

CASE REPORT

完全胸腔鏡下にて摘出した左下葉無気肺を呈する巨大後縦隔血管腫

篠原茉莉子¹・石橋洋則¹・石沢遼太¹・
明石 巧²・小林正嗣¹・大久保憲一¹

A Case of Thoracoscopic Excision of a Giant Posterior Mediastinal Hemangioma Presenting Left Lower Atelectasis

Mariko Shinohara¹; Hironori Ishibashi¹; Ryota Ishizawa¹;
Takumi Akashi²; Masashi Kobayashi¹; Kenichi Okubo¹

¹Department of Thoracic Surgery, Graduate School of Medical and Dental Sciences, Tokyo Medical and Dental University, Japan; ²Department of Pathology, Tokyo Medical and Dental University Hospital, Japan.

ABSTRACT — **Background.** Mediastinal hemangioma is a rare tumor and difficult to diagnose preoperatively. **Case.** A 30-year-old woman presenting with a fever and severe chest pain was referred to our hospital for treatment of a giant posterior mediastinal tumor. Chest radiography on admission revealed opacification of the left hemithorax. Chest computed tomography showed a left posterior mediastinum tumor measuring 100 × 65 mm. Chest magnetic resonance imaging showed low signal intensity on T1-weighted imaging and high signal intensity on T2-weighted imaging. Lymphangioma was suspected by a percutaneous computed tomography-guided biopsy. The tumor was excised by thoracoscopic surgery. Immunohistochemical staining showed that the tumor cells were positive for desmin and CD34, and the tumor was diagnosed as hemangioma. **Conclusion.** We experienced a case of a giant posterior mediastinal hemangioma presenting with left lower atelectasis excised by thoracoscopic surgery.

(JLCC. 2019;59:1151-1155)

KEY WORDS — Hemangioma, Posterior mediastinal tumor, Thoracoscopic surgery

Corresponding author: Kenichi Okubo.

Received April 24, 2019; accepted September 3, 2019.

要旨 — **背景.** 縦隔血管腫は稀な疾患で、術前診断が困難である。**症例.** 30歳、女性。38℃の発熱と激しい胸痛があり、胸部X線検査で左下肺野腫瘤影を認め当科紹介となった。胸部CTで左後縦隔に径100×65mmの低吸収、辺縁整な腫瘍と、左下葉に無気肺を認めた。胸部MRIでT1低信号、T2高信号の左後縦隔腫瘍を認めた。CT

ガイド下生検を施行し、リンパ管囊腫疑いで完全胸腔鏡下手術を施行した。永久標本ではdesmin陽性、CD34陽性で血管腫の診断であった。**結論.** 左下葉無気肺を呈する巨大後縦隔血管腫に対して、胸腔鏡下にて摘除した1例を経験した。

索引用語 — 血管腫、後縦隔腫瘍、胸腔鏡手術

はじめに

縦隔血管腫は稀な疾患で、術前に正確に診断された症例は少ない。今回、術前CTガイド下生検で縦隔リンパ管囊腫と診断された左下葉無気肺を呈する巨大後縦隔血管

腫に対して、完全胸腔鏡下にて摘出した1例を経験した。若干の文献的考察を加えて報告する。

症例

症例：30歳、女性。

¹東京医科歯科大学大学院医歯学総合研究科呼吸器外科学分野；
²東京医科歯科大学医学部附属病院病理部。

論文責任者：大久保憲一。
受付日：2019年4月24日、採択日：2019年9月3日。



Figure 1. Chest radiography shows a 100-mm-diameter, smooth-surfaced tumor with a clear border in the left mediastinum.

主訴：発熱，胸痛。

生活歴：喫煙歴 5～6 本/日×5 年。

家族歴：特記事項なし。

既往歴：椎間板ヘルニア，腰部脊柱管狭窄症。

現病歴：38℃ の発熱と激しい胸痛が持続し近医を受診，胸部 X 線検査で縦隔左側第 2, 3 弓が突出する胸部異常陰影を認め，当科紹介受診した。

初診時現症：身長 154.4 cm，体重 51.4 kg，血圧 95/58 mmHg，脈拍 82/min，体温 36.8℃。

検査所見

血算・生化・腫瘍マーカーとも異常を認めなかった。

胸部単純 X 線所見：縦隔左側に 60×100 mm 大の腫瘤影を認めた (Figure 1)。

胸部 CT 所見：Th5～9 レベルの左後縦隔に 100×65 mm 大の境界明瞭，内部に造影効果を認めない均一な腫瘍を認めた。胸壁・大動脈に広く接し，腫瘍による左下葉無気肺を認めた (Figure 2A)。

