

# AMCoR

Asahikawa Medical University Repository <http://amcor.asahikawa-med.ac.jp/>

日本呼吸器外科学会雑誌 (2003.05) 17巻4号:515～518.

特異な形態を呈した肺内気管支性嚢胞の1例

齊藤幸裕, 八柳英治, 山崎弘資, 杉本泰一, 小沢恵介, 笹  
嶋唯博

## 症 例

## 特異な形態を呈した肺内気管支性嚢胞の1例

齊藤 幸裕, 八柳 英治, 山崎 弘資, 杉本 泰一  
小沢 恵介, 笹嶋 唯博

## 要 旨

我々は特異な形態, 内容物を有する肺内気管支性嚢胞の1手術例を経験したので報告する。症例は55歳, 男性。CT上右S7末梢にダンベル状の腫瘤像を認め, BFではB7が膜様に閉塞していた。画像上肺内気管支性嚢胞が疑われたが, 確定診断に至らず, 充実性腫瘍も否定できなかった為, 診断および治療目的にて手術を行った。手術は腫瘤が肺底区気管支と近接しており, 腫瘤切除術およびS3区域切除術はともに困難と判断し, 右肺底区区域切除術を施行した。腫瘤は被膜を有し, 内部にはチーズ様の内容物が充満しており, 病理組織学的にBronchogenic cystと診断された。

索引用語: 肺内気管支性嚢胞, 肺底区区域切除術  
intrapulmonary bronchogenic cyst, basal segmentectomy

## はじめに

気管支性嚢胞は縦隔内に発生することが多い疾患であるが, 肺内に腫瘤を形成することは稀とされている。

今回, 我々は右肺S7末梢に発生した, 特異な形態, 内容物を有した肺内気管支性嚢胞を経験したので, 若干の文献的考察を加え報告する。

## 症 例

患 者: 55歳, 男性。

主 訴: 胸部異常陰影。

現病歴: 1994年の検診にて胸部単純X線写真上, 右下肺野の異常陰影を指摘され近医を受診したが, 特に症状なく経過観察となった。1998年再度同部位の腫瘤像を指摘され, 当院内科を紹介され精査を施行するも, 確定診断に至らず, 手術による診断および治療目的にて1999年10月, 当科入院となった。

既往歴: 1991年より糖尿病, 高尿酸血症にて食餌療法, 1996年より胆石症にて経過観察中であった。

家族歴: 特記すべき事項なし。

入院時現症: 身長167cm, 体重74kg, 血圧126/92mmHg。理学所見上, 特に異常を認めない。

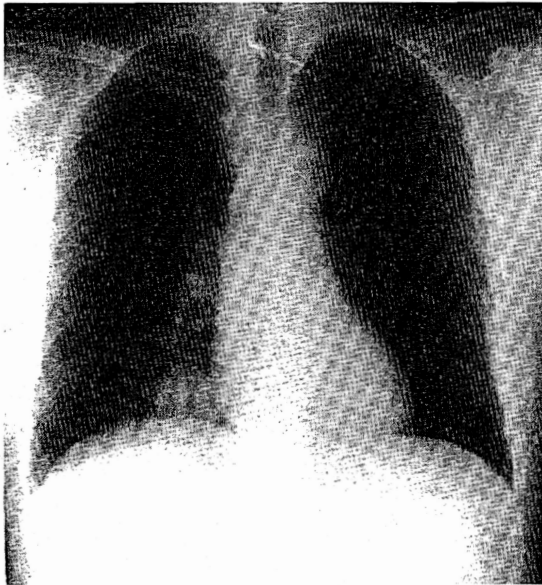
入院時検査所見: 血液一般検査, 生化学検査に異常はなく, 腫瘍マーカーも正常値であった。

