

## CASE REPORT

### 胸腺嚢胞を合併した胸腺カルチノイドの1切除例

住友亮太<sup>1</sup>・住友伸一<sup>2</sup>・松本和也<sup>2</sup>・  
奥田昌也<sup>2</sup>・中野貴之<sup>3</sup>・飯森俊介<sup>2</sup>

#### A Resected Case of a Thymic Carcinoid with a Thymic Cyst

Ryota Sumitomo<sup>1</sup>; Shinichi Sumitomo<sup>2</sup>; Kazuya Matsumoto<sup>2</sup>;  
Masaya Okuda<sup>2</sup>; Takayuki Nakano<sup>3</sup>; Shunsuke Iimori<sup>2</sup>

<sup>1</sup>Department of Thoracic Surgery, Shimada Municipal Hospital, Japan; <sup>2</sup>Department of Thoracic Surgery, Japanese Red Cross Society Wakayama Medical Center, Japan; <sup>3</sup>Department of Thoracic Surgery, Kochi Health Sciences Center, Japan.

**ABSTRACT** — **Background.** Thymic carcinoid with a thymic cyst is extremely rare. **Case.** An abnormal mediastinal shadow was noted in a 35-year-old man on a chest radiograph during a follow-up examination for chronic hepatitis C. Computed tomography (CT) revealed a solid tumor in the anterior mediastinum with a cystic lesion. Positron emission tomography-CT (PET-CT) showed uptake (maximum standardized uptake value: 3.95) in the tumor, which was diagnosed as well-differentiated neuroendocrine carcinoma by CT-guided biopsy. The patient was referred to our hospital for surgery, which consisted of tumor resection and thymectomy through a median sternotomy. The histopathological diagnosis was atypical carcinoid of the thymus with a thymic cyst. Furthermore, metastasis to an anterior mediastinal lymph node was observed. **Conclusion.** We report a resected case of a thymic carcinoid with a thymic cyst, which is the first case described in the Japanese literature. It is possible that thymic carcinoid can develop from the wall of a thymic cyst.

(JLCC. 2012;52:39-42)

**KEY WORDS** — Well-differentiated neuroendocrine carcinoma, Thymic atypical carcinoid, Thymic cyst

Reprints: Ryota Sumitomo, Department of Thoracic Surgery, Shimada Municipal Hospital, 1200-5 Noda, Shimada-shi, Shizuoka 427-8502, Japan (e-mail: ryota.sum@gmail.com).

Received July 8, 2011; accepted November 18, 2011.

**要旨** — **背景.** 胸腺嚢胞を合併した胸腺カルチノイドの報告は非常に稀である。**症例.** 35歳男性。慢性C型肝炎の経過観察中に胸部X線写真で異常陰影を指摘された。胸部CTで一部に嚢胞性病変を示す前縦隔腫瘍を認めた。PET-CTではSUVmax 3.95の集積を腫瘍に認めた。CTガイド下生検で高分化神経内分泌腫瘍と診断され、手術目的に当院に紹介となった。胸骨正中切開で縦隔腫瘍・胸腺摘出術を施行した。腫瘍は胸腺嚢胞を合併

した胸腺非定型カルチノイドで、前縦隔リンパ節への転移を認めた。**結論.** 胸腺嚢胞を合併した胸腺カルチノイドの1切除例を経験した。同症例の報告は日本で第1例目である。胸腺嚢胞から胸腺カルチノイドが発生した可能性が示唆された。

**索引用語** — 高分化神経内分泌腫瘍, 胸腺非定型カルチノイド, 胸腺嚢胞

<sup>1</sup>市立島田市民病院呼吸器外科；<sup>2</sup>日本赤十字社和歌山医療センター呼吸器外科；<sup>3</sup>高知医療センター呼吸器外科。  
別刷請求先：住友亮太，市立島田市民病院呼吸器外科，〒427-

