

## 小児甲状腺癌の2例

小池祥一郎 矢満田 健 増田 裕行

小林 信や 菅谷 昭 飯田 太

信州大学医学部第2外科学教室

### Two Cases of Thyroid Carcinoma in Childhood

Shoichiro KOIKE, Takeshi YAMANDA, Hiroyuki MASUDA

Shinya KOBAYASHI, Akira SUGENOYA and Futoshi IIDA

Department of Surgery, Shinshu University School of Medicine

Two cases of thyroid carcinoma in childhood are reported. Case 1 was a 9-year-old girl, and case 2 an 11-year-old boy. Both patients presented with asymptomatic swelling of the cervical nodes. Total thyroidectomy with bilateral neck and upper mediastinal lymph node dissection was carried out. Furthermore, segmental resection (6 cartilages) of the invaded trachea, diagnosed by preoperative echography and CT-scan, was performed in case 2. Local recurrence was found in case 1 3 years post-operatively.

Based upon the characteristics of thyroid carcinoma in childhood, the principle of surgical treatment in our department was mentioned; ① total thyroidectomy, ② bilateral modified neck dissection and ③ combined organs and/or upper mediastinal dissection if needed. *Shinshu Med. J.*, 39:291-299, 1991

(Received for publication September 18, 1990)

---

**Key words:** thyroid carcinoma in childhood, upper mediastinal dissection, intrathyroidal metastasis

小児甲状腺癌, 上縦隔郭清, 腺内転移

---

#### I はじめに

小児甲状腺癌は比較的にまれなため、早期に診断を確定することが困難な癌のひとつである。しかし、成人の甲状腺癌に比較していくつかの臨床的特徴が認められている。また治療法に関しても成人の甲状腺癌と異なった問題点を抱えており、議論の多いところである。

1985年に教室の宮川<sup>1)</sup>は、15歳以下の小児甲状腺癌9例を報告しているが、最近新たに2例を経験したので、前回の報告例も加えて手術術式を中心として考察を加える。

なお、本論文における頸部所属リンパ節の分類は、甲状腺癌取り扱い規約<sup>2)</sup>に準じた。

#### II 症 例

症 例1: 9歳, 女児。

主 訴: 両側頸部リンパ節腫脹。

既往歴, 家族歴: 特記すべきことなし。

現病歴: 昭和60年5月頃より、両側頸部リンパ節腫脹に気づいていたが経過観察していた。その後次第に増大してきたため昭和61年5月近医を受診し、甲状腺癌を疑われ当科へ紹介された。

局所所見: 図1のごとく、甲状腺は両側ともびまん性に触れ、右葉は3.5×3.0cm、左葉は3.5×2.0cmで、明瞭な結節は触知しなかった。両側頸部に腫大したリンパ節を連珠状に触知した。

