

CASE REPORT

局所麻酔下胸腔鏡検査で診断しえた左肩甲部皮下原発
粘液線維肉腫胸腔内転移の1例

北村淳史¹・中岡大士¹・岡藤浩平¹・
仁多寅彦¹・西村直樹¹・蝶名林直彦¹

A Case of Myxofibrosarcoma with Pleural Metastases Diagnosed
by Thoracoscopy Under Local Anesthesia

Atsushi Kitamura¹; Hiroshi Nakaoka¹; Kohei Okafuji¹;
Torahiko Jinta¹; Naoki Nishimura¹; Naohiko Chohnabayashi¹

¹Division of Pulmonary Medicine, St. Luke's International Hospital, Japan.

ABSTRACT — **Background.** Myxofibrosarcoma is a relatively rare soft tissue tumor appearing most commonly on the limbs of elderly patients. There are limited reports about its pleural metastasis. **Case.** An 86-year-old male with a past history of myxofibrosarcoma in the left scapular region visited our department with a chief complaint of dyspnea. A plain chest X-ray showed right pleural effusion and a chest computed tomography (CT) scan revealed pleural tumors with effusion. After admission to hospital, with a cytological analysis of the pleural aspirate, which proved inconclusive, we performed thoracoscopy under local anesthesia, which revealed red pleural nodules. A histopathological examination confirmed that the nodules were composed of metastatic myxofibrosarcoma. **Conclusion.** When pleural effusion cytology is inconclusive in a patient with a past history of myxofibrosarcoma, thoracoscopy under local anesthesia can be useful for the diagnosis of pleural metastasis.

(JLCC. 2015;55:151-154)

KEY WORDS — Myxofibrosarcoma, Pleural metastasis, Thoracoscopy under local anesthesia

Reprints: Atsushi Kitamura, Division of Pulmonary Medicine, St. Luke's International Hospital, 9-1 Akashi-cho, Chuo-ku, Tokyo 104-8560, Japan (e-mail: akitamur@luke.ac.jp).

Received January 27, 2015; accepted April 7, 2015.

要旨 — **背景.** 粘液線維肉腫は高齢者の四肢に好発する比較的まれな軟部組織腫瘍であり、胸腔内転移をきたし胸腔鏡が施行された報告は少ない。 **症例.** 86歳男性。2013年4月に左肩甲部に腫瘤を自覚し、2013年5月に同部位を生検し、高分化型粘液線維肉腫, cT2bN1M0 Stage III (American Joint Committee on Cancer (AJCC) Staging)と診断された。2013年6月に左背部肉腫切除術が施行され、断端陰性のため追加治療なく、経過観察となった。2014年7月頃より呼吸困難が出現し増悪するため、当科を受診した。胸部CT上右胸水と胸腔内に腫瘤をみ

とめ、両側肺野に多発する結節をみとめた。胸水細胞診では診断がえられず、確定診断目的に局所麻酔下胸腔鏡を施行した。壁側胸膜に多発する赤色調の腫瘤をみとめ、同部位から生検を行い粘液線維肉腫の胸腔内転移の診断をえた。その後呼吸不全が急速に進行したため、第22病日に永眠された。 **結論.** 粘液線維肉腫の胸腔内転移の1例を経験した。局所麻酔下胸腔鏡でまれな同腫瘍の胸腔内病変を観察することができ、診断に有用であった。

索引用語 — 粘液線維肉腫, 胸腔内転移, 局所麻酔下胸腔鏡

¹聖路加国際病院呼吸器センター呼吸器内科。

別刷請求先: 北村淳史, 聖路加国際病院呼吸器センター呼吸器内科, 〒104-8560 東京都中央区明石町9-1 (e-mail: akitamur@luke.

