症 例

縦隔発生骨髓脂肪腫の 1 例

千場 隆, 大崎 敏弘, 小舘満太郎

要 旨

症例は67歳, 男性. 健診の胸部 X 線で右心陰影とのシルエットサインが陰性の腫瘍陰影を指摘された. 胸部 CT, MRI では第 8~10 胸椎右側に接して軟部組織濃度と脂肪濃度が混在する辺縁明瞭な 60×30 mm の腫瘍を認めた. 画像から脂肪肉腫を疑い腫瘍摘出術を施行した. 腫瘍は肉眼的に境界明瞭な 53×38×25 mm の充実性腫瘍で, 病理学的には薄い線維性被膜に包まれた成熟脂肪組織に三系統の造血細胞を含む骨髓組織を島状に認め骨髓脂肪腫と診断された. 縦隔に発生する骨髓脂肪腫は稀な疾患であり, 自験例を含め過去 20 年間に報告された 15 例を集計し考察を加え報告する.

索引用語: 骨髓脂肪腫, 縦隔
myelolipoma, mediastinum

はじめに

骨髓脂肪腫は比較的稀な良性腫瘍で, 副腎皮質に発生することが最も多い. 副腎外では仙骨前面や後腹膜の発生例が散見されるが, 縦隔発生は稀である. 今回, 後縦隔に発生した骨髓脂肪腫の 1 例を経験したので文献的考察を加えて報告する.

症 例

症 例: 67歳, 男性.

主 訴: 胸部異常陰影.

既往歴: 高血圧, 糖尿病, 慢性腎不全, 高脂血症.

現病歴: 健診の胸部 X 線で異常陰影を指摘された. 縦隔腫瘍が疑われ 2010 年 12 月当科紹介受診となった.

入院時身体所見: 身長 160.0 cm, 体重 59.0 kg. 身体所見に異常を認めなかった.

入院時検査所見: Hgb 10.7 g/dL, Hct 33.3% と軽度の貧血を認めた. BUN 74 mg/dL, Cre 4.3 mg/dL と腎機能低下があり, その他 UA 10.4 mg/dL と高尿酸血症を認めた. 糖尿病は良好にコントロールされてい

た (HbA1c 4.8%).

胸部単純 X 線所見: 右心陰影第 2 弓とシルエットサインが陰性の辺縁明瞭な長径 6 cm の腫瘍陰影を認めた (Fig. 1).

胸部 CT 所見: 第 8~10 胸椎右側に接して, 60×30 mm の腫瘍を認めた. 辺縁は明瞭・平滑で胸椎への浸

Fig. 1 Chest radiograph showed a well-defined mass in the right lower mediastinum without a silhouette sign (arrow).

Fig. 2 Chest CT showed a 60×30-mm mass with fat and soft tissue attenuation in the posterior mediastinum adjacent to the thoracic vertebra.

Fig. 3 Axial T1-weighted MR image showed a 60×30-mm mass with heterogeneous high- and low-intensity signals in the posterior mediastinum adjacent to the thoracic vertebra.

潤は認めなかった。内部は不均一で、脂肪濃度を示す領域と淡い造影効果を示す領域が混在していた (Fig. 2)。

胸部 MRI 所見：第8～10胸椎に接する60×30 mmの腫瘍を認めた。辺縁は明瞭・平滑、内部はT1, T2強調画像ともに、低信号、高信号が混在する不均一な腫瘍であった (Fig. 3)。腫瘍は淡い造影効果を示し、脂肪抑制画像では腫瘍の大部分が低信号を呈した。以上の画像所見から高分化脂肪肉腫を疑い手術を施行し

Fig. 4 Macroscopic findings of the resected specimen showed a 53×38×25-mm dark red-yellow solid tumor.

Fig. 5 Histological examination showed focal hematopoietic elements in mature adipocytes (H. E. stain, ×200).

