

## CASE REPORT

### 骨髄脂肪腫と診断された後縦隔腫瘍の1例

江花弘基<sup>1</sup>・岡本翔一<sup>2</sup>・臼井 亮<sup>2</sup>・  
伊藤 淳<sup>1</sup>・澁谷泰寛<sup>2</sup>・石川 進<sup>1</sup>

#### A Case of Posterior Mediastinal Myelolipoma

Hiroki Ebana<sup>1</sup>; Shoichi Okamoto<sup>2</sup>; Ryo Usui<sup>2</sup>;  
Atsushi Itou<sup>1</sup>; Yasuhiro Shibuya<sup>2</sup>; Susumu Ishikawa<sup>1</sup>

<sup>1</sup>Department of Thoracic and Cardiovascular Surgery, <sup>2</sup>Department of Respiratory Medicine, Tokyo Metropolitan Bokutoh Hospital, Japan.

**ABSTRACT** — **Background.** Myelolipoma is a benign tumor that mainly occurs in the adrenal cortex. Here we report a rare case of posterior mediastinal myelolipoma. **Case.** A posterior mediastinal tumor was identified in 78-year-old man on a chest radiograph and CT scan during an examination involving another disease. He was referred to our department for further examination and treatment. A chest CT showed a tumor with a diameter of 40×26 mm on the right side beside the ninth thoracic vertebra. The tumor was a well circumscribed, low-density mass with poor contrast enhancement, but with no calcification. A chest MRI revealed a slightly high intensity heterogeneous mass on both T1 and T2 weighted images. Fat-suppressed T2 weighted image revealed that the tumor consisted of fat tissue. The tumor was resected using video-assisted thoracoscopic surgery. Postoperative pathological examination showed that the tumor was well covered with a capsule, and composed of mature adipose tissue and hematopoietic tissues including erythroblasts and myeloid cells. There was no history of blood disorder, and we diagnosed the tumor as an extraadrenal myelolipoma. **Conclusion.** Primary mediastinal myelolipoma is relatively rare, but should be considered in the differential diagnosis of posterior mediastinal tumors containing fat tissue. It is difficult to distinguish myelolipoma and extramedullary hematopoiesis using histopathological examination only, therefore we should also consider the presence of systemic disease, for example blood disorders. Because myelolipoma is a benign tumor, it is also possible to follow it conservatively if there are no coexisting symptoms.

(JLCC. 2012;52:397-401)

**KEY WORDS** — Posterior mediastinal tumor, Myelolipoma, Extramedullary hematopoiesis

Reprints: Hiroki Ebana, Department of Thoracic and Cardiovascular Surgery, Tokyo Metropolitan Bokutoh Hospital, 4-23-15 Kohtohbashi, Sumida-ku, Tokyo 130-8575, Japan (e-mail: h.ebana@bokutoh-hp.metro.tokyo.jp).

Received December 19, 2011; accepted June 18, 2012.

**要旨** — **背景.** 骨髄脂肪腫は主に副腎皮質に発生する良性腫瘍であり、後縦隔発生例は比較的稀である。**症例.** 78歳、男性。他病精査時の胸部X線写真ならびに胸部CTで偶然右後縦隔腫瘍を指摘され、精査・加療目的に当科紹介となった。胸部CTでは第9/10胸椎レベルの右傍椎体域に40×26mmの辺縁整、異常石灰化を認めない、造影効果の乏しい低吸収域の腫瘤を認めた。胸部MRIではT1およびT2強調像で軽度高信号を基調とし

不均一な低信号を混じり、低信号の被膜を伴っていた。脂肪抑制T2強調像では脂肪を含有することが示唆された。診断と治療をかね胸腔鏡下に被膜ごと腫瘍を摘出した。病理では被膜様構造に覆われた成熟脂肪細胞の増生と脂肪細胞間に赤芽球系や骨髄球系細胞などの骨髄組織を伴う腫瘍であった。血液疾患の既往がないことから骨髄脂肪腫と診断した。**結論.** 骨髄脂肪腫は比較的稀な疾患であるが脂肪を含む後縦隔腫瘍の鑑別診断の一つとし