造影 MRI 所見：T1 強調画像で低信号，T2 強調画像ではモザイク状高信号の腫瘍を認めた (Figure 2B, 2C)。

画像上，神経原性腫瘍を疑い CT ガイド下生検を施行，リンパ節囊腫疑いであった。

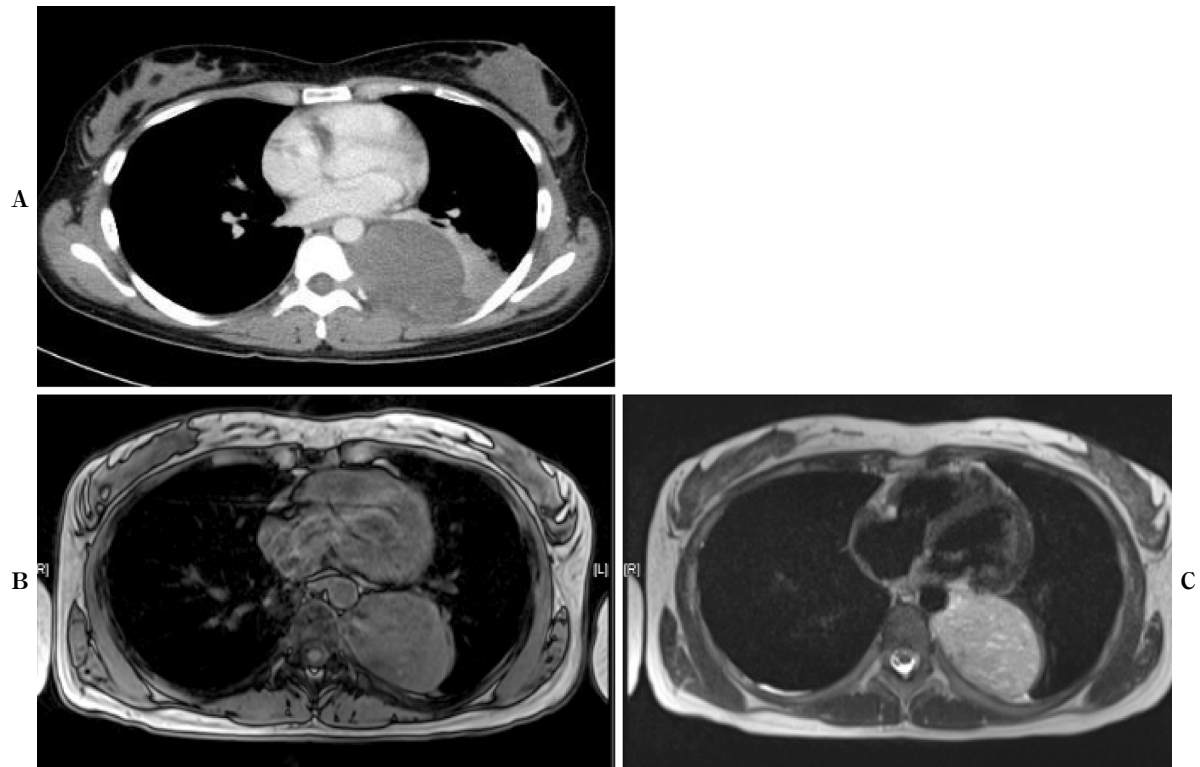


Figure 2. A: Chest computed tomography show a well-delineated mass measuring 100×65 mm in diameter along the left paravertebral space with atelectasis of the left lower lung. B, C: Enhanced chest MRI shows a low signal intensity on T1WI (B) and heterogeneous high signal intensity on T2WI (C).

