

●画像診断

気管支サーモプラスティ後に肺嚢胞の出現を認めた1例

西田 浩平 三木 真理 澤 信彦
香川 浩之 三木 啓資 北田 清悟

要旨：症例は57歳男性。高用量吸入ステロイド剤を含む多剤併用治療下でも喘息コントロールが不良であり、難治性喘息と診断した。気管支サーモプラスティを3回に分けて施行したところ、3回目の両側上葉の治療終了翌日に右肺中葉に嚢胞が出現し、内部に液体貯留を認めた。経過観察にて嚢胞は縮小を認めている。肺嚢胞出現の原因として、治療後に形成された粘液栓や熱エネルギーにより構造変化した気道壁がチェックバルブ機構を構築した可能性や、熱エネルギーによる刺激で肺裂傷が生じた可能性などが考えられた。稀少な合併症であり報告する。

キーワード：気管支喘息、合併症、ニューマトセル（気腫）、外傷性肺嚢胞

Bronchial asthma, Complication, Pneumatocele, Traumatic pulmonary cyst

緒言

気管支サーモプラスティ (bronchial thermoplasty : BT) は、コントロール困難な重症気管支喘息に対する気管支鏡的治療である。BTの主な合併症として、喘息症状の悪化や上下気道感染などが報告¹⁾されているが、これまでに肺嚢胞を合併した報告はない。今回我々は、BT施行後に肺嚢胞の出現を認めた症例を経験したため報告する。

症例

患者：57歳，男性。

主訴：呼吸困難。

既往歴：40歳 好酸球性副鼻腔炎，52歳 肺炎，56歳 大腸ポリープ。

喫煙歴：なし。

現病歴：30歳頃に感冒を契機に気管支喘息（アスピリン喘息）を発症した。近医にて通院加療を継続していたが、高用量吸入ステロイド薬，長時間作動性 β_2 刺激吸入薬，長時間作動性抗コリン薬などの使用中にもかかわらず喘息発作が頻発し，201X年2月に当院を受診した。プレドニゾロン（prednisolone）30mg/日を6日間内服して

発作は改善したが、呼吸困難感やピークフロー値の変動があり、難治性喘息と考えられ、201X年11月よりBTを施行することとなった。

BT施行前所見：胸部聴診ではラ音を聴取しなかった。血液検査所見では、白血球数は $6,550/\mu\text{L}$ と正常範囲内であったが、好酸球割合が7.1%、非特異的IgEが 256U/mL と上昇していた。画像所見としては、胸部単純X線写真 (Fig. 1a) では明らかな異常陰影を認めず、胸部単純computed tomography (CT) では両側肺で気管支壁肥厚所見を認めた。呼吸機能検査では、1秒量 (FEV₁) は2.74L (% FEV₁ 79.4%) と保たれていたが、1秒率 (FEV₁/FVC) は51.0%と低下していた。肺活量 (VC) は5.10L (% VC 120.9%) と拘束性換気障害は認めなかった。呼気一酸化窒素濃度は68ppbと上昇していた。

臨床経過：201X年11月とその3週間後の12月に入院し静脈麻酔下で右肺下葉枝，左肺下葉枝にそれぞれBTを施行した。両側下葉枝は気管支粘膜肥厚による狭窄が認められ，右下葉枝処置中は咳嗽反射も強く，アクティベーション回数はそれぞれ12回，26回にとどまった。喀痰は少量であり，術後に明らかな合併症を認めなかった。さらに4週間後の201X+1年1月，両側肺上葉枝にBT（アクティベーション右26回，左34回）を施行した。気管支鏡所見では，上葉枝や右肺中葉支に明らかな異常を認めず，処置中も肉眼的には変化を認めなかった。3回目のBT施行直後の胸部X線写真では右中下肺野に浸潤影を認めるのみであったが，翌日の胸部X線写真で右中下肺野に嚢胞性病変を認めた (Fig. 1b)。胸部単純CTでも，内部に液体貯留と分枝状気腔を有する肺嚢胞が右肺

連絡先：西田 浩平

〒560-8552 大阪府豊中市刀根山5-1-1

独立行政法人国立病院機構刀根山病院呼吸器内科

(E-mail: knishida@toneyama.go.jp)

(Received 28 Aug 2017/Accepted 19 Oct 2017)

