

CASE REPORT

胸腺嚢胞に合併した胸腺原発粘表皮癌の1切除例

椎名裕樹<sup>1</sup>・芳野 充<sup>1</sup>・丸岡美貴<sup>2</sup>・  
永井雄一郎<sup>3</sup>・斎藤幸雄<sup>1</sup>

A Case of Mucoepidermoid Carcinoma of the Thymus with a Thymic Cyst

Yuki Shiina<sup>1</sup>; Mitsuru Yoshino<sup>1</sup>; Miki Maruoka<sup>2</sup>;  
Yuuichirou Nagai<sup>3</sup>; Yukio Saitoh<sup>1</sup>

<sup>1</sup>Department of Thoracic Surgery, <sup>2</sup>Department of Respiratory Medicine, <sup>3</sup>Department of Pathology, National Hospital Organization Chiba Medical Center, Japan.

**ABSTRACT** — **Background.** Mucoepidermoid carcinoma of the thymus is an extremely rare malignant mediastinal neoplasm. **Case.** We herein report the case of an asymptomatic 29-year-old man with mucoepidermoid carcinoma of the thymus. Chest radiography revealed an anterior mediastinal mass. Computed tomography of the chest demonstrated multiple 62×38×74 mm cystic masses with a focally-enhanced solid portion. Tumor resection was performed, and the pathological diagnosis was mucoepidermoid carcinoma of the thymus with a thymic cyst. **Conclusion.** We experienced a case of mucoepidermoid carcinoma of the thymus with a thymic cyst. At the time of writing, the patient remains alive without recurrence at 16 months after surgery.

(JLCC. 2016;56:1017-1021)

**KEY WORDS** — Thymus carcinoma, Mucoepidermoid carcinoma, Thymic cyst

Corresponding author: Yuki Shiina.

Received March 10, 2016; accepted August 1, 2016.

**要旨** — **背景.** 胸腺原発粘表皮癌は稀な腫瘍である。**症例.** 29歳男性。検診にて胸部異常陰影を指摘された。胸部単純X線写真で右側縦隔から突出する腫瘤影、胸部CT検査で前縦隔に62×38×74mmの一部造影される多房性嚢胞を認めた。胸骨正中切開にて前縦隔腫瘍摘出

術を施行し、術後病理で胸腺嚢胞に合併した胸腺原発粘表皮癌と診断された。**結論.** 胸腺嚢胞に合併した胸腺原発粘表皮癌を経験した。切除後1年4ヶ月無再発生存中である。

**索引用語** — 胸腺癌、粘表皮癌、胸腺嚢胞

はじめに

胸腺原発粘表皮癌は、極めて稀な縦隔腫瘍である。今回我々は胸腺嚢胞に合併した胸腺原発粘表皮癌の1切除例を経験したので、その臨床像・胸腺嚢胞との合併・治療法・予後について、文献的考察を加えて報告する。

