

症 例 報 告

悪性リンパ腫治療後, ^{18}F -FDG PET にて
高集積を示した頸部異所性胸腺の1例岩間祐基, 藤井正彦, 矢内友子¹⁾, 前田貢作²⁾, 杉村和朗神戸大学 放射線科, 同 小児科¹⁾, 同 呼吸循環器外科²⁾Ectopic Cervical Thymus which Showed Increased Uptake on
 ^{18}F -FDG PET Scan after Chemotherapy of Malignant LymphomaYuki Iwama, Masahiko Fujii, Tomoko Yanai¹⁾, Kousaku Maeda²⁾, Kazuro SugimuraDepartment of Radiology, Pediatrics¹⁾, and Cardiovascular and Respiratory Surgery²⁾, Kobe University Hospital**Abstract** Ectopic cervical thymus is an uncommon cause of cervical mass in children and is rarely considered in the differential diagnosis.

We report a case of cervical ectopic thymus in an 11-year-old boy after chemotherapy of malignant lymphoma. MR images showed a well-defined homogeneous signal intensity mass in the left carotid sheath. ^{18}F -FDG PET showed markedly increased accumulation in concurrence with the mass. After chemotherapy, lymphatic tissues can undergo reactive hyperplasia including the thymic rebound phenomenon. Image interpretation of ^{18}F -FDG PET can be complicated. Ectopic cervical thymus is a very important pitfall in ^{18}F -FDG-PET scan.

Keywords Ectopic cervical thymus, ^{18}F -FDG PET, Chemotherapy, Thymic rebound

はじめに

悪性リンパ腫の治療後の経過観察中に頸部腫瘍が出現し, MRI および ^{18}F -FDG PET による画像診断において, 悪性リンパ腫の再発との鑑別が問題となった頸部異所性胸腺の1例を経験したので報告する。

症 例

症例: 11歳男児。

主訴: 左頸部腫瘍

家族歴: 特記すべき事項なし

既往歴: 特記すべき事項なし

現病歴: 菌痛, 扁桃腫大にて近医受診したところ, 両側上顎洞, 頸部および脾, 両側腎臓に多数の腫瘍を認めた。骨髓生検を含めた精査の結果, バーキットリンパ腫 (Stage IV, CNS浸潤あり) と診断され, 当院小児科紹介受診となった。入院後に化学療法が施行され, 治療前に認めた全身の病変は画像診断上は消失し, 6コース終了後のCT, MRI, ガリウムシンチでも, 再燃の所見は認めら

