

●症 例

Finger-in-glove sign を呈した孤立性気管支乳頭腫の1例

鎌崎恵里子^a 関谷 充晃^a 児玉 裕三^a
鈴木 健司^b 植草 利公^c 高橋 和久^a

要旨：症例は63歳，男性。2012年9月の健診で右肺門部腫瘍を指摘された。胸部CTで右S³に2cm大の結節とその末梢に分枝状のfinger-in-glove signを認めた。気管支鏡で右B³入口部を閉塞する腫瘍を認め，右上葉切除の結果，孤立性腺上皮型乳頭腫と診断した。孤立性気管支乳頭腫はまれな疾患であるが，finger-in-glove signを呈する鑑別疾患として考慮すべきである。

キーワード：気管支乳頭腫，粘液栓

Bronchial papilloma, Mucoïd impaction

緒 言

粘液栓は，中枢気道の閉塞により，末梢の拡張気管支に粘液が充満した所見をさす。そのCT所見は，指を入れた手袋を思わせる形状からfinger-in-glove signと呼ばれる¹⁾。一方，孤立性気管支乳頭腫はまれな疾患であるが，中枢気道に発生し，粘液栓をきたしうるとされている。今回我々はfinger-in-glove signを呈した孤立性気管支乳頭腫の1例を経験したため，文献的考察を加え報告する。

症 例

患者：63歳，男性。

主訴：自覚症状なし。

既往歴：27歳 肺結核，56歳 高血圧。

家族歴：父 気管支喘息。

生活歴：喫煙歴なし。

現病歴：2012年9月下旬の健診で右肺門部の腫瘍影を疑われ，近医を受診した。胸部CTで右S³の中枢に約2cmの結節と末梢に分枝状陰影を認めた。肺癌とそれに伴う閉塞性肺炎が疑われ，同年10月下旬に当科を紹介された。

初診時現症：身長166cm，体重71.5kg，血圧131/78mmHg，脈拍76回/min・整，SpO₂96%（室内気）。貧血・黄疸なし。心雑音・肺副雑音なし。両下肢浮腫なし。表在リンパ節を触知せず。

検査成績（表1）：CRPの軽度上昇を認める以外に，腫瘍マーカー，β-D-グルカンなど血清学的検査に異常は認めなかった。

画像所見：胸部X線写真（図1a）では，右肺門部の腫脹を認めた。胸部CT（図1b）では，右B³入口部に2cm大の結節と，その末梢に粘液栓を思わせる分枝状の陰影を認めた。

気管支鏡所見（図2）：右B³入口部を閉塞する表面粗の結節状の腫瘍を認め，生検の結果，腺上皮型気管支乳頭腫と診断した。

気管支鏡所見，画像所見から孤立性気管支乳頭腫と考え，翌年3月上旬に右肺上葉切除を施行した。手術検体の肉眼所見では，右B³入口部の22mm大の境界明瞭な白色結節性病変と拡張した末梢気道内に粘液の充満を認めた（図3）。弱拡大像では，腫瘍は乳頭状の発育を呈し（図4a），強拡大像では，腫瘍は線維血管性の軸を有し，細胞異型の乏しい1層の円柱上皮で覆われていた（図4b）。以上より，腺上皮型乳頭腫と診断した。術後30ヶ月が経過するが再発なく経過良好である。

考 察

多発性乳頭腫は，小児や若年者に多くみられ，ヒトパピローマウイルスとの関連が深く，上気道から下気道に発生する。一方，孤立性乳頭腫は成人の中枢気管支・気管に好発するまれな疾患である。

我が国の孤立性気管支乳頭腫54例の特徴をまとめる

連絡先：関谷 充晃

〒113-8421 東京都文京区本郷2-1-1

^a順天堂大学医学部呼吸器内科

^b同 呼吸器外科

^c関東労災病院病理診断科

(E-mail: msekiya@juntendo.ac.jp)

(Received 28 Oct 2015/ Accepted 1 Feb 2016)

表1 検査所見

Hematology		Serology	
WBC	3,800/ μ l	CRP	0 mg/dl
Neut	45.5%	<i>Aspergillus</i> antigen	0.1
Lym	48.0%	IgE	365 IU/ml
Eos	0.8%	Specific IgE antibody	
Hb	14.0 g/dl	<i>Aspergillus</i>	class 0
Plt	17.2×10^4 / μ l	<i>Mucor</i>	class 0
ESR	4 mm/h	<i>Candida</i>	class 0
		<i>Alternaria</i>	class 0
Chemistry		β -D-glucan	<5.0 pg/ml
AST	34 IU/L	CEA	2.7 ng/ml
ALT	33 IU/L	CYFRA	1.4 ng/ml
LDH	202 IU/L	ProGRP	58.2 pg/ml
TP	6.9 g/dl		
BUN	14 mg/dl		
Cr	0.76 mg/dl		
Na	142 mEq/L		
K	4.2 mEq/L		
Cl	104 mEq/L		



図1 (a) 胸部X線写真. 右肺門部腫脹を認める. (b) 胸部CT. 右B³入口部に2 cm 大の結節と、その末梢に粘液栓を思わせる分枝状の陰影を認める.

