

●症 例

巨大ブラを呈した Cryptogenic organizing pneumonia の 1 例

井上 哲郎¹⁾ 田中 栄作¹⁾ 櫻本 稔¹⁾ 水口 正義¹⁾ 前田 勇司¹⁾
 馬庭 厚¹⁾ 谷澤 公伸¹⁾ 竹田 知史¹⁾ 岡元 昌樹¹⁾ 小橋陽一郎²⁾
 弓場 吉哲²⁾ 野間 恵之³⁾ 田口 善夫¹⁾

要旨：症例は 66 歳男性。発熱あり他院に入院し、右肺野に浸潤影を認めたため肺炎の診断で抗菌薬を投与されたが改善なく当院に転院した。画像上、右肺の浸潤影に接して巨大ブラを認めた。経気管支肺生検で細胞浸潤を伴う胞隔炎と器質化病変を認めた。臨床経過および病理所見から Cryptogenic organizing pneumonia と診断し副腎皮質ステロイド剤を投与したところ自覚症状および画像所見の改善がえられた。以前の画像に嚢胞性病変はなく、浸潤影に接して嚢胞が形成され急速に増大した経過から、細気管支炎領域のチェックバルブメカニズムが嚢胞形成の機序として推測された。巨大ブラを呈した Cryptogenic organizing pneumonia はまれであるため報告した。

キーワード：特発性器質化肺炎，BOOP，巨大ブラ，嚢胞性変化，経気管支肺生検

Cryptogenic organizing pneumonia, Bronchiolitis obliterans organizing pneumonia,
Giant bulla, Cystic change, Transbronchial lung biopsy

緒 言

今回われわれは巨大ブラを呈し、細気管支炎領域のチェックバルブメカニズムが嚢胞形成の機序として推測された、特発性器質化肺炎 (Cryptogenic organizing pneumonia, COP) 症例を経験したので報告する。

症 例

症例：66 歳，男性。

主訴：発熱。

家族歴：特記すべきことなし。

既往歴：特記すべきことなし。

職業歴：農業。

喫煙歴：なし。

飲酒歴：なし。

現病歴：2001 年 5 月 15 日頃から 37°C 台の発熱あり、5 月 22 日右上肺野に浸潤影を認め肺炎の診断で他院に入院した。抗菌薬 (メロペネムおよびクリンダマイシン) を投与されたが改善なく、5 月 31 日頃から右肺にブラが出現し徐々に増大した。6 月 14 日に右気胸を発症し、気胸は胸腔ドレナージで改善したが、ブラと浸潤影は改

善せず当科紹介受診となり、精査のため 6 月 20 日に転入院となった。

入院時現症：身長 165cm，体重 60kg，体温 37.3°C，脈拍 84/分整，血圧 120/65mmHg，呼吸数 12/分，SpO₂ 96%。意識清明，チアノーゼなし。結膜に貧血黄疸なく，表在リンパ節は触知せず。右肺呼吸音の低下を認めた。心音や腹部所見に異常は認めなかった。

入院時検査所見 (Table 1)：血沈の上昇，CRP の軽度上昇を認めた。KL-6 は上昇していなかった。呼吸機能検査は気胸発症直後のため施行しなかった。

胸部 X 線写真：入院約 1 年前 (2000 年) には異常を認めなかった。嚢胞性病変も認めなかった (Fig. 1-a)。前医入院時 (5 月 22 日) には右上肺野に浸潤影を認めた (Fig. 1-b)。5 月 31 日には右上肺野の浸潤影に接してブラを認めた (Fig. 1-c)。6 月 14 日に右気胸を発症した (Fig. 1-d)。気胸はその後の胸腔ドレナージで改善した。当科入院時 (6 月 20 日) の胸部 X 線写真では右肺に巨大なブラと浸潤影を認めた。また左肺にも淡い浸潤影を認めた (Fig. 1-e)。

胸部 CT：前医入院時 (5 月 22 日) には右肺に非区域性的浸潤影を認めた (Fig. 2-a, b)。当科入院後 (6 月 22 日) の胸部 CT では右肺に巨大なブラと浸潤影を認めた。また左肺にも淡い浸潤影を認めた (Fig. 3-a, b)。