ac.jp)。

受付日: 2015年1月27日, 採択日: 2015年4月7日。

背景

粘液線維肉腫は、高齢者の四肢に好発する比較的まれな軟部組織腫瘍である。悪性軟部組織腫瘍全体の70～80%が肺転移をきたし、¹肺転移例の予後は不良である。一方複数の癌の既往のある患者に肺転移がみとめられた場合は、確定診断や遺伝子変異検索のために組織検体を要することが多い。近年、組織採取のアプローチとして局所麻酔下胸腔鏡の安全性や有用性の報告が相次いでおり、²局所麻酔下胸腔鏡でまれな同腫瘍の胸腔内病変を観察することができ、診断に有用であった。

症例

症例：86歳男性。

主訴：呼吸困難感。

既往歴：30歳代：肺結核、66歳：右腎細胞癌；clear cell type stage I、右腎摘出術、直腸癌；adenocarcinoma stage I、直腸切除術、人工肛門造設。

喫煙歴：10本/日×17年（21～38歳）。

家族歴：特記事項なし。

現病歴：2013年4月に左肩甲部に腫瘤を自覚し当院形成外科を紹介受診した。2013年5月に同部位を生検し、高分化型粘液線維肉腫、cT2bN1M0 stage III (AJCC Staging)と診断された。2013年6月に当院にて左背部肉腫切除術と広背筋皮弁による再建術が施行され、断端陰性であり経過観察された。2014年7月に施行された左肩甲骨部の造影MRIでは局所の再発はみとめなかったも



Figure 1. A chest X-ray film revealed a large quantity of right pleural effusion and multiple nodules in both lung fields.

の、同時期に呼吸困難が出現し急速に増悪するため、当科を受診した。

入院時現症：身長162 cm、体重58 kg、体温36.7℃、血圧134/85 mmHg、心拍数130/分（整）、呼吸数34/分、意識清明、表在リンパ節触知せず、右呼吸音減弱、心音リズム不整。皮膚所見や神経学的な特記異常はなし。Performance statusは3であった。

入院時血液検査所見：AST 67 U/l、ALT 46 U/lと軽度上昇、LDHは261 U/l、CRP 13.12 mg/dlと上昇していたこと以外は特記異常なし。動脈血液ガス分析は酸素3 l/分、鼻カニューレ吸入下でpH 7.410、PaO₂ 109 mmHg、PaCO₂ 36.4 mmHg、HCO₃⁻ 22.6 mEq/lと軽度の呼吸不全をみとめた。

胸部X線写真所見：右胸水貯留と、両肺に多発する結節影をみとめた（Figure 1）。

胸部・腹部造影CT所見：右胸腔に大量胸水をみとめ、内部に多発する低吸収域をみとめた。両側肺野には多発する大小の結節をみとめ、縦隔リンパ節は#7が軽度腫大していた。腹部リンパ節、肝臓、腎臓に転移を疑わせる病変はみとめられなかった（Figure 2）。

入院後経過：入院後に胸水検査を施行した。胸水の性状は血性でTP 4.5 g/dl、LDH 414 U/lと滲出性胸水であり、細胞診ではclass Vと悪性所見をみとめたものの、組織型は判定困難であり確定診断はえられなかった。培養検査は一般細菌、抗酸菌ともに陰性であった。

胸水の細胞診では確定診断にいたらず、入院第3病日に胸腔鏡検査を施行した。第4肋間中腋窩線に局所麻酔下でポートを留置し、胸腔内を観察した。壁側胸膜と臓側胸膜両方に赤色調の腫瘤を多数みとめた（Figure 3）。

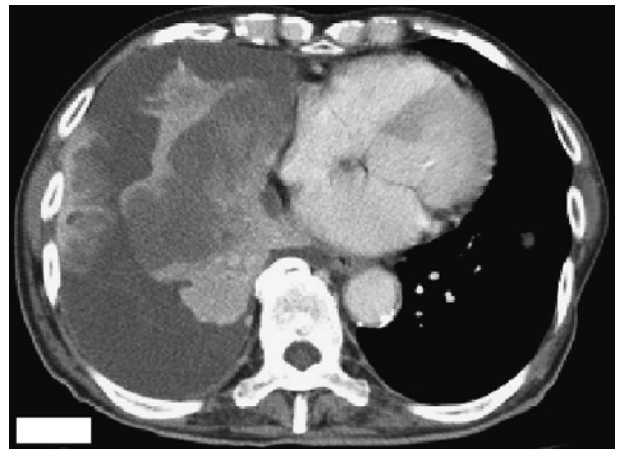


Figure 2. Chest CT with contrast medium-enhancement on admission showed a large quantity of right pleural effusion and multiple nodular lesions associated with pleural effusion.