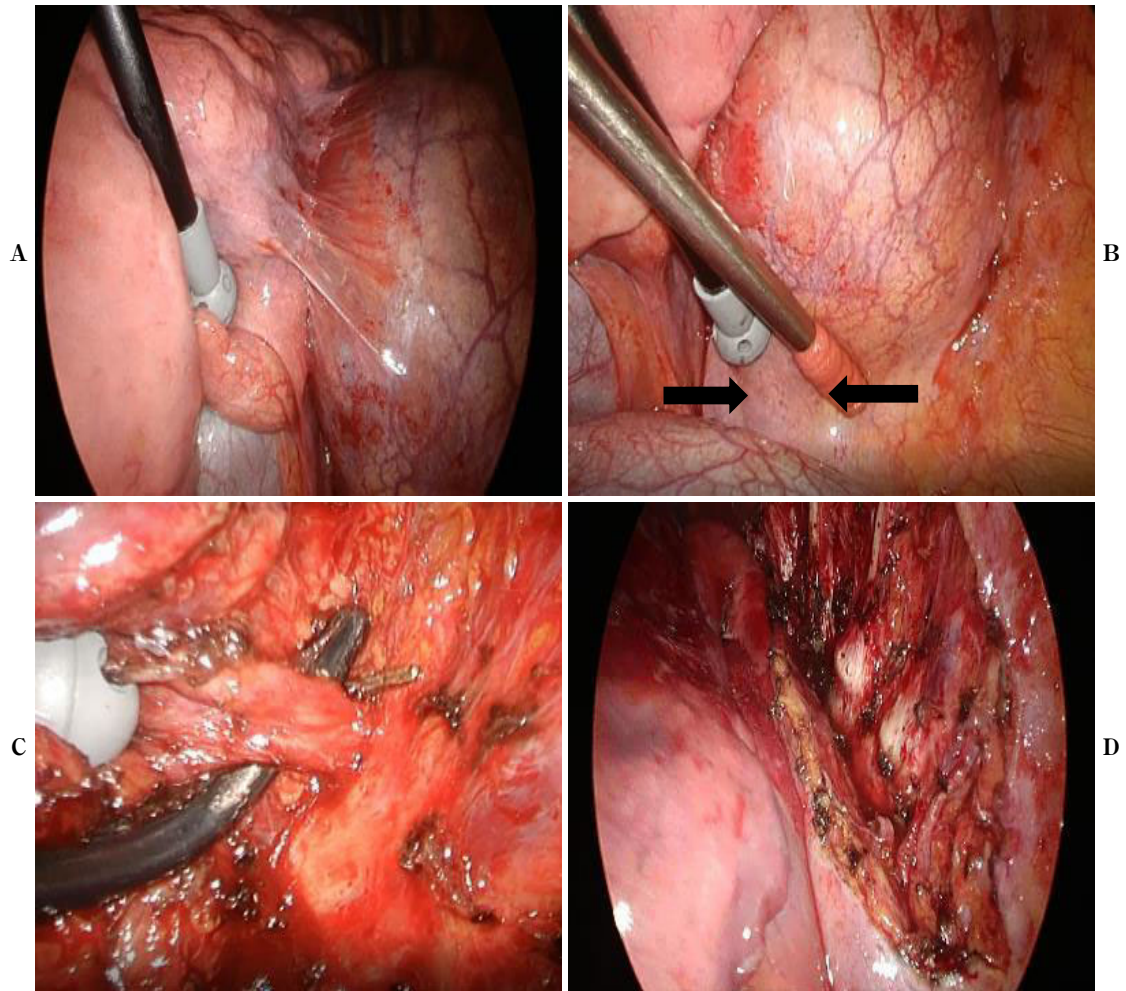


Figure 3. **A:** The tumor appearance via thoracoscopy. The tumor was adhesive to the left lower lung. **B:** The tumor surrounded the descending thoracic aorta (arrows). **C:** Feeding artery from the intercostal artery. **D:** The tumor was excised from the chest wall and descending aorta.

以上より、左下葉無気肺を呈する巨大後縦隔リンパ管囊腫疑いに対し、胸腔鏡下摘出術を予定した。

手術所見

右側臥位・第7肋間中腋窩線に5 mm ポート留置、カメラポートとし胸腔内を観察した。腫瘍は、左肺下葉に広範で強固な線維性癒着を認めた (Figure 3A)。第5肋間中腋窩線に2.5 cm の操作孔を置き、一部肺を電気メスで部分切除し癒着を剥離、腫瘍は肺靭帯背側から大動脈・椎体を覆うように存在していた (Figure 3B)。電気メス・LigaSure™にて胸壁から腫瘍を頭側方向へ剥離し、肋間動脈より流入する血管はクリッピングした (Figure 3C)。一部腫瘍が肋間・椎間孔へ入り込む部分があったため、一部肋間筋を合併切除し腫瘍遺残がないように腫瘍を椎体から剥離した。大動脈を確認し、大動脈に沿って尾側から腫瘍を剥離し、摘出した (Figure 3D)。術中

