

SHORT REPORT

## カルチノイドの混在を認めた硬化性肺胞上皮腫の1例

大野慧介<sup>1</sup>・坪地宏嘉<sup>1</sup>・峯岸健太郎<sup>1</sup>・  
遠藤俊輔<sup>1</sup>・蛭田昌宏<sup>2</sup>・増永敦子<sup>3</sup>

### A Case of Sclerosing Pneumocytoma Mixed with Carcinoid Tumor

Keisuke Ohno<sup>1</sup>; Hiroyoshi Tsubochi<sup>1</sup>; Kentaro Minegishi<sup>1</sup>; Shunsuke Endo<sup>1</sup>; Masahiro Hiruta<sup>2</sup>; Atsuko Masunaga<sup>3</sup>

<sup>1</sup>Department of Thoracic Surgery, <sup>2</sup>Division of Pathology, Jichi Medical University Saitama Medical Center, Japan; <sup>3</sup>Division of Pathology, Tokyo Women's Medical University Medical Center East, Japan.

(JLCC. 2018;58:365-366)

**KEY WORDS** — Sclerosing pneumocytoma, Carcinoid tumor, Lung

Corresponding author: Hiroyoshi Tsubochi.

**要旨** — 硬化性肺胞上皮腫と肺カルチノイドはともに原発性肺腫瘍の中でも比較的稀な腫瘍であり、その合併は極めて稀である。今回、我々は硬化性肺胞上皮腫と肺

カルチノイドを合併した稀な症例を経験したため報告する。

**索引用語** — 硬化性肺胞上皮腫, カルチノイド, 肺

症例：26歳女性。主訴：なし。既往歴：統合失調症。喫煙歴：なし。

現病歴：嘔気を主訴に近医を受診した。CTで偶発的に右肺門部に腫瘤影を認め、精査加療目的に当科紹介となった。

血液検査所見：腫瘍マーカーの上昇を認めず。

胸部X線：右肺門部に境界明瞭な40mm大の腫瘤影を認めた。

胸部CT：右肺門部中下葉間に不均一な造影効果を伴う辺縁明瞭な44mmの腫瘤影を認めた。周囲の血管や気管支に明らかな浸潤を認めず。

FDG-PET CT：右肺門部腫瘍にSUVmax 3.9のFDG異常集積を認めた (Figure 1)。

MRI：T1強調画像、T2強調画像で腫瘍は軟部組織と等信号であり、T2強調画像脂肪抑制では腫瘍は高信号を示した。

治療方針：悪性腫瘍が否定できず、診断加療目的に手術加療の方針とした。

手術所見：胸腔鏡で観察すると、腫瘍は中葉S<sup>5</sup>に存在し、辺縁整、表面平滑で白色変化を伴っていた。周囲臓器への浸潤は認めなかった。部分切除は困難であり、胸腔鏡下右肺中葉切除術を施行した。手術時間は144分、

出血量は210mlであった。術中迅速診断では硬化性肺胞上皮腫の診断であった。

病理組織所見：立方上皮と扁平上皮からなり、円形核を有する細胞増殖による間質を認め、免疫染色ではAE1/3, Napsin A, TTF-1, Vimentinが陽性であった。また、その腫瘍の中央部・繊毛上皮の直下に紡錘形細胞からなる結節も認め、免疫染色ではCD56, Chromogranin A, Synaptophysinが陽性であった (Figure 2)。これらの所見から、硬化性肺胞上皮腫とカルチノイドが混在する腫瘍と診断した。

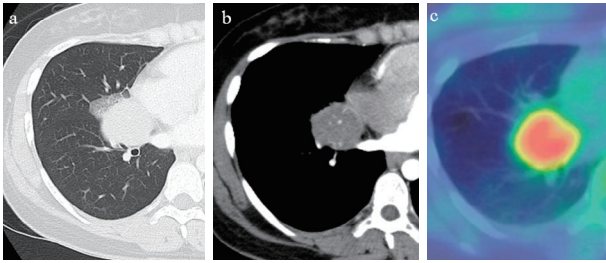
術後経過：術後3日目にドレーン抜去し、術後5日目に退院した。現在術後1年無再発生存中である。

考察：硬化性肺胞上皮腫は肺腫瘍の2~7%を占める良性腫瘍の約20%程度とされる。一方、肺カルチノイドは肺腫瘍の1~2%を占める比較的稀な疾患である。硬化性肺胞上皮腫と肺カルチノイドの合併例は極めて稀である。

硬化性肺胞上皮腫の発生母地はII型肺胞上皮細胞由来とされている一方で、カルチノイドの発生母地はいまだ不明である。カルチノイドの前腫瘍性病変として推定されているびまん性特発性神経内分泌細胞過形成 (diffuse idiopathic pulmonary neuroendocrine cell hyperpla-