8502 静岡県島田市野田 1200-5 (e-mail: ryota.sum@gmail.com).  
受付日：2011年7月8日，採択日：2011年11月18日。

## はじめに

胸腺カルチノイドは2004年WHO分類で高分化神経内分泌腫瘍に分類された稀な疾患で、転移・浸潤例が多く、予後不良で悪性度が高いことが示唆されている。<sup>1</sup> 胸腺嚢胞を合併した胸腺カルチノイドは非常に稀であり、文献的考察を加えて報告する。

## 症 例

症例：35歳，男性。

主訴：胸部異常陰影。

既往歴：慢性C型肝炎。

喫煙歴：20本/日×15年，current-smoker。

現病歴：2009年8月，前医で慢性C型肝炎の経過観察中に胸部X線写真で異常陰影を指摘された。胸部CT



**Figure 1.** Chest radiograph showing an abnormal shadow overlapping the hilum of the right lung.

で一部に嚢胞性病変を示す前縦隔腫瘍を認めた。CTガイド下生検で高分化神経内分泌腫瘍と診断され、手術的に当院へ紹介となった。

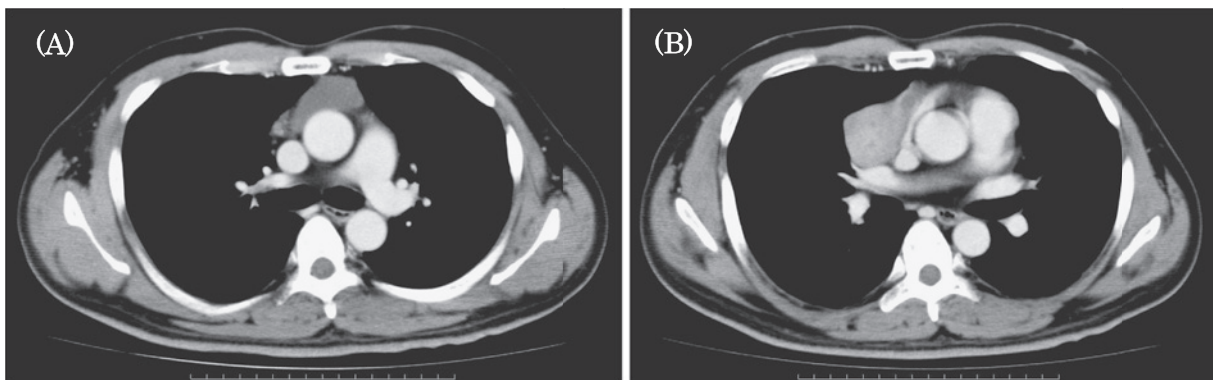
入院時現症：身長162cm，体重62.1kg，体温36.2℃，血圧114/70mmHg，脈拍84/分，表在リンパ節触知せず，心音・呼吸音に異常認めず，その他特記すべき所見なし。

血液検査所見：CEA 5.8 ng/ml (3.4以下正常)と軽度上昇していたが，NSE 10.6 ng/ml，AFP 5.1 ng/ml，βHCG < 0.1 mIU/mlは正常値であった。

入院時画像所見：胸部X線写真で右肺門部に重なる腫瘍状陰影を認めた (Figure 1)。造影CTでは一部に嚢胞性病変を示す7cm大の，造影効果が不均一な前縦隔腫瘍を認めた (Figure 2)。腫瘍は境界明瞭で，周囲臓器への浸潤を疑う所見を認めなかった。胸水や心嚢水の貯留はなく，明らかなリンパ節腫大も認めなかった。PET-CTでは前縦隔腫瘍にmaximum standardized uptake value (SUVmax) 3.95の集積を認めた。

手術所見：胸骨正中切開で縦隔腫瘍・胸腺摘出術を行った。腫瘍は縦隔胸膜に浸潤していたが，胸腔内に露出していなかった。肺，心膜への浸潤を認めなかった。浸潤している縦隔胸膜を含めて腫瘍を切除した。左腕頭静脈頭側の前縦隔リンパ節が腫大していたため摘出したところ，転移を認めた。