検査所見: 甲状腺機能は正常で、甲状腺自己抗体も陰性であったが、血中サイログロブリン値は145.6ng/

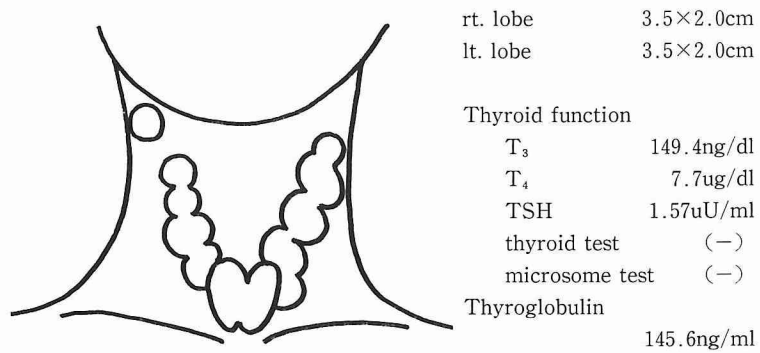


図1 症例1の局所所見および甲状腺機能  
両側頸部に腫大したリンパ節を連珠状に触知した。



図2 症例1の頸部軟X線撮影  
大型の石灰化像の中に微細な石灰化陰影を認める。

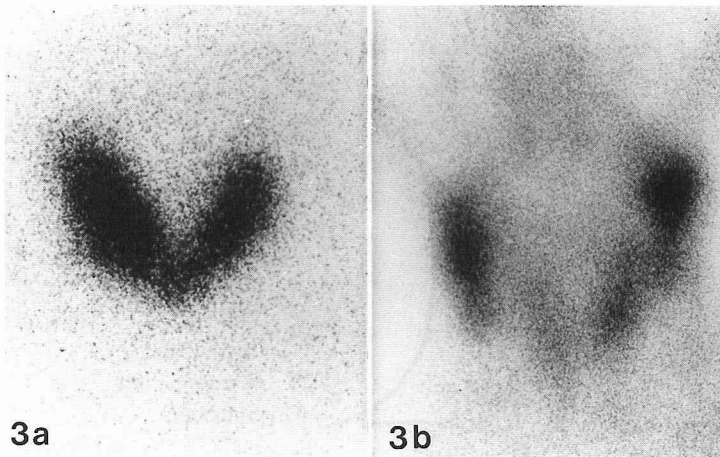


図3 症例1の甲状腺シンチグラム  
a  $^{123}\text{I}$  シンチグラム cold nodule は認められない。  
b  $^{201}\text{Tl}$  シンチグラム両側頸下部に集積を認める。