と(表2), 幅広い年齢層に発症し, 男性の喫煙者が多かった. 38例(74.5%)が自覚症状を有し, 咳嗽25例(65.8%), 血痰13例(34.2%)が多かった. 組織型を確認しえた44例中, 扁平上皮型が21例(47.7%), 腺上皮型が10例(22.7%), 混合型が13例(29.5%)と扁平上皮型が最多であった. 本症例は非喫煙者で, 自覚症状もなく, 気管支乳頭腫としては非典型的であり, 当初は乳頭腫を疑わなかった.

治療としては49例中32例(65.3%)で外科切除, 14例(28.6%)で内視鏡的治療が施行された. 中枢気管支に局限した乳頭腫では, YAGレーザー²³⁾や高周波スネア⁴⁾⁵⁾などの局所治療の有効性を示す報告もあり, 本症例に対し上葉切除が妥当だったか議論のあるところである

う. Kajiwaraらは良性気管支腫瘍について, 悪性が否定できない, 器質化肺炎や腫瘍の末梢側の著明な気管支拡張, 3軟骨輪以上にわたる腫瘍浸潤, 気管壁を越えた浸潤がある場合は, 内視鏡的治療でなく, 外科切除を考慮するとしている. さらに, 閉塞部位より末梢側の状態が確認できない場合や気管支穿孔によって致死的な出血をきたす可能性がある場合も, 内視鏡的治療は適応にならないとしている⁶⁾. 本症例も, 閉塞部より末梢の気管支は観察困難で, かつ気管支拡張を伴う粘液栓が存在し, 内視鏡的治療には慎重な判断が必要と考えられた.

乳頭腫細胞の末梢気管支への腔内播種⁷⁾や乳頭腫の末梢側への連続性の進展⁸⁾以外に, 末梢側での扁平上皮癌⁹⁾¹⁰⁾や上皮内癌の合併¹¹⁾の報告もある. 気管支乳頭腫と

肺癌の合併には喫煙の影響も考えられるが、直接的な因果関係は明らかでない。肺癌合併や癌化は9例^{9)~15)}(16.7%)にみられ、詳細不明な1例を除きすべて扁平上皮癌であった。6例は乳頭腫とは異なる部位での肺癌合併であったが、残り3例^{9)~11)}は扁平上皮型乳頭腫に接する、もしくは乳頭腫内の扁平上皮癌であり、乳頭腫が癌化した可能性は否定できなかった。これら乳頭腫の組織型は、不明の2例を除くと、扁平上皮型5例、混合型2例で腺上皮型での肺癌合併はみられなかった。本症例の術前診断は気管支鏡での生検検体によるため、その時点では混合型乳頭腫の可能性は完全には否定できなかった。以上のように、本症例のような特徴を有する気管支腫瘍に対しては、十分な説明のうえで、外科的切除も考慮してよいと考えられる。

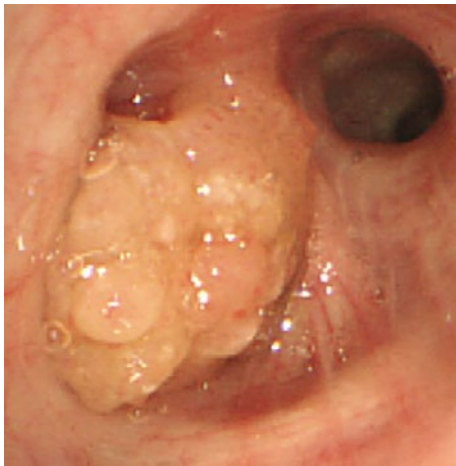


図2 気管支鏡. 右B³入口部を閉塞する表面粗の結節状の腫瘍を認める.

