隔腫瘍はMRIのT1強調画像・T2強調画像において高信号を示し、T1脂肪抑制画像において低信号を示した。確定診断および治療目的に右肺上葉切除・縦隔リンパ節郭清術、右後縦隔腫瘍切除術を施行した。病理診断より右肺S<sup>1</sup>結節は低分化型腺癌、野口type D+F, pT1aN1M0、病理病期IIAの肺癌、また後縦隔腫瘍は骨髄脂肪腫と診断された。**結論.** 肺癌に併発した後縦隔発生の骨髄脂肪腫の1例を

茨城県立中央病院<sup>1</sup>呼吸器外科、<sup>2</sup>放射線科、<sup>3</sup>病理診断部。  
別刷請求先：藤原隆行，茨城県立中央病院呼吸器外科，〒309-

1793 茨城県笠間市鯉淵 6528.

受付日：2011年1月28日，採択日：2011年3月29日。

経験した。縦隔内に脂肪含有腫瘍を認めた場合、鑑別として骨髓脂肪腫を挙げる必要がある。画像診断において骨髓脂肪腫と髓外造血巣との鑑別は困難であり、確定診

断には臨床所見および病理学的診断が有用である。

**索引用語**—— 骨髓脂肪腫, 原発性肺癌, 縦隔

## はじめに

今回我々は肺癌に併発した後縦隔発生骨髓脂肪腫を経験した。極めて稀な症例のため報告する。

## 症 例

症例：71 歳, 男性.

主訴：食思不振.

既往歴：46 歳時から多血症を診断されていた。68 歳時 Hb 21.5 g/dl, Ht 63.7% の検査値のために瀉血療法を受けた。51 歳から糖尿病と高血圧の治療を受けている。71 歳時には胃潰瘍, 慢性閉塞性肺疾患 (COPD) の治療歴がある。

家族歴：兄が高血圧.

喫煙歴：20 本/日×52 年間 (20~71 歳).

現病歴：症例は、2009 年 6 月食思不振が出現し近医を受診した。胸部 X 線写真・胸部 CT 検査において右肺 S<sub>1</sub>a に 15 mm 大の結節影, および縦隔の両側第 3 胸椎後側に右 15 mm 大, 左 25 mm 大の腫瘤影を指摘され, 当院を紹介受診した。

現症：身長 163 cm, 体重 59 kg. 脈拍 58 回/分, 血圧 134/75 mmHg, 体温 35.8°C, SpO<sub>2</sub> 98% (Room air gas). 身体所見に特記事項なし.

検査所見：血算検査で WBC 8000/μl, Plt 179×10<sup>3</sup>/μl と正常範囲内, Hb は 16.5 g/dl, Ht は 48.8% と正常上限の値を認め, 血液ガスにおいて PaO<sub>2</sub> が 74.8 mmHg (Room air gas) と軽度減少していた。生化学, 凝固検査に異常を認めなかった。腫瘍マーカーは ProGRP 52.4 pg/ml と上昇を認めた。

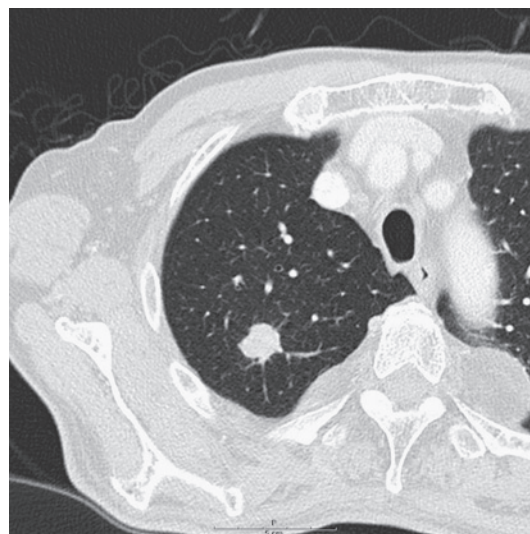
胸部 X 線所見：右上肺野に第 1 肋間前側に重なるように 15 mm 大の境界明瞭な結節影を認めた (Figure 1).

