

●画像診断

下気道感染の合併により増大し、肺野に多彩な陰影を伴った 気管支原性嚢胞の1例

角谷 拓哉^a 横村 光司^a 後藤 彩乃^a
小谷内敬史^a 丹羽 宏^b 須田 隆文^c

要旨：症例は64歳、女性。胸痛と乾性咳嗽を主訴に受診した。胸部画像検査では気管分岐下に65mm大の嚢胞性病変を認め、これにより右中葉気管支は圧排され、肺野には右中葉に局限した小葉間隔壁の肥厚、小葉中心性粒状影、すりガラス影といった所見が混在し、少量の右胸水を伴っていた。血液検査で炎症反応の上昇があり、抗菌薬により症状・炎症反応・肺野陰影および胸水は速やかに改善し、嚢胞の縮小が得られ、嚢胞摘出術が施行された。下気道感染に伴い気管支原性嚢胞が増大し、周囲臓器を圧排したことにより多彩な陰影を呈したと考えられた。

キーワード：気管支原性嚢胞、縦隔腫瘍、小葉間隔壁肥厚、小葉中心性粒状影

Bronchogenic cyst, Mediastinal tumor, Septal thickening, Centrilobular shadow

緒言

気管支原性嚢胞は、縦隔腫瘍全体の4.5%を占める¹⁾先天性嚢胞性病変である。一般に無症状で経過することが多いが、嚢胞の増大から周囲臓器の圧排による症状を呈することがある。今回我々は、胸痛と乾性咳嗽の症状に加えて、多彩な肺野の異常陰影を呈し、炎症の改善に伴い症状および肺野陰影の速やかな改善と嚢胞の縮小が得られた気管支原性嚢胞の1例を経験したので報告する。

症例

患者：64歳、女性。

主訴：乾性咳嗽、胸痛。

既往歴：なし。

喫煙歴・粉塵吸入歴：なし。

現病歴：入院3ヶ月前より乾性咳嗽が持続し近医で鎮咳薬を処方されていた。入院1週間前より咳嗽が悪化し、胸痛も伴うようになり、胸部X線写真で異常を指摘され紹介入院となった。

入院時現症：身長154.0cm、体重51.0kg、体温37.6℃、血圧104/60mmHg、脈拍100回/min、呼吸数20回/min、経皮的動脈血酸素飽和度(SpO₂)97%(室内気)。理学的所見は明らかな異常を認めず、呼吸音も正常であった。

入院時検査所見：白血球7,770/μl、C反応性蛋白(CRP)8.6mg/dlと軽度の炎症反応を認める以外、血算・生化学検査に異常はなく、各種腫瘍マーカーの上昇は認めなかった。

胸部X線写真(図1)：気管分岐角が開大し、右肺門部の拡大と右下肺野の透過性低下、右肋骨横隔膜角の鈍化を認める。

胸部造影CT：縦隔条件(図2)では気管分岐下に径65mm大の内部造影効果の乏しい腫瘤と右片側性胸水を認める。肺野条件(図3)では右中葉に局限して、気管支血管束の肥厚、肺脈管影の腫大、小葉間隔壁肥厚、小葉中心性粒状影や分岐線状影、すりガラス影、浸潤影といった多彩な陰影が混在している。

臨床経過：気管分岐下の腫瘤は嚢胞性の良性疾患の可能性が高いと判断したが、中葉気管支の圧排・狭窄所見や、癌性リンパ管症を思わせる広義間質の肥厚所見から悪性疾患の鑑別も必要と考えられた。炎症反応と発熱を伴っていたことから感染の合併を考えセフトリアキソン(ceftriaxone)2g/日の投与を行いつつ精査を開始した。右胸水はリンパ球優位の細胞増多を伴う滲出性で細胞診はClass Iであった。気管支鏡検査では右中葉気管支粘膜の浮腫性肥厚を認めたのみで気道内分泌物は目立たず、経気管支肺生検や気管支洗浄液でも有意な所見は得

連絡先：角谷 拓哉

〒433-8558 静岡県浜松市北区三方原町3453

^a 聖隷三方原病院呼吸器センター内科

^b 同 呼吸器センター外科

^c 浜松医科大学呼吸器内科

(E-mail: takuya32k@yahoo.co.jp)

(Received 5 Jun 2016/Accepted 26 Sep 2016)



図1 胸部X線写真. 気管分岐角が開大し, 右肺門部の拡大と右下肺野透過性低下を認めている. 右肋骨横隔膜角の鈍化を認めている. 一部横隔膜と心陰影の境界が不明瞭化し, 右横隔膜の挙上を認めている.

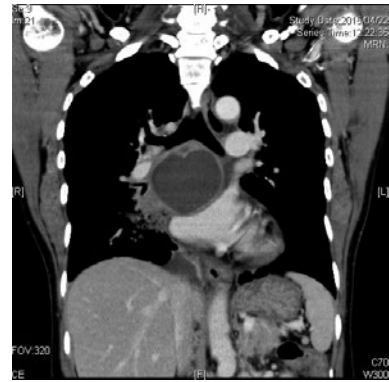


図2 胸部造影CT (縦隔条件). 気管分岐下に径65 mm大の内部造影効果の乏しい腫瘍と右片側性の胸水を認めている.