また腫瘍形成のない壁側胸膜も肋骨の走行の確認は乏しく、同部も悪性腫瘍の転移が疑われた。壁側胸膜の腫瘍

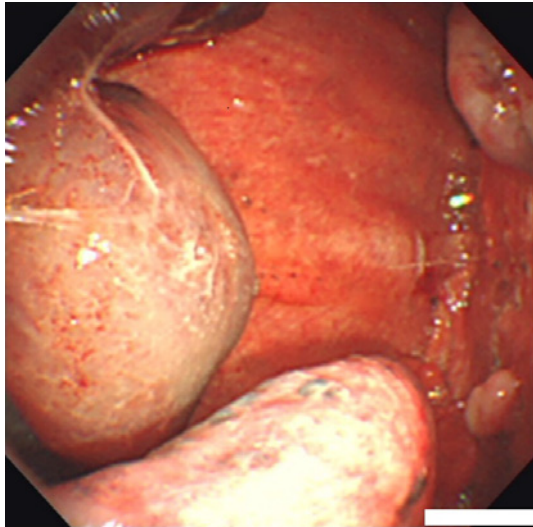


Figure 3. Thoracoscopy revealed multiple polypoid tumors on both the parietal and visceral pleura.

から生検を、腫瘍形成のみとめられない胸膜からもランダムに生検を行った。検査前後において侵襲による performance status の悪化はみとめられなかった。

病理組織所見では、N/C 比が高く細胞異型が高度な紡錘形細胞・多角形細胞の密な増殖をみとめた。免疫染色ではサイトケラチン AE1/AE3-, α -SMA +/-, S100, caldesmon, CD34 は陰性であった。MIB-1 index は 79% で悪性度の高さが示唆された (Figure 4)。2013 年に当院にて切除された腫瘍に類似した所見がみとめられ (Figure 5)、粘液線維肉腫の胸腔内転移との診断となった。

検査前後での performance status の悪化はみとめられなかったものの、入院後胸腔内の腫瘍の急速な増大をみとめ、第 20 病日より呼吸不全が急速に悪化し、第 22 病日に死亡した。

考 察

粘液線維肉腫は、以前は悪性線維性組織球腫 (malignant fibrous histiocytoma, MFH) の亜型に分類されていた。しかし、Weiss らが myxoid な MFH が他の亜型と比較し予後良好なことから MFH の variant を提唱し、³

