

症 例

多発結節影が亜急性に進行しリング状陰影に
変化したサルコイドーシスの1例藤井 雅人¹⁾ 井田 雅章¹⁾ 榎本 紀之¹⁾ 野木村 宏¹⁾
中村祐太郎²⁾ 千田 金吾²⁾ 中村 浩淑²⁾

要旨：症例は40歳，男性．2000年9月に検診で胸部X線上，右上葉に結節影を指摘され受診した．経気管支肺生検を行ったところ非乾酪性類上皮肉芽腫を認め，サルコイドーシスと診断した．経過観察中に結節影は亜急性の経過で全肺野に増加，増大し，その後リング状陰影に変化していった．2000年12月，他疾患の可能性を考慮し胸腔鏡下肺生検を施行した．病理組織学的に帯状に分布する著明な気腔内への器質化浸出物の存在を認め，周囲の胞隔は肥厚していた．その後，陰影は無治療で急速に消失した．リング状陰影はBOOPによる陰影を反映しているものと思われ，またサルコイドーシスとBOOPの関係が興味深い症例であった．

キーワード：リング状陰影，サルコイドーシス，BOOP，多発性結節影

Annular opacities, Sarcoidosis, BOOP, Multiple nodular Shadows

はじめに

CT上，多発性リング状陰影を呈する症例は現在までにBOOP，サルコイドーシス，薬剤性肺炎等が報告されているが，症例数が少なく未だその形成機序における病態は不明である^{1)~4)}．今回，我々は画像上，亜急性の経過で結節影が増大増加し，その後リング状陰影へ変化したサルコイドーシス症例を経験した．更に経過中施行した胸腔鏡下肺生検でいわゆるBOOP所見を呈したことによりサルコイドーシスとBOOPの関連を考慮する上においても貴重な症例と考えられた．

症 例

症例：40歳，男性．

主訴：胸部異常影（自覚症状は無し）．

家族歴：特記すべきことなし．

既往歴：特記すべきことなし．

喫煙歴：20～40歳，20本/日．

職業歴：4年前より茶製造業（それ以前は運転手）．

現病歴：2000年8月の検診で胸部X線上，右上葉に結節影を指摘されたため9月28日に精査目的で入院となった．

入院時現症：身長167cm，体重76.5kg，体温36.6℃，
血圧125/67，脈拍90/分・整，胸部聴打診上異常なし．
腹部異常所見無し．表在リンパ節触知せず．パチ状指なし．
浮腫，皮疹なし．神経学的所見に異常を認めず．眼底検査で異常を認めず．

入院時検査所見（Table 1）：血算，分画は正常，生化学検査では肝腎機能，電解質は異常なかった．CRP 2.7と軽度の炎症所見を認め，赤沈は51.0 mm/hと上昇していた．C3が112.7と高値を示した．ACEは正常値でツベルクリン反応は陰性であった．

入院時胸部X線写真（2000年9月26日）（Fig. 1A）：
右上肺野に径2.5cmの結節影を認めた．

入院時胸部CT（9月26日）（Fig. 2A）：右S2の結節影は辺縁不整で充実性であり，さらに同様の結節影が右S2にもう一個認められた．

入院後経過：サルコイドーシス，肺抗酸菌症，肺真菌症，転移性肺腫瘍，悪性リンパ腫，ウェゲナー肉芽腫症などを疑い，S2bより経気管支肺生検（TBLB）を行った．検体から気管支直下及び肺泡領域に比較的境界が明瞭な非壊死性類上皮肉芽腫を認めた（Fig. 3）．サルコイドーシスに合致する肉芽腫の形態であり，病歴・検査所見上，他疾患は否定的であったためサルコイドーシスと診断した．以後，無治療で経過観察を行ったが，急速に陰影が増大し，両肺に広がったため11月16日に再度，精査目的で二回目の入院となった．胸部X線写真（Fig. 1B）では初診時に比較して右上葉の結節影が増大しており，対側肺にも結節影が出現していた．胸部CT（Fig.