図3 胸部造影CT (肺野条件). 右中葉に局限して気管支血管束の肥厚, 肺脈管影の腫大, 小葉間隔壁肥厚, 小葉中心性粒状影や分岐線状影, すりガラス影, 浸潤影といった多彩な陰影の混在を認めている. また気管支は一部狭小化を認めている.



図4 胸部造影MRI T2強調画像冠状断. 縦隔の腫瘍性病変は内部均一な高信号を呈している.

られなかった. 胸部造影MRIでは縦隔の腫瘍性病変は造影効果に乏しく, T1強調画像で内部均一な低信号, T2強調画像(図4)で高信号を呈していた. PET/CTでは嚢胞性病変および肺野への ^{18}F -fluorodeoxyglucose 取り込みは認めなかった.

自覚症状および胸部画像所見は第3病日以降で改善傾向となり, 第10病日に再検した胸部単純CT(図5, 6)では肺野の異常所見と胸水はほぼ消失し, 嚢胞性病変も縮小していた. 第40病日の胸部単純CTでは嚢胞性病変はさらに縮小が確認され, その後嚢胞摘出術を施行した. 嚢胞壁は炎症の影響と思われる周囲臓器と高度の癒着を伴っていたが, 術後経過は良好で現在まで再発徴候なく経過している. 摘出された嚢胞の組織所見では, 壁表面に線毛上皮がみられ, 壁に結節には軟骨成分を認め, 気管支原性嚢胞と診断された.

考 察

気管支原性嚢胞は, 胎生期における原始前腸からの異常迷芽や分枝によって発生する先天性疾患であり, 胎生4週までに発生すれば気管, 気管分岐部付近の縦隔に存在し, 胎生4週以降に発生すれば肺内に存在するといわれている. 成人例86例の集計では縦隔型が66例(77%)と多く, 肺内型は20例(23%)と報告されている²⁾. 縦隔型は, ① paratracheal group, ② carinal group, ③ hilar group, ④ paraesophageal group, ⑤ miscellaneous groupの5型に分類され³⁾, 本症例はcarinal groupに相当する.

成人の縦隔内気管支原性嚢胞は一般的に無症状で経過することが多いが, 腫瘍の増大により周囲の圧迫による胸痛や咳嗽といった症状を生じる場合もあり⁴⁾, 国内外から複数の症例報告がある. 感染徴候を伴わず短期間に増大し, 気道の圧迫から呼吸不全を呈した症例の報告も



図5 胸部単純CT (第10病日). 右中葉の多彩な肺野陰影, 片側性胸水の消失を認めている.

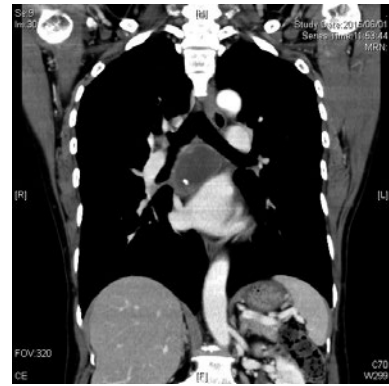


図6 胸部造影CT (第10病日). 嚢胞性病変の残存は認めるものの著明な縮小が確認された.

ある⁵⁾が, 経過中に嚢胞の増大が確認された症例の多くは白血球増多やCRP上昇といった炎症反応を伴っており^{6)~8)}, これらには本症例のように炎症の改善とともに嚢胞の縮小が得られた症例^{7,8)}も含まれている. St-Georgesらは44例の有症状例を含む66例の縦隔型気管支原性嚢胞の手術例を検討し, 気道との交通があった症例は3例(4.5%)で, 明らかな交通を認めずに嚢胞内に感染をきたしていた症例はわずかに1例(1.5%)であったと報告²⁾しており, 嚢胞内の細菌感染の頻度は必ずしも高くはないと考えられる. 本症例も抗菌薬の投与のみで短期間に嚢胞の縮小が得られたことから, 嚢胞内感染は伴わず, 嚢胞周囲の炎症が嚢胞壁へ波及し嚢胞内浸出液の増加をきたしたと考えている. 術前診断においてはMRI検査の有用性が高いとされている⁹⁾. 嚢胞内容物の性状によりCT値やT1強調画像の信号強度はさまざまであるが, 本症例のようにT2強調画像で均一な高信号を呈し, 造影効果を受けないことが重要であり, この所見が確認されれば気管支原性嚢胞の診断率は100%であったとする報告もある¹⁰⁾.

前述のとおり, 嚢胞の増大や縮小, 随伴症状や合併症についてはさまざまな報告がなされている. 一方で, 肺野の所見については縮小した嚢胞周囲の肺炎所見をHimuroらが報告している¹¹⁾程度であり注目されていない. 本症例では, 初診時に嚢胞の末梢側に多彩な陰影を呈しており, 炎症の改善とともに嚢胞の縮小と肺野陰影の速やかな改善が確認された. 発症前の画像経過が不明であるため推測の域を超えないが, 陰影変化が短期間に確認された経過からは, 気道炎症が嚢胞壁に波及し, 嚢胞内浸出液の増加により嚢胞が緊満・増大し, 中枢気道および周囲脈管の圧排が起り, 肺静脈やリンパのうっ滞をきたしたことが, 気管支血管束肥厚, 小葉間隔壁肥厚, すりガラス影といった多彩な陰影を呈したと考えられた.

