症 例

穿刺吸引細胞診により診断した胃原発奇形腫の1例

川崎医科大学附属病院病院病理部¹⁾, 川崎医科大学附属病院人体病理²⁾昌 榮¹⁾ 太田 節子¹⁾ 津嘉山朝達²⁾ 中川 定明²⁾

生後2ヵ月の男児の胃に発生した成熟奇形腫の1例を経験した。その吸引、捺印細胞診像は成熟した扁平上皮、グリア細胞などの外胚葉成分と、内胚葉成分呼吸器系の線毛円柱上皮、消化器上皮、それに加えて中胚葉としての骨、軟骨、平滑筋、脂肪細胞が混在した。少数の未熟な神経系細胞が認められたが、幼若な胚細胞は認められなかった。これらの点から成熟奇形腫が推測された。組織学的にも、成熟した三胚葉成分がみられ、捺印細胞像を裏づけるような所見を得た。術後6ヵ月までの観察では再発の兆候はない。

Key words : Gastric teratoma—Morphology—Aspiration cytology—Case report

I. はじめに

小児に発生する腫瘍のうち、奇形腫群腫瘍は神経芽腫群腫瘍についてその頻度は高い。本邦では睾丸奇形腫の頻度が最も高く、ついで卵巣、尾仙部、後腹膜、縦隔、頭頸部の順に多く発生するが、なかでも胃に発生する奇形腫はまれなものでわれわれの知るかぎり本邦では20数例の報告をみるにすぎない。臨床的に腹部腫瘤を主訴とする胃の奇形腫は神経芽細胞腫やWillms腫瘍との鑑別が重要である。最近われわれは、腹部膨満を主訴とした生後2ヵ月男児の胃奇形腫症例を経験した。われわれの知るかぎり、本腫瘍の細胞診学的形態を記載した報告はない。そこで本症例を呈示し、細胞像を中心に紹介し、若干の文献的考察を加えて報告したい。

II. 臨床的事項

症 例 : F.N., 2ヵ月男児。

主 訴 : 腹部膨満, 下痢。

家族歴 : 母方の祖父が肺癌。

現病歴 : 母親, 24歳, 38週にて出生。生下時, 体重3,370gで生後発育は良好であった。昭和60年1月21日乳児検診にて4.2kg(30g/日)の体重であった。この頃より下痢気味で近医を受診, 同年2月初旬, 両親が腹部膨満に気づくも放置していた。同時期より哺乳力低下がみられ母乳6回/日+ミルク90mlを1日に飲ませたが, ミルクも50ml程度しか哺乳せず, 母乳も哺乳時間も5分以下であった。同年2月19日2ヵ月検診にて腹部膨満の進行および腹壁静脈怒張が認められ同月20日川崎医科大学附属病院小児科受診し, 同日入院した。

入院時現症 : 身長54cm, 体重5,425g, 頭囲35.5cm, 腹囲44.3cm(腹高), 体格, 栄養は中等度であった。意識清明, 脈拍140/分で整, 眼瞼結膜は軽度貧血性, 眼球結膜には黄疸を認めず, 表在リンパ節は触知しなかった。腹部は全体に膨隆し, 上腹部に静脈の怒張を認めた。触診で腹部全体を占拠した腫瘤が認められた。腹水はなく, 肝, 脾は触知し得なかった。

入院時検査 : 赤血球数 $200 \times 10^4/\text{mm}^3$, Hb 5.6 g/dl, Ht 18.8%, 白血球数 $270 \times 10^3/\text{mm}^3$ であり, 貧血を認めた。血漿蛋白 4.6 g/dl, 血清電解質 Na 38 mEq/l, K

Gastric teratoma diagnosed cytologically by aspiration cytology

Sakae HATA, C.T., I.A.C.T. and Setsuko OOTA, C.T., I.A.C.T.

Department of pathology, Kawasaki Medical School Hospital

Chotatsu TSUKAYAMA, M.D. and Sadaaki NAKAGAWA, M.D., F.I.A.C.

Department of Human Pathology, Kawasaki Medical School Hospital

論文別刷請求先 ☎701-02 倉敷市松島 577 川崎医科大学附属病院病院病理部 昌 榮

昭和60年8月27日受付

昭和61年4月18日受理

図1 入院時腹部 CT

腫瘍は腹腔の2/3を占拠し、腫瘍内部は不均一で cystic な像を示す

図2 摘出腫瘍肉眼像

4.8 mEq/l であった。肺機能、尿所見は正常であり、血清 α -fetoprotein は 3,000 ng/ml であった。LDH は 163 IU/l, VMA 1.3 μ g/ml, HVA 3.0 μ g/ml で正常範囲内であった。腹部単純X線、腹部超音波検査で腫瘍は腹部をほぼ占拠し、肝を胸腔側におしあげていた。腫瘍の内部は充実性だがそのなかに散在性に小さな嚢胞がみられ、また一部に石灰化と思われるエコー輝度の増強を示す部分も認められた。腹部 CT では腫瘍は腹腔の2/3を占拠し、内部は不均一でところどころ、low density を示す部がみられ、これは嚢胞性病変と考えられた。また一部に石灰化を認めた。以上の CT 所見より、骨様組織、脂肪組織、嚢胞状組織よりなる複雑な内部構造をもつ腫瘍で、隣接臓器との連続性、浸潤像はなく、左腎、脾臓を後方に圧排し増殖した腫瘍であった(図1)。