病理所見：5cm大の単胞性胸腺嚢胞に接した5cm大の神経内分泌腫瘍 (WHO病期分類T3N1M0，stage III)であった (Figure 3)。嚢胞壁の内側は立方上皮細胞，扁平上皮細胞で覆われており胸腺嚢胞と診断した。嚢胞内容物は褐色泥状で古い血液様を呈した。腫瘍部分には壊死像，細胞分裂像 (4-5 per 10 high-powered fields) が散見された (Figure 4)。また免疫染色ではCD56，chromogranin，synaptophysin，NSEがいずれも陽性であり，胸腺由来の非定型カルチノイドと診断した。腫瘍近傍の胸腺嚢胞壁内には非連続性に点在するカルチノイドが認め



**Figure 2.** Chest computed tomography scan shows an anterior mediastinal tumor with cystic lesion. (A) cystic lesion. (B) solid lesion.



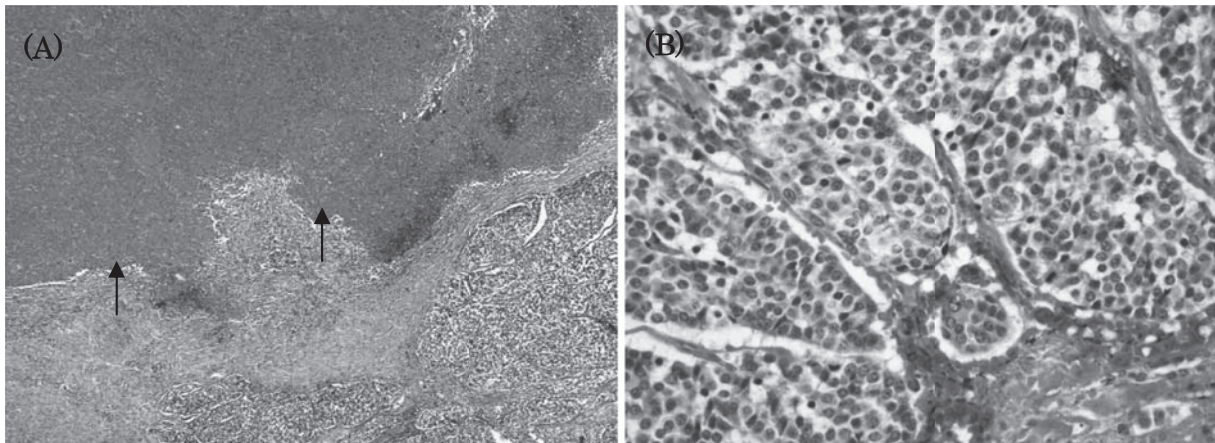
**Figure 3.** Macroscopic findings of the resected specimen showing a thymus and a solid tumor with a thymic cyst.

られた (Figure 5).