〒421 0302 榛原郡榛原町細江 2887 1

¹⁾榛原総合病院呼吸器科

〒431 3192 浜松市半田山1丁目20番1号

²⁾浜松医科大学第2内科学講座

（受付日平成14年8月20日）

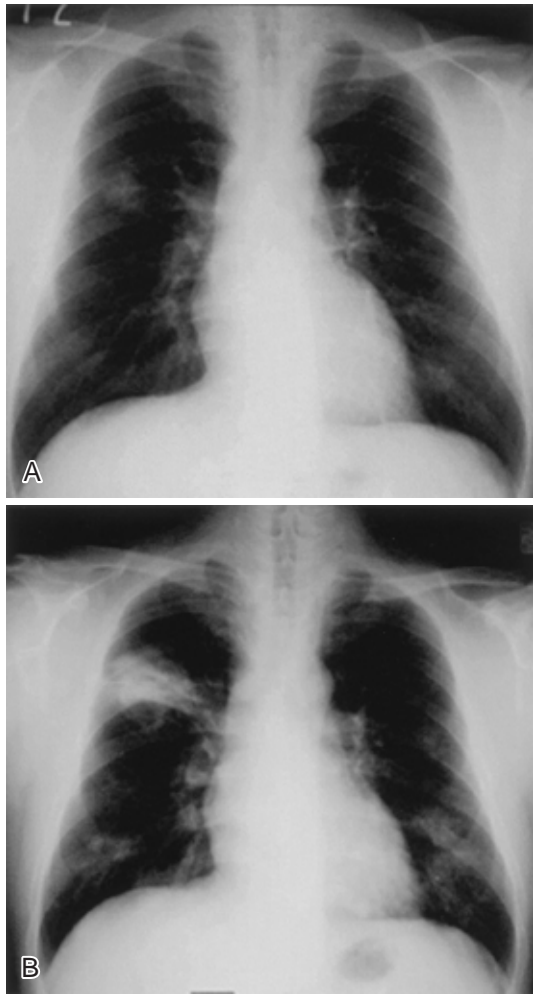


Fig. 1 (A) Chest radiograph (Sep. 26, 2000) on admission showing nodular shadow in right upper field. (B) Chest radiograph (Oct. 13, 2000) on second admission showing increased nodular shadows in the both lung fields.

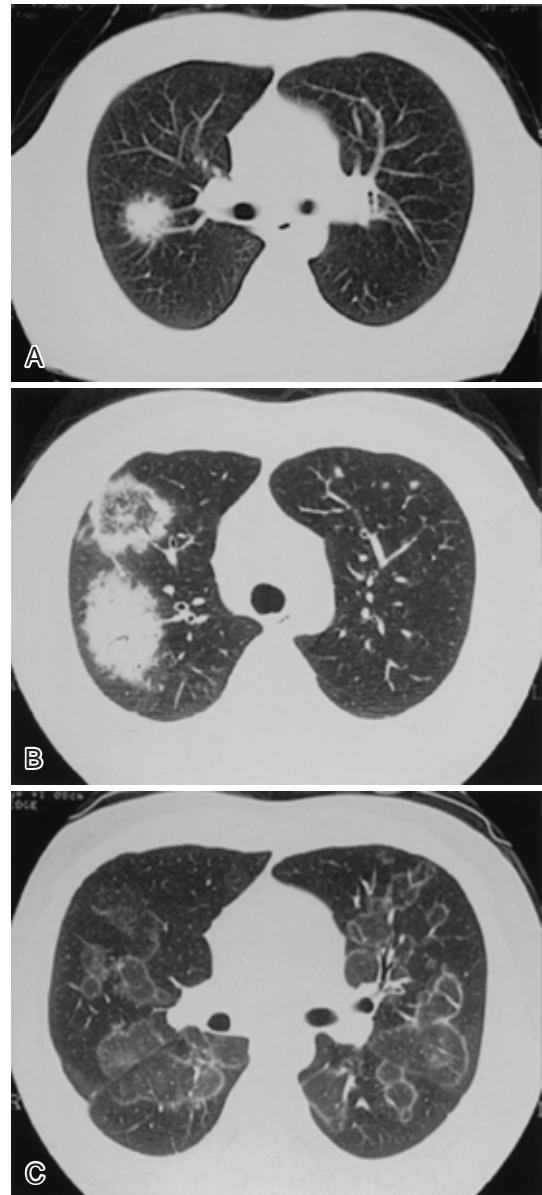


Fig. 2 (A) Chest CT scan (Sep. 26, 2000) on admission showing nodular shadow in the right upper field. (B) Chest CT scan (Oct. 13, 2000) on second admission showing multiple nodules, some of which were annular opacities with central areas of ground-glass attenuation. (C) Chest CT scan (Dec. 13, 2000) on third admission showing multiple annular opacities.