胸部X線所見: 正面像において右下肺野縦隔側に45mmの境界明瞭な円形の腫瘤像を認め, その内部にさらに38mmの濃度の異なる部分を認めた (Fig. 1)。

胸部CT所見: 右肺S7に60×40mmのダンベル状を呈する内部均一な, 充実性の腫瘤像を認め, enhance CTでは辺縁のみ造影された (Fig. 2a)。また, 3D構築したところB7が閉塞している像が描出されたが (Fig. 2b), 気管支鏡でも同様の所見が認められた (Fig. 3)。

胸部MRI所見: T1強調像でhigh Intensity (Fig. 4a), T2強調像でIso Intensity (Fig. 4b)であり内部はほぼ均一であった。MRI上は脂肪組織に近いIntensityを示しており, 液体や腫瘍とは異なったパターンであった。形態はやはりダンベル状であった。

CT上辺縁のみ造影される被膜を有し, 気管支が膜様に閉塞していることと周辺組織への浸潤像が認められないことより気管支性嚢胞が最も疑われたが, MRI上内容が固形物であると予想されたため充実性腫瘍も否定できず, 手術を施行した。



**Fig. 1** Chest X-ray film showing a mass in the right lower lung field.

**手術所見：**右側方切開，muscle sparing，第5肋間にて開胸した。胸腔内を検索したところ下葉縦隔側に50mm大の弾性軟の腫瘤を触知した。その他には異常は認めなかった。腫瘤は肺深部に存在し肺底区域気管支と近接し，これとの切離は困難であると考えられたことから，腫瘤の核出あるいはS<sup>7</sup>区域切除はあきらめ，肺底区区域切除術を施行した。また胆石症に対し，同時に腹腔鏡下胆嚢摘出術を併施した。

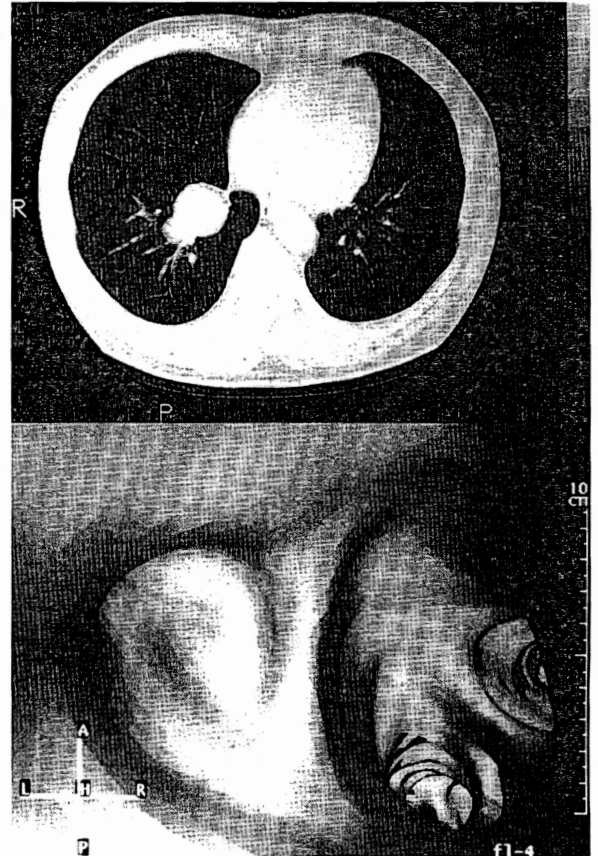
**摘出標本所見：**腫瘤は術前画像所見どおり60×40mmでダンベル状を呈し，チーズ様の内容物を有していた (Fig. 5)。