当科入院後の経過：精査のため気管支鏡検査を行った。右肺中葉で行った気管支肺胞洗浄 (BAL) ではリンパ球増多を認め、培養や細胞診は陰性であった。右肺

〒632-8552 奈良県天理市三島町 200

¹⁾天理よろづ相談所病院呼吸器内科

²⁾同 病理

³⁾同 放射線部

(受付日平成 17 年 8 月 31 日)

Table 1 Laboratory data on admission

| | | | |
|------------------|---|-------------------------------|---------------------------|
| Peripheral Blood | | Urinalysis | |
| WBC | 5,500/mm ³ | Glucose | (-) |
| N. Seg | 49% | Protein | (-) |
| N. Band | 1% | Serology | |
| Ly. | 39% | CRP | 1.9 mg/dl |
| Eos. | 5% | IgE | 57 U/ml |
| Mon. | 5% | RF | 2.9 IU/ml |
| Bas. | 1% | ANA | (-) |
| RBC | 347 × 10 ⁴ /mm ³ | <i>M. pneumonia</i> Ab (CF) | <4 |
| Hb | 11.2 g/dl | <i>C. pneumonia</i> IgA Ab | (-) |
| Ht | 33.7% | IgG Ab | (-) |
| Plt | 40.1 × 10 ⁴ /mm ³ | Blood gas analysis (room air) | |
| ESR | 79 mm/hr | PH | 7.459 |
| Blood Chemistry | | PaCO ₂ | 35.9 mmHg |
| Total Protein | 6.7 g/dl | PaO ₂ | 68.3 mmHg |
| Albumin | 2.9 g/dl | Sputum Culture | |
| BUN | 14.5 mg/dl | (-) | |
| Creatinine | 0.8 mg/dl | BALF: right-B ⁴ | |
| Glucose | 100 mg/dl | Recovery | 51/150 ml |
| T-Chol | 193 mg/dl | Total cell count | 1.0 × 10 ⁵ /ml |
| T-Bil | 0.7 mg/dl | Neut. | 2% |
| LDH | 209 IU/L | Ly. | 40% |
| AST | 30 IU/L | Eos. | 6% |
| ALT | 38 IU/L | Mφ | 52% |
| CK | 41 IU/L | CD4/8 | 0.4 |
| Na | 139 mEq/L | <i>P. carinii</i> | (-) |
| K | 4.6 mEq/L | Culture | (-) |
| Cl | 104 mEq/L | | |
| KL-6 | 402 U/ml | | |

下葉の経気管支肺生検 (TBLB) においては、弱拡大では細胞浸潤を伴う胞隔炎があり (Fig. 4-a), 強拡大では末梢気腔に、再生上皮によって被覆されている器質性病変を認めた (Fig. 4-b). 以上の臨床経過と BAL, TBLB の所見から特発性器質性肺炎 (Cryptogenic organizing pneumonia, COP) と診断した. 入院後に測定したマイコプラズマやクラミジアニューモニア抗体の上昇はなかった. 感染や薬剤の関与は否定的であり, 膠原病を疑わせる所見も認めないことから特発性と診断した.

6月27日からプレドニゾン 30mg/日, を開始したところ自覚症状および画像所見の改善を認めたためプレドニゾンを漸減し約1年後に中止した. プレドニゾン中止時の胸部 X 線 (Fig. 1-f) および胸部 CT (Fig. 5-a, b) では, プラ, 浸潤影ともに消失しており右中肺野に索状影が残存するのみであった. 現在, プレドニゾン中止後約3年が経過しているが再燃はみられていない.

考 察

COP は 1983 年に Davison ら¹⁾により提唱された臨床

病理学的疾患概念で, 1985年に Epler ら²⁾によって提唱された BOOP (Bronchiolitis obliterans organizing pneumonia) と同一の疾患であると認識されている. 本邦では BOOP という呼称の方が一般的であったが, International multidisciplinary consensus classification では COP の名称の使用が望ましいとされている^{3,4)}.