原稿受付日: 2007年5月14日, 最終受付日: 2007年7月3日

別刷請求先: 〒650-0017 神戸市中央区楠町7-5-2

神戸大学大学院医学系研究所 内科系講座 放射線医学分野 岩間祐基

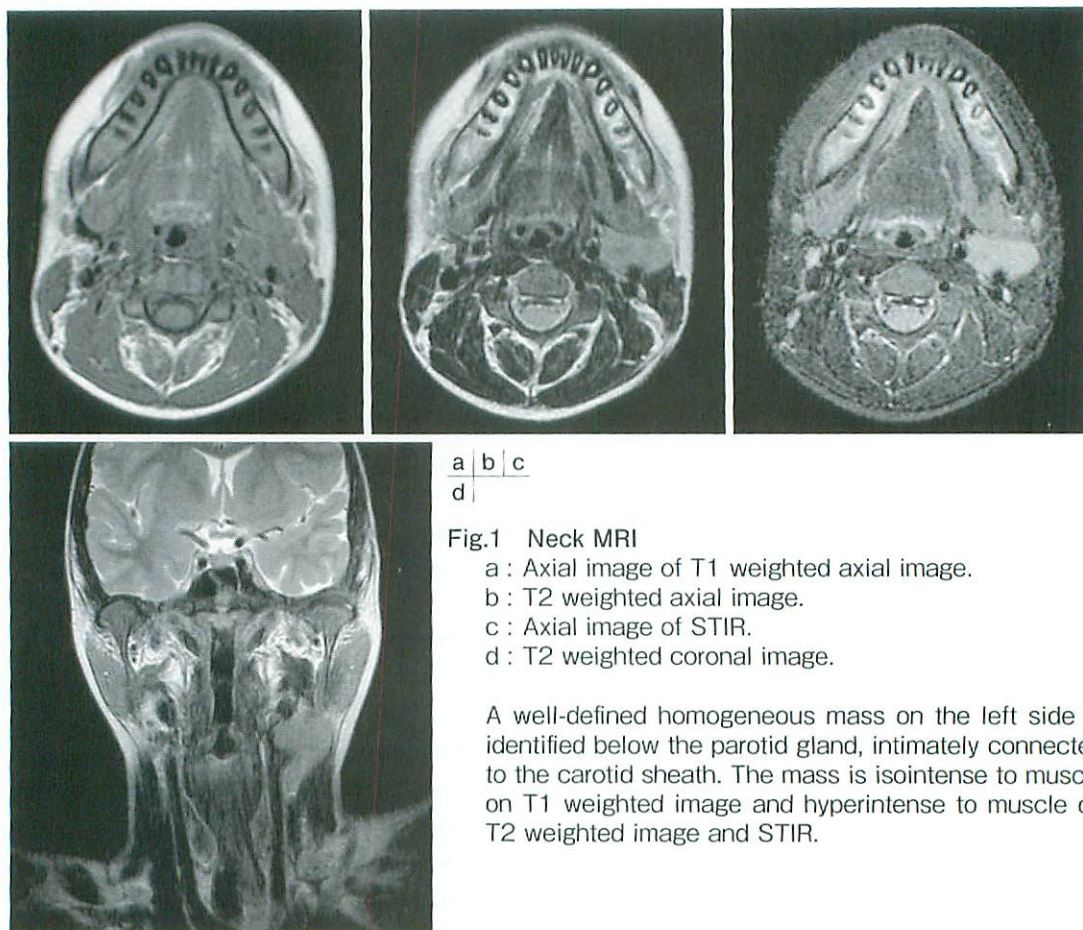


Fig.1 Neck MRI

a : Axial image of T1 weighted axial image.

b : T2 weighted axial image.

c : Axial image of STIR.

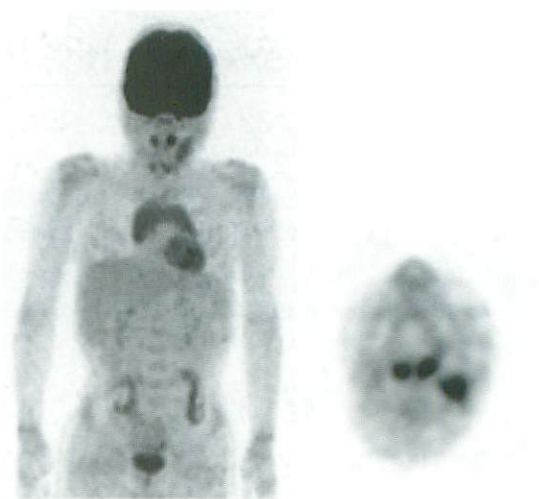
d : T2 weighted coronal image.

A well-defined homogeneous mass on the left side is identified below the parotid gland, intimately connected to the carotid sheath. The mass is isointense to muscle on T1 weighted image and hyperintense to muscle on T2 weighted image and STIR.

れなかった。治療終了2ヵ月後、経過観察のために施行されたMRIで左顎下部背側、頸動脈間隙に軟部腫瘍の出現を認めた。さらに2ヵ月後のMRIでも腫瘍は残存していたため、 ^{18}F -FDG PETを施行したところ、同部の集積亢進が認められた。腫瘍マーカーの上昇などは見られなかったが、再発を否定しきれないため、切除生検目的にて再入院となった。

MRI所見：左顎下腺の背側、かつ内頸動静脈の間に長径約3cm大の腫瘍が認められた。境界は明瞭で、頭尾方向に細長い形態を呈し、T1強調像で低信号、T2強調像では均一な高信号を示していた (Fig.1)。

PET所見：左頸部の腫瘍に一致した集積亢進が明瞭である (集積度の半定量的指標 Standards Uptake Valueの最大値 (SUV max) は2.7であった)。胸腺にも集積亢進が認められる (SUV maxは3.0)。

Fig.2 ^{18}F -FDG PET

a : 3D-image

b : Axial image

Increased uptake is visualized in the neck mass, and is seen similarly in the thymus.

