

SHORT REPORT

左肺下葉原発 ciliated muconodular papillary tumor の 1 切除例

石川善啓<sup>1</sup>・亀田陽一<sup>2</sup>・田尻道彦<sup>1</sup>・大森隆広<sup>1</sup>・永島琢也<sup>1</sup>・小島陽子<sup>1</sup>・菅野健児<sup>1</sup>・岡本浩直<sup>1</sup>・梅田茂明<sup>3</sup>・益田宗孝<sup>4</sup>・廣島健三<sup>5</sup>

A Case of Ciliated Muconodular Papillary Tumor of the Peripheral Lung Originating in Left Lower Lobe

Yoshihiro Ishikawa<sup>1</sup>; Youichi Kameda<sup>2</sup>; Michihiko Tajiri<sup>1</sup>; Takahiro Omori<sup>1</sup>; Takuya Nagashima<sup>1</sup>; Yoko Kojima<sup>1</sup>; Kenji Kanno<sup>1</sup>; Hironao Okamoto<sup>1</sup>; Shigeaki Umeda<sup>3</sup>; Munetaka Masuda<sup>4</sup>; Kenzo Hiroshima<sup>5</sup>

<sup>1</sup>Department of General Thoracic Surgery, <sup>2</sup>Department of Pathology, Kanagawa Cardiovascular and Respiratory Center, Japan; <sup>3</sup>Department of Pathology, Yokohama City University Graduate School of Medicine, Japan; <sup>4</sup>Department of Surgery, Yokohama City University, Japan; <sup>5</sup>Department of Pathology, Tokyo Women's Medical University Yachiyo Medical Center, Japan (Adviser of Pathological Findings).

(JLCC. 2013;53:817-818)

KEY WORDS — Ciliated muconodular papillary tumor, Lung, Peripheral

Reprints: Yoshihiro Ishikawa, Department of General Thoracic Surgery, Kanagawa Cardiovascular and Respiratory Center, 6-16-1 Tomiokahigashi, Kanazawa-ku, Yokohama City, Kanagawa 236-0051, Japan.

要旨 — Ciliated muconodular papillary tumor (線毛性粘液結節性乳頭状腫瘍) は肺末梢部に発生し、線毛細胞と杯細胞が乳頭状増殖を示す稀な腫瘍である。今回我々

は、本疾患の 1 切除例を経験したので報告する。

索引用語 — ciliated muconodular papillary tumor (線毛性粘液結節性乳頭状腫瘍), 肺, 末梢部

症例：57 歳，女性。

主訴：腹痛。

既往歴：17 歳 血小板減少性紫斑病，34 歳 卵巣腫瘍。

喫煙歴：なし。

現病歴：2012 年 1 月，腹痛のため近医で CT を施行した際に左肺下葉の結節を指摘された。

初診時現症：特記すべきことなし。

血液検査所見：腫瘍マーカー (CEA, SCC, proGRP) を含め特記すべき異常なし。

胸部 X 線：左中下肺野に 1 cm の結節影を認めた。

胸部造影 CT：左肺下葉 S<sup>9</sup> 辺縁部に、内部に小さな空洞を有する径 10 mm の充実性結節を認めた (Figure 1)。

気管支鏡：左 B<sup>9</sup> より生検，擦過細胞診を行ったが明らかな悪性所見を認めなかった。

PET 検査：有意な FDG 集積を認めなかった。

経過：上記検査により確定診断に至らなかったが，CT 所見から原発性肺癌が疑われたため手術の方針とした。

手術所見：まず胸腔鏡下左肺 S<sup>9</sup> 部分切除を施行，術中

迅速病理診断で腺癌の診断となり，胸腔鏡下左肺下葉切除術，縦隔リンパ節郭清術 (ND2a-1) を施行した。

切除標本肉眼所見：割面に透明感を有し，黄色調を帯びた灰白色の腫瘍を認めた。

組織所見：腫瘍は大きさ 11×10×10 mm で，左肺 S<sup>9</sup> 末梢部，主に肺泡領域に存在し，細気管支との連続性も認められた。杯細胞と線毛細胞の混在する円柱上皮が乳頭状に増殖しており，基底側に基底細胞様の細胞の増殖を認めた (Figure 2)。腫瘍は被膜を有さず，胞体外に多量の粘液を分泌していた。腫瘍辺縁部では主に多数の杯細胞からなる単層円柱上皮が肺泡置換型に増殖しており，粘液産生型の細気管支肺泡上皮癌 (BAC) に類似していた (Figure 3)。全体的に核異型は軽度で核分裂像はほとんど認めなかった。これらの所見から ciliated muconodular papillary tumor (CMPT) と診断した。脈管浸潤，胸膜浸潤，リンパ節転移は認めなかった。