COP の画像所見は気管支透亮像を伴う非区域性の多発浸潤影が一般的であり⁴⁾, 嚢胞性病変を伴う報告はまれである. 肺気腫に COP が合併した場合, 肺気腫による気腔を避けるように COP による浸潤影が出現するため, 不均一で網状の陰影 (いわゆる swiss cheese appearance) を呈することが知られている^{5,6)}. しかし, 本例のように COP による浸潤影に続いて嚢胞性病変が出現する例はきわめてまれであり, 検索しえた範囲では今まで中山らの報告があるのみであった⁷⁾. 中山らは嚢胞形成の機序として, 細気管支炎領域がチェックバルブとなってその末梢の気腔が拡大し, 気腫性嚢胞を形成するものと推測している⁸⁾. 副腎皮質ステロイド剤の投与によって細気管支炎領域のチェックバルブメカニズムが消失し嚢胞内の空気が排出され, かつ嚢胞周囲の肺胞領域



Fig. 1-a Chest radiograph one year before admission shows no abnormality.

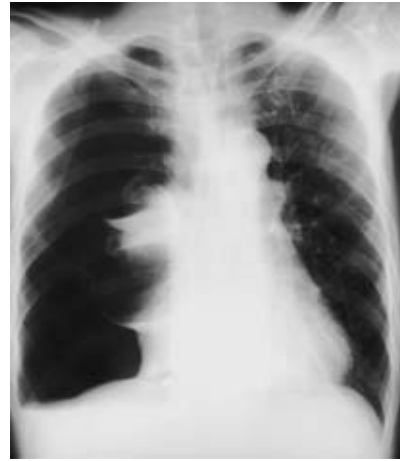


Fig. 1-d Chest radiograph on June 14 shows pneumothorax.



Fig. 1-b Chest radiograph on May 22 shows consolidation in the right upper lung field.



Fig. 1-e Chest radiograph on admission shows large bullae and consolidation in the right lung field, also consolidation in the left lung field.



Fig. 1-c Chest radiograph on May 31 shows a bulla adjacent to the consolidation.



Fig. 1-f Chest radiograph one year after treatment shows the improvement.

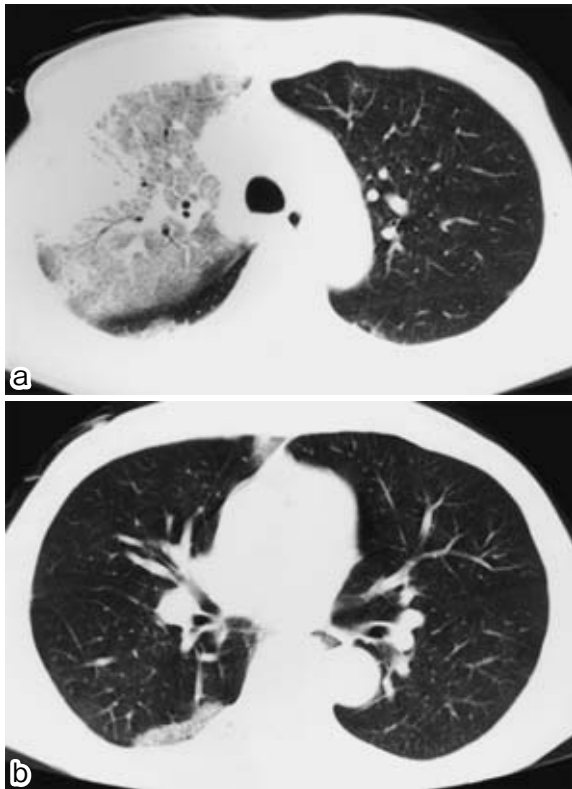


Fig. 2-a, b Chest CT on May 22 reveals consolidation in the right lung field.