東京都立墨東病院<sup>1</sup>胸部心臓血管外科、<sup>2</sup>呼吸器内科。

別刷請求先：江花弘基，東京都立墨東病院胸部心臓血管外科，〒130-8575 東京都墨田区江東橋4-23-15 (e-mail: h.ebana@bokutoh-

hp.metro.tokyo.jp)。

受付日：2011年12月19日，採択日：2012年6月18日。

て念頭に置くべきである。髄外造血巣との鑑別は病理像だけでは困難であり血液疾患の有無なども考慮し診断にあたるべきである。良性腫瘍であるため術前に診断が得

られ、特に随伴症状がなければ経過観察も一つの選択肢と考える。

**索引用語**—— 後縦隔腫瘍、骨髄脂肪腫、髄外造血

## はじめに

骨髄脂肪腫は成熟脂肪細胞と正常骨髄系細胞からなる良性腫瘍であり、<sup>1,2</sup> 過去の報告では副腎からの発症例が多い。副腎外では仙骨前面や腎周囲など腹部病変が多く、胸部領域での発生は比較的稀である。<sup>3-5</sup> 後縦隔に発生した骨髄脂肪腫の1例を経験したので報告する。

## 症 例

症例：78歳、男性。

主訴：胸部異常陰影。

既往歴：高血圧、アルコール性肝障害。

家族歴：特記すべきことなし。

喫煙歴：なし。

現病歴：2010年6月、他病精査目的に行った胸部X線ならびに胸部CT検査で偶然右後縦隔腫瘍を指摘された。約3か月後の経過観察目的に行った胸部CTでも腫瘍が消失しないことから、精査・加療目的に当科紹介となった。

血液検査所見：WBC 3150/ $\mu$ l, Hb 12.6 g/dl, Plt 9.1万/ $\mu$ l と軽度減少。T.Bil 1.3 g/dl, D.Bil 0.2 g/dl, AST 93

U/l, ALT 71 U/l と軽度上昇しており、既往のアルコール性肝障害のためと思われた。腫瘍マーカーはCEA 4.9 ng/ml, NSE 9.7 ng/ml, AFP 6.7 ng/ml, HCG $\beta$  < 0.1 と正常範囲内であった。その他異常値を認めず、末梢血液像にも異型細胞はなかった。

腹部超音波所見：脾腫や肝硬変の所見はなかった。

胸部X線写真所見：右心横隔膜角の鈍化を認めた。腫瘤影は右第2弓とシルエットサイン陰性であり、右傍椎体域に存在することが示唆された (Figure 1)。

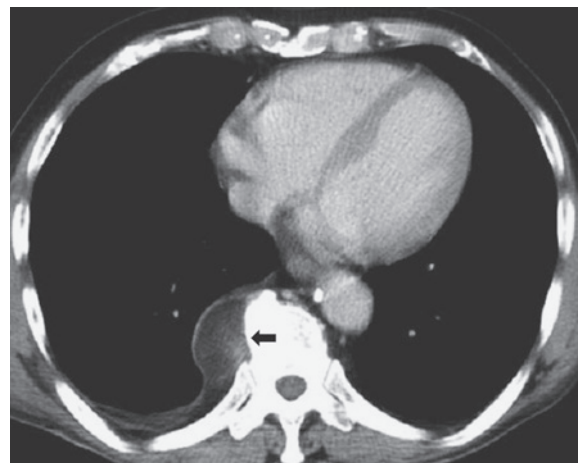
胸部CT所見：Th9/10レベルの右傍椎体域に脂肪を主体とする40×26 mmの境界明瞭な腫瘤を認めた。内部に網状の軟部組織濃度を示す領域を認め、わずかに均一に造影された。また、背側胸壁に沿って胸膜外脂肪織の増生を伴っていた。異常石灰化は認めず、明らかな椎体への浸潤も否定的であった (Figure 2)。

胸部MRI所見：腫瘤はT1およびT2強調像でやや不均一な高信号を呈していた。脂肪抑制T2強調像で抑制されることから脂肪を含有していることが示唆された。腫瘍の周りには低信号の被膜を有し、椎間孔との連続性は明らかではなかった (Figure 3)。