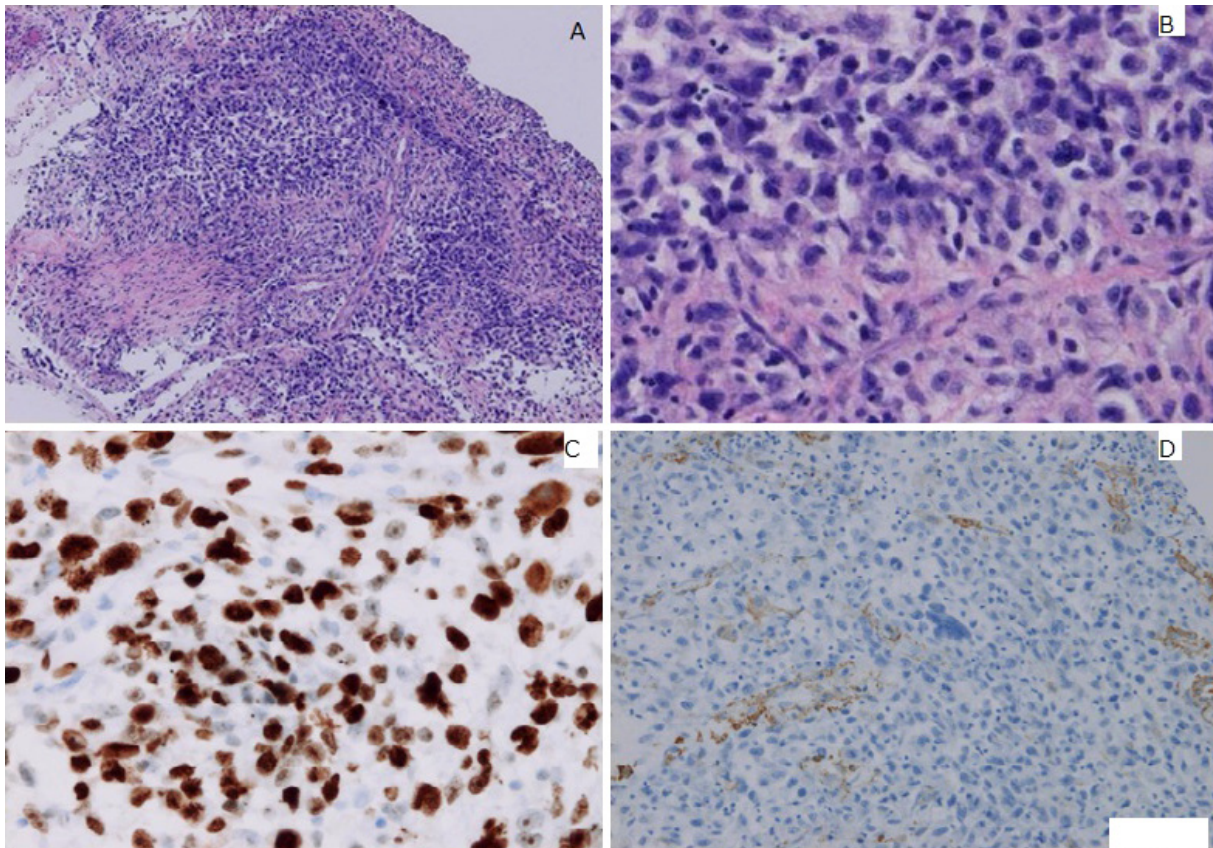


Figure 4. A histological examination of a parietal pleural nodule showed an interlacing arrangement of round and spindle cells (A, B: HE staining, $\times 400$, original magnification). C: The MIB-1 index was 79%. D: The spindle-shaped tumor cells were immunohistochemically-positive for α -SMA.

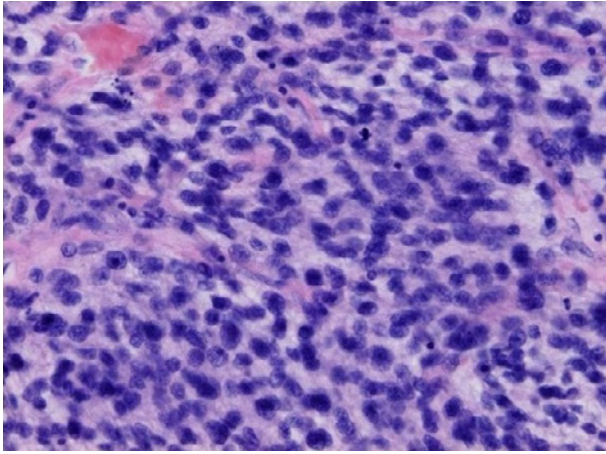


Figure 5. The histological examination of the tumor resection in the left back showed an interlacing arrangement of round and spindle cells (HE staining, $\times 400$, original magnification).

