

●症 例

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 例金原 正志¹⁾ 土井美帆子²⁾ 中村 憲二³⁾ 中野喜久雄⁴⁾ 平本 雄彦⁴⁾

要旨：症例は 27 歳，男性．平成 10 年 12 月下旬より胸痛，咳嗽を認め，近医受診も症状改善せず平成 11 年 1 月 8 日当科入院．入院時胸部 X 線写真では気管分岐角の開大を認め，胸部 CT，胸部 MRI において中縦隔に境界明瞭な嚢胞性腫瘍影を認めた．入院時検査にて軽度の炎症所見と血清 Sialyl Lewis X-i 抗原（以下 SLX）高値を示した．悪性腫瘍を完全に否定しきれず腫瘍摘出術を施行した．病理学的には，嚢胞壁は線毛円柱上皮で覆われ悪性所見は認められず，気管支嚢胞と診断した．嚢胞液中の SLX は 56,700U/ml と著明に上昇していた．免疫組織化学的染色で嚢胞壁の上皮細胞は陽性所見を示した．術後血清 SLX は 96.2 U/ml まで低下した．

キーワード：気管支嚢胞，SLX，免疫組織化学

Bronchogenic cyst, SLX, Immunohistochemistry

緒 言

気管支嚢胞は，胎生 26 日から 40 日の間に前腸から分芽する肺芽が，過剰にまたは異所性の発生異常に起因し，異常発芽の起こる時期の違いにより，傍気管や縦隔または肺内に嚢胞を形成したもので¹⁾，外科的切除により予後は良好と考えられている²⁾．近年，血清や嚢胞液中の腫瘍マーカーが高値を示す気管支嚢胞の報告が散見される．今回，我々は 2 カ月間に急速な増大傾向を認め，血清及び嚢胞液中 SLX が高値を示した気管支嚢胞の 1 例を経験したので若干の文献的考察を加え報告する．

症 例

症例：27 歳，男性．

主訴：胸痛，咳嗽．

既往歴：特記すべきことなし．

喫煙歴：20 本/日×7 年．

現病歴：平成 10 年 12 月下旬より胸痛，咳嗽を認め近

医受診，感冒と診断され内服加療も症状改善認めず，平成 11 年 1 月 8 日当科受診，入院となった．

入院時現症：意識清明，脈拍 70/分・整，血圧 140/70 mmHg，体温 36.6℃，結膜に貧血，黄疸なく，呼吸音・心音異常なし．腹部，神経学的所見異常なく，表在リンパ節触知せず．

入院時検査所見（Table 1）：分画は正常であったが白血球数増加，血沈の亢進及び CRP の軽度上昇を認めた．腫瘍マーカーは SLX が 731U/ml と著しい高値を示したが，その他の腫瘍マーカーは正常範囲内であった．呼吸機能検査，動脈血ガス分析において異常所見を認めなかった．

胸部 X 線写真（Fig. 1）：来院 2 カ月前の健診時胸部 X 線写真（Fig. 1a）に比し入院時の胸部 X 線写真（Fig. 1b）では，気管分岐角の開大を認めた．肺野には異常所見を認めなかった．

入院時胸部 CT（Fig. 2）：胸部 CT では，気管分岐下，前方は右肺動脈，左心房，後方は胸椎，下行大動脈に囲まれた領域に 9cm×7cm 大の辺縁整，境界明瞭な low density mass を認めた．

胸部 MRI（Fig. 3）：胸部 MRI においても気管分岐下，右肺動脈，胸椎，下行動脈に囲まれ，T1 強調像（Fig. 3a）で中等度，T2 強調像（Fig. 3b）で高信号を呈する 8.5cm×6.5cm×8.0cm，2.0cm×1.5cm×1.5cm の 2 個の cystic mass を認めた．

