

## ●症 例

胸痛を呈し、胸膜病変の診断と病勢評価に FDG-PET  
(fluorodeoxyglucose-positron emission tomography)

## が有用であったサルコイドーシスの 1 例

服部 健史 今野 哲 猪又 崇志  
南須原康行 別役 智子 西村 正治

要旨：背景．サルコイドーシス患者における胸膜病変の報告例は近年増加しつつある．また，胸痛を呈する報告も見られるが，原因は不明であることが多い．サルコイドーシスでは診断，病勢評価における FDG-PET の有用性が報告されている．症例．62 歳，男性．左前胸部を中心に広範な胸背部痛が出現し，近医で胸部 CT を撮像されたが異常を認めなかった．2 カ月後に胸背部痛の増強と霧視を認め当院受診．ぶどう膜炎の診断と腎機能障害に加え，胸部 CT 上両側肺門縦隔リンパ節腫大と，肺野と一部胸膜下に粒状影と結節性陰影を認めた．FDG-PET では肺門縦隔リンパ節，両側胸膜に一致して広範な集積亢進を認めた．経気管支肺生検，腎生検にて非乾酪性類上皮細胞肉芽腫を認めサルコイドーシスと診断した．胸背部痛は遷延し，腎機能の急速な悪化を認めたため，全身ステロイド投与を開始した．治療開始後胸背部痛は消失，腎機能は改善し，治療開始 2 カ月後の FDG-PET では集積亢進は消失した．

キーワード：胸膜サルコイドーシス，胸痛，FDG-PET，腎臓サルコイドーシス

Pleural sarcoidosis, Chest pain, FDG-PET, Renal sarcoidosis

## 緒 言

サルコイドーシス（サ症）における胸膜病変の報告例は近年増加しつつある<sup>1)~3)</sup>．サ症では胸痛を呈することがあるという報告はあるものの<sup>4)</sup>，原因不明であることが多い．また，サ症における FDG-PET は特異性が高くはないが診断の一助となり，病勢評価にも有用である可能性が報告されてきている<sup>5)</sup>．今回我々は，胸痛を呈し，胸膜病変の診断と病勢評価に FDG-PET (fluorodeoxyglucose-positron emission tomography) が有用であったサ症の 1 例を経験したので報告する．

## 症 例

症例：62 歳，男性．

主訴：胸背部痛，霧視．

現病歴：2008 年 2 月に左前胸部を中心に広範な胸背部痛を自覚し近医受診．胸部 CT を撮像したが異常を認めなかった．2 カ月後に胸背部痛が急速に増強し，霧視も認めるようになったため，他院受診．胸部 X 線上両

側肺門リンパ節腫大を指摘され当院受診．眼科でぶどう膜炎と緑内障の診断がなされ，胸部の精査目的に当科入院となった．

既往歴・家族歴：特記すべき事項なし．

喫煙歴：20 本/日（30～62 歳）．

入院時現症：身長 167cm，体重 80kg．血圧 130/68 mmHg．脈拍 70/分，整．体温 36.7℃．胸部聴診上異常なし．腹部は異常所見なし．表在リンパ節を触知せず．神経学的異常所見を認めない．四肢・皮膚に異常を認めない．

一般検査所見 (Table 1)：血液検査では，CRP 0.49mg/dl と軽度の炎症反応の亢進を認めた． $\gamma$ グロブリンは 19.2%，血清 ACE 活性は 25.3U/l，可溶性 IL-2 受容体は 2,451U/ml と高値であった．Cr 1.3mg/dl，BUN 19mg/dl と腎機能障害を認めた．尿検査では，尿潜血陽性，尿中  $\beta_2$  ミクログロブリンは 0.279mg/l，尿中 NAG 14.2U/l と増加を認めた．呼吸機能検査では異常を認めなかった．心電図，心臓超音波検査では異常を認めなかった．

胸部 X 線写真 (Fig. 1)：両側肺門リンパ節の腫大を認めた．

胸部 CT (Fig. 2A, 2B)：両側肺門，縦隔リンパ節の腫大を認めた．左肺 S<sup>1+2</sup> 領域に小粒状影の集簇と一部胸膜下も含め散在性の結節性陰影を認めた．胸膜肥厚所見