迅速診断でもリンパ管囊腫の診断であった。手術時間は3時間4分、出血量330 mlであった。

病理所見

マクロ所見：腫瘍径9×6×4 cm、断面は全体的に暗赤色を呈していた (Figure 4A)。

ミクロ所見：HE染色で、内腔の拡張を伴う大小不同の血管の動静脈の増生を認めた (Figure 4B)。免疫染色では、平滑筋マーカーである desmin が陽性 (Figure 4C)、血管内皮細胞マーカーである CD34 も陽性で (Figure 4D)、断端は陰性であった。以上により後縦隔血管腫と診断された。

術後経過良好で現在術後1年、無再発外来通院中である。

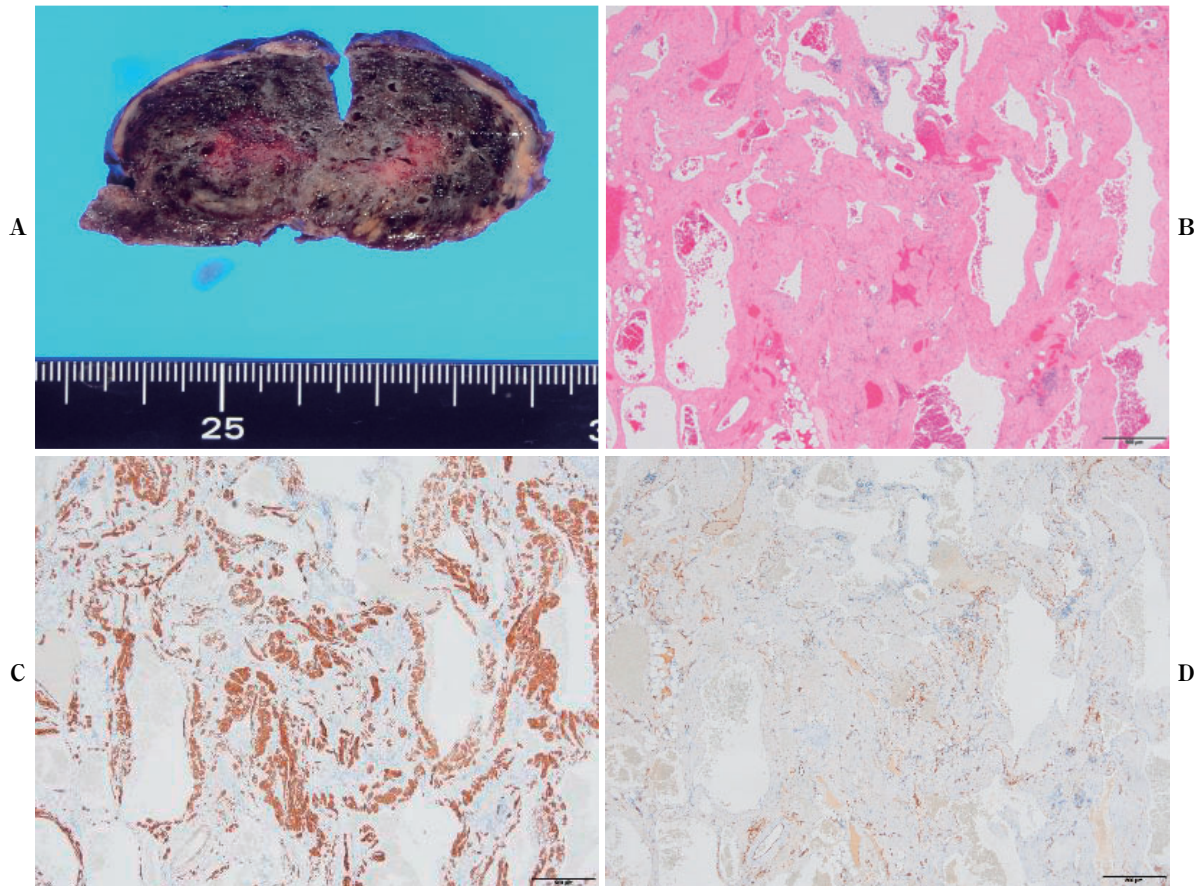


Figure 4. **A:** Macroscopic findings of the resected specimen show a tumor of 9×6 cm. The cut surface of the tumor is dark red (formalin-fixed). **B:** The vascular lumen was filled with blood, and the vascular wall was extremely thin (HE stain, ×40). **C:** Immunohistochemical findings of anti-CD34 antibody: lining cells inside the vessels were anti-CD34 antibody-positive endothelial cells (×40). **D:** Immunohistochemical findings of desmin antibody: lining cells inside the vessels were desmin-positive endothelial cells (×40).