a | b

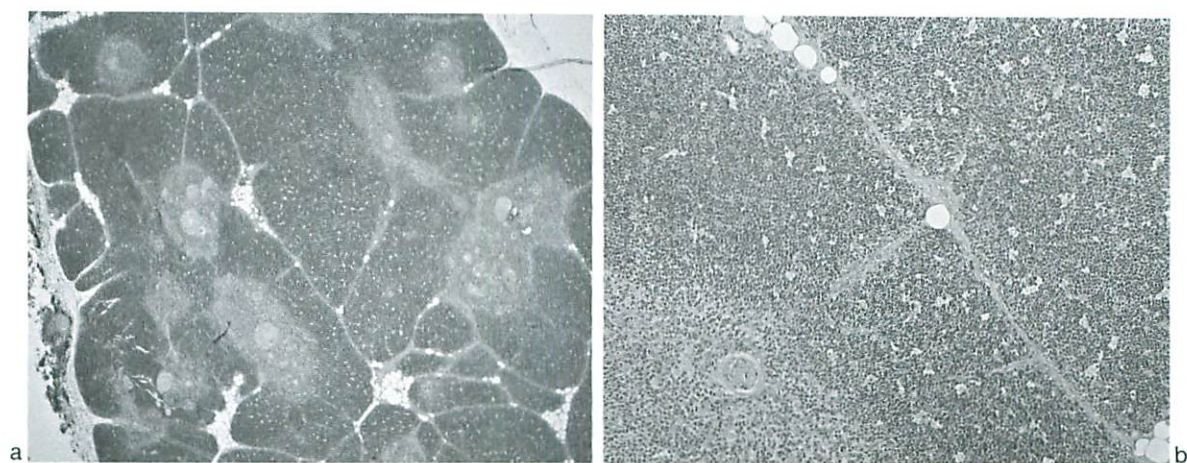


Fig.3 Pathological findings

a : Low magnification

b : High magnification

Mature thymic elements are depicted consisting of primary septa, cortex, and medulla. On high magnification, Hassall's corpuscles are shown within the cortex.

なお、腫瘍の上縁レベルに口蓋扁桃へ、下縁レベルには舌下腺への生理的集積が見られる (Fig.2)。

病理所見：被膜に覆われ、剖面では皮質と髄質構造を認める。髄質内にはハッサル小体が認められ、正常胸腺組織と診断された (Fig.3)。

その後の経過観察にても、明らかな再発は認められていない。

考 察

頸部異所性胸腺は、第三咽頭嚢の分化異常に伴う、非常に稀な小児頸部腫瘍で、胸腺原基の遺残あるいは副胸腺組織などが感染や予防接種などを契機として肥大して生じると考えられている。通常は無痛性の頸部腫瘍として発見されるが、10%程度に頸部痛や上気道感染、腫瘍の気管への圧排による喘鳴、嚔声、呼吸障害などの症状を有することがある。発生頻度は10歳以下の小児に多く、男女比では男児に多いとされている。異所性となる原因は、胸腺原基の頸部から縦隔への下降過程の異常と考えられ、診断においては発生学的な背景を理解することが重要である^{1,2)}。

胸腺は胎生4週に第三咽頭嚢の腹側の上皮に原基が形成される。胎生5週には胸腺咽頭管 (thymopharyngeal canal) と呼ばれるルートに沿って、頸部へと移動し、胎生7週頃正中で癒合

し胸腺原基を形成する。胸腺原基はさらに尾側へと伸長し、縦隔上部へと下降する。胸腺の成長発育は、出生時には完了しておらず、胸郭上口から上方へ向かって頸部の下方までのびている。小児期後期頃から成長に伴い退行し、大きさが減少していく³⁾。このような発生学的見地より成因を見ると、①胸腺原基の一部が取り残された場合、②消失するはずの遺残物が残存した場合、③下降が起こらなかったか不完全であった場合、④縦隔内へ下降した胸腺が頸部へ肥大した場合などが考えられている²⁾。

画像所見に関するまとまった報告はないが、CTもしくはMRIにてcarotid sheathに沿った部位に、均一な充実性腫瘍として認められることが多いようである。発生学的に胸腺咽頭管のルートに沿ったどの部位にも発生しうるが、下頸部の頸動静脈前方に接して認められることが多く、過去の報告でもこの部位の報告例が非常に多い^{1,2,4,5)}。左側の胸腺上極部の下降が遅延する傾向があり、左側にやや多いようである。また、5%程度は両側性に認められる。ごく稀には、同部から胸腺腫や胸腺嚢胞が発生することもある⁶⁾。画像診断においては、リンパ腫、神経芽腫、横紋筋肉腫などの軟部悪性腫瘍との鑑別が問題となる。画像所見は、境界明瞭で均一な充実性腫瘍で、mass effectに乏