胸腹部 CT 所見：右肺 S<sub>1</sub>a に周囲血管影の集束像を伴う 15 mm 大の境界明瞭な充実性結節を認めた。周囲肺に一部で Low attenuation area を認め, 気腫性変化を認めた (Figure 2)。第 3 胸椎と接するように右側 15 mm 大, 左側 29 mm 大の後縦隔腫瘤を認めた。腫瘤は不均一なまだら状の濃淡陰影を呈していた。肺内転移を示唆する所見はなく, 肺門・縦隔のリンパ節腫脹を認めなかった。副腎, 肝, 脾に明らかな腫瘍性病変を認めず, 肝脾腫も認めなかった。

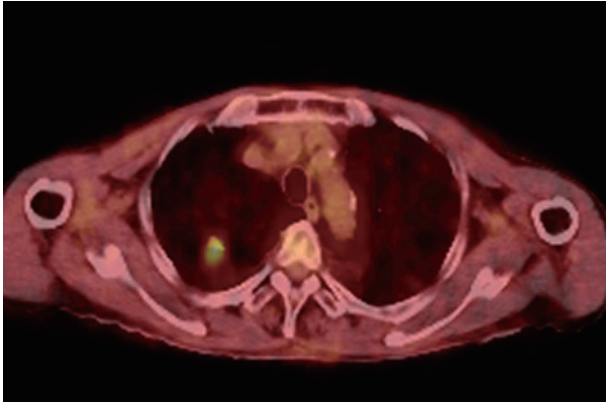
<sup>18</sup>F-FDG positron emission tomography/computed to-



**Figure 1.** Chest radiography shows a nodule in the right upper lung field.



**Figure 2.** Computed tomographic image of the chest shows a seemingly-circumscribed nodule in S<sub>1</sub> of the right lung, and solid nodules on both sides of the third thoracic vertebra.



**Figure 3.** FDG-PET shows FDG uptake in a nodule in S<sup>1</sup> of the right lung.

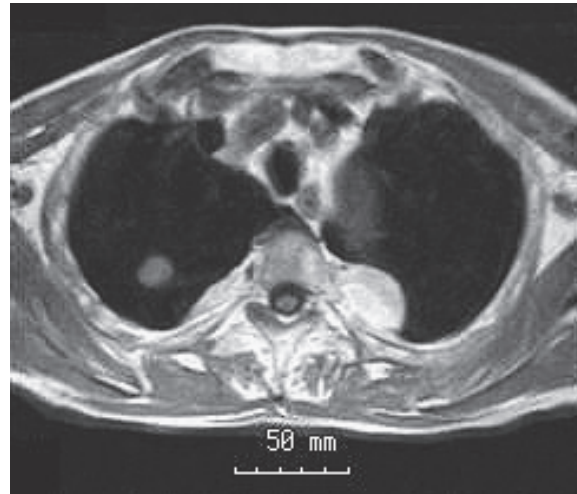
mography (FDG-PET/CT) 所見：胸部 CT において認められた右肺 S<sup>1</sup>a 結節に一致する位置に FDG 集積を認め、maximum standardized uptake value (SUV max) は早期像 4.25, 後期像 6.17 であった。後縦隔病変への FDG の集積は認められなかった (Figure 3)。肺門・縦隔リンパ節転移と考えられる FDG の集積を認めず、遠隔転移巣を疑う FDG 集積も認められなかった。

胸部 MRI 所見：両側後縦隔腫瘤は T1 強調画像 (Figure 4A), T2 強調画像 (Figure 4B) とともに高信号域, T1 脂肪抑制画像では低信号域を呈した (Figure 4C)。

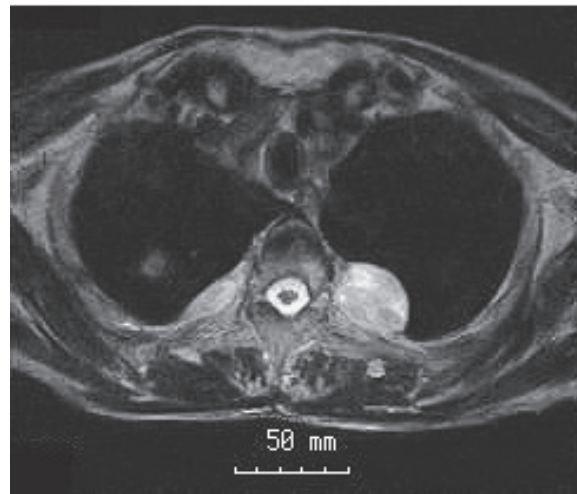
以上の所見より術前診断は右肺 S<sup>1</sup> 原発性肺癌 cT1aN0M0, cStage IA および両側後縦隔脂肪腫と診断し、治療および確定診断目的に開胸下に右肺上葉切除術および縦隔リンパ節郭清術, 右後縦隔腫瘤切除術を施行した。