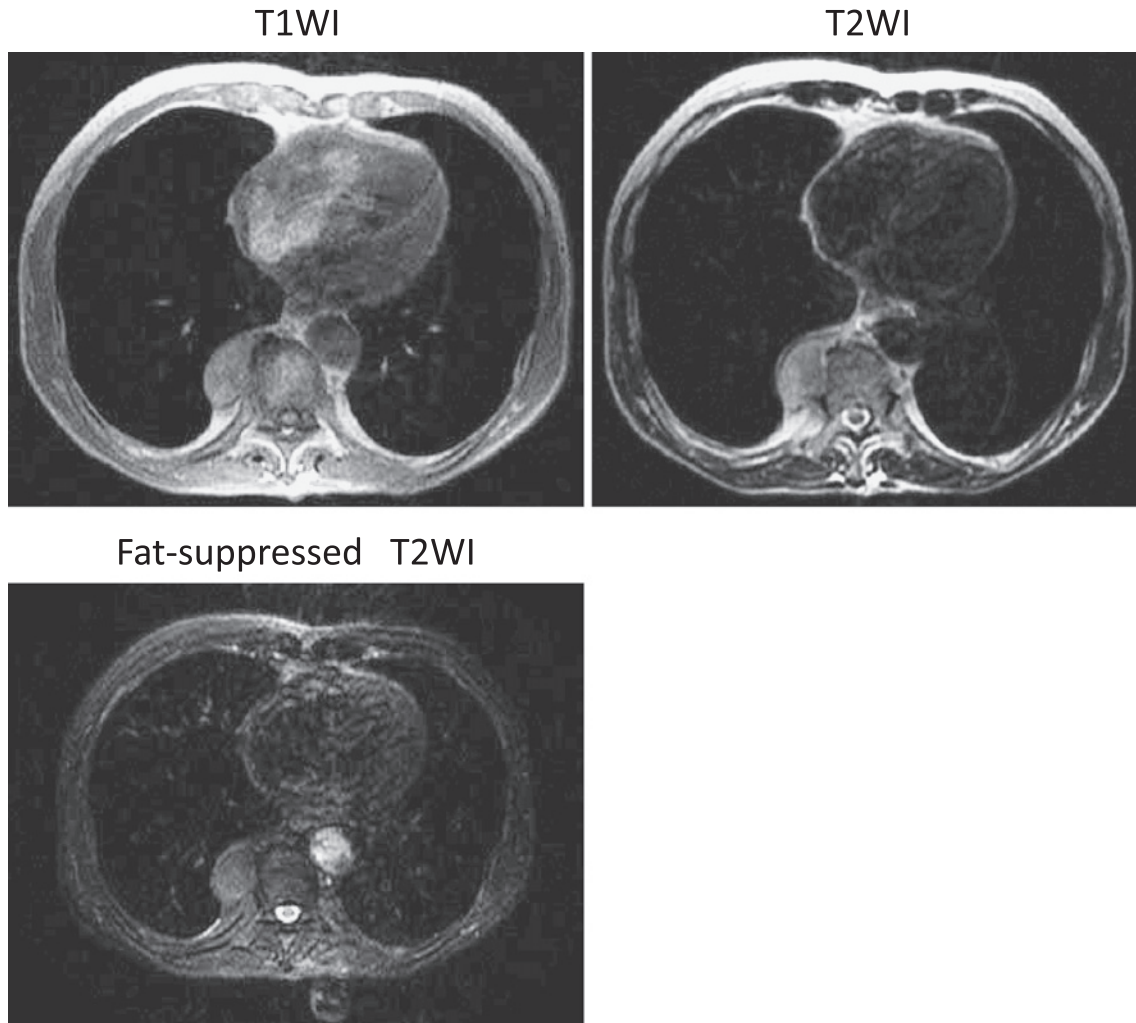
術前診断：不均一な内部構造、充実性、脂肪を含む後縦隔、傍脊柱の腫瘍性病変ということから脂肪腫、高分化型脂肪肉腫、髄外造血、骨髄脂肪腫、リンパ腫、神経



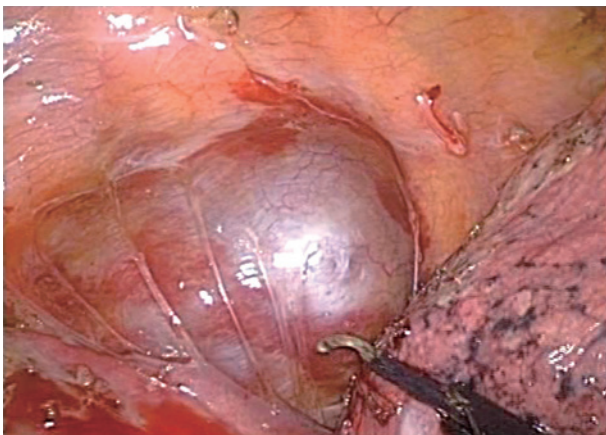
**Figure 1.** Chest radiograph shows a paramedial mass (arrow).



**Figure 2.** Chest CT revealed a well encapsulated and heterogeneous mass of 40×26 mm in diameter beside the Th9 and Th10 thoracic vertebra (arrow).



**Figure 3.** Chest MRI revealed slightly high intensity heterogeneous mass on both T1 and T2 weighted images. Fat-suppressed T2 weighted image revealed that the tumor implied fat tissue. The tumor invaded neither the intervertebral foramen nor the vertebral body.