症例

症例：29歳男性。  
主訴：胸部異常陰影。

既往歴：うつ病。

現病歴：検診胸部X線にて異常影を指摘され、近医受診。胸部CTにて前縦隔に腫瘤影を認め、縦隔腫瘍が疑われ当科紹介受診。

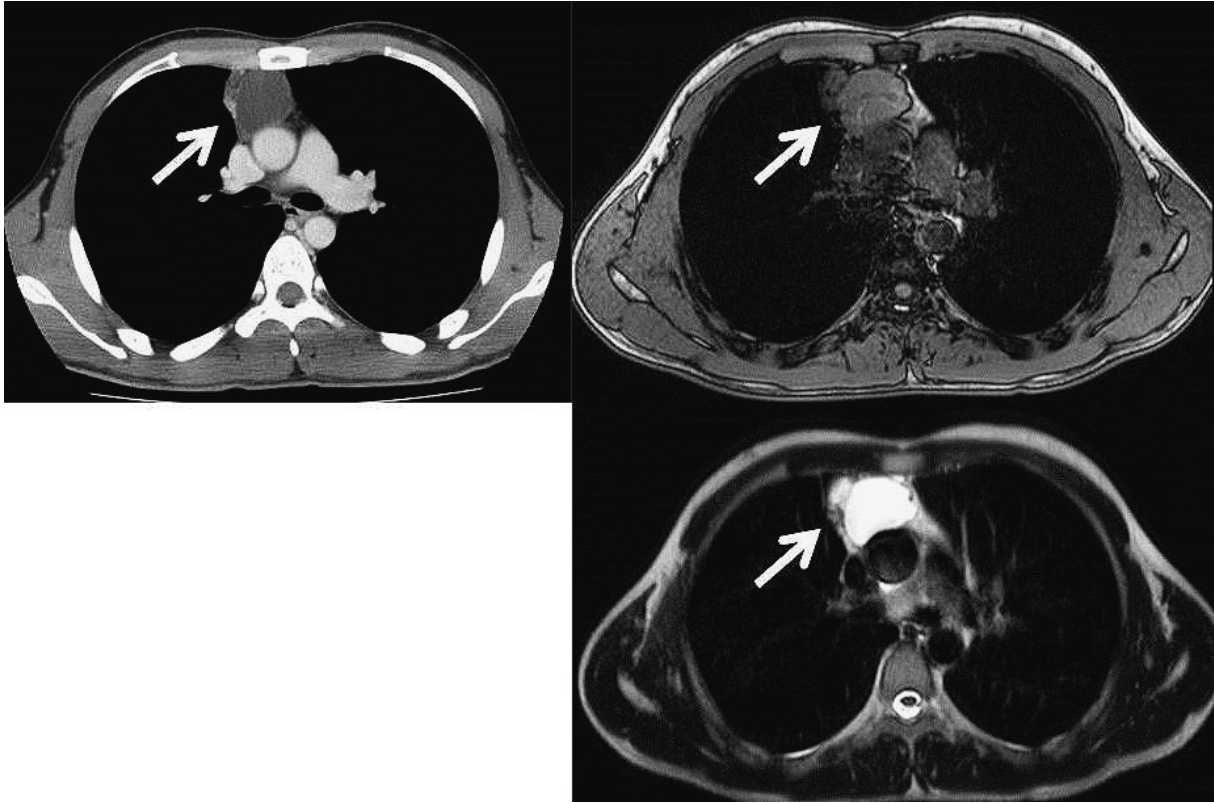
喫煙歴：20本/日×10年。

初診時現症：身体所見に特記事項なし。血算・生化学に異常所見なし。腫瘍マーカーはSCCの軽度上昇を認めた。抗アセチルコリンレセプター抗体は陰性であった。心電図・肺機能検査に異常はなかった。胸部単純X線写真では、縦隔から右側に突出する腫瘤影を認めた。胸部

独立行政法人国立病院機構千葉医療センター<sup>1</sup>呼吸器外科,<sup>2</sup>呼吸器内科,<sup>3</sup>臨床病理部。

論文責任者：椎名裕樹。

受付日：2016年3月10日、採択日：2016年8月1日。



**Figure 1.** A chest contrast-enhanced tomographic scan shows a 62×38×74 mm multilocular cyst in the anterior mediastinum, with a 10×10 mm enhanced portion (left). Chest magnetic resonance imaging shows a mass in the anterior mediastinum on T1-weighted (top-right) and T2-weighted images (bottom-right).



**Figure 2.** The gross appearance of the resected tumor. The tumor has multilocular cystic areas and a 10×10 mm solid area.