治療の原則は外科的切除であり, 本症例も症状出現から1ヶ月程度後に手術治療を行ったが, 嚢胞と周囲臓器には強固な癒着が認められていた. 無症状の気管支原性嚢胞では経過観察する選択もあるが, 悪性腫瘍を合併したとの報告や¹²⁾, 経過中にも症状を伴う可能性があること, 嚢胞の増大から重篤な症状をきたす可能性のある¹³⁾¹⁴⁾こと, 症状出現後には炎症性の癒着で手術が困難となる可能性のあることから, 手術可能な症例においては症状出現前の積極的な治療が⁸⁾¹⁵⁾妥当と考えられる.

気管支原性嚢胞は, 感染の合併などに伴い増大した場合, 周囲臓器の圧迫を伴う症状に加え, 肺野にも多彩な陰影をきたす可能性があることは認識する必要があると思われる報告した.

本論文の要旨は, 第108回日本呼吸器学会東海地方学会(2015年11月, 岐阜)において発表した.

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

- 1) 正岡 昭, 他. 縦隔外科全国統計. 日胸外会誌 1971; 19: 1289-300.
- 2) St-Georges R, et al. Clinical spectrum of bronchogenic cysts of the mediastinum and lung in the adult. *Ann Thorac Surg* 1991; 52: 6-13.
- 3) Maier HC. Bronchiogenic Cysts of the Mediastinum. *Ann Surg* 1948; 127: 476-502.
- 4) Patel SR, et al. Presentation and management of bronchogenic cysts in the adult. *Chest* 1994; 106: 79-85.
- 5) 井伊康弘, 他. 進行する呼吸不全を呈した気管支原性嚢胞に対して胸腔鏡下手術を行った一例. *日呼外会誌* 2010; 24: 1073-6.

- 6) 永廣 格. 経過中増大後に縮小した縦隔気管支原性嚢胞の1例. 日呼外会誌 2009; 23: 735-9.
- 7) 金原正志, 他. 急速な増大傾向を示し, 血清及び嚢胞液中のSLXが高値を呈した気管支嚢胞の1例. 日呼吸会誌 2006; 44: 874-8.
- 8) 福田高士, 他. 嚔下痛と発熱の症状により発見された気管支原性嚢胞の1例. 日呼外会誌 2010; 24: 828-31.
- 9) McAdams HP, et al. Bronchogenic cyst: imaging features with clinical and histopathologic correlation. Radiology 2000; 217: 441-6.
- 10) Kanemitsu Y, et al. Clinical features and management of bronchogenic cysts: report of 17 cases. Surg Today 1999; 29: 1201-5.
- 11) Himuro N, et al. Spontaneous regression of bronchogenic cyst accompanied by pneumonia. Surg Case Rep 2015; 1: 106.
- 12) 瀬川正孝, 他. 肺内気管支嚢胞壁から発生した肺腺癌の1例. 日呼外会誌 2002; 17: 72-6.
- 13) Fratellone PM, et al. Hemodynamic compromise secondary to a mediastinal bronchogenic cyst. Chest 1994; 106: 610-2.
- 14) 大澤久慶, 他. 短期間に鏡面像が出現した縦隔内気管支嚢腫の1例. 日呼外会誌 2003; 17: 87-90.
- 15) Aktoğu S, et al. Bronchogenic cysts: clinicopathological presentation and treatment. Eur Respir J 1996; 9: 2017-21.

Abstract

A case of bronchogenic cyst showing various abnormal shadows in the lung field

Takuya Kakutani^a, Koshi Yokomura^a, Ayano Goto^a,
Takafumi Koyauchi^a, Hiroshi Niwa^b and Takafumi Suda^c

^aDepartment of Respiratory Medicine, Respiratory Disease Center, Seirei Mikatahara General Hospital

^bDepartment of Respiratory Surgery, Respiratory Disease Center, Seirei Mikatahara General Hospital

^cSecond Department of Internal Medicine, Hamamatsu University School of Medicine

A 64-year-old woman was admitted to our hospital with complaints of chest pain and dry cough. Chest computed tomography showed that a cystic lesion of around 65 mm in the subcarinal space had compressed the right main bronchus. We also found various abnormal shadows, including septal thickening, a centrilobular shadow, and ground-glass opacity, which were restricted to the middle lobe of the right lung, together with right-sided pleural effusion. After treatment with antibiotics, all of these findings improved quickly and the cystic lesion also shrank. About 40 days after the first visit, the cystic lesion was resected surgically and diagnosed as a bronchogenic cyst. We should take notice that the inflammation-like infection can enlarge the bronchogenic cyst, and the enlarged cyst may cause various types of abnormal shadows in the lung field.