

画像診断

一部に空洞を伴う多発性結節性陰影を呈した肺好酸球性肉芽腫の2例

埴淵 昌毅^{1,3)} 平野 博嗣²⁾ 北田 清悟¹⁾ 山口 俊彦¹⁾
 岡田 達也¹⁾ 中川 勝¹⁾ 横田総一郎¹⁾ 伊藤 正己¹⁾

要旨：症例1は54歳、男性で主訴は胸痛、乾性咳嗽、喫煙歴は20本/日×36年、症例2は37歳、女性で主訴は乾性咳嗽、喫煙歴は15本/日×20年であった。2例ともに胸部X線および胸部CTで、両側肺に比較的辺縁明瞭な結節性陰影を多数認め、一部の結節では空洞を伴っていた。症例1は開胸肺生検、症例2は経皮的肺生検にて肺好酸球性肉芽腫と診断した。診断後、禁煙指導のみにて経過観察し、自覚症状および画像所見の改善を認めた。多発性結節性陰影を呈する肺好酸球性肉芽腫は稀であり、報告した。胸部X線および胸部CT上多発性結節性陰影を呈する症例では、転移性肺腫瘍だけでなく肺好酸球性肉芽腫も考慮すべきであると考えられた。

キーワード：空洞，多発性結節性陰影，肺好酸球性肉芽腫，喫煙

Cavity, Multiple nodular shadow, Pulmonary eosinophilic granuloma, Smoking

はじめに

肺好酸球性肉芽腫 (Pulmonary eosinophilic granuloma: 以下 PEG) は、病理組織学的に免疫担当単核球である Langerhans 細胞の非腫瘍性増殖と好酸球浸潤による肉芽腫形成を特徴とする原因不明の疾患である¹⁾。PEG の胸部 X 線所見は、びまん性粒状網状影、輪状影、嚢胞状陰影を呈することが多く²⁾、また胸部 CT および肺野高分解能 CT (high resolution CT: 以下肺野 HRCT) 所見は、薄壁の嚢胞陰影あるいは小葉中心性の小結節影が典型的であり³⁾、多発性結節性陰影を呈する症例は稀である。今回我々は一部に空洞を伴う多発性結節性陰影を呈した PEG の2例を経験したので、文献的考察を加えて報告する。

症 例

症例1: 54歳、男性、会社員。

主訴: 胸痛、乾性咳嗽。

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: 煙草 20本/日×36年。

現病歴: 1996年11月頃より胸痛、乾性咳嗽が出現した。近医受診し、胸部X線上多発性結節性陰影を指摘

され転移性肺腫瘍疑いにて同医入院。消化管を中心に精査するも診断がつかず、当院紹介となった。

入院時身体所見: 身長 162 cm, 体重 55 kg, 意識清明, 血圧 116/64 mmHg, 心拍数 72/分, 整, 呼吸数 13/分, 体温 36.4, チアノーゼ・ばち状指なし, 貧血黄疸なし, 口腔内異常所見なし, 頸部リンパ節触知せず, 心音正常, 呼吸音正常, 腹部異常なし, 神経学的異常所見なし, 浮腫なし。

入院時検査所見: 末梢血検査, 血液生化学検査では特に異常を認めなかった。動脈血ガス分析, 呼吸機能検査ともに正常であった。喀痰一般細菌, 結核菌ともに陰性であり, 血清中腫瘍マーカーもすべて正常であった。

画像所見: 胸部 X 線 (Fig. 1A) および胸部 CT (Fig. 1B) では, 両側肺に比較的辺縁明瞭な結節性陰影を多数認め, 一部の結節では空洞を伴っていた。肺門縦隔リンパ節腫大は認められなかった。

病理所見: 経気管支肺生検により得られた組織では軽度の胞隔肥厚と細胞浸潤を認めるのみで, 確定診断が得られず, 開胸肺生検を施行した。左 S³ の腫瘤の光顕像ではリンパ球を主体とした炎症細胞とともに多数の組織球を伴った非乾酪性肉芽腫を認めた (Fig. 2)。一部の組織球では分葉状で溝をもつ核がみられた。免疫組織学的には組織球系細胞は S-100 蛋白のみに陽性所見を呈し (Fig. 3), CEA, EMA, vimentin は陰性であり, PEG と診断した。