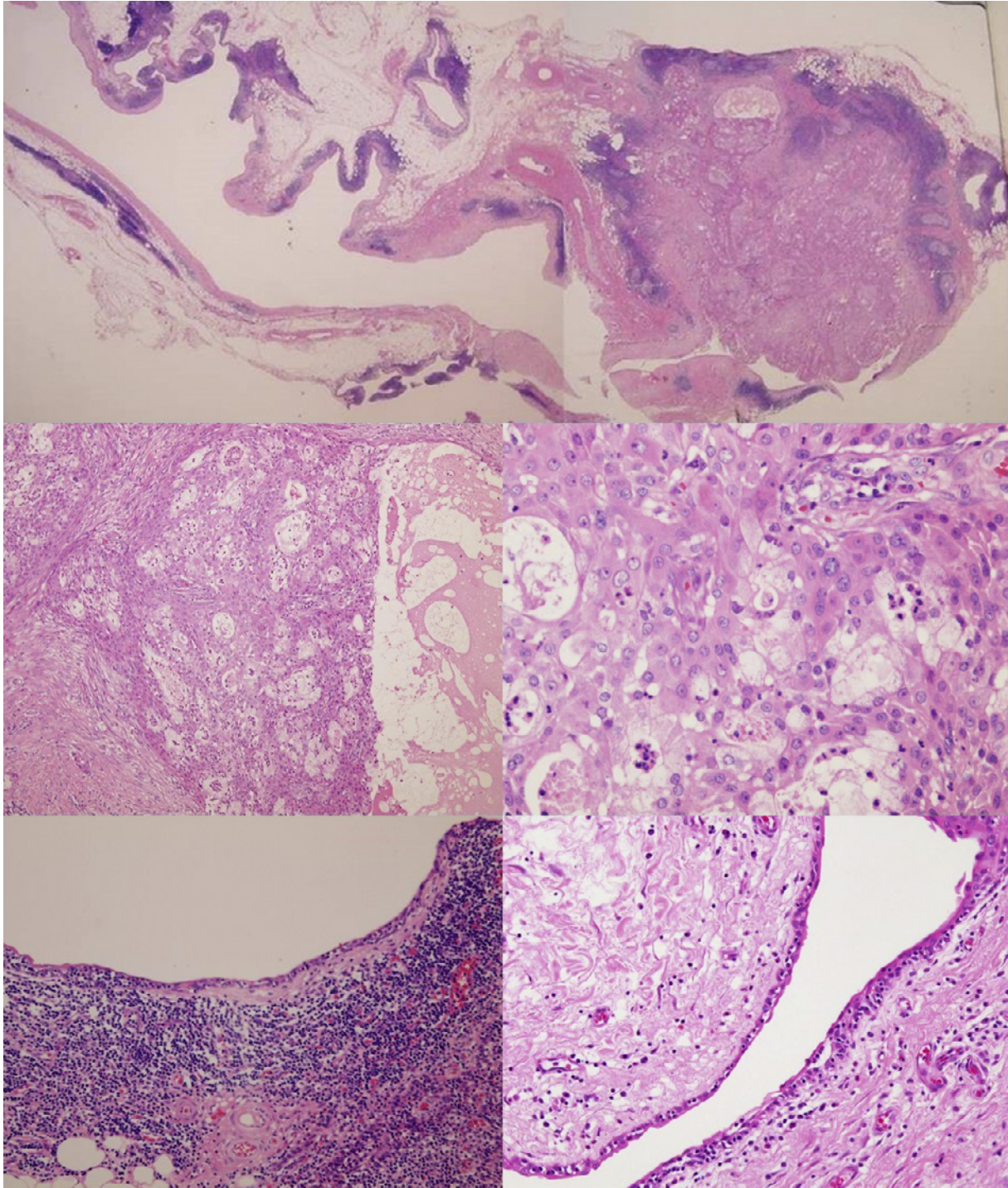
造影 CT 検査では、前縦隔に 62×38×74 mm の多房性嚢胞を認め、一部に 10×10 mm の造影される結節状の部分 を認めた (Figure 1)。胸部 MRI 検査では病変内部は T1