2002年のWHO分類では粘液線維肉腫 (myxofibrosarcoma) としてMFHから独立し、線維性腫瘍群に再分類された。60～70歳代の中高年に多く、発生部位としては下肢57%、上肢31%、体幹8%、頭頸部4%との報告があり、⁴本症例のように肩甲骨部に発生するのはまれではない。大きさが5 cm以上、壊死像がある例、病理組織にて異型がhigh-gradeな例では、20～35%は肺転移し、転移後の生存期間中央値は1年未満と予後不良である。^{5,6}治療は抗癌剤や放射線療法には低感受性であり、根治には腫瘍の完全切除が必要である。⁶本症例のように肺転移をきたした場合の根治は困難である。

一方人口の高齢化に伴い、複数の癌の既往を有する高齢者に新たな肺転移が出現した場合は、その診断に苦慮することも多い。確定診断のためには転移巣からの生検を施行し、免疫染色などを用いた病理学的な検索が必要である。特に本症例は腎細胞癌の既往があり、腎細胞癌の肺転移は20年後に出現することも報告されており、^{7,8}鑑別、治療法の検討のために生検検体を要した。胸腔内転移を疑った場合の生検のアプローチとしてはエコーやCT下針生検、全身麻酔による胸腔鏡や局所麻酔下胸腔鏡による直視下生検などの選択肢がある。本症例は治療として呼吸状態の改善のために胸腔ドレナージが必要なことや、高齢であり全身状態が不良であったため、全身麻酔のリスクを勘案し、検査の必要性と侵襲性を十分にinformed consentした上で、局所麻酔下胸腔鏡を選択、実施した。実際、熟練した術者が行えば、胸腔ドレナージ挿入と同等の侵襲程度で施行しえ、本症例も安全に施行しえた。

近年局所麻酔下胸腔鏡の有用性が報告されているが、粘液線維肉腫の胸腔内転移所見の報告はまれである。本症例における同腫瘍の胸腔内転移所見は赤色調で、表面の血管は目立たなかった。胸腔鏡所見のみでは、他の腫瘍と比較して同腫瘍に特徴的な所見はえられなかったものの、確実に病変部から病理検体を採取することができ、診断に有用であった。

結 語

局所麻酔下胸腔鏡により診断した粘液線維肉腫の胸腔内転移の1例を経験した。複数の癌の既往がある場合は診断に苦慮することが多いが、局所麻酔下胸腔鏡は、同腫瘍の胸腔内転移でも施行することが可能で診断に有用であった。

本論文内容に関連する著者の利益相反：なし

謝辞：本症例につきご指導を賜りました聖路加国際病院病理診断科鈴木高祐先生に深謝します。

REFERENCES

- Christie-Large M, James SL, Tiessen L, Davies AM, Grimer RJ. Imaging strategy for detecting lung metastases at presentation in patients with soft tissue sarcomas. *Eur J Cancer*. 2008;44:1841-1845.
- 石井 聡, 竹田雄一郎, 鈴木 学, 仲 剛, 飯倉元保, 杉山温人. 局所麻酔下胸腔鏡 (手技と所見). *気管支学*. 2014;36:428-432.
- Weiss SW, Enzinger FM. Myxoid variant of malignant fibrous histiocytoma. *Cancer*. 1977;39:1672-1685.
- Huang HY, Lal P, Qin J, Brennan MF, Antonescu CR. Low-grade myxofibrosarcoma: a clinicopathologic analysis of 49 cases treated at a single institution with simultaneous assessment of the efficacy of 3-tier and 4-tier grading systems. *Hum Pathol*. 2004;35:612-621.
- Mentzel T, Calonje E, Wadden C, Camplejohn RS, Beham A, Smith MA, et al. Myxofibrosarcoma. Clinicopathologic analysis of 75 cases with emphasis on the low-grade variant. *Am J Surg Pathol*. 1996;20:391-405.
- Sanfilippo R, Miceli R, Grosso F, Fiore M, Puma E, Pennacchioli E, et al. Myxofibrosarcoma: prognostic factors and survival in a series of patients treated at a single institution. *Ann Surg Oncol*. 2011;18:720-725.
- Kyoda Y, Kobayashi K, Hirobe M, Shindo T, Fukuta F, Hashimoto K, et al. Evaluation of long-term outcome for patients with renal cell carcinoma after surgery: analysis of cancer deaths occurring more than 10 years after initial treatment. *Int J Clin Oncol*. 2014;19:146-151.
- Takaiwa T, Kunimasa K, Hotta M, Ishida T. Late multiple pleural metastases of renal cell carcinoma. *Intern Med*. 2013;52:2475.