2B)上、結節影は増大，増加傾向を示しており，また一部の結節ではリング状に周囲は強く肺野濃度が上昇し内部は淡く肺野濃度の上昇を呈していた。他疾患鑑別のため再度，BAL，TBLBを施行した。BAL (Table 1)ではリンパ球分画が16.2%と上昇していた。TBLB所見 (Fig. 4)ではS2より採取した検体から肺胞領域に前回と同様に非壊死性の類上皮肉芽腫を認めた。その他、他疾患を示唆する有意な所見は無く，二回目のTBLB所見からもサルコイドーシスが考えられた。しかし，胸部CT (12月12日) (Fig. 2C)で示すように経過中，結節影はさらに増加し，波紋様のリング状陰影に変化した。サルコイドーシスとしては非典型的と考えられ，3回目の入院の上，12月14日，左S8より胸腔鏡下肺生検を施行した。

病理組織学的には (Fig. 5A, B)，帯状に分布する著

明な気腔内への器質化浸出物の存在を認め，周囲の胞隔は肥厚していた。浸潤している細胞はリンパ球を主体とした単核細胞で，今回採取された検体においては明らかな肉芽腫の存在はみられなかった。また細気管支や血管にも異常はみられず，今回の組織像はいわゆるBOOPに合致する所見であった。

その後，陰影は自然軽快傾向であったため無治療で経

過観察を行った．約3カ月の経過でリング状陰影は急速に消失し，肺野濃度上昇も消失していった．2002年2月，経過観察中に陰影の再燃を認めた．胸部CTでは肺門・縦隔リンパ節腫大，結節影，胸膜面の凹凸像などを認め，また6月の血液検査ではACE 37.2と上昇を認めるようになった．現在，サルコイドーシスとして外来で慎重に経過観察を行っている．

考 察

サルコイドーシス症（以下サ症）は多彩なCT所見が報告されている疾患である．しかし本症例のようにリン

グ状陰影を呈する例は極めて稀と思われ，我々の検索した限り Marlow らによる1例の報告を認めるのみであった¹⁾．彼らの症例では初診時にリング状陰影を呈しておりTBLBによりサ症と診断されている．またリング状陰影の成因としてリング部では新しい肉芽腫が形成され，内部において肉芽腫が自然改善しているのではないかと推測している．本症例についても経過前期，辺縁部が厚いリング状陰影に対して行ったTBLBではサ症に合致した肉芽腫を認めておりこの点においては Marlow

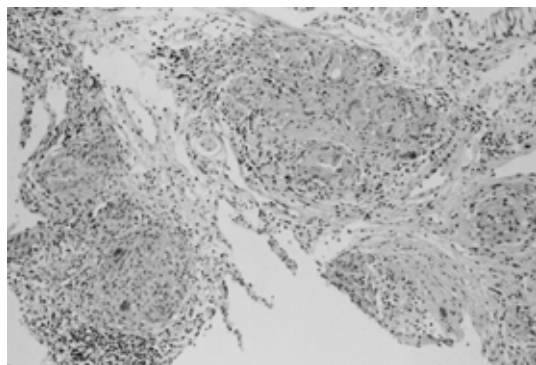


Fig. 3 Transbronchial lung biopsy specimen (Sep. 28, 2000) showing non-necrotizing epithelioid cell granulomas.

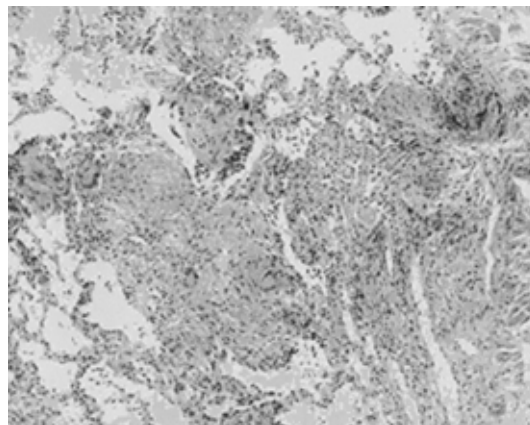


Fig. 4 Transbronchial lung biopsy specimen (Oct. 16, 2000) also showing non-necrotizing epithelioid cell granulomas.