強調像で低信号、T2 強調像で高信号を呈していた。造影 効果を持つ腫瘤状の部分は T1 強調像・T2 強調像とも に低信号であった (Figure 1)。

嚢胞状胸腺腫などの可能性も考慮し、胸骨正中切開ア プローチにて胸腺摘出術を施行した。病変は鶏卵大・弾 性軟の嚢胞であり (Figure 2)、10 mm 大の小結節を触知 した。同部位を含め周囲への浸潤および胸腔播種は認め なかった。内容液は黄色漿液性であった。手術時間は 2 時間 31 分、出血量は 50 g であった。

病理学的所見：大小の多数の多房性嚢胞と、それに接 する 1 cm 大の結節性病変を認めた。結節性病変部では、 泡沫状の細胞内粘液を有する粘液細胞と弱好酸性の細胞 質を有する扁平上皮への分化を疑う細胞の増生を認め た。それらとともに細胞質がやや狭小で類円形の核を有 し、核小体の腫大がやや目立つ腫瘍細胞、いわゆる中間 細胞に相当する細胞を認めた (Figure 3)。粘液細胞は PAS 染色およびアルシアンブルー染色陽性の粘液を 含有し、中間細胞は AE1/AE3 および EMA、P63 陽性で、 α-SMA および S-100 蛋白陰性であり、中間細胞として矛 盾しない所見であった (Figure 4)。腫瘍は境界明瞭であり、嚢胞形成を認め、粘液細胞の比率が 50% 以上を超え、





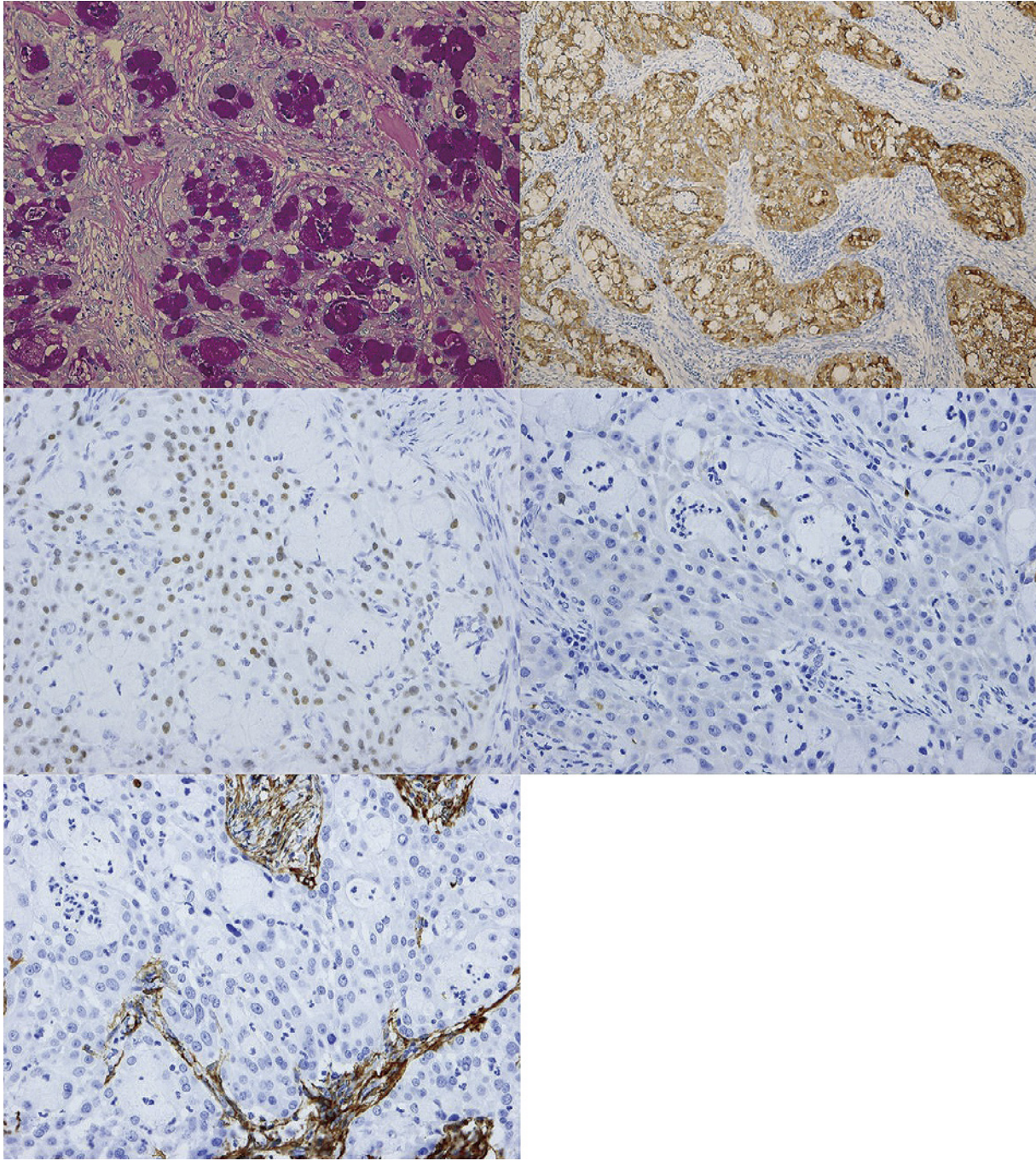
**Figure 3.** Multilocular cysts of various sizes and a 10×10 mm solid lesion (top). The tumor consists of foamy mucinous cells, eosinophilic polygonal cells, and smaller intermediate cells, the latter two of which have numerous larger nuclei and evident nucleoli (middle images). The cysts are lined by a stratified squamous epithelium of varying thickness, which shows no atypia-like mucoepidermoid carcinoma cells (bottom images).