気管支鏡検査所見（Fig. 4）：気管支鏡検査では，左主気管支膜様部の圧排狭窄を認めたが，粘膜面に異常を認

〒729-2316 広島県竹原市忠海中町 2-2-45

¹⁾ 呉共済病院忠海分院内科

〒734-8530 広島県広島市南区宇品神田 1-5-54

²⁾ 県立広島病院腫瘍科

〒791-0281 愛媛県東温市横河原 366 番地

³⁾ 国立病院機構愛媛病院呼吸器外科

〒737-0023 広島県呉市青山町 3-1

⁴⁾ 国立病院機構呉医療センター呼吸器内科

（受付日平成 18 年 3 月 20 日）

Table 1 Laboratory data on admission

Hematology		Biochemistry		Tumor markers	
WBC	12,400/ μ l	TP	6.9 mg/dl	CEA	4.1 ng/ml
seg	68.9%	ALB	4.0 mg/dl	SLX	731 U/ml
Eo	1.35%	T-bil	0.9 mg/dl	SCC	0.9 ng/ml
Ba	0.5%	AST	15 IU/l	CYFRA	< 0.5 ng/ml
Ly	23.4%	ALT	9 IU/l	Pro-GRP	18.5 pg/ml
Mo	5.9%	γ -GTP	12 IU/l		
RBC	481×10^4 / μ l	LDH	191 IU/l	Pulmonary function test	
Hb	14.1 g/dl	Cr	0.8 mg/dl	VC	4.55 L
Hct	42.1%	BUN	13 mg/dl	%VC	100.4%
Plt	25.8×10^4 / μ l	Na	139 mEq/l	FEV1.0	4.15 L
		K	4.4 mEq/l	FEV1.0%	93.3%
		Cl	98 mEq/l		
Serology					
ESR	43 m/hr				
CRP	2.7 mg/dl				

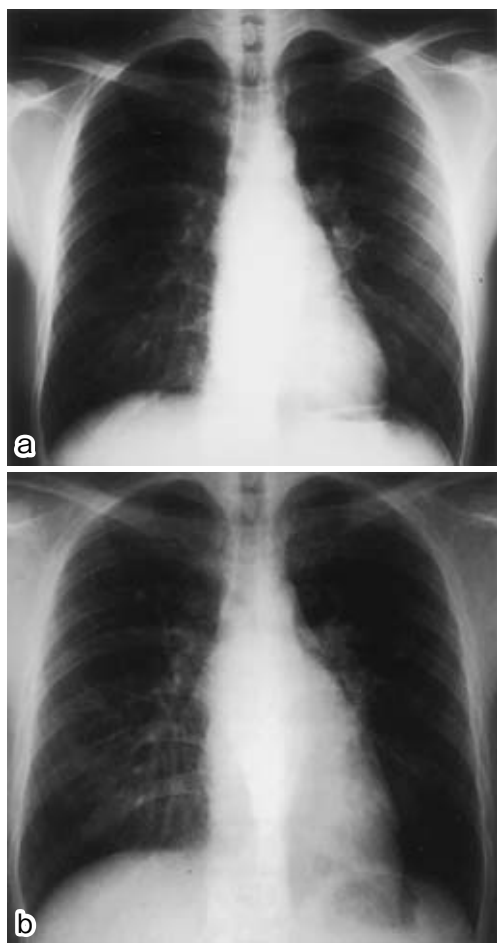


Fig. 1 Chest radiograph taken on admission (b), showing widening of the tracheal bifurcation in comparison with a chest radiograph at the time of a medical examination about 2 months before admission (a).

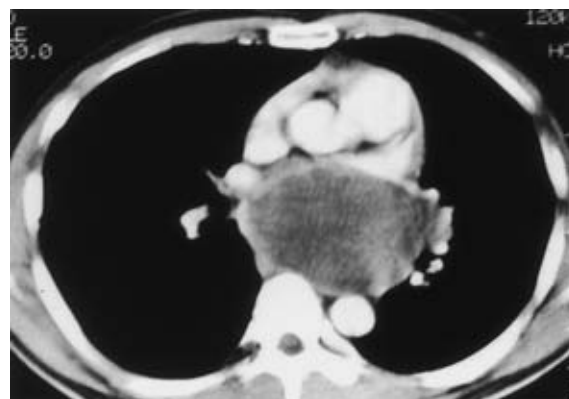


Fig. 2 Chest computed tomography on admission, showing a low density mass at the tracheal bifurcation.