た。

手術所見：2011年1月左側臥位にて後側方切開、第8肋骨間で開胸した。胸腔内全面に癒着を認めた。

第9, 10椎体前面, 下行大動脈右側面に腫瘍を認め、第9, 10肋間動脈からの栄養血管が腫瘍に流入、腫瘍の一部は強固に椎体と癒着していた。2本の栄養血管を切離し腫瘍の完全摘出を行った。

肉眼的所見：53×38×25 mmの境界明瞭な充実性腫瘍で、断面は暗赤色から一部黄色調を呈していた (Fig. 4)。

組織学的所見：薄い線維性被膜に包まれた成熟脂肪組織内に三系統の造血細胞を含む骨髓組織を島状に認めた (Fig. 5)。悪性所見は認めず骨髓脂肪腫と診断された。

術後経過：術後に両側胸水貯留と炎症反応の上昇を

Table 1 Clinical Features of Reported Cases of Mediastinal Myelolipoma (1991-2010)

Case	Year	Author	Age/Sex	Underlying disease	Cinical symptom	Diameter (cm)	Primary site	Diagnosis	Treatment
1	1992	Okamoto T. ⁵⁾	65/M	DM	No symptom	10	P(R)	Surgery	Surgery
2	1993	Krismann M. ⁶⁾	50/M	Unknown	No symptom	Unknown	P(B)	Thoracoscopic biopsy	Unknown
3	1994	Wyttenbach R. ⁷⁾	53/M	BPH	No symptom	8	A(R)	Surgery	Surgery
4	1996	Kurihara M. ⁸⁾	47/M	HS, HT, goat	No symptom	5.4	P(R)	Surgery	Surgery
5	1997	Minamiya Y. ⁹⁾	59/M	n.p.	No symptom	6.5	P(R)	Surgery	Surgery
6	1999	Koizumi J. ¹⁰⁾	55/M	HT, DM, pneumothorax	Chest pain (pneumothorax)	5	P(R)	Surgery	Surgery
7	2000	Kawanami S. ¹¹⁾	72/M	DM, alcoholic liver dysfunction	No symptom	Unknown	P(B)	CT-guided needle biopsy	Follow-up
8	2002	Gao B. ¹²⁾	59/M	HT, bronchitis	No symptom	3	P(R)	Surgery	Surgery
9	2004	Franiel T. ¹³⁾	65/F	HT, COPD	No symptom	(R)6.5, (L)4.5	P(B)	Surgery	Surgery
10	2006	Sawhney R. ¹⁴⁾	30/M	n.p.	Nausea, vomiting, abdominal pain	(R)1.7, (L)2.3	P(B)	CT-guided needle biopsy	Follow-up
11	2006	Mohan K. ¹⁵⁾	46/M	n.p.	Central chest pain	4.5	S(R)	Surgery	Surgery
12	2007	Rossi M. ¹⁶⁾	73/F	Unknown	No symptom	7	P(L)	Surgery	Surgery
13	2008	Vaziri M. ¹⁷⁾	56/M	HT	No symptom	25	P(R)	Surgery	Surgery
14	2010	Tamura K. ¹⁸⁾	62/M	HT, alcoholic liver dysfunction	No symptom	3	P(R)	Surgery	Surgery
15	2010	Semba T.	67/M	HT, DM, CKD, HL	No symptom	5.3	P(R)	Surgery	Surgery

F: female, M: male, A: anterior, S: superior, P: posterior, R: right, L: left, B: bilateral, DM: diabetes mellitus, BPH: benign prostatic hyperplasia, HS: hereditary spherocytosis, HT: hypertension, COPD: chronic obstructive pulmonary disease, CKD: chronic kidney disease, HL: hyperlipidemia.

認めたが抗生剤投与により軽快，術後10日目に退院となった。

考 察

骨髓脂肪腫は成熟脂肪細胞と骨髓組織に類似した造血細胞の集簇によって構成される良性腫瘍である。骨髓腫の発生母地としては、①異所性造血細胞，②異所性副腎組織の間葉系細胞，などが考えられているが，異所性造血細胞発生の説が有力とされている^{1,2)}。副腎に発生することがほとんどで，Kenney らの報告では74例中64例（86%）が副腎発生であった³⁾。副腎外の発生部位としては仙骨前面，後腹膜腔などが多く，その他に肝，胃，脾，肺，軟膜，縦隔などの報告がある²⁾。腫瘍そのものが内分泌機能を有することはなく多くは無症状で，近年はCTやMRIの普及に伴い偶然に発見される症例が増加している⁴⁾。