考察

縦隔血管腫は1914年、Shannonにより初めて報告された稀な疾患である。¹ その発生頻度は、本邦における全国集計で全縦隔腫瘍の0.35%とされる。² 本邦61例の解析では発症年齢は3か月から76歳、平均35歳と比較的若く、75%の症例が35歳までに発見される。男性51%と性差はほとんど認められず、前縦隔49%、後縦隔34%と前縦隔に好発し、左側47%、右側36%とやや左側に多い。大きさは2~17 cm、平均6.6 cmで、56%が無症状であり、腫瘍の圧排などにより咳嗽、胸痛、呼吸困難などの症状を呈する。³

胸部単純CT検査では、静脈内に器質化した血栓が石灰化した静脈結石が16%に認められる。⁴ 胸部造影CT検査では内部不均一な造影効果を示すという報告や、dynamic CT検査で腫瘍辺縁に高濃度のperipheral puddlesが認められるとの報告もある。MRI検査ではT1

強調画像で筋組織と同程度、T2強調画像で高信号を呈する例が多いとされる。⁴ 本症例では、造影胸部CT検査で腫瘍内部に造影効果は認めず、胸部MRIではT1強調画像で低信号、T2強調画像で高信号を示した。これら画像検査により神経原性腫瘍、血管腫、リンパ管囊腫などが鑑別に挙げられ、術前画像診断は困難であった。

治療は、良性であっても増大し周囲臓器圧迫の可能性があるため、多くは確定診断を含め第一選択は外科的切除がなされている。アプローチは、近年胸腔鏡手術下摘除の報告が散見されるが、血管増生による易出血性のため術前動脈塞栓術を施行し出血量を軽減させた報告、⁵ 術中大動脈破裂をきたし人工血管に置換した報告、⁶ 術前造影CT検査で肋間動脈の流入を認めたため補助循環を使用した報告⁷などがあり、出血のリスクを考え開胸手術で施行されているものが多い。本症例では術前リンパ管囊腫疑いと診断され、造影CT検査でも腫瘍への明らかな流入血管は認めず、造影効果が乏しかったことよ

り術中の出血のリスクは少ないと判断して胸腔鏡手術を選択した。術中、腫瘍剥離部分からは静脈性出血が多く、腫瘍に流入する肋間動脈からの分枝も3本認められたが、クリップやエネルギーデバイスを使用した剥離操作で安全に手術を施行することができた。

予後は完全切除されれば比較的良好であるとされるが、局所再発する場合も報告されている。⁸ 本症例では、胸腔鏡下で完全切除が得られ、術後1年経過後も再発の所見は認めていない。

まとめ

巨大な後縦隔血管腫に対して完全胸腔鏡下摘出術を施行した1例を経験したので、若干の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. Shannon T. Histologically non-malignant angiomas with numerous metastases. *J Pathol*. 1914;19:139-154.
2. 和田洋巳, 寺松 孝. 縦隔腫瘍全国集計. 日胸外会誌. 1981;30:374-378.
3. Yamazaki A, Miyamoto H, Saito Y, Matsuzawa H, Sakao Y, Anami Y. Cavernous hemangioma of the anterior mediastinum: case report and 50-year review of Japanese cases. *Jpn J Thorac Cardiovasc Surg*. 2006;54:221-224.
4. Seline TH, Gross BH, Francis IR. CT and MR imaging of mediastinal hemangiomas. *J Comput Assist Tomogr*. 1990;14:766-768.
5. 北 雄介, 野木村宏, 大井 諭, 影山善彦, 松下晃三, 伊藤 靖, 他. 嚢胞性病変との鑑別を要した縦隔血管腫の1胸腔鏡手術例. 胸部外科. 2004;57:497-500.
6. Schurawitzki H, Stiglbauer R, Klepetko W, Eckersberger F. CT and MRI in benign mediastinal haemangioma. *Clin Radiol*. 1991;43:91-94.
7. 杉浦未紀, 中島 淳, 師田哲郎, 山本哲史, 佐野 厚, 深見武史, 他. 補助体外循環下で完全切除した後縦隔血管腫の1例. 胸部外科. 2007;60:857-860.
8. Cohen AJ, Sbaschnig RJ, Hochholzer L, Lough FC, Albus RA. Mediastinal hemangiomas. *Ann Thorac Surg*. 1987;43:656-659.