乳頭腫の多くが中枢気管支発生であるためと考えられるが、胸部X線写真は49例中16例で正常であった。胸部CT所見が確認できた14例では、腫瘍6例、結節6例、乳頭腫自体は不明瞭で無気肺や容積減少を認めたものが2例であった。また、3例で腫瘍や結節の末梢に無気肺や浸潤影を認めたが、finger-in-glove signを示した症例はなかった(表2)。

Finger-in-glove signは、gloved finger signとも呼ばれ

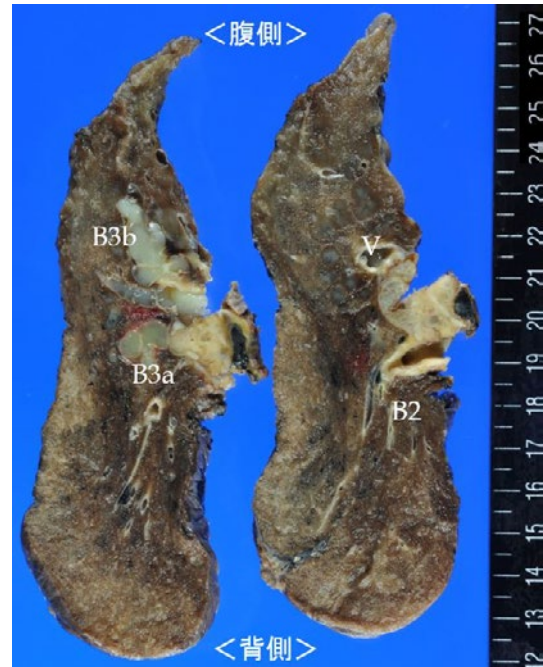


図3 肉眼所見. 右B³内腔に22 mm大の境界明瞭な白色結節性病変を認め、拡張した末梢気道内には粘液が充満している.

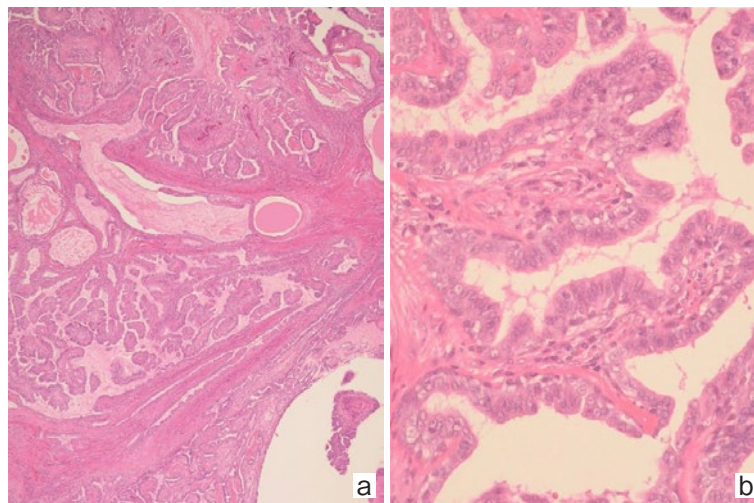


図4 (a) 弱拡大像. 腫瘍は乳頭状の発育を呈している. (b) 強拡大像. 線維血管性の軸を有し、細胞異型の乏しい1層の円柱上皮で覆われている.

表2 気管支乳頭腫54症例の臨床的特徴

Age (median [range])	62 [19~85] years		Chest X-ray	Normal	16 (32.7%)	
Gender	Male	37 (68.5%)		Abnormal	33 (67.3%)	
	Female	17 (31.5%)		NA	5	
Smoking	+	25 (69.4%)		Chest CT	+	
	-	11 (30.6%)		Nodule	5 (35.7%)	
	NA	18		Mass	4 (28.6%)	
Symptoms	+			Mass + atelectasis	1 (7.1%)	
		Cough	25 (65.8%)	Mass + infiltration	1 (7.1%)	
		Hemoptum	13 (34.2%)	Nodule + atelectasis	1 (7.1%)	
		Sputum	7 (18.4%)	Atelectasis	1 (7.1%)	
		Fever	4 (10.5%)	Volume loss + infiltration	1 (7.1%)	
		Wheeze	3 (7.9%)	NA	40	
		Dyspnea of exertion	2 (5.3%)	Histological type	Squamous	21 (47.7%)
		Hemoptysis	1 (2.6%)		Glandular	10 (22.7%)
		-	13		Mixed	13 (29.5%)
NA	3		NA	10		
Side	Right	23 (44.2%)	Complication of lung cancer	+	9 (16.7%)	
	Left	24 (46.2%)		-	45 (83.3%)	
	Trachea	5 (9.6%)	Treatment	Surgical resection	32 (65.3%)	
	NA	2		Endoscopic resection	14 (28.6%)	
Location	Central	48 (92.3%)		No therapy	3 (6.1%)	
	Peripheral	4 (7.7%)		NA	5	
	NA	2				

NA : not available.