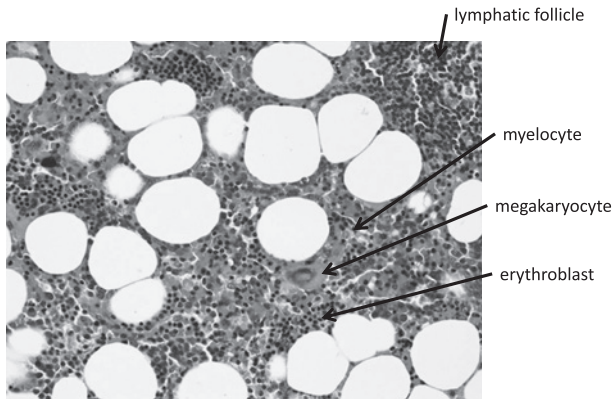
**Figure 4.** Operating findings. The tumor was well encapsulated, elastic soft and dark red.

原性腫瘍などが考えられた。腫瘍が胸壁から離れていること、脂肪肉腫などの悪性疾患の可能性も否定できないことからCT下生検は行わず、胸腔鏡下に腫瘍を摘出する方針とした。

手術：全身麻酔，分離肺換気，胸腔鏡下に腫瘍を被膜ごと摘出した。腫瘍は暗赤色で非常に軟らかい充実性腫瘍であった（Figure 4）。

術後病理所見：被膜様構造に覆われた腫瘍で成熟脂肪細胞が大半を占め，その脂肪成分の間に血球系の細胞を認めた。拡大像では脂肪細胞間に成熟赤血球が目立ったがリンパ濾胞や赤芽球，骨髓球，巨核球，三系統全ての血球を認めた。脂肪芽細胞や異型細胞は存在しなかった（Figure 5）。

術後診断：成熟脂肪細胞の増生と正常骨髓像を認め被膜様構造内に限局し，境界明瞭，周囲の脂肪組織には造



**Figure 5.** Postoperated pathology. Histologically, the tumor consisted of adipose and hematopoietic elements including lymphatic follicles, myelocytes, megakaryocytes and erythroblasts (HE staining  $\times 400$ ).

血組織を認めないこと、明らかな血液疾患の既往が存在しないことから骨髄脂肪腫と診断した。

術後経過：特に問題なく経過し第13病日に退院となった。術後1年6か月の現在、再発なく外来経過観察中である。

## 考 察

骨髄脂肪腫は1905年にGierke<sup>1</sup>により初めて報告され、1929年にOberling<sup>2</sup>により命名された成熟脂肪細胞と正常骨髄系細胞からなる良性腫瘍である。主に副腎皮質に発生し約15%が副腎外に発生するとされる。副腎外では約半数が仙骨前面に発生し一番多く、胸壁内は13%、縦隔は8%程度と報告されている。他に胃、肝、膀胱などの発生の報告もある。<sup>3,5</sup>

骨髄脂肪腫と同様の組織像を呈する疾患に髄外造血巣が存在する。髄外造血とは骨髄以外の臓器、例えば脾臓、肝臓、リンパ節、副腎、後縦隔など異所性に正常な血液細胞が形成・増殖される状態をいう。悪性貧血、種々の白血病や骨髄異型性症候群、サラセミア、鎌状赤血球症などの全身性の血液疾患に関連して起こる生理的な代償機転と考えられているため多くの場合脾腫を伴う。また、多発・巨大化の傾向がある。さらに髄外造血では末梢血に赤芽球、幼若顆粒球、巨核球が出現する場合もある。<sup>6</sup>一方、骨髄脂肪腫は腫瘍性病変であるために被膜を有し、単発であることが多い。豊富な脂肪組織の中に一部造血組織を認める。脂肪成分が多く血球成分が少ない、赤芽球はあるが過形成にはなっていない、髄外造血では起こらないとされているリンパ球の集簇がある、などの特徴を有する。<sup>5</sup>骨髄脂肪腫と髄外造血巣の鑑別は細胞像からだけでは困難とされ、患者の基礎疾患や腫瘍の肉眼所見に重点を置いた判定が必要とされる。<sup>7</sup>本症例では、腫

瘍は被膜に覆われ、被膜外の脂肪織内には骨髄細胞は認めず腫瘍内に局限していた。採血検査だけでなく、家族歴や脾腫もないことから全身性の血液疾患の存在は否定的であった。以上より骨髄脂肪腫と診断した。

