

CASE REPORT

横隔膜上リンパ節に転移が認められた原発性腹膜癌の1症例

岡田春太郎¹・郷田康文¹・太田紗千子¹・
高橋 守¹・渋谷信介²・寺田泰二¹

A Case of Primary Peritoneal Carcinoma with Supradiaphragmatic Lymph Node Metastasis

Harutaro Okada¹; Yasufumi Goda¹; Sachiko Ota¹;
Mamoru Takahashi¹; Shinsuke Shibuya²; Yasuji Terada¹

¹Department of Thoracic Surgery, Respiratory Disease Center, ²Department of Diagnostic Pathology, Kyoto Katsura Hospital, Japan.

ABSTRACT — **Background.** Primary peritoneal carcinoma, ovarian carcinoma, and fallopian tube carcinoma are known as mullerian adenocarcinoma. We herein report a case of peritoneal carcinoma with metastasis to the supradiaphragmatic lymph nodes. **Case.** The patient was a 78-year-old woman with dermatomyositis. Computed tomography (CT) performed to investigate interstitial pneumonia revealed a 34-mm mass on the right side and a 49-mm mass on the left side of the diaphragm, within the adipose tissue, as well as numerous masses around the inferior vena cava and iliac artery. Since positron emission tomography/CT (PET-CT) showed the accumulation of fluorodeoxyglucose (FDG) in the masses, malignant lymphoma was suspected. She was referred to our department for a biopsy and underwent thoroscopic resection of the tumor on the right diaphragm. The pathological diagnosis was serous adenocarcinoma; thus, tumor metastasis from a gynecological organ was suspected. Laparoscopic bilateral adnexectomy and mesenteric tumor resection were performed in our gynecology department. A pathological examination revealed no malignant findings in the bilateral adnexa; however, the tumor in the mesentery was the same type as the tumor on the diaphragm. Ovarian cancer is reported to metastasize to the thoracic lymph nodes through the transdiaphragmatic route. In this case, the metastatic lesion on the diaphragm was thought to be the paracardiac group of superior diaphragmatic lymph nodes on the thoracic surface. **Conclusion.** When patients present with supradiaphragmatic swelling without lung lesions, in addition to malignant lymphoma, physicians should consider the possibility of metastasis of malignant tumors, such as primary peritoneal cancer.

(JLCC. 2021;61:50-53)

KEY WORDS — Primary peritoneal carcinoma, Mullerian adenocarcinoma, Serous carcinoma, Supradiaphragmatic lymph node metastasis

Corresponding author: Yasuji Terada.

Received June 20, 2020; accepted November 10, 2020.

要旨 — **背景.** 原発性腹膜癌は卵巣癌, 卵管癌とともにミューラー管由来腺癌と総称される疾患である。今回, 両側の横隔膜上の脂肪組織内に転移が認められた原発性腹膜癌症例を経験したので報告する。**症例.** 78歳女性。皮膚筋炎と診断され, 間質性肺炎の評価のためのCTで横隔膜前縁の脂肪組織内に右側34mm, 左側49mm大の腫瘤と, 下大静脈や腸骨動脈周囲に多数の腫瘤が認めら

れ, 悪性リンパ腫が疑われた。生検目的で胸腔鏡下に右側の脂肪内の腫瘍を摘出し, 病理検査で漿液性癌が認められた。婦人科臓器由来の腫瘍転移が疑われ, 婦人科で腹腔鏡下両側付属器摘出と腸間膜腫瘍摘出が施行され, 両側付属器には腫瘍は認められなかったが, 腸間膜上の腫瘍は横隔膜上脂肪組織内のものと同じ組織像であり, 原発性腹膜癌と診断した。卵巣癌は横隔膜直下の腹膜か

ら横隔膜を浸潤して胸腔へのリンパ節へ転移する経路が報告されているが、本症例も同じ転移経路で横隔膜上のリンパ節に転移したと考えられた。結論、原発巣が明らかでない横隔膜上の腫瘍性病変が認められる症例は、炎