手術所見：審査胸腔鏡を試みたが胸膜癒着のため断念し、前方腋窩切開・第 4 肋間開胸とした。癒着剥離を行い、胸膜播種は認められなかった。右肺上葉 S<sup>1</sup> 領域に硬い結節を触れ、術野から針生検を施行し、迅速病理で非小細胞肺癌と診断された。右肺上葉切除・縦隔リンパ節郭清術を行った。奇静脈弓の頭側に鉗子で把持すると崩れるくらいの柔らかい腫瘤を確認し、切除した。

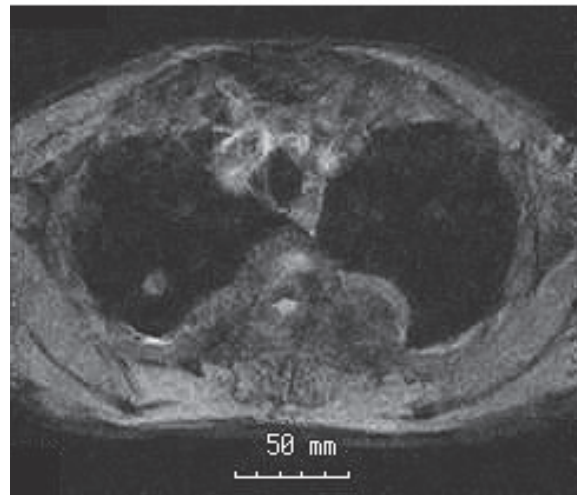
病理組織学的所見：右肺 S<sup>1</sup> 結節は 15 mm 大の境界明瞭な白色の結節であった。病理組織所見では結節中心部に円柱状から立方状の細胞が、大小不整な乳頭腺管状構造、篩状の構造を形成し、腫瘍辺縁部では多角形から不整円柱状細胞が充実性胞巣を形成し増殖していた (Figure 5)。一部で静脈浸潤およびリンパ管浸潤を認め、肺門リンパ節に転移を認めた。以上より低分化型腺癌, 野口 type D + F, pT1aN1M0, pStage IIA と診断した。後縦隔腫瘤は 15 mm 大で褐色を呈していた (Figure 6)。病理組織所見では成熟脂肪組織に囲まれるようにして顆粒球系