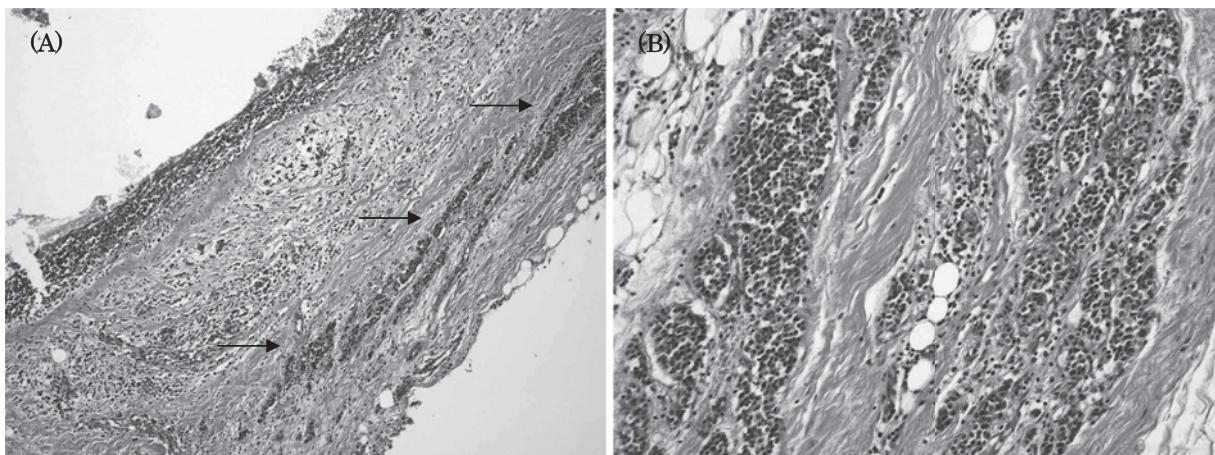
術後経過：前縦隔に 50 Gy (2 Gy×25 Fr) の放射線照射を追加した。現在術後 1 年 3 か月経過したが、再発徴候は認めていない。

### 考 察

胸腺カルチノイドは 1972 年に Rosai らによって確立された疾患概念で、<sup>2</sup> 縦隔腫瘍 1320 例中 41 例 (3.1%) と稀な疾患である。<sup>3</sup> 本症例のように大半の症例が無症状であることが多いが、腫瘍が発見されずに増大し、胸痛や咳嗽、呼吸苦などの局所症状を呈することがある。また Cushing 症候群や多発性内分泌腫瘍症 1 型 (multiple endocrine neoplasia type 1 : MEN1 型) を合併することも報告されている<sup>4,5</sup> が、本症例ではこれらの疾患を疑う



**Figure 4.** (A) Necrosis (arrows) was present (hematoxylin-eosin [HE] stain, original magnification ×100). (B) 4-5 mitoses were observed per 10 high-powered fields (HE stain, original magnification ×400).



**Figure 5.** Microscopic findings (HE stain) show carcinoids in the wall of the thymic cyst (arrows). (A) HE stain, original magnification ×100. (B) HE stain, original magnification ×200.

臨床所見は認めていない。診断は病理学的な診断以外に、現在は2004年のWHO病理分類が広く利用されており、細胞形態、核分裂の数、壊死巣の有無によって分類されている。<sup>1</sup>

呼吸器領域においてfluorodeoxyglucose (FDG)-PETは肺結節の良・悪性の鑑別や肺癌の病期決定に有用であるが、胸腺カルチノイドにおいても有用性が報告されている。一般的にカルチノイドは低悪性度腫瘍であるが、胸腺カルチノイドは肺カルチノイドと比べて非定型カルチノイドが多く、予後不良で悪性度が高い。<sup>6</sup> そのためFDG-PETは胸腺カルチノイドの評価に有用であると考えられる。中村らは胸腺カルチノイド本体にSUV値で4.5の集積を認めたと報告している。<sup>7</sup> 本症例でもSUVmax 3.95の集積が見られ、腫瘍の術前診断に有用であった。同時に中村らはリンパ節転移部にも集積が見られたと報告している。<sup>7</sup> 本症例ではリンパ節転移部にFDGの集積が見られなかったものの、胸腺カルチノイドのリンパ節転移の検索においても一定の有用性があると考えられる。

胸腺カルチノイドの治療法は外科的切除しかないが、完全切除を行った症例でも再発率が高く予後不良であり、5年生存率は定型カルチノイドで50%、非定型カルチノイドで20%との報告がある。<sup>6</sup> 有効性は確立していないが、術後の化学療法や放射線療法は予後を改善する目的で推奨されている。<sup>8</sup> 術後の縦隔リンパ節再発病変に対して化学療法が無効であったが、放射線療法が著効したという報告がある。<sup>9</sup> そのため本症例では術後に化学療法は行わず前縦隔への放射線療法のみを施行した。現在術後1年3か月が経過し、再発なく生存しているが、今後も注意深い観察が必要と考えられる。術後の化学療法・放射線治療の有用性に関する検討が望まれる。