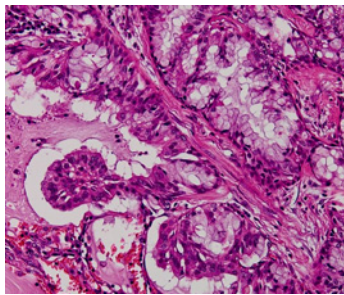
免疫組織化学所見：全体的に CK7 は陽性，CK20 は陰性であった。TTF-1 は基底細胞様の細胞優位に広範囲に

神奈川県立循環器呼吸器病センター<sup>1</sup>呼吸器外科，<sup>2</sup>病理診断科；<sup>3</sup>横浜市立大学大学院医学研究科病態病理学；<sup>4</sup>横浜市立大学外科治療学；<sup>5</sup>東京女子医科大学八千代医療センター病理診断科 (病理アドバイザー)。

別刷請求先：石川善啓，神奈川県立循環器呼吸器病センター呼吸器外科，〒236-0051 神奈川県横浜市金沢区富岡東 6-16-1。 ※第 165 回日本肺癌学会関東支部会推薦症例 (平成 24 年 12 月 8 日 日本肺癌学会関東支部会)。



**Figure 1.** CT showed an irregularly shaped mass, 10 mm in diameter, in the left lower lobe of the lung.

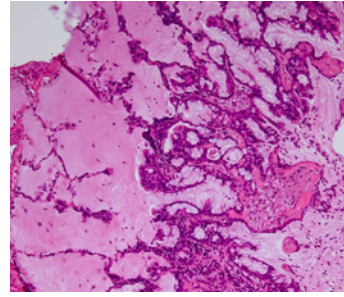


**Figure 2.** Histopathologic finding of the tumor. Tumor consisted of ciliated columnar cells and goblet cells with proliferation of basaloid cells.

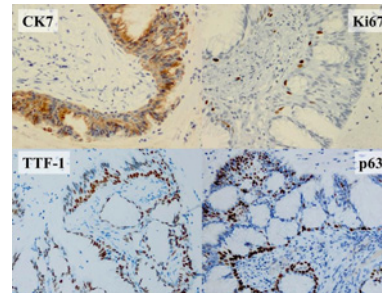
陽性細胞を認めた。p63は基底細胞様の細胞に陽性細胞を認め、表層の杯細胞は弱陽性であった。CEAは杯細胞の一部のみ陽性であった。MUC1は陽性であった。MUC5ACは表層の杯細胞が陽性であった。Ki67標識率は3~5%であった (Figure 4)。

術後経過：術後6か月経過し無再発である。

考察：肺末梢部に発生するCMPTは、線毛細胞と杯細胞を有し、粘液産生を伴う乳頭状腫瘍である。<sup>1</sup> 一般に線毛を有する腫瘍は良性と考えられてきたが、本疾患について良悪性の位置づけは確立していない。石川の報告<sup>1</sup>では悪性を示唆する所見として1) 肺胞構造の破壊と弾性線維の凝集、2) BACのような肺胞上皮置換性の増殖と、肺内転移を疑うスキップ病変、3) 被膜のないこと、4) CEAが陽性、5) micropapillary pattern、を挙げ、一方良性病変を考えさせる所見として1) 線毛細胞への分化(きわめて高分化)、2) 核分裂像のないこと、3) K-ras変異のないこと、を指摘している。免疫組織化学的所見は一般にCEA、TTF-1およびCK7が陽性で、CK20は陰性であり、肺腺癌と類似している。線毛を有し肺末梢に発生する腫瘍は稀とされ、本疾患の報告は過去5例に留



**Figure 3.** Tumor showed lepidic growth pattern in the periphery of the tumor.



**Figure 4.** Immunohistochemical features of the tumor. CK7 was generally positive (upper left), Ki67 labeling index was 3 to 5% (upper right), TTF-1 was positive widely but predominantly in the basaloid cells (lower left), and p63 was positive in the basaloid cells (lower right).

まるが、extremely well-differentiated papillary adenocarcinoma, solitary peripheral ciliated glandular papillomaとして報告された例では類似した組織像を呈している。<sup>2</sup> これらとCMPTとの鑑別点としては、前者はCMPTより核異型が強く核分裂像も認められる点異なっている。また後者は組織像がCMPTと類似しているが粘液結節を形成していない点異なっており、免疫組織学的所見については不明である。治療および予後については、本例を含め本疾患6例は全て外科的切除が行われており、術後6か月から10年の経過で再発は認めない。

以上、稀な腫瘍であるCMPTの1例を経験した。

本論文内容に関連する著者の利益相反：なし

#### REFERENCES

1. 石川雄一. 肺末梢の線毛性粘液結節性乳頭状腫瘍：良性か悪性か？ 病理と臨床. 2002;20:964-965.
2. Hata Y, Yuasa R, Sato F, Otsuka H, Goto H, Isobe K, et al. Ciliated muconodular papillary tumor of the lung: a newly defined low-grade malignant tumor with CT findings reminiscent of adenocarcinoma. *Jpn J Clin Oncol*. 2013;43:205-207.