扁平上皮成分も高分化であった。以上より、結節性病変部は高分化型粘表皮癌と診断した。

全身検索にてその他の部位に腫瘍を認めず、胸腺原発

粘表皮癌の診断となった。また、多房性嚢胞は粘表皮癌の細胞とは形質の異なる核異型の乏しい扁平上皮により裏打ちされており (Figure 3)、粘表皮癌との移行性は認





**Figure 4.** The foamy cells have PAS-positive mucus (top-left). The larger polygonal squamoid cells, which have an eosinophilic cytoplasm, and the smaller intermediate cells are immunohistochemically-positive for AE1/AE3 (right upper) and P63 (middle-left), but negative for S-100 (middle-right) and  $\alpha$ -SMA (bottom-left).

めず、嚢胞が粘表皮癌の発生母体である所見は認めなかった。以上より、胸腺原発粘表皮癌と胸腺嚢胞の合併と診断された。

現在まで術後1年4ヶ月無再発生存中である。

## 考 察

胸腺原発粘表皮癌は、胸腺癌の0.7~1.7%<sup>1,2</sup>と言われる稀な腫瘍である。報告されている症例については、恩田らが2014年に36例をまとめている。<sup>3</sup>今回さらに検索し得た5例<sup>4-8</sup>と自験例を含めた42例につき、臨床的特

徴・治療法・予後・嚢胞との関連性につき検討を行った。

年齢は8歳から80歳までの報告があり、平均は52.4歳であった。男女比は22:16と若干男性に多くみられた。臨床症状としては半数以上が自覚症状を認めなかったが、腫瘍径の大きなものは胸痛や呼吸苦などの圧迫症状を認めた。腫瘍の進展形式としては、局所進行では隣接臓器である心嚢や左右上葉への浸潤が多かった。特異的な腫瘍マーカーの上昇はみられなかった。重症筋無力症との合併は2例、胸腺腫との合併は1例のみであり、従来の胸腺癌と同様に稀と考えられた。自験例では自覚症状はなく、重症筋無力症との合併はみられなかった。また術前に軽度上昇を認めたSCCは、術後にも改善を認めなかった。