**病理組織所見：**腫瘤の内面は線維性結合織と多列絨毛上皮にて構成されており，気管支原性嚢胞と診断された。また内容物は粘液と変性細胞塊が充満したものであった (Fig. 6)。

**術後経過：**術後経過は良好で，術後23日目に退院となった。

## 考 察

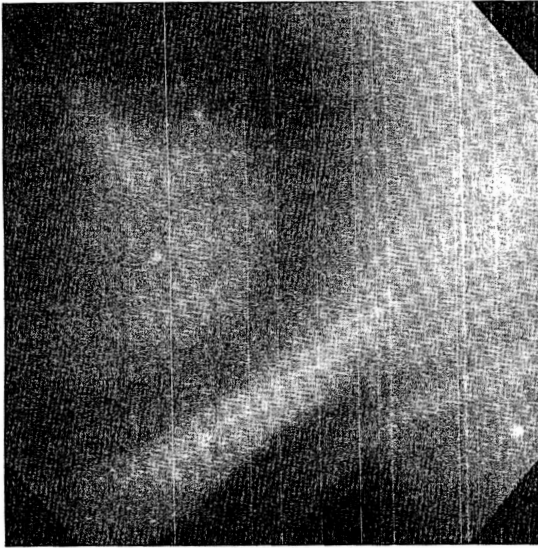
気管支性嚢胞は65%が縦隔に発生し，肺内に発生するものは8%と報告されている<sup>1)</sup>。その症状は乳幼児に発症したものほど強く，呼吸困難を起し，緊急手術を要する場合もある。しかし，成人に発症した場合は一般に症状は軽く，胸痛，咳嗽，発熱が主症状とな



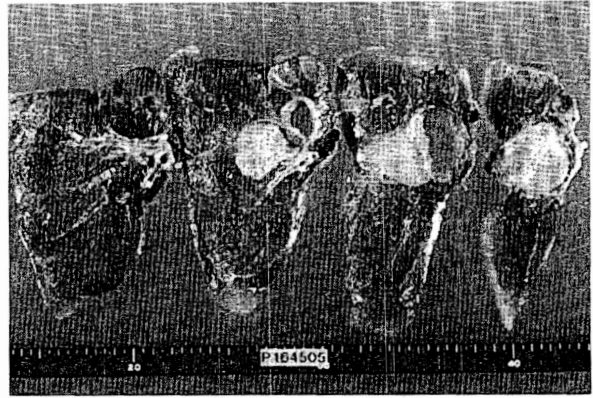
**Fig. 2a:** Chest CT showing a dumbbell-shaped mass in the right S<sup>7</sup> region.

**b:** Chest 3D CT showing an obstructed B<sup>7</sup> region.

る。肺内に発生した気管支性嚢胞は初め孤立性であるが，その3/4に感染をくり返し，気道との交通が発生するとされ<sup>2)</sup>，成人においてはこの過程で症状が出るものと考えられている。肺嚢胞症の分類は諸家により様々なものが提唱されているが<sup>3-5)</sup>，大畑ら<sup>6)</sup>は肺嚢胞症を肺原基異常による肺嚢胞と気腫性肺嚢胞に大別し，気管支原性肺嚢胞は前者に含まれている。気管支原性肺嚢胞はその構成上皮によって気管支上皮性嚢胞と細気管支・肺胞上皮性嚢胞に分けられ，この分類上，本症例は気管支原性肺嚢胞の気管支上皮性嚢胞にあたる。さらに気管支原性肺嚢胞は臨床症状により5型に分類されており，本症例はV型に相当する。この分類ではII型，III型が多数であり，V型の報告は今回検索し得た限り比較的稀であり特に本症例のように特異な形態，内容物を有した報告はそれぞれ1例のみであった<sup>7,8)</sup>。本症例がこのような形態，内容物を有するま