自治医科大学附属さいたま医療センター<sup>1</sup>呼吸器外科、<sup>2</sup>病理部；  
<sup>3</sup>東京女子医科大学東医療センター病理診断科。  
論文責任者：坪地宏嘉。

※第181回日本肺癌学会関東支部会推薦症例 (平成30年3月3日日本肺癌学会関東支部会)。

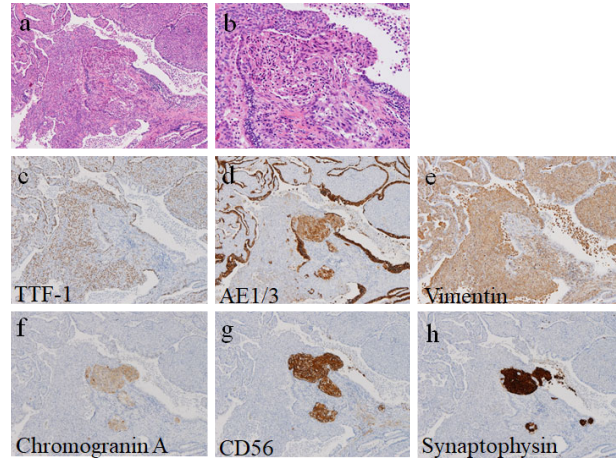


**Figure 1.** (a) Computed tomography (CT) showed a 44-mm-diameter round tumor in the right middle lobe. (b) Enhanced CT showed a non-homogeneous enhanced tumor. (c)  $^{18}\text{F}$ -fluorodeoxyglucose (FDG) positron emission tomography-CT revealed a high FDG uptake (maximum standardized uptake value = 3.9).

sia : DIPNECH) が腫瘍周囲や非腫瘍肺に存在していれば、DIPNECH を背景として発生した肺カルチノイドが肺胞上皮腫に合併したとも考えられる<sup>1</sup>が、本症例ではDIPNECH は認めなかった。神経内分泌細胞と肺胞上皮細胞とは共通する起源を持つことや、肺が損傷を受けた後に神経内分泌細胞が増加した報告がある。<sup>2</sup> 本症例では、硬化性肺胞上皮腫の発生時に末梢細気管支閉塞などにより肺胞へのダメージが加わり、神経内分泌細胞が増殖した可能性は否定できないが、その証左は得られなかった。硬化性肺胞上皮腫と肺カルチノイドの合併報告例はごくわずかであることから、両者の関係性に関しては今後症例の蓄積が必要である。

また、現時点で硬化性肺胞上皮腫に対する術式に一定した見解はない。硬化性肺胞上皮腫は良性あるいは非常に低悪性度の腫瘍とされており、約 1% にリンパ節転移を認めると報告されている。また、局所再発した症例も報告されている。本症例のように迅速病理診断で肺胞上皮腫と診断され、その後免疫組織学的検査で肺カルチノイドが合併した報告例や、迅速病理診断では肺胞上皮腫と診断され免疫組織学的検査で肺カルチノイドと診断された報告<sup>3</sup>もあるため、少なくとも腫瘍核出術は避けるべきであり、マージンを十分に取った部分切除や区域切除以上の解剖学的肺切除が妥当であると考えられる。

結語：硬化性肺胞上皮腫と肺カルチノイドが合併した非常に稀な症例を経験した。両者の関係性については今



**Figure 2.** (a) Cuboidal and squamous surface cells with round stromal cells and spindle cells were shown (hematoxylin and eosin [H&E],  $\times 40$ ). (b) The spindle cells were detected in part of the tumor ([H&E],  $\times 100$ ). (c) Immunohistochemical staining revealed thyroid transcription factor-1 in the surface cells and round cells ( $\times 40$ ). (d) Pankeratin (AE1/3) was detected in the surface cells and spindle cells ( $\times 40$ ). (e) Vimentin was detected in the surface cells and round cells ( $\times 40$ ). (f, g, h) Chromogranin A (f), CD56 (g), and synaptophysin (h) were detected in the spindle cells ( $\times 40$ ).

後さらなる検討を要する。

本論文内容に関連する著者の利益相反：なし

## REFERENCES

1. Wang Y, He Q, Shi W, Wang J, Ji H. A mixture of carcinoid tumors, extensive neuroendocrine proliferation, and multiple pulmonary sclerosing hemangiomas. *World J Surg Oncol*. 2014;12:209.
2. Song H, Yao E, Lin C, Gacayan R, Chen MH, Chuang PT. Functional characterization of pulmonary neuroendocrine cells in lung development, injury, and tumorigenesis. *Proc Natl Acad Sci U S A*. 2012;109:17531-17536.
3. 阿南栄一郎, 白井 亮, 平田範夫, 仲間 薫, 牛島千衣, 門田淳一. 術中迅速病理診断が困難であった肺硬化性血管腫と肺末梢型カルチノイドの 2 例. *日呼吸会誌*. 2010; 48:253-259.