て約 10cm にわたり右背側への圧排像を認めた。また粘膜面は平坦でバリウムの通過は良好であった。

画像所見からは囊胞性腫瘍が疑われたが、急速な増大傾向を示したことから、血清 SLX が高値を示したことから悪性腫瘍合併の可能性を否定できず、平成 11 年 1 月 26 日切除術が施行された。

手術所見：左後側方切開、第 6 肋骨の上縁に沿って第 5 肋間で開胸した。腫瘍は中縦隔に存在し弾性軟で、囊胞と周囲組織との癒着が強く境界は不明瞭で剝離困難であった。囊胞は約 10.5cm \times 5.0cm 大で内部に約 2cm 大の囊胞が隔壁されていた。内容液 (Fig. 6) は緑褐色透明で、内容液中の SLX は 56,700U/ml と高値であった。

病理組織学所見 (Fig. 7)：H.E 染色では、囊胞壁は線毛円柱上皮で覆われており、悪性所見を認めず気管支囊胞と診断した (Fig. 7a)。SLX による免疫組織染色では、囊胞壁の上皮細胞は SLX 陽性を呈した (Fig. 7b)。

入院時血清 SLX は 731U/ml と高値を示したが、術後

めなかった。

食道造影 (Fig. 5)：胸部中部から胸部下部食道にかけ

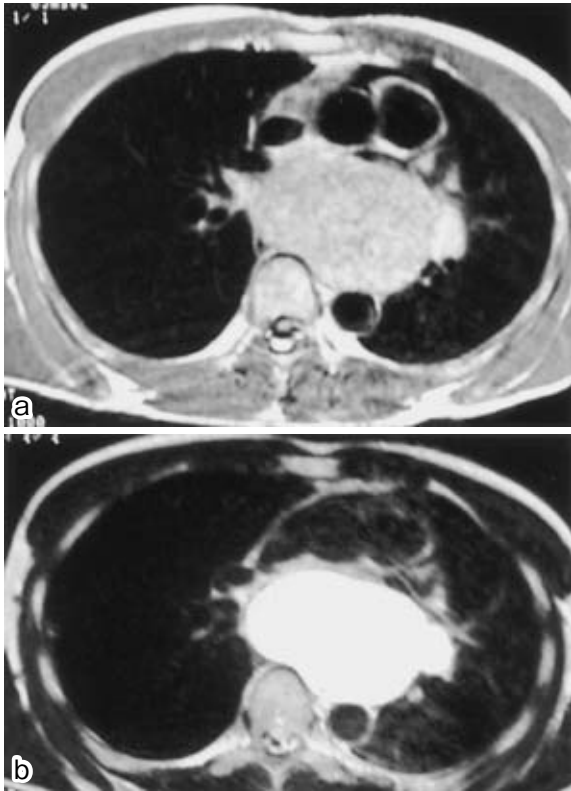


Fig. 3 Magnetic resonance imaging of the chest, showing a well defined mass with isointensity on T1-weighted images (a), and high intensity on T2-weighted images (b).

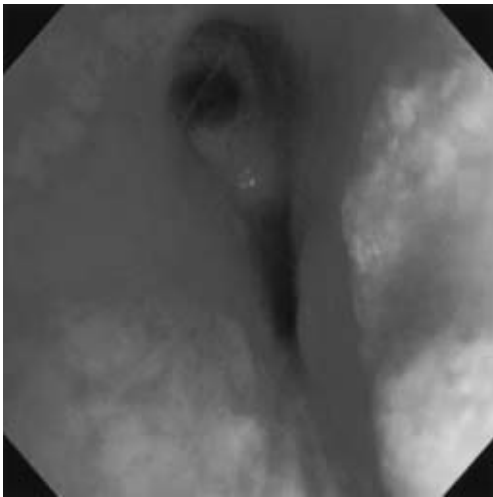


Fig. 4 Bronchoscopic examination showing stenosis of the left main bronchus.