臨床経過: 診断時より禁煙指導を行い, 禁煙のみにて経過観察した。多発性結節性陰影は自然消退傾向を示し, 禁煙5カ月後の胸部 X 線 (Fig. 4) および胸部 CT では

〒770 8503 徳島市蔵本町3丁目18 15

¹⁾ 国立療養所刀根山病院内科

²⁾ 国立療養所刀根山病院病理

³⁾ 徳島大学医学部分子制御内科学

(受付日平成14年4月15日)

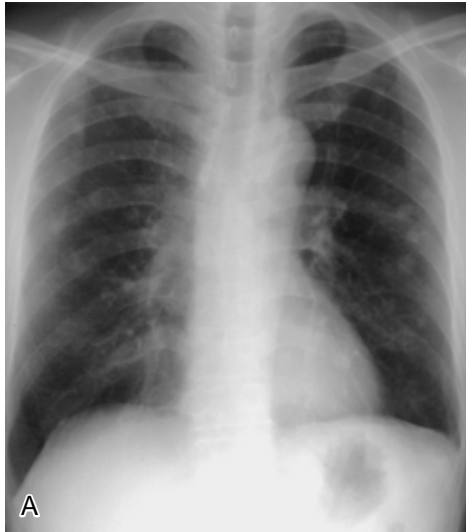


Fig. 1 A Chest radiograph taken on admission showing multiple nodular shadows in both lungs.

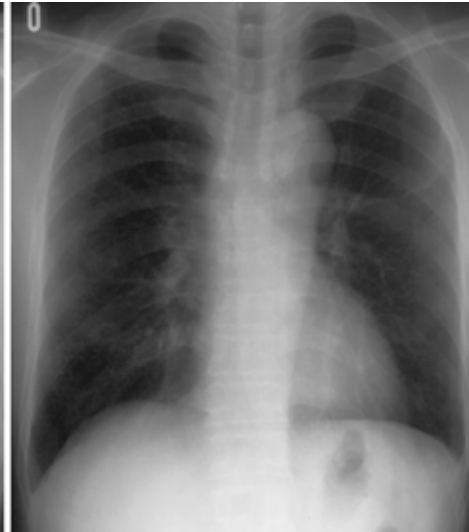


Fig. 4 Chest radiograph taken 5 months after smoking cessation, showing disappearance of multiple nodular shadows.



Fig. 1B Chest CT taken on admission showing multiple nodular shadows in both lungs.

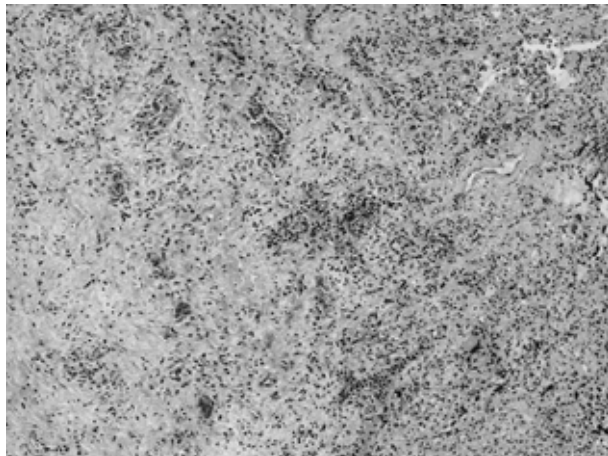


Fig. 2 Histological appearance of eosinophilic granuloma. (HE staining, original magnification $\times 30$)

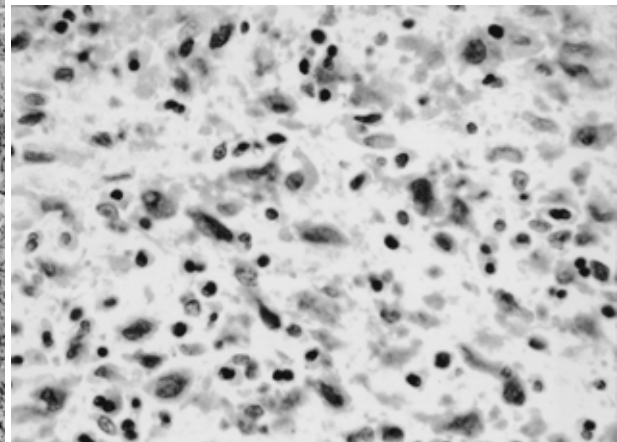


Fig. 3 Positive immunohistochemical staining for S-100 protein in histiocytes. (Original magnification $\times 300$)