画像上は脂肪成分を含む後縦隔腫瘍ということから脂肪腫、高分化型脂肪肉腫、髄外造血、骨髄脂肪腫、リンパ腫などが鑑別に挙げられた。確定診断のためCT下生検も考慮したが、悪性疾患であった場合の皮膚転移や胸腔内への播種の可能性、腫瘍が傍脊柱のため胸壁と距離があり気胸のリスクがあること、腫瘍の部位ならびに大きさから胸腔鏡手術は容易と考えられたことから、CT下生検は行わず胸腔鏡下に被膜ごと腫瘍を切除する方針とした。しかし全縦隔腫瘍のうち脂肪肉腫の発生頻度は0.13~0.75%程度<sup>8,9</sup>と非常に稀である。CT下あるいはエコーガイド下の針生検が有効との報告<sup>10,11</sup>も散見されることから、腫瘍が胸壁に接しており穿刺が容易であると考えられる場合や腫瘍が巨大で低侵襲な鏡視下手術が困難と思われる場合には、CTもしくはエコーガイド下生検を選択し、術前の病理診断を確認することも有用と考える。

胸腔内骨髄脂肪腫は本症例のように検診や他病観察中に偶然発見されることがほとんどだが、<sup>12,13</sup>腫瘍の位置や大きさによっては胸痛、咳、呼吸困難で発見された例も存在する。<sup>14</sup>骨髄脂肪腫は良性腫瘍であるため術前になんらかの方法で腫瘍細胞を採取し診断に至れば、腫瘍が小さく呼吸困難や出血などの重篤な合併症を認めない限り経過観察することも一つの選択肢と考える。

## 結 語

後縦隔発生の骨髄脂肪腫は比較的稀な疾患だが、脂肪を含む後縦隔腫瘍の鑑別診断の一つとして念頭に置くべきである。髄外造血巣との鑑別は病理学的検索のみでは困難であり、血液疾患の有無や肝脾腫などの臨床所見も考慮し診断にあたるべきである。良性腫瘍であるため術前に診断が得られ、特に随伴症状がなければ経過観察も可能である。

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52回日本肺癌学会総会(大阪市)で発表した。

## REFERENCES

1. Gierke E. Uber Knochenmarksgewebe in der Nebenniere. *Beitr Pathol Anat.* 1905;7:311-325.
2. Oberling C. Les formations myelolipomateuses. *Bull Assoc Fr Etud Cancer.* 1929;18:234-246.
3. Patel VG, Babalola OA, Fortson JK, Weaver WL. Adre-

- nal myelolipoma: report of a case and review of the literature. *Am Surg*. 2006;72:649-654.
4. 山口俊介, 松田健司, 堀田 司, 瀧藤克也, 東口 崇, 尾崎 敬, 他. 仙骨前面に発生した骨髄脂肪腫の1例. 日臨外会誌. 2009;70:2536-2539.
  5. Fowler MR, Williams RB, Alba JM, Byrd CR. Extraadrenal myelolipomas compared with extramedullary hematopoietic tumors: a case of presacral myelolipoma. *Am J Surg Pathol*. 1982;6:363-374.
  6. 佐藤哲夫, 望月太一, 井上 寧, 岡村樹里. 縦隔髓外造血. 日本臨床. 別冊呼吸器症候群 III. 大阪:日本臨牀社; 2009:546-548.
  7. 春田磨美, 松井成明, 北村隆司, 滝本雅文, 塩川 章. サラセミアに合併した後縦隔髓外造血の1例. 日臨細胞誌. 1999;38:462-466.
  8. 和田洋巳, 寺松 孝. 縦隔腫瘍全国集計(1975.7~1979.5). 日胸外会誌. 1981;30:374-378.
  9. Wychulis AR, Payne WS, Clagett OT, Woolner LB. Surgical treatment of mediastinal tumors: a 40 year experience. *J Thorac Cardiovasc Surg*. 1971;62:379-392.
  10. Rossi M, Ravizza D, Fiori G, Trovato C, Renne G, Miller MJ, et al. Thoracic myelolipoma diagnosed by endoscopic ultrasonography and fine-needle aspiration cytology. *Endoscopy*. 2007;39(Suppl 1):E114-E115.
  11. Spanta R, Saleh HA, Khatib G. Fine needle aspiration diagnosis of extraadrenal myelolipoma presenting as a pleural mass. A case report. *Acta Cytol*. 1999;43:295-298.
  12. 小泉淳一, 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.
  13. 田村和貴, 谷口英樹. 後縦隔に発生した骨髄脂肪腫の1例. 日呼外会誌. 2010;24:28-30.
  14. Vaziri M, Sadeghipour A, Pazooki A, Shoolami LZ. Primary mediastinal myelolipoma. *Ann Thorac Surg*. 2008;85:1805-1806.