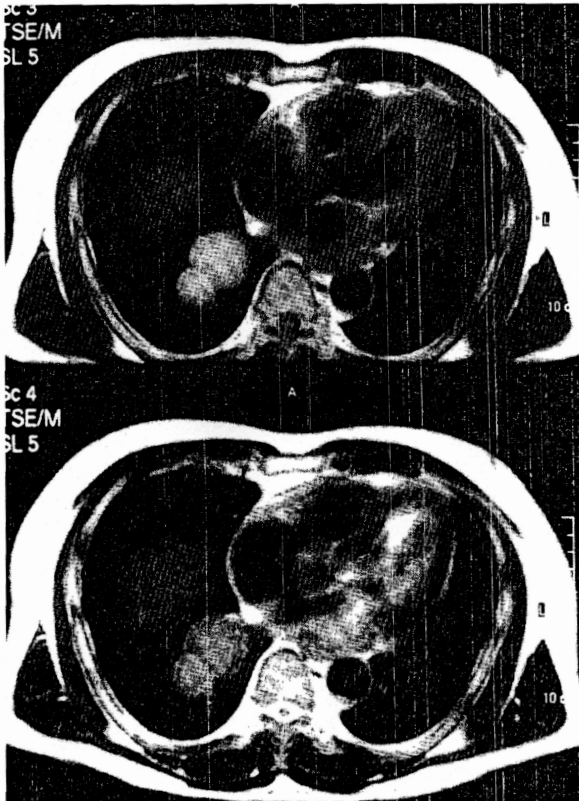
**Fig. 3** Bronchofiberscopy shows an obstructed B<sup>7</sup> region.



**Fig. 5** Horizontal cut surface of the resected specimen.

撮影された画像所見はほぼ一致しており、この約5年間に大きな変化は認めていない。気管支性嚢胞については出生後のいわゆる postnatal lung development の障害によっても起こることが明らかにされており<sup>9)</sup>、すべて先天性異常とはいえないが、幼少期より存在していたことは間違いないように思われる。これが長期間かけ、内腔の細胞の脱落を繰り返し増大したものであると思われる。本症例は気管支との交通がなく完全に孤立性であったため、感染を起こすことなく内腔の細胞塊がチーズ様の変性細胞塊となり、また増大過程において周辺気管支により取り囲まれていたため、増大方向として末梢側へ進展しこのような形態を呈したと推測される。嚢胞液中のアミラーゼや CA19-9 が高値を示したとされる報告<sup>2,10)</sup>を認めるが、本症例においては明らかな嚢胞液は認めず、変性細胞塊の周辺に粘液が付着する程度であった。このこともまた孤立性病変として長時間存在するに至った理由の一つと考えられる。

肺内気管支性嚢胞の治療法は発見次第、外科的に切除するのが一般的である<sup>2,6)</sup>。術式は、本疾患が良性疾患である以上、可能な限り機能温存を優先した術式が選択されるべきであると考えられる。しかしながら実際に選択された術式の内訳をみると、大畑ら<sup>6)</sup>の報告では肺葉切除術69.2%、肺区域切除術15.4%、肺部分切除術15.4%であり、また St-Georges ら<sup>11)</sup>の報告では肺葉切除術65.0%、肺部分切除術30.0%、片肺全摘術5.0%とされており、決して低侵襲な術式が選択されているとはいえない。この理由としては、術前の確定診断が困難であること、多発病変の場合があること、病態によっては炎症所見が強く、緊急手術を要するこ