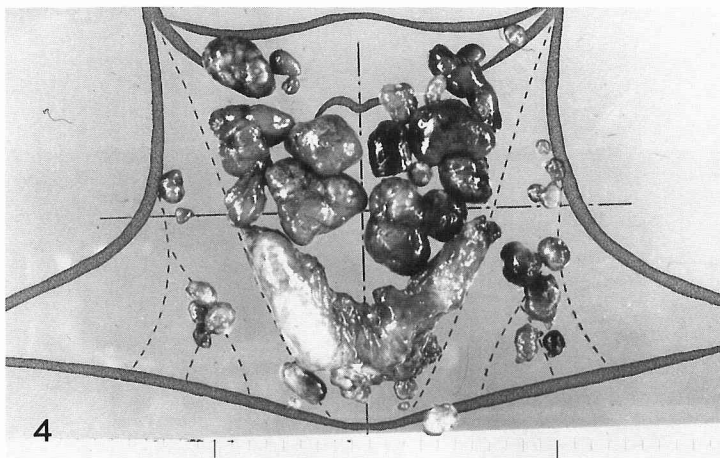


図4 症例1の切除標本 著明なリンパ節腫脹を認める。

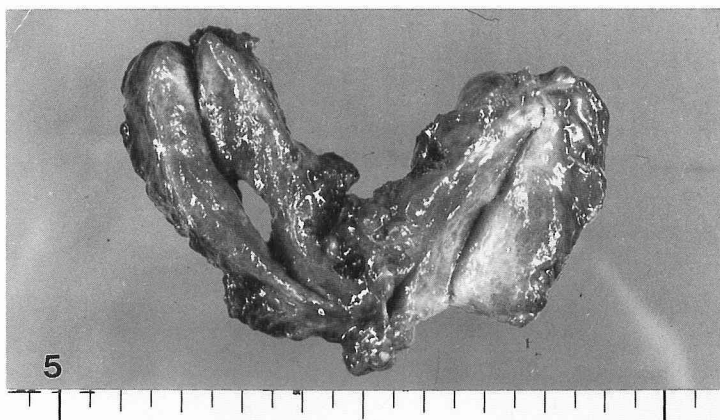


図5 症例1の甲状腺断面 明らかな腫瘍を認めない。

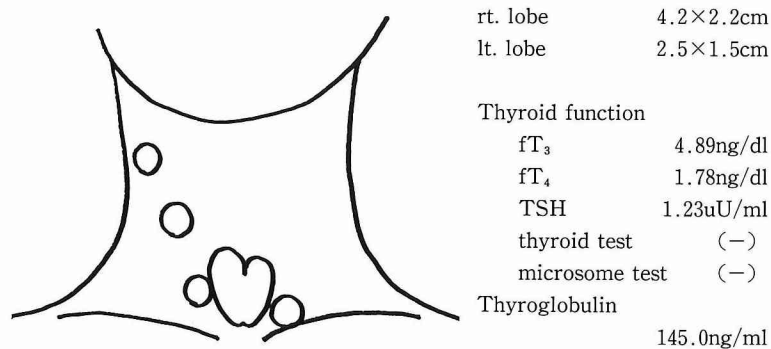


図6 症例2の局所所見および甲状腺機能  
腫大リンパ節を多数触知し、サイログロブリンの  
高値を認めた。

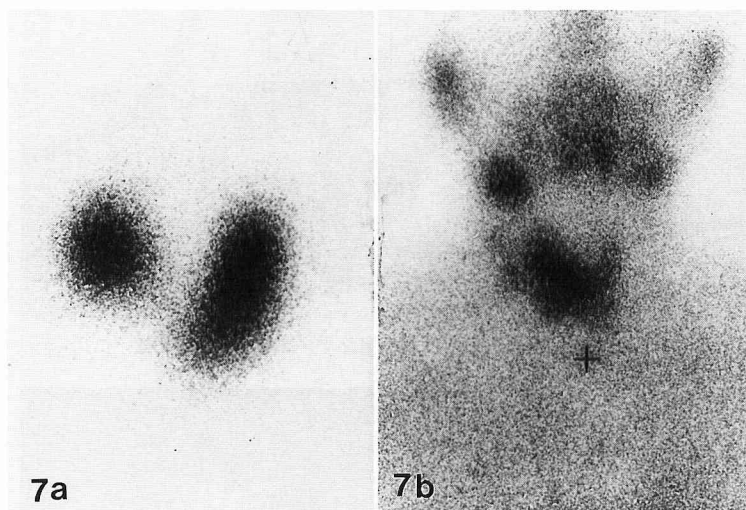


図7 症例2の甲状腺シンチグラム  
a <sup>123</sup>I シンチグラム  
右葉下極に cold nodule を認める。  
b <sup>201</sup>Tl シンチグラム  
右葉および両側頸部に異常集積を認める。



図8 症例2の頸部CT

腫瘍により気管は強く圧排され、接触面は直線化している。



図9 症例2の切除標本

甲状腺右葉下極に腫瘤を認め、リンパ節腫脹が著明である。

ml（正常値30ng/ml以下）と高値であった。頸部軟X線撮影（図2）では、境界が比較的明瞭な大型の石灰化像の中に、悪性を疑わせる微細な石灰化陰影を認めた。 $^{123}\text{I}$ シンチグラム（図3a）では明瞭なcold noduleはなく、 $^{201}\text{Tl}$ シンチグラム（図3b）では両側頸下部に異常集積を認めた。超音波検査では、左葉下極に $2.0 \times 2.0\text{cm}$ の悪性所見を伴う腫瘤陰影を認め、CTでも同様の所見とともに、両側頸部に腫大したリンパ節を多数認めた。穿刺吸引細胞診ではclass Vであった。以上の検査成績より、リンパ節転移を伴う

甲状腺癌と診断し手術を施行した。

手術所見：全麻下で前頸部にT字状皮切を加え甲状腺を露出した。明らかな孤立性の腫瘤は触知しなかったが、前頸筋、気管との癒着を認め、両側頸部リンパ節腫大が著明であったため、前頸筋も一部含めた甲状腺全摘および両側I～IX群のmodified radical neck dissectionを施行した。さらに胸骨を逆T字状に切開し上縦隔リンパ節の拡大郭清を行った。反回神経は両側とも温存することができた。また、術中上皮小体1腺を確認し、これを左前腕に移植した。切除標本（図

4)では、両側ともⅢ～Ⅶ群のリンパ節が腫大し、肉眼的には甲状腺に明らかな腫瘍を認めなかった(図5)。病理診断は乳頭癌で、腺内転移を認め、さらに郭清リンパ節40個のうち、23個に転移が認められ、上方は顎下部、下方は上縦隔リンパ節にまで転移が及んでいた。