A

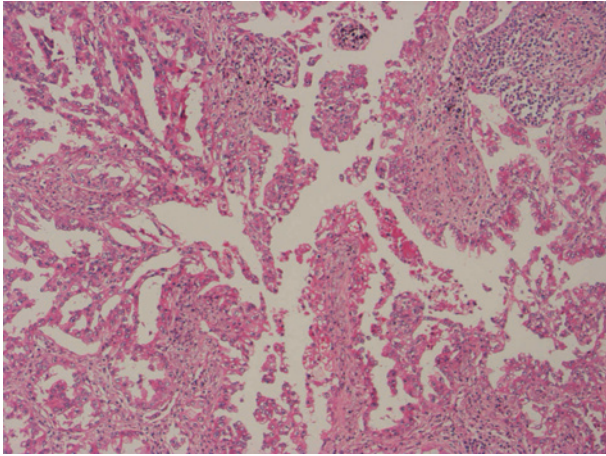


B

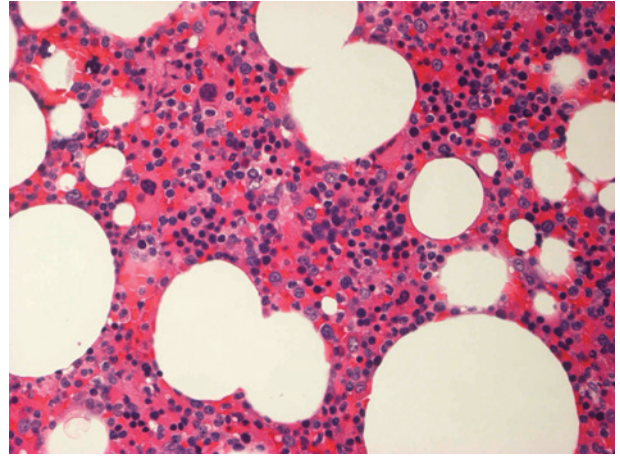


C

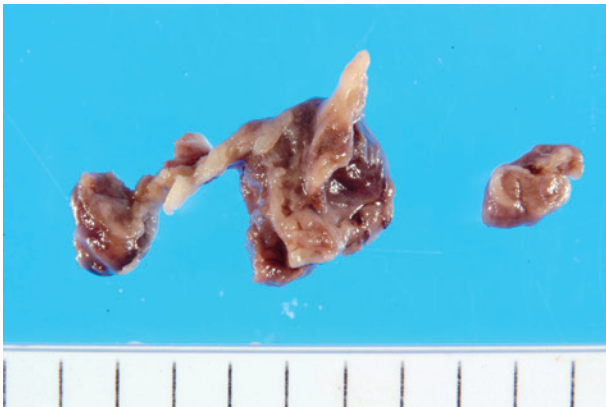
**Figure 4.** A) T1-weighted magnetic resonance image (MRI) shows high intensity lesions on both sides of the third thoracic vertebra. B) T2-weighted MR image shows high intensity lesions on both sides of the third thoracic vertebra. C) Fat-suppressed T1-weighted MR image shows low intensity lesions on both sides of the third thoracic vertebra.



**Figure 5.** Columnar and cuboidal cells show that the structure of the papillary duct in the center of the tumor largely consisted of nuclear atypia.



**Figure 7.** Aggregates of granulocytes, erythroblasts, and megakaryocytes are surrounded by adipose tissue in the posterior mediastinal mass, compatible with the microscopic findings of myelolipoma.



**Figure 6.** The posterior mediastinal mass is ginger-colored, with a greatest dimension of 15 mm on a gross pathology image.

細胞・赤芽球系細胞・巨核球の骨髄3系統成分の集簇を認め (Figure 7), 骨髄脂肪腫と診断した。

術後経過：術後6病日に退院したが膿胸を発症，再入院し洗浄・ドレナージで改善した。現在，再発所見なく外来通院中で，Hb・Htは術前レベルを推移している。左側腫瘤は画像所見より右側同様骨髄脂肪腫と思われ，良性腫瘍であることから切除はせずに経過観察としている。術後に測定したエリスロポエチンは13.3 mIU/mlと正常範囲内であった。

## 考 察

骨髄脂肪腫は骨髄成分および成熟脂肪組織からなる非常に稀な良性腫瘍であり，剖検例の0.08～0.4%に認められる。<sup>1</sup> そのうち85%は副腎発生であるが，胸腔内・後

腹膜腔・大網などにも発生することがある。本症例のような縦隔発生例は骨髄脂肪腫全体の3%と報告され，<sup>2</sup> 後縦隔下部傍椎体部の発生が最も多いとされている。<sup>3</sup>

画像所見では，単純CTで低吸収域として示され，造影CTでは内部に造影効果を伴うことがある。<sup>4</sup> MRIではT1強調画像・T2強調画像ともに高信号域として表示される。本症例においても造影CTにおいて腫瘤内にまだら状の濃淡陰影および造影効果を認めた。副腎腫瘍のうち脂肪含有腫瘍の大多数は骨髄脂肪腫であるため，副腎発生骨髄脂肪腫の画像診断は容易である。<sup>4</sup> しかし縦隔脂肪含有腫瘍においては鑑別診断として脂肪腫，骨髄脂肪腫，悪性リンパ腫，神経原性腫瘍，髓外造血巣を挙げる必要があり，本症例では術前診断を脂肪腫とした。造影CTにおいて脂肪腫は境界明瞭な低吸収域として示されるが，骨髄脂肪腫や髓外造血巣は低吸収域の内部に骨髄成分を示す高吸収域が散在する像を呈する。本症例において後者の所見を認めたことより，術前画像鑑別として骨髄脂肪腫および髓外造血巣を挙げるのが可能であったと考えられた。縦隔内髓外造血巣と骨髄脂肪腫は骨髄成分および脂肪成分を有し，造影CTで同様の画像所見を呈するために，画像での鑑別は困難である。<sup>2</sup> 両者の鑑別には臨床所見および病理所見が有用となる。髓外造血巣は臨床所見上貧血，脾腫，末梢血液像での異常があり，<sup>5</sup> 病理所見上骨髄成分が主体で，赤芽球の過形成を認め，リンパ球の集簇を認めることによって特徴づけられ，骨髄脂肪腫との相違点となる。<sup>6</sup> 本症例では臨床所見上貧血・脾腫は存在せず，病理所見において脂肪成分主体であり赤芽球の過形成は認められなかったため術後診断は骨髄脂肪腫とした。