今回，医学中央雑誌およびPubMedを用いて「縦隔」，「骨髓脂肪腫」，「mediastinum」，「myelolipoma」を

キーワードに文献検索を行った。1991年から2010年までの20年間に報告されたのは14例であり⁵⁻¹⁸⁾，これに自験例を含めた15例をTable 1に示した。副腎外骨髓脂肪腫はやや女性に多いとの報告があるが¹⁴⁾，男女比は13：2でほとんどが男性であった。年齢は30歳から73歳（平均57.3歳）で，50～60歳台に好発していた。発生部位は右後縦隔が8例と最も多く，次いで両側後縦隔に多発した症例が4例，左後縦隔，右前縦隔，右上縦隔がそれぞれ1例であった。腫瘍径は3～25 cm（平均7.5 cm）で，3例は10 cmを超えていた。副腎原発の骨髓脂肪腫については腫瘍径が10 cmを超えると出血のリスクが有意に高いとする報告もある³⁾が，集計した15例では出血を伴った症例はなかった。無症状が12例（80%）と多く，有症状は3例のみであった。胸痛が2例うち1例は気胸を合併，1例は悪心，嘔吐，腹痛を呈していた。15例中少なくとも10例は何らかの基礎疾患を有しており，高血圧が7例，糖尿病が4例に合併していた。骨髓脂肪腫はしばしば肥満や高血圧，

糖尿病との合併を認め、Conn 症候群や Cushing 症候群に合併した報告もみられる^{14, 19, 20)}。このような基礎疾患が合併する頻度が高い理由として、高血圧、肥満、熱傷、慢性消耗性疾患などによる微小出血などの組織壊死が骨髓脂肪腫様変性に関与しているとも言われている²¹⁾。また検索し得た範囲では悪性化の報告はなかった。

骨髓脂肪腫の CT 画像は、脂肪組織を反映した低吸収領域の中に、類骨髓組織の高吸収領域が散在している点の特徴である¹¹⁾。MRI 画像は T1 強調画像で腫瘍の脂肪組織部分が高信号、造血組織が低信号となるのに対し、T2 強調画像では脂肪組織が低信号、造血組織がやや高信号を呈する²²⁾。また脂肪抑制法は腫瘍内の脂肪組織を証明するのに有用である²³⁾。縦隔に発生する腫瘍で同様の画像所見を呈するものには脂肪腫、脂肪肉腫、髓外造血、奇形腫、血管脂肪腫などが挙げられる。

今回集計した15例中12例 (80%) は腫瘍摘出術が行われ、手術標本により確定診断が得られている。2例は CT ガイド下生検、1例は局所麻酔下胸腔鏡下生検で確定診断が得られている。骨髓脂肪腫は良性疾患であり、確定診断がつけば無症状の症例には切除を行う必要はないとする意見もあり¹¹⁾。前述の CT ガイド下生検で診断が確定した2例も経過観察になっている。

本症例は画像から脂肪肉腫を疑い術前の組織診断は未確定であったが手術を行った。画像的には鑑別困難な症例が多く、また骨髓脂肪腫は基礎疾患をもつ症例も多いことから、手術のリスクが高い症例では術前の組織学的診断を積極的に試みるべきと思われた。