ほぼ完全な陰影の消失を認めた。また禁煙により乾性咳嗽は消失した。

症例 2 : 37 歳, 女性, 看護師。

主訴 : 乾性咳嗽。

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 : 煙草 15 本/日 × 20 年。

現病歴 : 1998 年 12 月頃より乾性咳嗽を自覚していた。1999 年 2 月下旬より増強したため近医受診し, 胸部 X 線上多発性結節性陰影を指摘され転移性肺腫瘍疑いにて当院紹介となった。乾性咳嗽以外には症状は乏しく, 体重減少, 呼吸困難, 全身倦怠感, 盗汗は認められなかった。

入院時身体所見 : 身長 160 cm, 体重 52 kg, 意識清明, 血圧 110/70 mmHg, 心拍数 78/分, 整, 呼吸数 14/分, 体温 36.5, チアノーゼ・ばち状指なし, 貧血黄疸なし, 口腔内異常所見なし, 頸部リンパ節触知せず, 心音正常, 呼吸音正常, 腹部異常なし, 神経学的異常所見なし, 浮腫なし。

入院時検査所見 : 末梢血検査では好酸球増多を認めた。血液生化学検査では特に異常を認めなかった。血清学的検査では IgE の上昇が認められた。動脈血ガス分析, 呼吸機能検査ともに正常であった。喀痰一般細菌, 結核菌ともに陰性であり, 血清中腫瘍マーカーもすべて正常であった。

画像所見 : 胸部 X 線 (Fig. 5A) および胸部 CT (Fig. 5B) では, 両側肺に比較的辺縁明瞭な結節性陰影を多数認めた。一部空洞を伴う結節も認められた。肺門縦隔リンパ節腫大は認められなかった。上腹部・骨盤部 CT, 腹部エコー, 上部消化管内視鏡および大腸内視鏡では明らかな悪性腫瘍を疑わせる病変は指摘できなかった。

病理所見 : 経気管支肺生検では確定診断が得られなかったため, 17 G クイックカット針 (Quick-Cut C2, 八光メディカル社) を用い, CT ガイド下に肺腫瘍の経皮的肺生検を施行した。生検後, 気胸や出血などの合併症は認められなかった。腫瘍部位の光顕像では非乾酪性肉芽腫を認め, 周囲にはほとんど線維化を認めなかった。強拡大像では組織球系細胞から形成される肉芽腫性病変と周囲への好酸球の浸潤を認めた。免疫染色にて組織球系細胞は S-100 蛋白陽性であり, PEG と診断した。

臨床経過 : 診断時より禁煙指導を行い, 禁煙のみにて経過観察した。禁煙により乾性咳嗽は消失した。禁煙 3 ヶ月後の胸部 X 線では両肺野結節影の著明な縮小を認めた。禁煙 1 年後の胸部 X 線 (Fig. 6) および胸部 CT では結節影はほぼ消失し, 末梢血好酸球数および血清 IgE ともに正常化した。

考 察

肺好酸球性肉芽腫 (PEG) は Langerhans 細胞が好酸球を伴って増殖し, 肺の線維化を来す原因不明の疾患で, 本邦では比較的稀だとされるが, 1957 年の報告⁴⁾以来, その特徴的な画像所見から報告例は増加している。

PEG 患者の約 90% に喫煙歴を認め⁵⁾, 発症と喫煙の関係が推定されていること, 病変の消退と喫煙歴に相関を認めたとの報告⁶⁾があること, また自然軽快の報告例も多く⁵⁾, ステロイドや免疫抑制剤の有効性については検討が不十分であることから, PEG 患者には治療の見地から禁煙指導を行うことが重要であると考えられる。自験例は 2 例とも喫煙歴を有し, 禁煙のみで経過観察したところ自覚症状および画像所見の改善を認めた。ただし自然軽快例に占める禁煙例の比率, 臨床経過の比較など, PEG の経過に及ぼす禁煙の影響については十分な検討はなく, 今後の症例の集積が必要と思われる。