しく、MRIにて正常胸腺と等信号を示す。ただし、文献ではほとんどの症例で術前の確定診断には至っておらず、生検あるいは手術が施行されている。

本症例は、部位、画像所見ともに、頸部異所性胸腺に典型的であった。本例の場合、悪性リンパ腫の治療後であり、PETでの集積亢進により再発に診断が傾きやすいが、正常胸腺にも同程度に集積亢進が見られる点に留意する必要がある。ストレスや化学療法、ステロイド療法などの後に免疫機能が賦活され、縮小した胸腺が肥大することをrebound phenomenonと呼ぶ。このような化学療法後の胸腺肥大、過形成に関しては日常臨床で経験することは稀ではない。Kasteらによると、悪性リンパ腫に対する化学療法後の胸腺のrebound phenomenonは、化学療法中もしくは直後に見られ、PETでも集積亢進を示すことがあり、画像所見の解釈を難しくすることがあると報告している。胸腺のrebound phenomenonの場合、経時的に大きさは縮小するとともに、PETでの集積も軽減していくとしており、臨床的に再発の所見が明らかではない場合、胸腺の生検をせずに経過観察することが可能と述べている⁷⁾。このような臨床的背景も考慮すると、本症例の病態としては、頸部の遺残胸腺あるいは副胸腺が化学療法後に反応性の過形成を来したものと考えられる。我々が検索した範囲ではrebound phenomenonを示した頸部異所性胸腺の¹⁸F-FDG PETに関する報告はなく、非常に稀な症例と思われる。ただし、¹⁸F-FDG PETの胸腺への集積はrebound phenomenonに伴う集積と解釈していたが、胸腺の発生学的背景なども考慮すれば、頸部腫瘍への集積に関しても同様の変化と考えて経過観察することも可能であったと思われる。

化学療法によって悪性リンパ腫の寛解後に頸部腫瘍を認めた場合、異所性胸腺も鑑別に挙げる必要がある。¹⁸F-FDG PETにて集積亢進を認めた場合、再発との鑑別に有用な所見は同時に正常胸腺への集積亢進も認められることである。このよ

うな場合、胸腺のrebound phenomenonに伴う変化と解釈して、臨床医に経過観察する選択肢を示す必要がある。

結 語

悪性リンパ腫治療後の頸部異所性胸腺を経験した。化学療法後の胸腺過形成は日常臨床にてしばしば経験されるが、頸部異所性胸腺についてのrebound phenomenonの報告は稀である。今後PETの普及に伴い、このような症例に遭遇する機会も増えると推測される。悪性リンパ腫におけるPET診断においては、頸部異所性胸腺は重要なピットフォールの一つと思われ、留意する必要がある。

(本論文の要旨は第42回の本学会において発表した。)

●文献

- 1) Scott KJ, Schroeder AA, Greinwald JH : Ectopic Cervical Thymus : An uncommon diagnosis in the evaluation of pediatric neck mass. Arch Otolaryngol Head Neck surg ; 2002 ; 128 : 714-742.
- 2) 小角卓也, 米倉竹夫, 保木昌徳, 他 : 頸部異所性胸腺の1乳児例—本邦小児報告例の検討—. 日小児外会誌 2005 ; 41 : 963-967.
- 3) Moore P : ムーア人体発生学 (第5版). 東京, 医歯薬出版, 1997, p196-201.
- 4) Kakuno Y, Yamada T, Mori H, et al : Ectopic Thymus Presenting as Neck Mass. Nippon Igaku Hoshasen Gakkai Zasshi ; 2002, 62 : 747-748.
- 5) Saggese D, Compadretti GC, Cartoroni C : Cervical ectopic thymus : a case report and review of the literature. Int J Pediatr Otorhinolaryngol ; 2002, 66 : 77-80.
- 6) Kaufman MR, Smith S, Rothschild MA, et al : Thymopharyngeal dust cyst : an unusual variant of cervical thymic anomalies. Arch Otolaryngol Head Neck Surg. ; 2001, 127 : 1357-1360.
- 7) Kaste SC, Howard SC, McCarville EB, et al : ¹⁸F-FDG-avid sites mimicking active disease in pediatric Hodgkin's. Pediatr Radiol ; 2005, 35 : 141-154.