Table 1 Laboratory data on admission

Urinalysis	ALP	181 IU/l	Sputum analysis	
W.N.L	TP	7.5 g/dl	normal flora	
Hematology	Alb	4.7 g/dl	acid fast bacilli(-)	
WBC	Serology		Arterial blood gas(room air)	
Neut	CRP	2.67 mg/dl	pH	7.402
Lymph	IgG	1,456 mg/dl	PaO ₂	84.0 torr
Mono	IgA	158 mg/dl	PaCO ₂	41.4 torr
Baso	IgM	110.6 mg/dl	Pulmonary function tests	
Eos	IgE	100 mg/dl	VC	3.90 L
RBC	CH50	40.8 U/ml	%VC	100.8 %
Hb	C3	112.7 mg/dl	FEV 1.0	3.29 L
Ht	C4	52.9 mg/dl	FEV 1.0%	88.0 %
Plt	ANA	< x 40	DLCO	21.8 ml/min/mmHg
ESR	ACE	9.9 IU/l	%DLCO	84.2 %
Biochemistry	KL-6	168 U/ml	Bronchoalveolar lavage	
Na	PPD	0 x 0/0 x 0	Cell count	2.31 x 10 ⁵ /ml
K	Mycotic examination		Macrophages	75.8 %
Cl	β-D-glucan	5.5 pg/ml	Lymphocytes	16.2 %
Cre	Tumor markers		Neutrophils	2.8 %
BUN	CEA	0.8 ng/ml	Eosinophils	5.2 %
T. Bil	CYFRA	< 1.0 ng/ml	CD 4/8	1.60
GOT	Pro-GRP	1.8 pg/ml		
GPT				
LDH				

らの報告例と一致している。

一方、リング状陰影を呈した症例について文献検索を行ったところサ症の他に特発性 BOOP 3 例、薬剤性肺炎 1 例が報告されており²⁾⁻⁴⁾、その病因には多様性があると思われる。組織像についてはサ症の 1 例を除き全例 BOOP 所見であった (Table 2)。Voloudaki ら²⁾は開胸

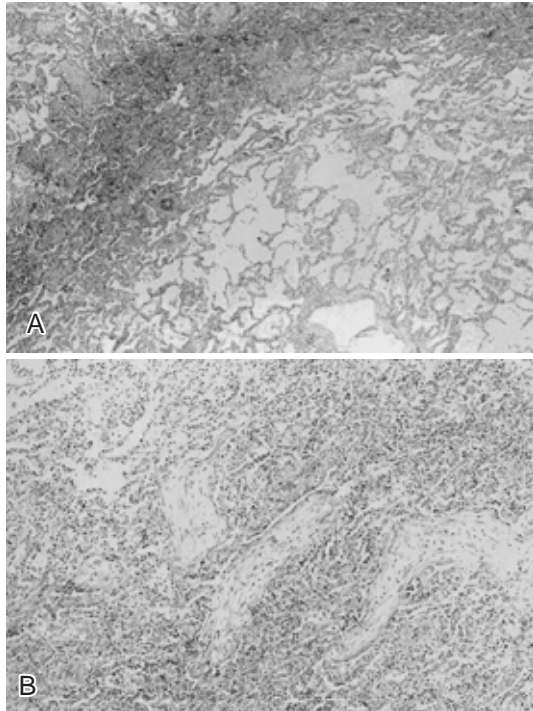


Fig. 5 (A) Lung biopsy specimens obtained by VATS (Dec. 14, 2000) revealing polypoid organized granulation tissue in the lumens of alveolar ducts in the periphery of the region and less polypoid organized granulation tissue and alveolar septal inflammation in the central area of ground-glass attenuation at higher magnification. (B) Polypoid organized granulation tissue in the lumens of the alveolar ducts in the periphery of the region at lower magnification.

肺生検組織により CT 像と組織所見の対比を行っている。それによると CT 上、周囲のリング状陰影は組織上、器質化肺炎に対応し、リング内腔のスリガラス状陰影部では胞隔炎がみられたとしている。更に Zompatori ら³⁾もリング状陰影と内部のスリガラス状陰影部分より行った TBLB でそれぞれ器質化肺炎、胞隔炎がえられたとしている。本症においても、弱拡大所見においてみられる帯状の病変部は CT 上のリング状陰影に一致していると考えられ、CT 像と組織所見の対比はこれらの報告例とほぼ同様の所見ととらえることができる。

サルコイドーシスと BOOP 所見の合併については、検索した限り Eugeni ら⁵⁾の報告 1 例のみであった。彼らは air bronchogram を伴った肺胞性陰影を呈する症例に開胸肺生検を行い、内部に非乾酪性類上皮肉芽腫、その周囲に BOOP 所見を観察し、サ症に関連した BOOP 所見を呈した症例として報告している。本例は病理組織学的にはサルコイドーシスと BOOP 所見が同時にみられていないためこの点は彼らの症例とは合致しがたい。本例の病態については不明な点が多いが、現在のところサルコイドーシスが自然軽快してゆく過程で続発性 BOOP 病変を呈して消えていったという病態が推測される。文献的には BOOP の原因について気道感染や薬剤、膠原病などが誘因となることが知られているが⁶⁾⁻⁸⁾、サ症が続発性 BOOP の誘因になるという報告は検索した範囲では認められなかった。今後、サ症および BOOP の病態解明とともにこうした点も明らかになることが期待される。