PEG の典型的 X 線像は, 両側の粒状網状影, 輪状影あるいは嚢胞状陰影であり, 全肺野に分布するものが大半であるが, 上中肺野に病変が強いとされる²⁾。粒状影は, 胸部 X 線上で径 1~5 mm 以下であることが多く, 径 1 cm 以上の結節影を呈する頻度は 16~19% と報告されている^{7,8)}。自験例では, 2 例ともに胸部 X 線上粒状網状影, 輪状影および嚢胞状陰影は認められず, 両側肺に比較的辺縁明瞭な径 1 cm を超える結節状陰影を多数認めた。また PEG の胸部 CT および肺野 HRCT 像は, 薄壁の嚢胞陰影あるいは小結節影を呈することが多く, それぞれ 94%, 78% に認められる³⁾。結節影の分布は主に小葉中心性で, 径 5 mm 以下であることが多く, 径 1 cm 以上の結節を認める頻度は 24% であるとされる⁹⁾。自験例では胸部 CT 上薄壁嚢胞は認められず, 径 1 cm 以上の結節影が両肺野に多数認められた。径 5 mm 以下の小結節影は, 症例 1 では径 1 cm 以上の結節影と一部混在していたが, 症例 2 ではほとんど認められなかった。また一部の小結節は小葉中心性分布を示したが, 結節の径が大きくなるに従って小葉構造との関係が不明瞭となり, 径 1 cm 以上の結節では小葉構造とは無関係に存在しているものがほとんどであった。以上のことから, 自験例は画像所見的には PEG としては非典型例であると考えられた。

また自験例では胸部 X 線および胸部 CT で空洞を伴う結節陰影が認められた。PEG で胸部 CT 上空洞を伴う結節影を認める頻度は 14~43% であるとされる¹⁰⁾。PEG の自然経過中に充実性の結節が空洞を伴う結節に, また厚壁の嚢胞が薄壁嚢胞に変化することが知られており, 自験例でも, 充実性の結節が自然経過で空洞を伴う結節に変化したものだと考えられた。



Fig. 5A Chest radiograph taken on admission showing multiple nodular shadows in both lungs.



Fig. 6 Chest radiograph taken 12 months after smoking cessation, showing disappearance of multiple nodular shadows.

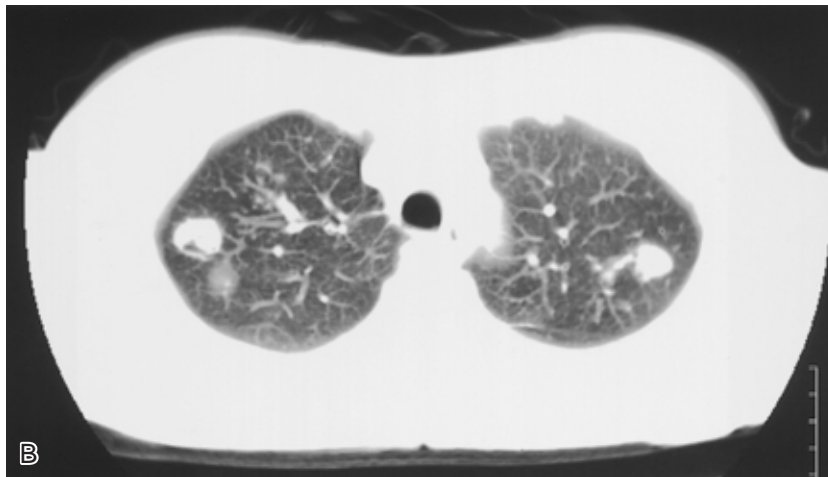


Fig. 5B Chest CT taken on admission showing multiple nodular shadows in both lungs.

胸部 X 線および胸部 CT で多発性結節性陰影を呈する疾患では、転移性肺腫瘍が最も多く、その他に日和見感染症、悪性リンパ腫、Wegener 肉芽腫症、多発性過誤腫など多くの疾患名が挙げられるが、頻度は低い。そのため吉川ら¹¹⁾の報告でもみられるように、多発性結節性陰影を呈する PEG は、転移性肺腫瘍を疑われて精査されることが多く、自験例も当初転移性肺腫瘍が最も疑われた。転移性肺腫瘍と PEG の胸部 CT 所見による鑑別点として、①結節の分布：転移性肺腫瘍では既存の肺構造に無関係に random に分布するが、PEG では主に小葉中心性分布である、②結節周囲の病変：PEG では

周囲に薄壁嚢胞が併存することが多い、③結節の辺縁：転移性肺腫瘍ではほとんどの結節が辺縁明瞭であり、PEG でも比較的辺縁明瞭な結節が多いが、空洞や線維化周囲の結節は辺縁不整になる、などが挙げられる。しかし、自験例のように結節が小葉中心性分布を示さず、薄壁嚢胞の認められない PEG 症例では、両者の鑑別は困難であると考えられる。

以上のように多発性結節性陰影を呈する PEG は、PEG の画像所見としては非典型的であるが、転移性肺腫瘍との鑑別診断上重要であり、肺野に多発性結節性陰影を呈する疾患では転移性肺腫瘍のみならず PEG も鑑別疾患

として考える必要性があると思われた .