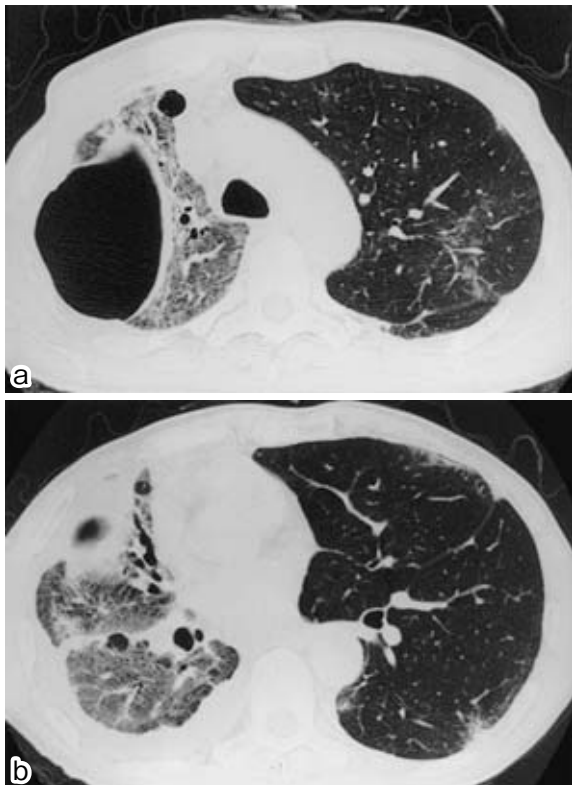


Fig. 3-a, b Chest CT on admission reveals large bullae and consolidation in the right lung field, also consolidation in the left lung field.

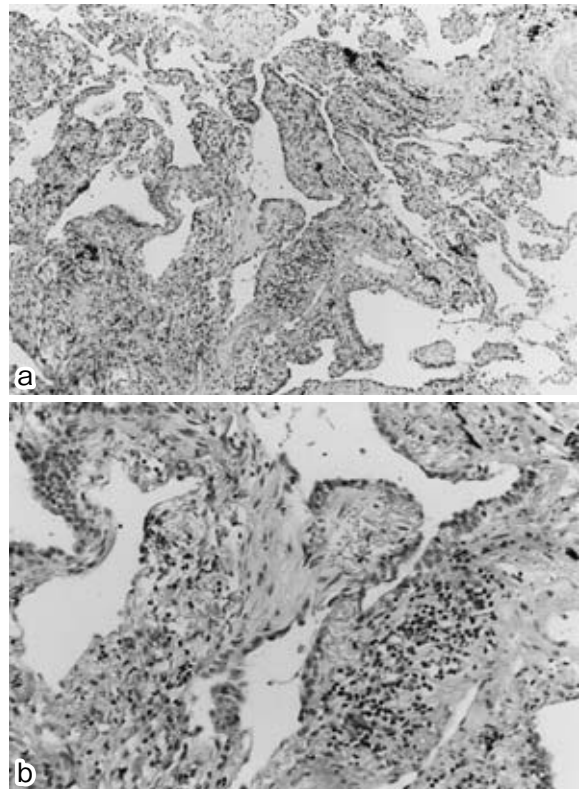


Fig. 4 TBLB specimen reveals infiltration of mononuclear cells in alveolar septa (Fig. 4-a: HE, $\times 5$), and organizing lesions in alveolar duct (Fig. 4-b: HE, $\times 25$).

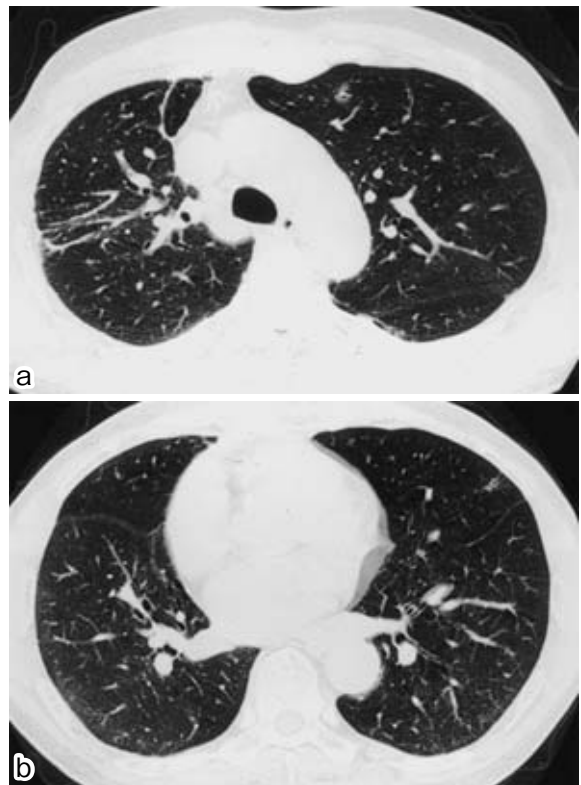


Fig. 5-a, b Chest CT one year after treatment reveals improvement.