入院後経過：外科的開腹生検を昭和60年2月21日に施行し、同時に穿刺吸引細胞診を施行しともに奇形腫と診断した。同月25日に腫瘍摘出手術を行った。

手術所見ならびに肉眼所見：開腹時腫瘍は左腹腔内を

図3 a, b, c 生検時穿刺吸引細胞診

(Papanicolaou stain, a, b; original $\times 400$, c; original $\times 1,000$)

占拠し、下行結腸を右側へ圧排して一部で腫瘍と炎症性に癒着していたが鈍的に剥離できた。胃体部大彎側と連結していたため大彎側を全層切開し、胃壁の一部を含めて腫瘍の摘出を行った。

摘出標本：12 $\times$ 9 $\times$ 9 cm, 430 g の粗大結節状の腫瘍で表面は明瞭で結合組織性の被膜で被われていた。断面は不均一で充実性の部と黄褐色粥状物を有した嚢胞状の部を混在させていた。一部に骨様組織、線維性結合組織ならび

図 4 a, b, c 術中迅速圧挫標本
(Papanicolaou stain, a ; original $\times 200$, b, c ; original $\times 200$)

に脂肪組織などを認めた (図 2)。

III. 細胞像

i) 生検時穿刺吸引細胞診

腫瘍穿刺吸引細胞診では、多くの炎症細胞を背景として $30\sim 60\mu$ 大の好酸性から好塩基性の胞体を有する細胞がみられ、一部に角化を示した成熟扁平上皮細胞 (図 3a)、円柱上皮、線毛円柱上皮の混在、さらに平滑筋、

図 5 a, b, c 摘出標本の組織像
(H-E stain, a, b ; original $\times 100$, c ; original $\times 200$)

線維芽細胞、脂肪細胞も認められた (図 3b)。また、数箇所に小型、N/C 比大、類円形を呈した細胞が集合重積性に出現し、一部でロゼットを形成する神経上皮由来の成分も認められた (図 3c)。

ii) 術中迅速圧挫標本

摘出腫瘍の断面から採取した圧挫標本では成熟扁平上皮とともに線維芽細胞、脂肪組織、軟骨細胞 (図 4a)、骨梁 (図 4b) を認め、一部で神経膠細胞も認められた (図 4c)。

IV. 組織学的所見

腫瘍は胃の筋層と連続し結合織性被膜で被われ、嚢胞状部と実質性部を認めた。腫瘍は角化した重層扁平上皮(図5a)、皮脂腺、また皮膚付属器がみられ、これらと混在して脳組織、脈絡膜組織、神経線維束、メラニン細胞などの外胚葉性成分が認められた。さらに中胚葉性組織の膠原線維、軟骨、骨、横紋筋など(図5b)、内胚葉性組織としての消化管上皮、気管上皮(図5c)などがみられた。これらの分化した組織の一部に未熟な神経管(図6)、軟骨などの成分が混在していた。

図6 摘出標本の組織像

一部にみられた未熟な神経管 (H-E stain, original $\times 200$)

V. 考 察

本邦における小児の固形悪性腫瘍は神経芽腫、奇形腫群腫瘍、Willms 腫瘍の順で多くみられ、奇形腫群腫瘍は総数の18.0%である。発生部位についてみると、本邦では睾丸が最も頻度が高く、全体の29.6%を占める。ついで卵巣(25.8%)、尾仙部(20.6%)、後腹膜(13.8%)、縦隔(3.8%)、頭頸部(1.9%)の順である。また発生部位別に悪性率をみると、睾丸奇形腫の悪性率が84%と最も高く、このうち93%に卵黄囊癌を含む胎児性癌を認めている。ついで卵巣、尾仙部、後腹膜、縦隔の順に多い⁴⁾。また、性別の頻度は男性46%、女性54%とやや女性に多い。後腹膜、尾仙部の奇形腫は約2~3倍で女性に多くみられる。ところが胃原発の奇形腫はまれで、1977年 Moriuchi ら³⁾により44例がまとめられ、報告されている。これによると、ほとんどが男児であり、生後短期間のうちに発現してくることが多く、大多数が1歳未満に発生している。初発症状は上腹部から左上腹部にかけての膨隆および腫瘤形成である。多くは胃近位側に発生しており、特に噴門部、底部、体部後壁に発生するものが多い。腫瘍の発育型は主として胃外発育型をとるが、胃内腔に発育、出血をみた例も報告されている。しかし、浸潤性増殖や転移をみた症例は報告されていない^{1,3,5)}。本例では2ヵ月男児の胃に発生した成熟型奇形腫で、臨床的にも、組織学的にも一致するものである。胃原発の奇形腫の一般的な臨床所見、組織像を細