**Fig. 4a:** T1-weighted MRI image showing a dumbbell-shaped mass with high signal intensity.

**b:** T2-weighted MRI image showing iso-intensity signal.

どとなった過程は相当長期間を要したものであると考えられる。1994年に撮影された画像所見と今回の手術直前に

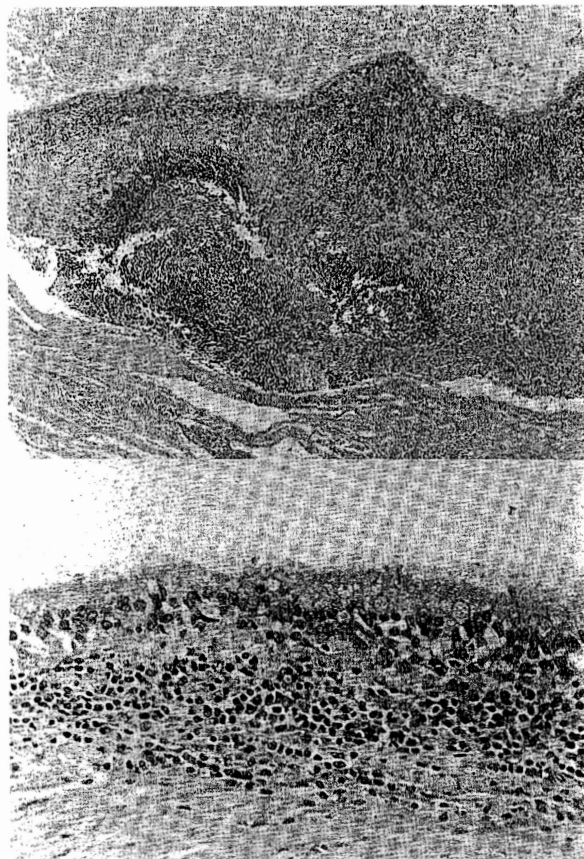


Fig. 6 Microscopic findings (H-E stain).

と等が考えられる。

本例においては、腫瘍が比較的大きく深部に存在し術中迅速病理検査が困難であったこと、さらに術前確定診断が得られなかったことから術後周囲肺構造物との関係を系統的に評価する必要性が生じる可能性を否定できず、腫瘍のみの切除ではなく系統的切除を行う方

針とした。ただし、悪性の可能性はそれほど高いとは考えられず下葉切除は選択せず、また腫瘍が肺底区域気管支と近接していたことからS<sup>7</sup>の区域切除も困難と判断し、肺底区の区域切除術を選択した。

以上、特異な形態、内容物を有する肺内気管支性嚢胞を経験したので報告した。

#### 文 献

- 1) F Griffith Pearson, MD: THORACIC SURGERY, 416-419, Churchill Livingstone, New York, 1995.
- 2) 正岡 昭: 呼吸器外科(第2版)238-239, 南山堂, 東京, 1997.
- 3) Hinshaw HC & Garland LH: Disease of chest. Saunders Comp, 1966.
- 4) Clagett OT: Surgical treatment of emphysematous blebs and bulla. Dis. chest, **16**: 669-683, 1949.
- 5) 熊谷 直: 肺嚢胞症について. 東北医誌, **63**: 247-268, 1961.
- 6) 大畑正昭, 飯田 守, 大森一光, 他: 肺・縦隔気管支原性嚢胞の病態と組織学的検討一 II. 肺内気管支原性嚢胞について一. 日胸 **41**: 809-821, 1987.
- 7) 稲葉浩久, 太田伸一郎, 西村俊彦, 他: 固形内容物を有したため充実性腫瘍と術前診断された肺内気管支嚢胞の一切除例. 日呼外会誌 **12**: 177-181, 1998.
- 8) 末永光邦, 松本英彦, 坂元史典, 他: 特異な形態を呈した後縦隔気管支原性嚢腫の1例. 日呼外会誌 **13**: 862-867, 1999.
- 9) Mayer E, Rappaport I: Developmental origin of cystic bronchiectatic and emphysematous change in the lung. Dis. chest, **21**: 146-160, 1962.
- 10) Okubo A, Sone S, Oguchi F: A Case of Bronchogenic Cyst With High Production of Antigen CA19-9. Cancer **63**: 1994-1997, 1989.
- 11) St-Georges R, Deslauries J, Duranceau A, et al: Clinical spectrum of Bronchogenic cysts of the mediastinum and lung In the adult. Ann Thorac Surg **52**: 6-13, 1991.

### A dumbbell-shaped intrapulmonary bronchogenic cyst

Yukihiro Saito, Eiji Yatuyanagi, Kousuke Yamazaki, Hirokatu Sugimoto  
Keisuke Ozawa, Tadahiro Sasajima

First Department of Surgery, Asahikawa Medical College

A 55-year-old man was admitted to our hospital with an abnormal shadow on chest X-ray film. He had no subjective symptoms. Chest CT revealed a dumbbell-shaped mass in the right S<sup>7</sup> region. We performed basal segmental resection. Histopathological examination showed a bronchogenic cyst. The postoperative course was uneventful.