胸腺嚢胞を合併した胸腺腫、胸腺癌が報告されており、胸腺嚢胞から胸腺腫、胸腺癌などが発生することが知られている。<sup>10</sup> 本症例では胸腺カルチノイドに胸腺嚢胞が合併しており、同症例の報告は非常に稀である。著者らが調べた限りでは論文としての報告は本邦では初めてであり、海外を含めても4例目となる。Moranらは胸腺嚢胞を合併した胸腺カルチノイドの2例を報告しており、胸腺嚢胞壁から胸腺カルチノイドが発生した可能性について示唆している。<sup>11</sup> 本症例でも胸腺嚢胞壁内にカルチノイドを認め、胸腺嚢胞壁内で胸腺カルチノイドが発生した可能性は否定できないが、これにはさらなる検討・症例の蓄積が必要であろう。

## 結 語

胸腺嚢胞を合併した胸腺カルチノイドの1切除例を経験した。同症例の論文としての報告は本邦では1例目であり、胸腺嚢胞から胸腺カルチノイドが発生した可能性が示唆された。術後の化学療法・放射線治療の有用性や胸腺嚢胞との関連性に関するさらなる検討・症例の蓄積が望まれる。

本論文内容に関連する著者の利益相反：なし

本論文の要旨は第27回日本呼吸器外科学会総会で発表した。

## REFERENCES

1. World Health Organization Classification of Tumours. *Pathology and genetics of tumours of the lung, pleura, thymus and heart*. Lyon: International Agency for Research on Cancer (IARC) Press; 2004.
2. Rosai J, Higa E, Davie J. Mediastinal endocrine neoplasm in patients with multiple endocrine adenomatosis. A previously unrecognized association. *Cancer*. 1972;29:1075-1083.
3. Kondo K, Monden Y. Therapy for thymic epithelial tumors: a clinical study of 1,320 patients from Japan. *Ann Thorac Surg*. 2003;76:878-885.
4. de Perrot M, Spiliopoulos A, Fischer S, Totsch M, Keshavjee S. Neuroendocrine carcinoma (carcinoid) of the thymus associated with Cushing's syndrome. *Ann Thorac Surg*. 2002;73:675-681.
5. Duh QY, Hybarger CP, Geist R, Gamsu G, Goodman PC, Gooding GA, et al. Carcinoids associated with multiple endocrine neoplasia syndromes. *Am J Surg*. 1987;154:142-148.
6. Moran CA, Suster S. Neuroendocrine carcinomas (carcinoid tumor) of thymus. A clinicopathologic analysis of 80 cases. *Am J Clin Pathol*. 2000;114:100-110.
7. 中村好宏, 佐藤伸之, 貝森光大, 今井 督. リンパ節転移を伴う胸腺カルチノイドの1例. *胸部外科*. 2007;60:1204-1207.
8. Fukai I, Masaoka A, Fujii Y, Yamakawa Y, Yokoyama T, Murase T, et al. Thymic neuroendocrine tumor (thymic carcinoid): a clinicopathologic study in 15 patients. *Ann Thorac Surg*. 1999;67:208-211.
9. 久岡崇宏, 尾浦正二, 吉増達也, 有本潤司, 桜井照久, 松山健次. 再発を繰り返した胸腺カルチノイドの手術例. *日臨外会誌*. 2001;62:2157-2161.
10. Suster S, Rosai J. Multilocular thymic cyst: an acquired reactive process. Study of 18 cases. *Am J Surg Pathol*. 1991; 15:388-398.
11. Moran CA, Suster S. Cystic well-differentiated neuroendocrine carcinoma (carcinoid tumor): a clinicopathologic and immunohistochemical study of two cases. *Am J Clin Pathol*. 2006;126:377-380.