14日で96.2U/mlまで改善した。

考 察

気管支嚢胞は、本邦では欧米に比し稀な疾患で無症状

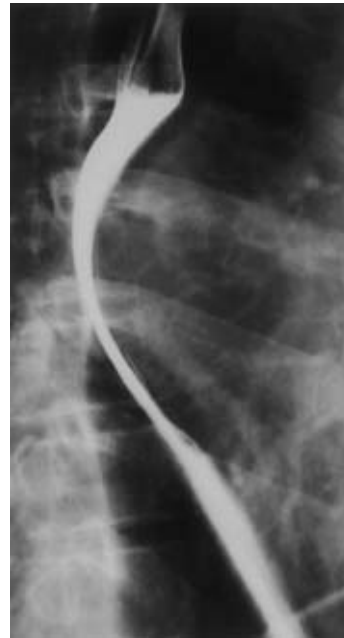


Fig. 5 Esophagram showing that the esophagus was compressed in the right posterior side by the tumor.

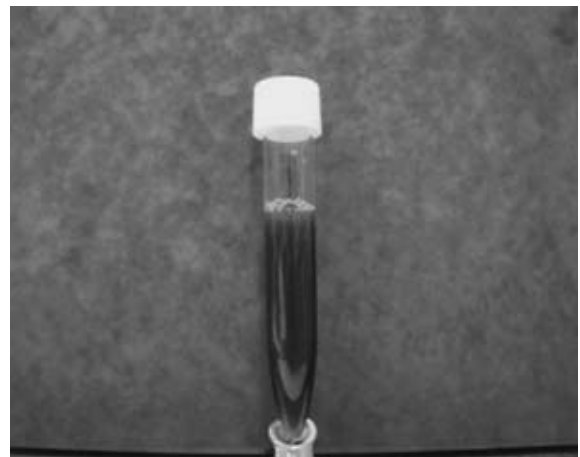


Fig. 6 The solution in the cyst was a drab olive transparent liquid.

で経過する症例もあり発症頻度の推定は困難とされているが、正岡らの全国集計では縦隔腫瘍中4.5%³⁾、寺松らの集計では5.3%と報告されている⁴⁾。発生部位は大きく肺内と縦隔に分けられ、さらに縦隔気管支嚢胞はMaierの分類で、I型 paratracheal, II型 carinal, III型 hilar, IV型 paraesophageal, V型 miscellaneousの5型に分類されている⁵⁾。大畑らによる本邦の集計では、I型とIII型が多いと報告されている⁶⁾が本症例は気管分岐下部に発生しておりMaier分類ではII型に分類される。

縦隔気管支嚢胞は、通常臨床症状を欠くことが多いが、

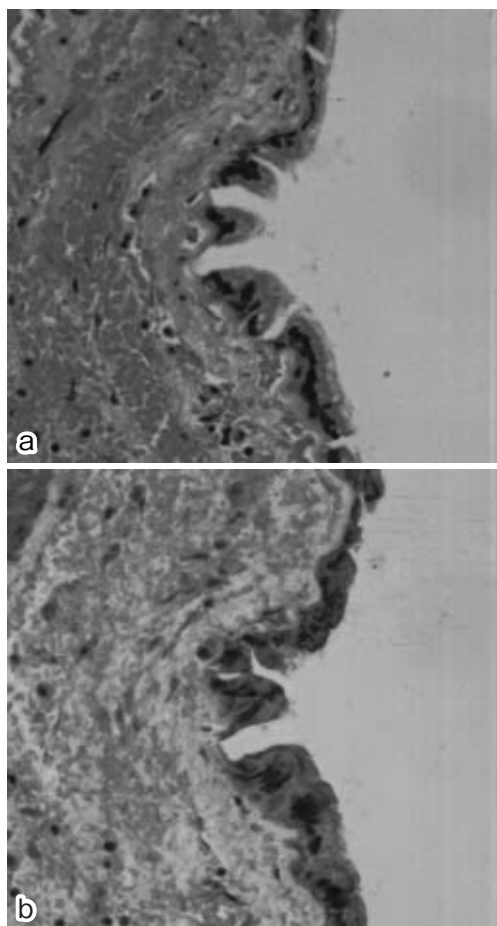


Fig. 7 (a) Histopathologically, the cyst wall was covered with ciliated columnar epithelium. (H.E. stains)
(b) Immunohistochemical staining of cystic epithelium was positive for SLX.