以上、サ症の経過中、リング状陰影を呈した稀な一例を経験した。多彩な経過を辿るサ症症例において、個々の症例の画像を含む経過の相違はどのような機序によるかは、原因の究明とともに今後の課題の一つである。今後の症例に蓄積によりこの様な症例の病態が明らかになることが期待される。

Table 2 Reported cases of ring-shaped opacities

Author	Age/Sex	Biopsy method	Pathology	Type	Treatment	Reference
Marlow	43/F	TBLB	sarcoidosis	idiopathic	steroid	(1)
Voloudaki	50/M	OLB	BOOP	idiopathic	steroid	(2)
	53/M	OLB	BOOP	idiopathic	steroid	
Zampatori	58/M	TBLB	BOOP	idiopathic	steroid	(3)
Kondou	39/F	TBLB	BOOP	drug-induced	drug with drawal	(4)
This case	40/M	TBLB VATS	sarcoidosis BOOP	idiopathic	observation	

TBLB: transbronchial lung biopsy. OLB: open lung biopsy. VATS: video-assisted thoracic surgery

文 献

- 1) Marlow TJ, Krapiva PI, Schabel SI, et al : The " fairy ring " : a new radiographic finding in sarcoidosis. Chest 1999 Jan ; 115 (1) : 275 - 276.
- 2) Voloudaki AE, Bouros DE, Froudarakis ME, et al : Crescentic and ring-shaped opacities. CT features in two cases of bronchiolitis obliterans organizing pneumonia (BOOP) Acta Radiologica 1996 ; 37 : 889 - 892.
- 3) Zampatori M, Poletti V, Battista G, et al : Bronchiolitis obliterans with organizing pneumonia (BOOP) presenting as a ring-shaped opacity at HRCT (the atoll sign) Radiol med 1999 ; 97 : 308 - 310.
- 4) 近藤英樹, 藤田次郎, 堀内宣昭, 他 : 胸部 CT 上多発性リング状影を呈し, 組織学的に bronchiolitis obliterans organizing pneumonia (BOOP) と診断されたミノサイクリンによる薬剤性肺炎の 1 例 . 日呼吸会誌 2001 ; 39 (3) : 215 - 219.
- 5) Rodriguez E, Lopez D, Buges J, et al : Sarcoidosis-associated bronchiolitis obliterans organizing pneumonia. Arch Intern Med 2001 ; 161 (17) : 2148 - 2149.
- 6) Gray R, Epler MD : Bronchiolitis obliterans organizing pneumonia. Arch Intern Med 2001 ; 161 : 158 - 164.
- 7) Boots Rj, Mowat P, McEvoy JDS, et al : Bronchiolitis obliterans organizing pneumonia-a clinical and radiological review. Aust NZ J Med 1995 ; 25 : 140 - 145.
- 8) Gray R, Epler MD : Heterogeneity of Bronchiolitis obliterans organizing pneumonia. Current Opinion in Pulmonary Medicine 1998 ; 4 : 93 - 97.

Abstract

A Case of Sarcoidosis Manifesting as Annular Opacities after Multiple Nodular Shadows

Masato Fujii¹⁾, Masaaki Ida¹⁾, Noriyuki Enomoto¹⁾, Hiroshi Nogimura¹⁾,
Yutaro Nakamura²⁾, Kingo Chida²⁾ and Hirotoshi Nakamura²⁾

¹⁾Department of Respiratory Medicine Haibara General Hospital,
2887-1 Hosoe, Haibara-cho, Haibaragun, Shizuoka, 421-0322, Japan

²⁾Second Department of Internal Medicine, Hamamatsu University of Medicine, Japan

A 40-year old man was admitted to our hospital because nodular shadows in the right upper lung field had shown deterioration on chest radiographs during a regular check-up (Sep. 28, 2000) Transbronchial lung biopsy specimens showed findings compatible with sarcoidosis. During follow-up, the nodular shadows became bigger, spread in both lung fields and turned into multiple annular opacities. In December, lung biopsy specimens obtained by VATS showed central areas of ground-glass attenuation corresponding to areas of alveolar septal inflammation, in contrast to the denser periphery, where polypoid organized granulation tissue in peripheral air spaces predominated. After 2 months, the opacities disappeared without treatment. In our case, the annular opacities on CT corresponded histologically to BOOP. It is interesting to note the relationship between sarcoidosis and BOOP.