症性疾患や悪性リンパ腫の他、原発性腹膜癌などの悪性腫瘍のリンパ節転移についても検討する必要がある。

索引用語—— 原発性腹膜癌、ミューラー管由来腺癌、漿液性癌、横隔膜上リンパ節転移

はじめに

原発性腹膜癌は卵巣癌や卵管癌と同様にミューラー管上皮由来の悪性腫瘍であり、総称してミューラー管由来腺癌と呼ばれている。今回、両側の横隔膜前縁の心膜周囲脂肪組織内に認めた腫瘍の生検で、原発性腹膜癌の横隔膜上転移と診断された症例を経験したため、文献的考察を加えて報告する。

症例

症例：78歳，女性。

主訴：全身の紅斑。

既往歴：皮膚筋炎，逆流性食道炎。

家族歴：特記事項なし。

現病歴：全身の紅斑を主訴に近医を受診し、当院皮膚科と膠原病内科を紹介受診された。皮膚科での生検で皮膚筋炎と診断され、膠原病内科で肺病変や悪性腫瘍の評価のため胸腹部CTが施行された。CTでは、下大静脈、腸骨動脈周囲と両側の横隔膜前縁の心膜周囲脂肪組織内に腫瘍が指摘され、同部位にPET-CTでも集積があり、炎症性疾患の他、皮膚筋炎との合併と合わせて悪性リンパ腫や悪性腫瘍のリンパ節転移などが疑われた。確定診断のため、横隔膜上腫瘍の生検を目的に当科紹介となった。

入院時現症：身長156.6 cm，体重60.2 kg。顔面，耳介後部，頸部から前胸部，腰部にかけて掻痒感を伴った紅斑が認められた。

血液生化学検査所見：抗核抗体160倍，抗DNA抗体7.9 IU/lと高値を認めた。腫瘍マーカーは可溶性IL-2レセプター-1,140 / μ l，carbohydrate antigen 125 (CA125) 182 U/mlと上昇が認められたが、それ以外はcarcinoembryonic antigen (CEA) 1.8 ng/ml，carbohydrate antigen 19-9 (CA19-9) 3.7 U/ml，squamous cell carcinoma related antigen (SCC) 0.70 ng/ml，cytokeratin 19 fragment (CYFRA) 2.48 ng/ml， α フェトプロテイン (AFP) 1.9 ng/mlと基準値範囲内であった。

画像所見：胸部CTでは肺野内には病変は認めなかったが、横隔膜前縁の脂肪組織内に右側34 mm，左側49 mm大の腫瘍が認められた (Figure 1)。腹腔内にも、肝門部下大静脈周囲や傍総腸骨動脈リンパ節領域にも、リ

ンパ節腫大と思われる腫瘍が認められた。PET-CTではCTで指摘された腫瘍に集積を認め (Figure 2)，横隔膜上腫瘍のstandardized uptake value max (SUVmax)は、右側17.0，左側23.2であった。

手術所見：胸水や胸膜病変は認めなかった。横隔膜前縁の脂肪組織内に硬い白色の腫瘍が認められ (Figure 3)，被膜を損傷することなく、一塊にして摘出可能であった。

病理組織所見：摘出病変は線維性被膜に覆われた腫瘍で、辺縁にリンパ濾胞などのリンパ節の固有構造を有していた (Figure 4A)。腫瘍の大部分では、核腫大や核型不整，核分裂像を示す異型細胞が壊死を伴いながら充実に増殖していた。一部に乳頭状管状の増殖像が認められ、腺癌のリンパ節転移と診断された (Figure 4B)。癌細胞は免疫組織学的に，cytokeratin 7 (CK7)，paired box gene 8 (PAX8)，estrogen receptor (ER)，Wilms tumor 1 (WT-1)，p16が陽性，p53が陰性 (null phenotype)であった。Cytokeratin 20 (CK20)，GATA binding protein 3 (GATA-3)，caudal type homeobox 2 (CDX2)，thyroid transcription factor-1 (TTF-1)も陰性であった。これらより、卵巣，卵管，子宮，または腹膜原発の漿液腺癌の転移が示唆された。