文 献

- 1) 浅本 仁, 北市正則, 長井苑子, 他: わが国における肺好酸球性肉芽腫症 17 症例についての臨床的分析 . 日胸疾会誌 1995; 33: 1372-1381.
- 2) 和泉孝志, 北村 諭: 胸部 X 線像の読み方 . VIII . 肺好酸球性肉芽腫症 . 内科 1982; 50: 332-335.
- 3) Brauner MW, Greiner P, Mouelhi MM, et al: Pulmonary histiocytosis X: evaluation with high resolution CT. Radiology 1989; 172: 255-258.
- 4) 岩井和郎, 丸山満典, 田尻定雄: 肺の好酸球性肉芽腫の 1 症例 . 日本臨床 1957; 15: 2015-2019.
- 5) Friedman PJ, Liebow AA, Sokoloff J: Eosinophilic granuloma of lung. Clinical aspects of primary histiocytosis in the adult. Medicine 1981; 60: 385-396.
- 6) 小林英夫, 高草木護, 中沢堅次, 他: 経気管支肺生検で診断し得た肺好酸球性肉芽腫症の 1 例 . 日胸疾会誌 1991; 29: 1079-1082.
- 7) Lacronique J, Roth C, Battesti JP, et al: Chest radiological features of pulmonary histiocytosis X: A report based on 50 adult cases. Thorax 1982; 37: 104-109.
- 8) 土井 修, 野辺地篤郎, 伊藤慶夫, 他: 肺好酸球性肉芽腫症の X 線所見 . 日胸疾会誌 1983; 21: 548-552.
- 9) Greiner P, Valeyre D, Cluzel P, et al: Chronic diffuse interstitial lung disease: diagnostic value of chest radiography and high-resolution CT. Radiology 1991; 179: 123-132.
- 10) Brauner MW, Greiner P, Tijani K, et al: Langerhans cell histiocytosis: evolution of lesions on CT scans. Radiology 1997; 204: 497-502.
- 11) 吉川雅子, 堅田 均, 三上理一郎, 他: 空洞化を伴う多発結節影を呈し開胸肺生検により診断し得た肺好酸球性肉芽腫症 . 日胸疾会誌 1985; 23: 629-633.

Abstract

Two Cases of Pulmonary Eosinophilic Granuloma with Multiple Nodular Shadows

Masaki Hanibuchi^{1,3)}, Hiroshi Hirano²⁾, Seigo Kitada¹⁾, Toshihiko Yamaguchi¹⁾,
Tatsuya Okada¹⁾, Masaru Nakagawa¹⁾, Soichiro Yokota¹⁾ and Masami Ito¹⁾

¹⁾Department of Internal Medicine, ²⁾Department of Pathology, Toneyama National Hospital,
5-1-1, Toneyama, Osaka, 560-8552, Japan

³⁾Department of Internal Medicine and Molecular Therapeutics, Course of Medical Oncology, University of
Tokushima School of Medicine, 3-18-15, Kuramoto-cho, Tokushima, 770-8503, Japan

We encountered two rare cases of pulmonary eosinophilic granuloma with multiple nodular shadows in both lungs. The patient in case 1 was a 54-year-old man complaining of dry cough and chest pain. He had smoked 20 cigarettes a day for 36 years. The patient in case 2 was a 37-year-old woman complaining of dry cough. She had smoked 15 cigarettes a day for 20 years. Chest radiography and CT revealed multiple nodular shadows in both lungs. Diagnosis was made by open lung biopsy in case 1 and by percutaneous lung biopsy in case 2. After smoking cessation, symptoms improved markedly and the shadows in the chest radiographs and CT disappeared. In cases of bilateral multiple nodular shadows, other than metastatic lung tumor cases, pulmonary eosinophilic granuloma should be considered.