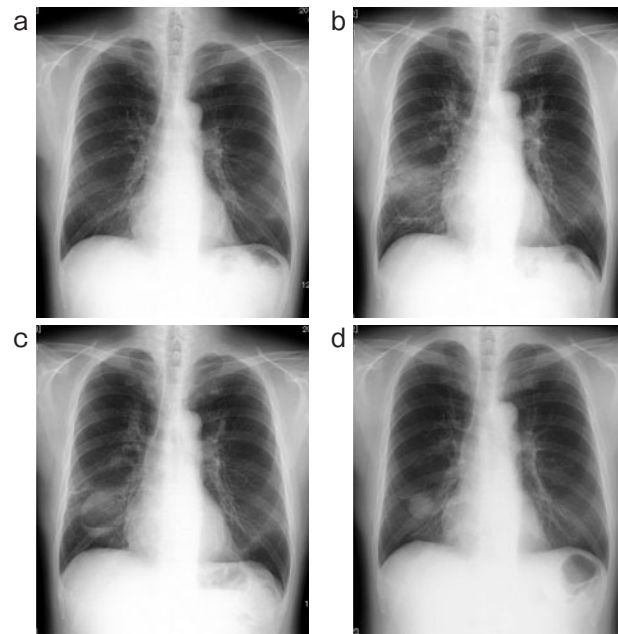


Fig. 1 Chest X-ray findings before and after the third bronchial thermoplasty (BT) session. (a) Abnormal shadow was not evident before the third BT session. (b) A cystic lesion containing fluid appeared in the lower right lung field the day after the third BT session. (c) Fluid accumulation was increased seven days after the third BT session. (d) Six months after the third BT session, the cystic lesion had shrunk.

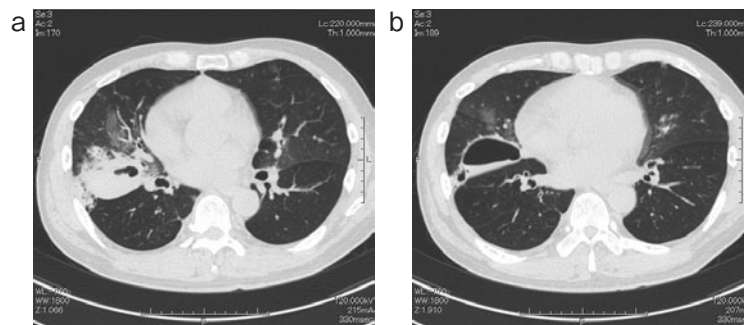


Fig. 2 Chest CT findings the day after the third bronchial thermoplasty (BT) session. (a) A fluid-filled cyst was located in the middle lobe of the right lung. Branched airspace was surrounded by fluid in the cyst and ground-glass opacity was evident around the cyst. (b) Airspace occupied the bottom of the cyst.

中葉に出現していた (Fig. 2a, b). その後さらに嚢胞内部の液体が増加した (Fig. 1c). 発熱や炎症反応上昇などの感染徴候は認めなかったため経過観察としていたが、約1ヶ月後からは次第に嚢胞の縮小を認め、6ヶ月経過後も縮小傾向は持続している (Fig. 1d). 喘息症状に関しては、3回目のBT施行後小発作が3日間認められ、ベタメタゾンリン酸エステル (betamethasone phosphate) の点滴を行ったが、その後はコントロール良好となっている。

考 察

BTは、気管支鏡に電極付きのカテーテルを挿入し、高周波電流により65℃で10秒間気管支壁を温めることで、肥厚した気管支平滑筋を減少させ²⁾、気管支の収縮を抑制し、喘息発作の頻度を減少させる気管支鏡手技である。治療は、気管支を右肺下葉枝、左肺下葉枝、右左上葉枝に分けて実施される。BTの安全性の研究としては、Asthma Intervention Research 2 (AIR2) Trial¹⁾ が実施されている。この研究では、190人の患者のうち、BT治

療期間中に喘息症状の悪化が52%に認められ、無気肺で2人、気道感染、血痰、FEV₁の低下、菌の吸引で各1人が入院加療を要したと報告されている。他にも、fibrin栓による無気肺³⁾、異常陰影の出現⁴⁾などの症例報告があるが、我々の検索した限り肺嚢胞の報告はみられなかった。

肺嚢胞は、気腫性肺嚢胞、気管支性肺嚢胞、リンパ管性肺嚢胞、寄生虫性肺嚢胞、その他の嚢胞性肺疾患に分類される。そのなかで気腫性肺嚢胞は、ブラ・ブレブ、巨大気腫性ブラ、pneumatocele (気瘤)、間質性肺気腫、外傷性肺嚢胞、肺葉性肺気腫に分類されている⁵⁾。肺嚢胞のなかで、壁が薄く平滑で、大きさが数日から数週間に変化するものはpneumatoceleと言われている⁶⁾。Pneumatoceleの発生機序は、気道にチェックバルブ機構が形成されて、その先で壊死に陥った肺実質が排出され、間質から空気が集まることによるとされている⁷⁾。原因の多くは重症気道感染⁸⁾であり、チェックバルブとなるのは炎症による滲出物や破壊された気道壁と考えられている⁹⁾。一方、肺嚢胞のなかで、胸部鈍的外傷後にみられる肺空洞性病変は外傷性肺嚢胞とされている¹⁰⁾。外傷性肺嚢胞は、強力な外力が原因の気道内圧上昇による末梢気管支壁の破裂や、外力の伝達による肺実質の裂傷で起こる¹¹⁾。受傷直後から嚢胞形成が認められ、内部にniveauを形成した報告¹²⁾もある。保存的治療のみで数週から数ヶ月の経過で自然消失することが多い¹⁰⁾とされている。