術後経過：甲状腺および上皮小体機能低下症に対して合成甲状腺ホルモン製剤とカルシウム剤による補充療法を行った。血中サイログロブリン値は5 ng/mlと正常化した。術後5ヵ月頃より左顎下部に小豆大の腫瘍を触知するようになった。ただし、 $^{201}\text{Tl}$ シンチグラムや穿刺吸引細胞診では異常所見を認めなかった。2年11ヵ月後の精査にて、血中サイログロブリン値は正常であったが、左反回神経の喉頭入口部付近に局所再発が確認されたため、 $^{131}\text{I}$ 治療を施行し、現在経過観察中である。

症 例 2：11歳、男児。

主 訴：両側頸部リンパ節腫脹。

既往歴、家族歴：特記すべきことなし。

現病歴：昭和60年春頃、両親が両側頸部リンパ節腫脹に気づいたが放置していた。昭和61年6月、学校の健康診断で精査を勧められ、近医を受診し、甲状腺癌を疑われ当科を紹介された。

局所所見：甲状腺は左右びまん性に触れ、右葉は $4.2 \times 2.2\text{cm}$ 、左葉は $2.5 \times 1.5\text{cm}$ で、明瞭な結節を触知しなかった。両側頸部に腫大リンパ節を多数認めた(図6)。

検査所見：甲状腺機能は正常で、甲状腺自己抗体は陰性であったが、血中サイログロブリン値は $145.0\text{ng/ml}$ と高値を示した。頸部軟X線撮影では、気管の左方への偏位が認められたが、異常石灰化所見はみられなかった。 $^{123}\text{I}$ シンチグラム(図7a)では、右葉下極にcold noduleがあり、 $^{201}\text{Tl}$ シンチグラム(図7b)では同部および両側頸部に異常集積を認めた。超音波検査では、右葉下極から峡部にかけて、 $2.0 \times 2.0\text{cm}$ の悪性を疑う腫瘍陰影を認めた。CTでも同様の所見に加え、腫瘍の気管への浸潤が疑われた(図8)。

手術所見：全皮下で前頸部にT字状皮切を加え、甲状腺を露出した。腫瘍は甲状腺右葉中下極に存在し、気管と強固に癒着していた。左右ともリンパ節腫脹が著明であったため、最初に左のⅠ～Ⅸ群のmodified neck dissectionを行った。甲状腺と気管との癒着が強く、剝離が困難であったため、一旦、気管浸潤部組織の一部を気管につけたまま甲状腺を切除した。続いて

左側と同様に右側のmodified neck dissectionを行い、さらに胸骨縦切開を追加して上縦隔リンパ節を郭清した。また第2から第5気管軟骨への癌浸潤が疑われたため、気管環状切除(6気管輪)・端々吻合を行った。左右の反回神経は温存した。切除標本では甲状腺右葉に $2.5 \times 1.5 \times 1.5\text{cm}$ の腫瘍を認め、峡部および左葉にも微小な腫瘍を認めた。病理診断は乳頭癌で、腺内転移を認め、郭清リンパ節48個のうち14個に転移が認められた(図9)。しかし、病理組織では気管粘膜への癌浸潤は認められず、上縦隔リンパ節転移も認められなかった。

術後経過：合成甲状腺ホルモン製剤とカルシウム剤による補充療法を行った。血中サイログロブリン値は3 ng/mlと低下したが、気管吻合部の縫合不全が発生し、その後肉芽により度々狭窄をおこし、3年5ヵ月を経過した現在も、気管切開口より肉芽形成防止の目的でT型のtubeを留置している。しかし、局所ならびに遠隔再発は認めておらず、通常の学生生活を送っている。