その後、当院婦人科において腹腔鏡下両側付属器摘出+腸間膜腫瘍摘出術が施行された。腹腔内に明らかな播種性病変を認めず、また子宮は小鶏卵大で肉眼的に異常所見はなく、右卵巣は母指頭大で表面平滑、左卵巣は小指頭大に萎縮が認められた。右卵管表面には数mm程度の小結節病変が認められたが、左卵管には認められなかった。S状結腸間膜に母指頭大の腫瘍を認め、両側付属器とともに摘出した。腹腔内摘出標本の病理組織所見では、卵巣，卵管に悪性所見は認められなかったが、S状結腸間膜の腫瘍は横隔膜上腫瘍と同じ病理学的所見および免疫染色結果であることから、原発性腹膜癌および横隔膜上リンパ節転移と診断した。現在、当院婦人科において化学療法 (ドセタキセル+カルボプラチン) が開始され、診断から20ヶ月が経過しているが腫瘍縮小を維持し通院加療を継続中である。また膠原病内科でもステロイド治療が開始され、皮膚筋炎についてもコントロール良好である。

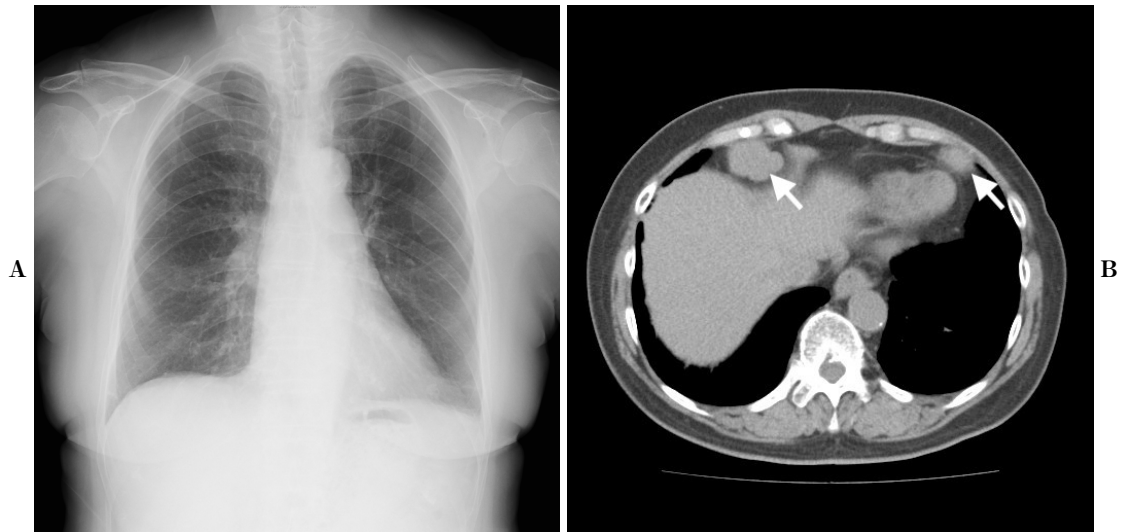


Figure 1. (A) Chest X-ray showed no abnormalities. (B) Computed tomography revealed masses (arrows) in the bilateral supradiaphragmatic adipose tissue.

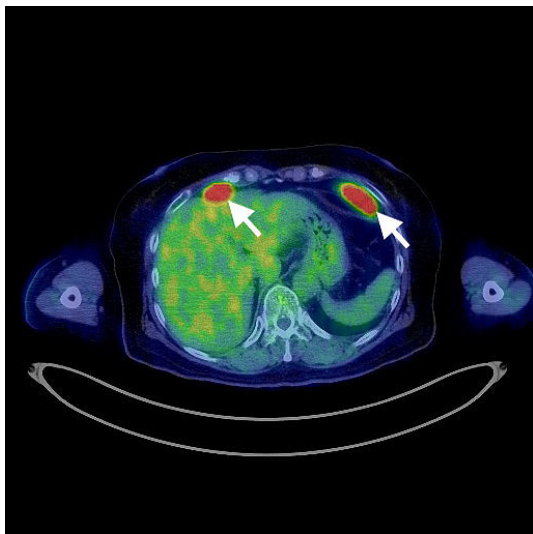


Figure 2. PET-CT showed the accumulation of FDG in the masses (arrows).