の病変が改善して含気が回復したため嚢胞の消退に至るものと推測されている⁷⁾。

本例においても画像的には既存の嚢胞性病変はなく、浸潤影に接して新しく嚢胞が形成され急速に増大したことから、同様に細気管支炎領域のチェックバルブメカニズムが嚢胞形成の機序として推測された。経過中にブラからのエアリークにより気胸を生じたものと思われたが、気胸は胸腔ドレナージにて改善した。COPと診断ののち、副腎皮質ステロイド剤の投与によって浸潤影の改善とともにブラの消退に至った。

以上、巨大ブラを呈し、細気管支炎領域のチェックバルブメカニズムが嚢胞形成の機序として推測された COP 症例を報告した。COP 症例で嚢胞性病変を伴うことはまれではあるがおこりうるという点に注意が必要と思われた。

なお、本論文の要旨は第 62 回日本呼吸器学会近畿地方会 (2003 年 12 月大阪) で発表した。

謝辞：貴重な症例をご紹介いただきました、奈良県立三室病院の紀川伊敏先生に深謝申し上げます。

引用文献

- 1) Davison AG, Heard BE, McAllister WA, et al. Cryptogenic organizing pneumonitis. *Q J Med* 1983; 52: 382—394.
- 2) Epler GR, Colby TV, Mcloud TC, et al. Bronchiolitis obliterans organizing pneumonia. *N Engl J Med* 1985; 312: 152—158.
- 3) American thoracic society/European thoracic society. International multidisciplinary consensus classification of the idiopathic interstitial pneumonias. *Am J Respir Crit Care Med* 2002; 165: 277—304.
- 4) 日本呼吸器学会びまん性肺疾患診断・治療ガイドライン作成委員会編. 特発性間質性肺炎診断と治療の手引き. 南江堂, 東京, 2004; 48—53.
- 5) 水之江俊治, 河野 宏, 森永亮太郎, 他. 胸部画像上 swiss cheese appearance 像を呈した BOOP 様病変合併肺気腫の 1 例. *日胸* 2001; 60: 636—641.
- 6) 加来千佳, 吉井千春, 岡部由紀子, 他. 興味深い画像所見を呈した肺気腫合併 COP/BOOP とされる 1 例. *呼吸* 2003; 22: 921—926.
- 7) 中山智子, 蜂須賀久喜, 阿久澤浩司, 他. 治癒過程において一過性に嚢胞形成を認め, TBLB と臨床経過により診断しえた特発性 Bronchiolitis obliterans organizing pneumonia (BOOP) の 1 例. *日呼吸会誌* 1999; 37: 922—927.
- 8) 八木一之, 人見滋樹. 嚢胞性肺疾患の発生, 進展, 治療. *呼と循* 1991; 39: 1181—1187.

Abstract

A case of cryptogenic organizing pneumonia accompanied by large bullae

Tetsuro Inoue¹⁾, Eisaku Tanaka¹⁾, Minoru Sakuramoto¹⁾, Masayoshi Minakuchi¹⁾, Yuji Maeda¹⁾, Ko Maniwa¹⁾, Kiminobu Tanizawa¹⁾, Tomoshi Takeda¹⁾, Masaki Okamoto¹⁾, Yoichiro Kobashi²⁾, Yoshiaki Yuba²⁾, Satoshi Noma³⁾ and Yoshio Taguchi¹⁾

¹⁾Department of Respiratory Medicine

²⁾Department of Pathology

³⁾Department of Radiology, Tenri Hospital

A 66-year-old man complaining of fever was given intravenous antibiotic therapy, but he did not improve. After subsequent admission, chest X-ray film and computed tomography scans showed large bullae and consolidation in the right lung field. A transbronchial lung biopsy specimen revealed infiltration of mononuclear cells in alveolar septa and organizing lesions in alveolar ducts. We considered this case to be cryptogenic organizing pneumonia (COP) from its clinical course and pathological findings. Treatment with corticosteroid resulted in disappearance of the large bullae and consolidations. COP accompanied by large bullae is very rare. The large bullae may have been caused by check-valve mechanism.