隣接臓器の圧迫症状として呼吸困難、嚥下困難、咳嗽、あるいは感染症状として発熱、胸痛、喀痰などを呈する。新生児期から圧迫症状や感染症状を呈する症例以外は健診時に偶然発見されたり、剖検により発見されることが多い⁵⁾。本症例では、胸部 X 線上短期間に気管支囊胞が増大し、入院時検査所見にて軽度の炎症所見を認め、さらに術中所見で囊胞と周囲組織との癒着が強く境界が不明瞭であったことから、囊胞内感染により囊胞内の内溶液が急激に増加しそのため圧迫症状である咳嗽、胸痛が出現したと考えられた。

囊胞液中、血清中腫瘍マーカーが上昇する気管支囊胞例が報告されているが、CA19-9 上昇例^{7)~13)}が最も多くその他 CA19-9 及び CEA 上昇例¹⁴⁾、CA19-9 及び CA125 上昇例¹⁵⁾¹⁶⁾、SCC 上昇例¹⁷⁾の報告も散見される。本症例では CEA, SCC, CYERA, Pro-GRP などその他の血清腫瘍マーカーは正常であったが血清 SLX のみが高値であった。肺膿瘍例¹⁸⁾、胸腺囊腫例¹⁹⁾では血清 SLX 高値例の報告はあるが、著者らが検索し得た限りでは気管支

囊胞例は本例以外に報告はなかった。

SLX はシアリルルイス X 抗原として分類される CA19-9 立体異性体で肺腺癌およびその他の肺癌、膝癌、卵巣癌において陽性率が高く、非悪性疾患での SLX 偽陽性率は 4.7% と極めて低く癌特異性が高いと報告されている²⁰⁾。本症例では、病理学的所見にて囊胞壁が線毛円柱上皮で覆われ悪性所見を認めなかったことから気管支囊胞と診断し、(1) 囊胞液中の SLX が 56,700U/ml と血清中に比べ著明に高かったこと、(2) 免疫組織化学的染色で囊胞壁の上皮細胞が SLX 陽性所見を示したこと、(3) 術後血清 SLX が 96.2U/ml まで低下したことから血清 SLX 上昇は気管支囊胞に由来するものと考えられた。このような肺良性疾患で血清腫瘍マーカーが上昇する機序は不明であるが、Okubo ら⁹⁾の CA19-9 上昇例では囊胞腔内に分泌された CA19-9 が、炎症による囊胞壁の透過性亢進のため血中に流出したためと推測されている。本症例においても囊胞内感染が存在し囊胞腔内に分泌された SLX が炎症によって血中に流出し、血清 SLX が上昇したのと考えられた。血清腫瘍マーカー高値は悪性腫瘍の存在を疑わせる所見であるが、高 SLX 血症に際して鑑別疾患として気管支囊胞も念頭に置くべきであると考えられた。

文 献

- 1) 塩田浩平, 谷村 孝. 呼吸器系の発生. 病態生理 1988;7:235—238.
- 2) 福島保喜. 肺囊胞症. 大藤正雄, 他編. Practice of Internal Medicine 新臨床内科学. 医学書院, 1993; 192—195.
- 3) 正岡 昭, 山口貞夫, 森 隆, 他. 縦隔外科全国集計. 日胸外会誌 1971;19:1289—1300.
- 4) 寺松 孝, 山本博昭, 伊藤元彦. 縦隔腫瘍に関する全国集計. 日胸外会誌 1976;24:264—269.
- 5) Maier HC. Bronchogenic cysts of the mediastinum. Ann Surg 1948;127:476—502.
- 6) 大畑正昭, 飯田 守, 大森一光, 他. 肺・縦隔気管支原性囊胞の病態と組織学的検討—I. 縦隔気管支原性囊胞について—. 日胸 1982;41:185—197.
- 7) Okubo A, Sone S, Ogushi F, et al. A Case of Bronchogenic Cyst With High Production of Antigen CA19-9. Cancer 1989;63:1994—1997.
- 8) 小倉山律, 小林ゆかり, 新井真理, 他. 肺内穿破による喀血で発症し血中 CA19-9 が高値を示した肺野型気管支原性囊胞の 1 例. 日胸 1993;52:760—765.
- 9) 大河内稔, 秋月健一, 神 靖人, 他. 囊胞内貯留液量により血清 CA19-9 値の変動を認めた気管支性囊胞の 1 例. 日胸疾会誌 1996;34:482—485.
- 10) 中村昭博, 内山貴堯, 山岡憲夫, 他. 血清 CA19-9