考 察

原発性腹膜癌は、1959年に Swerdlow によって卵巣癌と類似した骨盤腹膜から生じた腫瘍として初めて報告された疾患であり、¹ その後1999年に Gynecology Oncology Group により提唱された卵巣外原発性腹膜癌の診断基準が現在も広く用いられている。² 原発性腹膜癌は卵巣癌、卵管癌とともにミューラー管由来腺癌としてまとめて取り扱われており、³ その治療も原則として International Federation of Gynecology and Obstetrics (FIGO)分類 III・IV 期の進行上皮性卵巣癌に準じ、腫瘍

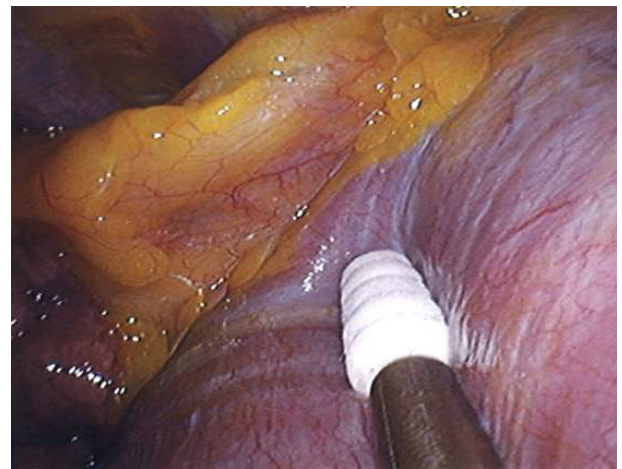


Figure 3. There was a mass in the fatty tissue on the right diaphragm.

減量術と化学療法を組み合わせた集学的治療が行われている。³

原発性腹膜癌は組織学的特徴や臨床所見、治療成績が進行卵巣漿液性癌と非常に似ているため、現時点ではそれに準じて取り扱われ、治療の主軸は最大限の腫瘍減量手術とタキサンープラチナ製剤の併用化学療法の組み合わせである。⁴ また卵巣癌と同様、短期的な治療成績は良好であるが、長期的な予後は依然不良である。原発性腹膜癌の転移部位は、脳転移や髄膜転移などの中枢神経系転移⁴や、気管支内転移⁵が報告されているが、ほとんどの症例では腹膜播種と大動脈周囲リンパ節への転移である。また、皮膚筋炎と原発性腹膜癌との関連については過去にも合併した症例が報告されている。

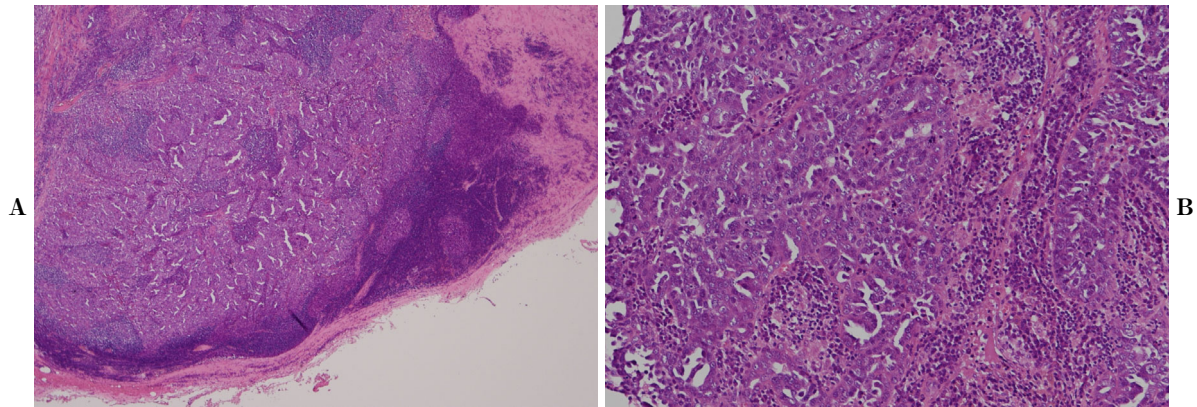


Figure 4. (A) HE staining of the resected supradiaphragmatic lymph nodes was performed. (B) HE staining revealed adenocarcinoma with papillary and tubular growth of cancer cells.