表1 Comparison of typical Gastric teratoma and present case^{1,3,5)}

	typical gastric teratoma	present case	
clinical data			
age range (average years)	infant ~ 40 yr (1 yr)	2 mos	
sex preponderance	M	M	
location	posterior wall	posterior wall	
growth	extragastric	extragastric	
rentogenology, ultrasonography	cystic and solid	cystic and solid	
result	recovered	recovered	
light microscopy	histology	histology	cytology
multiole epithelial-lined cysts	+	+	?
mature element			
ektoderm	+	+	+
central nervous system	+	+	—
neural groove system, tube	+	+	+
grial tissue	+	+	+
mesoderm	+	+	+
entoderm	+	+	+
immature neural tubular	+	+(10%)	+
germ cell element (malignant)	—	—	—

胞診像を加えた本例と対比してみると表1のようになる^{1,3,5)}。

われわれは穿刺吸引細胞像から奇形腫と診断したが、細胞診で奇形腫と診断するためには、1) 良性の成熟した三胚葉成分の同定が必要であり、2) 胎児性癌、絨毛癌、未分化胚腫瘍由来の悪性の細胞を認めないことである。本例の細胞診では分化成熟した外、中、内の三胚葉成分の出現があり、組織像を反映していると思われる。

次に本症例の予後についてみてみると、一般的に未熟な神経成分を含む奇形腫については悪性とみなす考え方があり、これは卵巣奇形腫についての考え方が一般化したものと思われる^{6,8)}。小児の未熟奇形腫については三杉ら²⁾の報告にも認められるように、死産児の1例を除いて7例いずれも外科的切除のみで良好な経過を得ている。また土田ら⁷⁾は奇形腫群腫瘍68例をまとめ、未熟奇形腫の7例のうち、後腹膜発生の2例に再発を認めたが、それでも全例生存していることを報告している。このように小児の奇形腫については、年齢、腫瘍の発生部位、大きさ、組織所見などが予後を判定するのに重要な因子となり、これらを総合して検討することが必要である^{3,4,7)}。また、嚢胞状を呈する奇形腫は一般的に予後は良好であるが、その組織像は種々の成分からなるため多彩で腫瘍全体を十分に検索する必要がある。また穿刺細胞診でもできるだけ多くの部分より標本作製し、悪性胚細胞成分がないことをみきわめることが必要である。われわれの症例も一部に未熟な神経組織、神経管様構造、軟骨を認めたが、術後6ヵ月後の現在、再発の徴候なく経過は良好である。

VI. 結 語

吸引細胞診、生検時捺印標本で成熟した外、中、内の三胚葉成分の出現した胃原発の成熟奇形腫を経験し、その細胞学的特徴とともに若干の文献的な考察を加え、報告した。

Summary

We report a case of gastric teratoma diagnosed by aspiration cytology. The patient was 2-month-old male infant. A large mass showing extragastric growth was located on the greater curvature of body region and measured 12×9×9 cm. Cytologically the tumor was composed of the elements derived from three germ layers including squamous, cuboidal and high columnar epithelium with or without cilia, fat tissue, cartilage and neural tissue.

The majority of these cells appeared to be predominant mature but some of the neural cell cluster showed primitive immature structures.

The patient is presently doing well 6 months of the surgery, and there is no evidence of recurrent tumor.

文 献

- 1) Gonzalez-Crussi, F.: Extragonadal teratomas, Atlas of tumor Pathology, Benign or malignant? a practical approach, pp. 44~46, Teratomas of the stomach, pp. 135~141, Second series, Fascicle, 18, AFIP, Washington, D.C., 1973.
- 2) 三杉和章, 佐々木佳郎: 奇形腫群腫瘍の悪性組織について, 小児外科, 12: 737~742, 1980.
- 3) Moriuchi, A., et al.: Gastric teratoma of children —A case report with review of the literature, Acta Path. Jap., : 749~758, 1977.
- 4) 中川原 章, 池田恵一: 特集, 悪性奇形腫とその周辺, 疫学, 小児外科, 12: 731~735, 1980.
- 5) 野浪一道・他: 胃奇形腫の一治験例—本邦報告例の集計による検討—, 小児外科, 578~581, 1977.
- 6) Norris, H.J., et al.: Immature (malignant) teratoma of the ovary, a clinical and pathologic study of 58 cases, Cancer, 37: 2359~2372, 1976.
- 7) 土田嘉昭・他: 小児奇形腫群腫瘍の臨床病理学的検討, 日本外科学会誌, 78: 131, 1977.
- 8) Wisniewski, M. and Deppisch, L.M.: Solid teratoma of the ovary, Cancer, 32: 440~446, 1973.