### Ⅲ 考 察

小児甲状腺癌は発生頻度が低く、一般的には、甲状腺癌全体の1～2%を占めるにすぎないと言われている<sup>1)</sup>。

性比に関しては、今回のわれわれの経験例では男女それぞれ1例ずつであったが、教室の宮川<sup>1)</sup>の報告例9例を加えた小児甲状腺癌11例について検討すると、男児3例に対し、女児8例であり、男女比は1:2.7であった。一方、同時期における教室の甲状腺癌全症例の男女比は1:8であるので、成人と比較した場合、小児期では男女比が高い傾向がうかがえる。他の報告をみても1:6<sup>2)4)</sup>、4:7<sup>5)</sup>と成人に比較して小児甲状腺癌では男児の占める割合がやや高い。

放射線被曝と甲状腺癌との関連性については、DuffyとFitzgerald<sup>6)</sup>、WinshipとRosvoll<sup>7)</sup>、Hempelman<sup>8)</sup>らにより指摘されており、近年ではチェルノブイリの被爆者における甲状腺異常の発生も問題となっている<sup>9)</sup>。著者らの経験した2例については、明らかな放射線被曝の既往は認められなかった。

小児における甲状腺癌発見の契機となるのは、前頸部腫瘍あるいは頸部リンパ節腫脹であることが多い。本報告例でもリンパ節腫脹を主訴とし、初診医によりリンパ節炎と診断されている。小児期には頸部リンパ節の腫脹をみる事が多く、かつ甲状腺癌はまれであ

表1 術後再発症例

症 例	初 回 術 式	再 発 部 位	治 療
1	左葉切除+頸部郭清	右葉および顎下リンパ節右肩関節	残存甲状腺切除+両側リンパ節郭清 <sup>131</sup> I治療
2	核出術	上縦隔リンパ節	甲状腺全摘+両側および上縦隔リンパ節郭清
3 (今回の 症例1)	甲状腺全摘+両側および上縦隔リンパ節郭清	左反回神経入口部	<sup>131</sup> I治療

るので、最初から正しく癌と診断される可能性は低いことが推察される。一方、小児甲状腺癌は、成人のそれに比べて発育が速いことが知られており、自験例でも、症例1ではリンパ節腫脹に気づいてから1年ほどの間に、上縦隔リンパ節への転移が発見されている。したがって、早期の確定診断が重要であるが、小児の場合、しばしば早期診断が困難である。その理由としては、触診上、甲状腺をびまん性に触知することが多く、成人例のように明らかな腫瘤として触れることが少ない。さらに頸部軟X線撮影で、異常石灰化所見を認める症例が少ないことである。渡辺<sup>10)</sup>によると、成人甲状腺癌における石灰化像の発現率は78%であるのに対し、著者らの経験した小児では、前回の報告例も加えて5例中1例(20%)に石灰化を認めたのみである。三村ら<sup>3)</sup>も19例中4例(21%)に石灰化を認めたと報告しており、成人例に比較して小児甲状腺癌では石灰化の頻度は少ない。したがって、早期の確定診断には、超音波検査、CT検査、シンチグラフィー、穿刺吸引細胞診などを併用し、総合的に検索を進めることが重要である。さらに頸部腫瘍を主訴とする小児においては、甲状腺癌を念頭において診察し、疑いがある場合には注意して経過観察を行うべきである。

小児甲状腺癌に対する治療の主体は、手術と<sup>131</sup>Iによる内照射であるが、術式に関しては必ずしも一致した見解が得られていない。すなわち、成長期にある小児に対して、甲状腺ならびに上皮小体の機能低下や反回神経麻痺などの合併症を来すような手術は避け、保存的手術を勧める報告<sup>11)-13)</sup>がある。他方、小児の場合は、腫瘍が両側に存在したり、腺内転移やリンパ節転移が高頻度に認められるため、甲状腺全摘および頸部郭清を行うべきであると主張する報告<sup>4)14)15)</sup>もある。一般には、成人の甲状腺癌に準じて術式が選択されていることが多いと思われる。すなわち、癌が一側腺葉内にとどまっている場合は、峡部を含めた患側の葉切