画像上嚢胞所見を呈するものは42例中23例に認められた。そのうち胸腺嚢胞の上皮細胞から粘表皮癌への移行性を認め、胸腺嚢胞が粘表皮癌の発生母体となったと考えられるものは7例あり、胸腺嚢胞を母体とする粘表皮癌は稀ではないと考えられた。自験例では胸腺嚢胞からの粘表皮癌への移行性は確認できなかったが、胸腺嚢胞と粘表皮癌には何らかの関連性が示唆される。また、粘表皮癌の発生母体となった7例全例が単房性ではなく多房性嚢胞であった。多房性胸腺嚢胞は、先天性が多い単房性胸腺嚢胞と異なり、胸腺実質の炎症を背景に後天的に発生するとされており、<sup>9</sup>粘表皮癌との間に何らかの関連性が示唆される。

治療としては、早期のものには手術が行われ、再発例や進行例に対しては胸腺腫・胸腺癌に準じた化学療法や放射線療法が行われているが、手術による完全切除以外に長期生存の報告はなかった。予後については、現在までの報告から、組織学的分化度と腫瘍の悪性度・予後は相関していると考えられ、高分化型は低悪性度とされ比較的予後良好であるのに対し、低分化型は高悪性度で予後不良とされる。<sup>10,11</sup>本症例は高分化型低悪性度に属すると考えられた。今回の検討においては、胸腺嚢胞から

の癌の発生と分化型には明らかな相関はみられなかった。また嚢胞を有さない粘表皮癌の症例では男女比が2:7と、全体の男女比に対して女性が多くみられた。

## 結 語

胸腺嚢胞に合併した胸腺原発粘表皮癌を経験したため、文献的考察を加えて報告した。

本論文内容に関連する著者の利益相反：なし

## REFERENCES

1. Chung DA. Thymic carcinoma—analysis of nineteen clinicopathological studies. *Thorac Cardiovasc Surg.* 2000;48:114-119.
2. Suster S, Rosai J. Thymic carcinoma. A clinicopathologic study of 60 cases. *Cancer.* 1991;67:1025-1032.
3. 恩田貴人, 松澤宏典, 鈴木未希子, 鈴木健司. 胸腺原発粘表皮癌の1切除例. *日呼外会誌.* 2014;28:945-949.
4. Nomori H, Morinaga S, Kobayashi R, Mimura T. Cervical thymic cancer infiltrating the trachea and thyroid. *Eur J Cardiothorac Surg.* 1994;8:222-224.
5. 清家彩子, 長阪 智, 桑田裕美, 伊藤秀幸. 重症筋無力症と同時発症した胸腺原発粘表皮癌の1切除例. *肺癌.* 2010;50:12-14.
6. 有村隆明, 境澤隆夫, 小沢恵介, 西村秀紀. 5年間放置した胸腺粘表皮癌の1手術例. *肺癌.* 2012;52:226-231.
7. Wu SG, Li Y, Li B, Tian XY, Li Z. Unusual combined thymic mucoepidermoid carcinoma and thymoma: a case report and review of literature. *Diagn Pathol.* 2014;9:8.
8. Woo WL, Panagiotopoulos N, Gvinianidze L, Proctor I, Lawrence D. Primary mucoepidermoid carcinoma of the thymus presenting with myasthenia gravis. *J Thorac Dis.* 2014;6:E223-E225.
9. Suster S, Rosai J. Multilocular thymic cyst: an acquired reactive process. Study of 18 cases. *Am J Surg Pathol.* 1991;15:388-398.
10. Moran CA, Suster S. Mucoepidermoid carcinomas of the thymus. A clinicopathologic study of six cases. *Am J Surg Pathol.* 1995;19:826-834.
11. Nonaka D, Klimstra D, Rosai J. Thymic mucoepidermoid carcinomas: a clinicopathologic study of 10 cases and review of the literature. *Am J Surg Pathol.* 2004;28:1526-1531.