る管状、分枝状陰影で、粘液が充満した拡張気管支を示唆する¹⁶⁾。先天性疾患(気管支閉鎖症や嚢胞性線維症)や感染性・炎症性疾患(アレルギー性気管支肺真菌症や異物誤嚥など)、腫瘍が原因となる。特に良性腫瘍では過誤腫、脂肪腫以外に乳頭腫が鑑別疾患の一つとされる¹⁾。しかし、既報告例では、finger-in-glove signを呈した症例はなく、乳頭腫自体もまれな疾患であるため、本症例はきわめてまれな症例と考えられる。

Finger-in-glove signを呈した孤立性気管支乳頭腫の1例を経験した。本所見をみた場合、気管支乳頭腫は鑑別すべき疾患の一つとして考慮すべきと考えられた。

著者のCOI (conflicts of interest) 開示：本論文発表内容に関して特に申告なし。

引用文献

- Martinez S, et al. Mucoid impactions: finger-in-glove sign and other CT and radiographic features. *Radiographics* 2008; 28: 1369-82.
- 畝川芳彦, 他. 内視鏡的Nd-YAGレーザー治療が奏効した孤立性気管支乳頭腫の1例. *気管支学* 1989; 11: 571-5.
- 細川 剛, 他. 内視鏡的Nd-YAGレーザーで焼灼し

得た孤立性気管支乳頭腫の1例. *日胸臨* 2000; 59: 304-7.

- 高桑 修, 他. 高周波スネアと高周波凝固子を用いて内視鏡的に切除した孤立性気管支乳頭腫の1例. *気管支学* 2004; 26: 621-4.
- 富地信和, 他. 内視鏡的治療により切除された孤立性気管支乳頭腫(扁平上皮腺上皮混合型)の1例. *肺癌* 2011; 51: 803-8.
- Kajiwara N, et al. Interventional management for benign airway tumors in relation to location, size, character and morphology. *J Thorac Dis* 2011; 3: 221-30.
- 四方裕夫, 他. 末梢粘液中に乳頭腫細胞塊の移植をみとめた孤立性気管支乳頭腫の1例. *日呼外会誌* 2002; 16: 724-8.
- 藤田 敦, 他. 気管支腺扁平上皮混合型乳頭腫の1切除例. *気管支学* 2001; 23: 464-7.
- Inoue Y, et al. A solitary bronchial papilloma with meralignant changes. *Intern Med* 2001; 24: 56-60.
- 富野晴彦, 他. 孤立性気管支乳頭腫を合併した肺癌の1例. *日胸疾患会誌* 1985; 34: 292-6.
- 笠松紀雄, 他. 上皮内癌を伴った孤立性気管支乳頭腫の1例. *肺癌* 1986; 26: 445-51.
- 桂 幸一, 他. 黒色表皮腫 (Acanthosis Nigricans) と孤立性気管支乳頭腫が認められた肺扁平上皮癌の

- 1 例. 日胸疾患会誌 1992; 30: 1991-5.
- 13) 矢野 守, 他. 孤立性気管支乳頭腫と肺癌合併の 1 例. 日胸疾患会誌 1988; 26: 1021.
- 14) 平沢路生, 他. 気道の三重癌を合併した孤立性気管支乳頭腫の 1 例. 肺癌 1991; 31: 403-8.
- 15) 二井谷研二, 他. 同時性多発肺癌に孤立性気管支乳頭腫を伴い術後喉頭癌を合併した 1 例. 気管支学 1995; 17: 40-5.
- 16) Oktay A, et al. Signs in chest imaging. Diagn Interv Radiol 2011; 17: 18-29.

Abstract

A case of solitary bronchial papilloma showing finger-in-glove sign

Eriko Kuwasaki^a, Mitsuaki Sekiya^a, Yuzo Kodama^a, Kenji Suzuki^b,
Toshimasa Uekusa^c and Kazuhisa Takahashi^a

^aDepartment of Respiratory Medicine, Internal Medicine, Faculty of Medicine, Juntendo University

^bDepartment of General Thoracic Surgery, Faculty of Medicine, Juntendo University

^cDepartment of Diagnostic Pathology, Kanto-Rosai Hospital

The patient was a 63-year-old man referred to our hospital because of a right hilar mass lesion on chest radiograph in September 2012. Thoracic CT showed a nodular lesion at right S³ and a peripheral branching shadow, which was suspected of being a mucoid impaction (so-called finger-in-glove sign). Bronchoscopic findings revealed a polypoid tumor at the orifice of a right B³. We diagnosed as bronchial papilloma with transbronchial biopsy, and a right upper lobectomy was performed. A definitive diagnosis of a solitary bronchial columnar papilloma was made with a detailed histological examination. Although a solitary bronchial papilloma is very rare, it is necessary to consider this disease as one of differential diagnoses showing finger-in-glove sign.