除と温存的郭清術を行い、癌が両葉におよぶ場合は、甲状腺全摘と両側温存的郭清術を施行している施設がほとんどである。

すでに述べたごとく、小児甲状腺癌は明らかな腫瘤を形成しない、びまん性発育を示す傾向が強く、しばしば腺内転移を認め、早期からリンパ節転移を来すなど、成人例に比較してより悪性の病像を示す。

しかしながら、術後の遠隔調査では、治療成績は意外に良好で、再発はみられるが死亡例は少ないとする報告<sup>11)16)</sup>が多い。著者らの経験例でも、前回の9例に今回の2例を加えた11例についてみると、術後3年から25年の間に、3例に再発を認めているが、現在までのところ死亡例はない。一般に再発形式は、残存甲状腺再発やリンパ節転移などの局所再発と肺転移の報告<sup>4)7)13)17)</sup>が多い。これは初回手術の際、成人の場合と同様の術式が選択されることが多いため、甲状腺切除範囲や郭清範囲が不十分となり、癌を取り残している可能性が大きいことが考えられる。教室で現在までに経験した再発例3例の初回術式と再発形式は、表1に示すごとくであるが、特に前2症例に関しては初回術式が不十分であったと反省している。第3例(症例1)は反回神経の温存を目的とし、入口部付近の甲状腺組織を一部残したための再発であると考えられる。

以上、述べた種々の問題点を考慮して、小児甲状腺癌の手術について考察すると、小児に対しては成人とは異なった態度で手術に臨むべきであると考ええる。すなわち、癌の発育速度、転移形式、さらに残された長い人生等々を考えあわせると、できるだけ機能温存を考慮した上で、予防的な意味も含め、多少過大となるが十分な手術を行うことが望ましい。具体的には、

① 腫瘍が一側腺葉内にとどまっているか、両側におよんでいるかの如何にかかわらず、甲状腺は全摘する。

② リンパ節腫脹が認められない場合は、両側のI

～Ⅶ群の modified neck dissection にとどめる。

③ 明らかに転移と思われる腫脹リンパ節が認められる場合は、両側のⅠ～Ⅹ群の modified neck dissection を行うとともに、必要に応じて縦隔リンパ節の郭清を追加する。

④ 頸部諸器官(反回神経、気管、動静脈、胸鎖乳突筋など)は可及的温存を心がけるが、腫瘍の浸潤が疑われる場合は、根治性を優先して合併切除もやむを得ない。

上記の基本方針は、今回われわれが経験したような進行例に対するものであって、早期の小児甲状腺癌ではこの限りではない。また、進行癌ですでに遠隔転移が明らかな場合には、甲状腺全摘とⅠ～Ⅶ群の modified neck dissection を行った上で<sup>131</sup>I 治療を行う。頸部諸器官は温存するべきであろう。

今回の自験例は、2例とも初診時にすでにかかなり進行した癌であり、手術のみでの根治は難しいと思われたため、術後に<sup>131</sup>I 治療を行う予定で手術術式を選択した。<sup>131</sup>I 治療を行ったのは第1例のみである。しかし、結果的に症例1では左反回神経を温存したために、2年後、わずかに残存した甲状腺組織から反回神経入口部に再発を認めた。症例2では気管浸潤が疑われたため、6気管輪を合併切除し、端々吻合を行い、3年を経過した現在、再発は認めていないが気管吻合部の狭窄が発生し、これに対し数回の気管形成を施行するも良好な結果は得られていない。とはいえ、前者では

反回神経を合併切除しても再発する可能性は高く、また後者では気管を温存できたか否かは疑問である。このように、今回の2症例についてみても術式の選択上問題が多く、今後さらに症例を重ねて検討するとともに、この2例を含めて長期的な経過観察が必要である。

小児甲状腺癌の手術成績について、武田ら<sup>15)</sup>は、本邦報告例138例のうち、死亡例は11例で、ほとんどの死因は気道狭窄か肺転移であったと述べている。一方、肺転移がありながらも長期間生存しているという報告例もあり<sup>16)</sup>、症例によっては担癌状態でも、<sup>131</sup>I 治療を継続することにより長期生存が期待できるものも含まれている。