本症例では、BT施行前の単純CTで明らかな嚢胞性病変を認めなかった右肺中葉に、BT施行後早期に肺嚢胞の出現を認めた。原因としては、BT施行後に右肺中葉に粘液栓による無気肺を生じた症例の報告³⁾や、BTの対象部位ではない右肺中葉でも熱エネルギーにより気道に沿ったすりガラス陰影やconsolidationが出現したという報告⁴⁾もあることから、高周波の影響で右肺中葉の気道壁の構造が変化してチェックバルブとなり、さらに粘液栓なども関与してpneumatoceleが形成された可能性が考えられる。他の可能性として、嚢胞内部に液体貯留があり、保存的治療のみで縮小を認めている点が外傷性肺嚢胞と類似していることから、熱エネルギーの力により外傷性肺嚢胞と同様の機序で肺嚢胞が発生した可能性も考えられる。

今回我々は、これまでBTの合併症として報告がなかった肺嚢胞が、BT施行後に出現した症例を経験した。今

後BTが普及するに伴い新たな合併症が出現してくる可能性もあり、安全性や実施方法などについてさらなる研究や調査が必要と考える。

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) Castro M, et al. Effectiveness and safety of bronchial thermoplasty in the treatment of severe asthma: A multicenter, randomized, double-blind, sham-controlled clinical trial. *Am J Respir Crit Care Med* 2010; 181: 116-24.
- 2) Cox PG, et al. Radiofrequency ablation of airway smooth muscle for sustained treatment of asthma: Preliminary investigations. *Eur Respir J* 2004; 24: 659-63.
- 3) Facciologno N, et al. Recurrent lung atelectasis from fibrin plugs as a very early complication of bronchial thermoplasty: A case report. *Multidiscip Respir Med* 2015; 10: 9.
- 4) Pretolani M, et al. Reduction of airway smooth muscle mass by bronchial thermoplasty in patients with severe asthma. *Am J Respir Crit Care Med* 2014; 190: 1452-4.
- 5) 日本気胸・嚢胞性肺疾患学会編. 気胸・嚢胞性肺疾患規約・用語・ガイドライン. 2009.
- 6) Fraser RS, et al. Fraser and Paré's Diagnosis of Diseases of the CHEST. 4th ed. Philadelphia: W.B. Saunders. 1999; 461-2, 504-9.
- 7) Quigley MJ, et al. Pulmonary pneumatocele: Pathology and pathogenesis. *AJR Am J Roentgenol* 1988; 150: 1275-7.
- 8) McGarry T, et al. Pneumatocele formation in adult pneumonia. *Chest* 1987; 92: 717-20.
- 9) 片山伸幸, 他. 気管支異物による気瘤を認めた1例. *気管支学* 2016; 38: 32-6.
- 10) Ganske JG, et al. Traumatic lung cyst: Case report and literature review. *J Trauma* 1981; 21: 493-6.
- 11) Fagan CJ, et al. Traumatic lung and paramediastinal pneumatoceles. *Radiology* 1976; 120: 11-8.
- 12) 辻 和宏, 他. 外傷性肺嚢胞の2例. *日呼外会誌* 2000; 14: 25-8.

Abstract

Pulmonary cyst arising after bronchial thermoplasty

Kohei Nishida, Mari Miki, Nobuhiko Sawa, Hiroyuki Kagawa,
Keisuke Miki and Seigo Kitada

Department of Respiratory Medicine, National Hospital Organization Toneyama National Hospital

Despite treatment for aspirin-induced asthma for 27 years, a 57-year-old male suffered repeated attacks. He recently underwent a series of bronchial thermoplasty (BT) sessions for refractory asthma at our hospital. A pulmonary cyst containing fluid appeared in the middle lobe of the right lung the day after the third BT session. The cyst was not treated because there were no signs of infection, and it began to shrink over time. In our view, possible causes of the cyst include mucus plugs, a change in part of the airway caused by the high-frequency stimulation of BT having resulted in a one-way valve, or laceration of the lung by the thermal energy from BT.