結 語

後縦隔に発生した骨髓脂肪腫の1例を経験した。稀な疾患であり過去の文献を集計し報告した。

文 献

- Spanta R, Saleh HA, Khatib G. Fine needle aspiration diagnosis of extraadrenal myelolipoma presenting as a pleural mass. *Acta Cytol* 1999; **43**: 295-8.
- Fowler MR, Williams RB, Alba JM, Byrd CR. Extraadrenal myelolipomas compared with extramedullary hematopoietic tumors: A case of presacral myelolipoma. *Am J Surg Pathol* 1982; **6**: 363-74.
- Kenney PJ, Wagner BJ, Rao P, Heffess CS. Myelolipoma: CT and pathologic features. *Radiology* 1998; **208**: 87-95.
- 望月得郎, 中村健治, 高田恵二, 他. 両側性の副腎 myelolipoma の1例. *臨床放射線* 1990; **35**: 995-8.
- 岡本 司, 山本浩史. 後縦隔より発生した myelolipoma の1例. *癌の臨床* 1992; **38**: 599-602.
- Krismann M, Reichle G, Müller KM. Thoracic bilateral myelolipoma. *Pneumologie* 1993; **47**: 501-3.
- Wytttenbach R, Fankhauser G, Mazzucchelli L, Probst P. Primary mediastinal myelolipoma: a case report. *Eur Radiol* 1994; **4**: 492-5.
- 栗原美貴子, 宮脇修一, 蔵屋敷隆二. 後縦隔に発生した骨髓脂肪腫の1例. *臨床放射線* 1996; **41**: 275-8.
- Minamiya Y, Abo S, Kitamura M, Izumi K. Mediastinal extraadrenal myelolipoma: report of a case. *Surg Today* 1997; **27**: 971-2.
- 小泉淳一, 原田英之, 山本直樹, 他. 縦隔内骨髓脂肪腫の1例. *胸部外科* 1999; **52**: 869-71.
- Kawanami S, Watanabe H, Aoki T, et al. Mediastinal myelolipoma: CT and MRI appearances. *Eur Radiol* 2000; **10**: 691-3.
- Gao B, Sugimura H, Sugimura S, Hattori Y, Iriyama T, Kano H. Mediastinal myelolipoma. *Asian Cardiovasc Thorac Ann* 2002; **10**: 189-90.
- Franiel T, Fleischer B, Raab BW, Füzesi L. Bilateral thoracic extraadrenal myelolipoma. *Eur J Cardiothorac Surg* 2004; **26**: 1220-2.
- Sawhney R, McRae B, Lazarchick J. A rare case of a multifocal extra-adrenal myelolipoma with markedly hypocellular bone marrow. *Ann Clin Lab Sci* 2006; **36**: 208-11.
- Mohan K, Gosney JR, Holemans JA. Symptomatic mediastinal myelolipoma. *Respiration* 2006; **73**: 552.
- Rossi M, Ravizza D, Fiori G, et al. Thoracic myelolipoma diagnosed by endoscopic ultrasonography and fine-needle aspiration cytology. *Endoscopy* 2007; **39**: 114-5.
- Vaziri M, Sadeghipour A, Pazooki A, Shoolami LZ. Primary mediastinal myelolipoma. *Ann Thorac Surg* 2008; **85**: 1805-6.
- 田村和貴, 谷口英樹. 後縦隔に発生した骨髓脂肪腫の1例. *日呼外会誌* 2010; **24**: 28-30.
- Dieckmann KP, Hamm B, Pickartz H, Jonas D, Bauer HW. Adrenal myelolipoma: clinical, radiologic, and histologic features. *Urology* 1987; **29**: 1-8.
- Oliva A, Duarte B, Hammadeh R, Ghosh L, Baker RJ. Myelolipoma and endocrine dysfunction. *Surgery* 1988; **103**: 711-5.
- Olsson CA, Krane RJ, Klugo RC, Selikowitz SM. Adrenal myelolipoma. *Surgery* 1973; **73**: 665-70.
- Kammen BF, Elder DE, Fraker DL, Siegelman ES. Extraadrenal myelolipoma: MR imaging findings. *Am J Roentgenol* 1998; **171**: 721-3.
- Rao P, Kenney PJ, Wagner BJ, Davidson AJ. Imaging and pathologic features of myelolipoma. *Radiographics* 1997; **17**: 1373-85.

A case of posterior mediastinal myelolipoma

Takashi Semba, Toshihiro Osaki, Mantaro Kodate

Department of Chest Surgery, Iizuka Hospital, Iizuka, Japan

We report a case of myelolipoma arising from the posterior mediastinum in a 67-year-old man with an abnormal shadow detected on routine chest radiograph. Chest radiograph showed a right mediastinal mass shadow without a silhouette sign of the heart. Chest computed tomography and magnetic resonance imaging showed a well circumscribed tumor with fat and soft tissue components adjacent to the 8th to 10th thoracic vertebrae, suggesting mediastinal liposarcoma. We performed complete resection of the tumor. Macroscopically, it was a 53×38×25-mm solid tumor. Histologically, the tumor had a thin fibrous capsule and was composed of focal hematopoietic elements and mature adipocytes. We diagnosed it as a myelolipoma. We report a rare case of mediastinal myelolipoma, and review 15 cases reported over the past two decades.