本症例のような横隔膜上への転移については、卵巣癌の症例がいくつか報告されている。^{6,7} 卵巣癌は、腹水の循環により腹腔内に広がるか、リンパ管を通して後腹膜と大動脈周囲のリンパ節転移が多く、FIGO 分類の Stage IV となる腹部外転移は稀であり、せいぜい細胞診により確認された悪性胸水が肝転移が一般的であるとされてきた。しかし、近年 PET-CT の普及により胸腔側のリンパ節転移が非常に重要であり、大動脈孔を通して胸管へ流れる後方の経路より前方の経横隔膜経路が重要であると指摘されている。⁸ 横隔膜の腹腔側のリンパ系は、横隔膜の腹膜下組織と交通しており、腹膜に播種した癌は経横隔膜的にリンパ系に浸潤して横隔膜上のリンパ節に転移する。その後の経路は、傍胸骨のリンパ節群に流れる anterior prepericardial group と、前縦隔のリンパ節群に流れる lateral paracardiac group の 2 つの経路が存在する。⁸ 本症例は、報告された卵巣癌の転移経路と同様の lateral paracardiac group の脂肪組織内のリンパ節に転移したと考えられた。

結語

原発性腹膜癌が横隔膜上リンパ節へ転移し、胸腔鏡下生検により診断した症例を経験した。心臓周囲や傍胸骨の腫瘍性病変が認められる症例は、炎症性疾患や悪性リンパ腫以外に原発性腹膜癌などの悪性腫瘍のリンパ節転移についても検討する必要がある。

本論文内容に関連する著者の利益相反：なし

REFERENCES

1. Swerdlow M. Mesothelioma of the pelvic peritoneum resembling papillary cystadenocarcinoma of the ovary: case report. *Am J Obstet Gynecol.* 1959;77:197-200.
2. Bloss JD, Liao SY, Buller RE, Manetta A, Berman ML, McMeekin S, et al. Extraovarian peritoneal serous papillary carcinoma: a case-control retrospective comparison to papillary adenocarcinoma of the ovary. *Gynecol Oncol.* 1993;50:347-351.
3. 日本婦人科腫瘍学会. 片渕秀隆, 三上幹男, 宇田川康博, 八重樫伸生, 永瀬 智, 金内優典, 編集. 卵巣がん治療ガイドライン. 第4版. 金原出版; 2015:110-120.
4. 笠原恭子, 林 香里, 鞠 錦, 山本嘉昭. 原発性腹膜癌の脳転移, 髄膜転移に対して複数の放射線療法および化学療法を行った1例. *産婦の進歩.* 2012;64:142-149.
5. Nakao M, Oguri T, Maeno K, Ota C, Takakuwa O, Iwashima Y, et al. Endobronchial Metastasis from Primary Papillary Serous Carcinoma of the Peritoneum. *Intern Med.* 2009;48:1165-1168.
6. Patel SV, Spencer JA, Wilkinson N, Perren TJ. Supradiaphragmatic manifestations of papillary serous adenocarcinoma of the ovary. *Clin Radiol.* 1999;54:748-754.
7. Ragusa M, Vannucci J, Capozzi R, Daddi N, Avenia N, Puma F. Isolated cardiophrenic angle node metastasis from ovarian primary. report of two cases. *J Cardiothorac Surg.* 2011;6:1.
8. Hynninen J, Auranen A, Carpén O, Dean K, Seppänen M, Kemppainen J, et al. FDG PET/CT in staging of advanced epithelial ovarian cancer: frequency of supradiaphragmatic lymph node metastasis challenges the traditional pattern of disease spread. *Gynecol Oncol.* 2012;126:64-68.