本症例では術前の画像診断として脂肪腫を第一に考えたが、腫瘍内部の濃度が不均一であったことから本疾患および髄外造血巣を疑うべきであった。また画像診断のみでは本疾患と髄外造血巣との鑑別が困難であるため、確定診断としては、吸引細胞診や切除標本による病理学的診断を行わざるを得ないと考えられた。<sup>3</sup>

本症例では椎体の対側にも同様の画像所見を呈する腫瘍を認めている。副腎外骨髄脂肪腫は通常単発性であるのに対して、髄外造血巣では多発性であることが多い。<sup>7</sup> 本症例では左側の結節も右側と同様の画像所見を示し、貧血も認めないため左側の腫瘍も骨髄脂肪腫であると判断した。胸腔内副腎外骨髄脂肪腫の両側発生病例は非常に稀であり、<sup>2,8,9</sup> 本症例はその1例であると判断した。

骨髄脂肪腫は全身性疾患を合併することが知られており、肥満、高血圧症、内分泌疾患の合併を認める。<sup>10,11</sup> 本症例でも高血圧症および糖尿病の併発を認め、骨髄脂肪腫との関連が示唆された。

## 結 語

高血圧症・糖尿病を併発する稀な多発性後縦隔骨髄脂肪腫の1例を報告した。

## REFERENCES

1. Lack EE. Tumors of the Adrenal Gland and Extra-Adrenal Paraganglia. In: *Atlas of Tumor Pathology (3rd series)*. Washington, DC: Armed Forces Institute of Pathology; 1997:176-180.
2. Franiel T, Fleischer B, Raab BW, Füzesi L. Bilateral thoracic extraadrenal myelolipoma. *Eur J Cardiothorac Surg*. 2004;26:1220-1222.
3. 小泉純一, 原田英之, 山本直樹, 椎久哉良, 小笠寿之, 高橋政明, 他. 縦隔内骨髄脂肪腫の1例. 胸部外科. 1999; 52:869-871.
4. 田村尚久, 中尾一和, ミエロリポーマ. 日本臨牀. 2006; Suppl 1:747-749.
5. Blake MA, Chaoui AS, Barish MA. Thoracic case of the day. Thoracic myelolipomatosis. *AJR Am J Roentgenol*. 1999;173:821, 823-824.
6. Minamiya Y, Abo S, Kitamura M, Izumi K. Mediastinal extraadrenal myelolipoma: report of a case. *Surg Today*. 1997;27:971-972.
7. Fowler MR, Williams RB, Alba JM, Byrd CR. Extra-adrenal myelolipomas compared with extramedullary hematopoietic tumors: a case of presacral myelolipoma. *Am J Surg Pathol*. 1982;6:363-374.
8. Krismann M, Reichle G, Müller KM. Thoracic bilateral myelolipoma. *Pneumologie*. 1993;47:501-503.
9. 古川絵梨, 杉本幸弘, 藤井慎嗣, 千場 博, 田上弘文, 稲吉 厚, 他. 両側後縦隔原発の myelolipoma の1例. 肺癌. 2007;47:809-810.
10. Gould JD, Mitty HA, Pertsemidid D, Szporn AH. Adrenal myelolipoma: diagnosis by fine-needle aspiration. *AJR Am J Roentgenol*. 1987;148:921-922.
11. Del Gaudio A, Solidoro G. Myelolipoma of the adrenal gland: report of two cases with a review of the literature. *Surgery*. 1986;99:293-301.