- 高値を伴った横隔膜気管支嚢胞の1切除例. 日胸部外会誌 1997;45:79—83.
- 11) Tokuchi Y, Ukita H, Tsuneta Y, et al. Bronchogenic Cyst with High Carbohydrate Antigen 19-9 in the Cyst Fluid and the Serum. Intern Med 1998;37:86—90.
 - 12) 角 泰雄, 大野喜代志, 山崎芳郎, 他. 血清 CA19-9 が高値を示した縦隔気管支嚢腫の1手術例. 日胸部外会誌 1998;46:110—114.
 - 13) 山崎明男, 宮元秀昭, 穴見洋一, 他. 血清 CA19-9 高値を伴った縦隔食道気管支嚢胞の1切除例. 胸部外科 2001;54:805—808.
 - 14) Uyama T, Monden Y, Sumitomo M, et al. CEA and CA19-9 in Benign Pulmonary or Mediastinal Cystic Lesions. Journal of surgical Oncology 1989;41:103—108.
 - 15) Sugano K, Ohkura H, Matsudo A, et al. Bronchogenic Lung Cyst with Elevated Serum Type I Chain Related Carbohydrate Antigens, CA19-9, CA50 and FH-7. Jpn J Clin Oncol 1990;20:182—187.
 - 16) Ott K, Sendler A, Heidecke CD, et al. Bronchogenic cyst of the esophagus with high tumor marker levels a case report and review of the literature. Dis Esophagus 1998;11:130—133.
 - 17) 龍田眞行, 西 敏夫, 山田晃正, 他. 血中 SCC 抗原高値を示した後縦隔気管支嚢腫の1切除例. 胸部外科 1993;46:623—625.
 - 18) 鈴木 聡, 小野貞文, 谷田達男, 他. 血清 Sialyl Lewis X-i (SLX) と CA19-9 が高値を示した肺膿瘍の1切除例. 胸部外科 1997;50:979—982.
 - 19) 石井 寛, 迎 寛, 芦谷淳一, 他. 急速に腫大し, 血清 SLX と嚢胞液中の腫瘍マーカーが高値を示した胸腺嚢腫の1例. 日呼吸会誌 1999;37:718—721.
 - 20) 井村裕夫, 遠藤治郎, 大倉久直, 他. 新しい腫瘍マーカー「シアリル SSEA-1 抗原」の測定の基礎的検討ならびに臨床的有用性. 癌と化療 1987;14:1322—1331.

Abstract

A case of bronchogenic cyst with elevated SLX levels in serum and cystic fluid

Masashi Kanehara¹⁾, Mihoko Doi²⁾, Kenji Nakamura³⁾, Kikuo Nakano⁴⁾ and Takehiko Hiramoto⁴⁾

¹⁾Department of Internal Medicine, Tadanoumi Hospital

²⁾Department of Oncology, Hiroshima Prefectural Hospital

³⁾Department of Thoracic Surgery, National Hospital Oraganaization Ehime National Hospital

⁴⁾Department of Respiratory Medicine, National Hospital Oraganaization Kure Medical Center

A 27-year-old man was admitted with chest pain and cough in January 1999. Chest radiograph on admission showed a widened tracheal bifurcation. Computer tomography on admission showed a low density mass located at the tracheal bifurcation. Magnetic resonance imaging of the chest showed a well defined mass with isointensity on T1-weighted images, and high intensity on T2-weighted images. Laboratory data on admission showed mild inflammatory findings and a high level of Sialyl Lewis X-i antigen (SLX) in serum. Thoracotomy revealed a cystic mass and pathologically, the cyst wall was lined with bronchial epithelium which showed no malignancy. The level of SLX in the cystic fluid was elevated, and immunohistochemical staining of the cystic epithelium was positive for SLX. After resection of the cyst, the level of SLX in serum decreased. This represents a rare case of bronchogenic cyst with a high level of SLX in serum and cystic fluid.