小児甲状腺癌の予後をさらに向上させるためには、より早期の診断ならびに適切にしてかつ十分な治療が重要であると思われる。

#### Ⅳ ま と め

最近経験した小児甲状腺癌の2例について報告した。触診上、成人に比べて悪性を疑わせる所見に乏しいため、頸部腫瘍を主訴とする小児を診察する場合には、他疾患とともに甲状腺癌も念頭において検査を進めることが大切である。また、腫瘍の増殖が速く、短期間で腺内転移やリンパ節転移、さらに隣接臓器への浸潤を来す場合が多いので、手術術式の選択には特別の配慮が必要である。最近経験した小児甲状腺癌の2例を報告し、われわれの基本的手術方針について述べた。

#### 文 献

- 1) 宮川 信：小児甲状腺癌の臨床像と治療。小児外科，17：719-725，1985
- 2) 甲状腺外科検討会編：外科・病理 甲状腺癌取扱い規約（第3版）。金原出版，東京，1988
- 3) 三村 孝，森 秀樹，浜田 昇，西川義彦，伊藤國彦：小児甲状腺癌22例の検討。小児外科，11：1571-1577，1980
- 4) 内野純一，今村文元，西田 修，池田正知，高橋武直，神坂幸次，菊地浩吉，葛西洋一：小児期甲状腺癌。外科診療，17：1453-1463，1976
- 5) Kodama, T., Fujimoto, Y., Obara, T. and Hidai, K.: Justification of conservative surgical treatment of childhood thyroid cancer: Report of eleven cases and analysis of Japanese literature. Jpn J Cancer Res (Gann), 77: 799-807, 1986
- 6) Duffy, B. J., Jr. and Fitzgerald, P. J.: Cancer of the thyroid in children. J Clin Endocrinol Metab, 10: 1296-1308, 1950
- 7) Winship, T. and Rosvoll, R. V.: Childhood thyroid carcinoma. Cancer, 14: 734-743, 1961
- 8) Hempelman, L. H.: Neoplasms in persons treated with X-rays in infancy. Fourth surgery in 20 years. J Natl Cancer Inst, 55: 519-530, 1975
- 9) 広瀬 隆：危険な話・チェルノブイリと日本の運命。第一版，pp. 52-66，八月書館，東京，1987
- 10) 渡辺豊昭：甲状腺腫瘍の石灰化像に関するX線学的研究。信州医誌，24：435-451，1976



- 11) De Keyser, L. F. and van Herle, A. J.: Differentiated thyroid cancer in children. Head Neck Surg, 8:100, 1985
- 12) 松田 淳, 加藤哲夫, 蛇口達造, 村越孝次, 小山研二, 桜庭 清: 小児甲状腺癌の治療経験. 外科, 48: 752-755, 1986
- 13) 土屋敦雄, 鈴木眞一, 鈴木正人, 野水 整, 六角裕一, 阿部力哉: 小児期(20歳以下)甲状腺癌の検討—術後長期追跡の成績—. 外科, 50: 797-800, 1988
- 14) Schlumberger, M., De Vathaire, F., Travagli, J. P., Vassal, G., Lemerle, J., Parmentier, C. and Tubiana, M.: Differentiated thyroid carcinoma in childhood: Long term follow-up of 72 patients. J Clin Endocrinol Metab, 65:1088, 1987
- 15) 武田 裕, 高屋 潔, 佐々木崇, 井口淳子, 八重柏都, 森 洋子, 里見 進, 田口喜雄, 森 昌造: 小児甲状腺癌7例の検討—成人例との比較—. 臨床外科, 44: 1219-1222, 1989
- 16) 内分泌外科クリニカルカンファランス. 小児甲状腺癌—診断と治療をめぐって. 内分泌外科, 6: 20-38, 1989
- 17) 高野邦夫, 鈴木伸男, 斉藤 博, 石橋 清, 星永 進, 近藤公男, 深瀬真之: 母と子に発生した甲状腺癌症例—小児甲状腺癌本邦82報告例の検討—. 日小外会誌, 21: 686-694, 1985

(2. 9. 18 受稿)