Table 1 Laboratory findings

Hematology	Na	140 mEq/l	QFT	negative
WBC 6,700/ $\mu$ l	K	4.1 mEq/l	BALF findings	
Neu 71.4%	Cl	105 mEq/l	Total cell counts	17.26 $\times$ 10 <sup>4</sup> /ml
Lym 17.2%	Ca	9.9 mg/dl	Mac	91.2%
Eos 2.4%	PG	116 mg/dl	Lym	8.8%
Mon 8.7%	Serology		CD4/CD8 ratio	5.13
RBC 4.43 $\times$ 10 <sup>6</sup> / $\mu$ l	CRP	0.49 mg/dl	Bacteria	negative
Hb 14.2 g/dl	$\gamma$ -gl	19.2%	Culture	negative
Hct 39.9%	ACE	25.3 U/l	Mycobacterium	
Plt 24.4 $\times$ 10 <sup>4</sup> / $\mu$ l	sIL-2R	2,451 U/ml	smear	negative
ESR 19 mm/h	RF	negative	PCR	
Biochemistry	ANA	negative	<i>M. tuberculosis</i>	negative
TP 7.1 g/dl	Urinalysis		<i>M. avium</i>	negative
AST 18 U/l	specific gravity	1.026	<i>M. intracellulare</i>	negative
ALT 20 U/l	pH	5.5		
ALP 210 U/l	occ	+		
$\gamma$ -GTP 51 U/l	protein	-		
LDH 157 U/l	glucose	-		
BUN 19 mg/dl	$\beta_2$ MG	0.279 mg/l		
Cr 1.3 mg/dl	NAG	14.2 U/l		



Fig. 1 Chest radiography on admission showing bilateral hilar lymphadenopathy.

などの明らかな胸膜病変を認めなかった。

FDG-PET (Fig. 2C)：両側肺門，縦隔リンパ節，左右の胸膜全体に沿って広範な(矢印)集積亢進を認めた。右鼠径部に局所的な集積亢進を認めた。

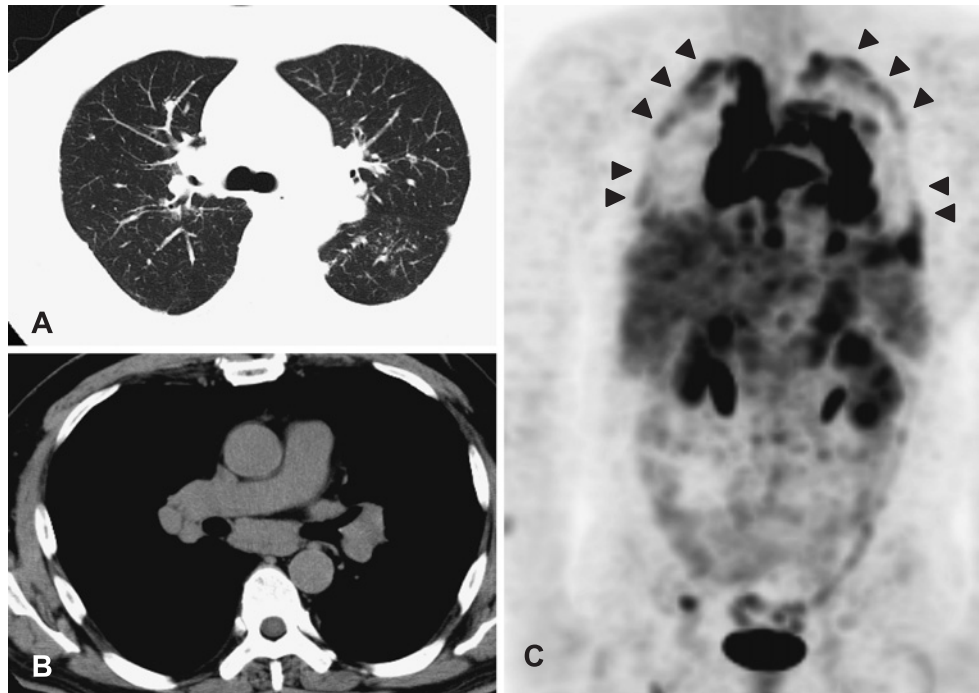
気管支肺胞洗浄 (Table 1)：総細胞数は 17.26 $\times$ 10<sup>4</sup>/ml，CD4/CD8 は 5.13 と上昇を認めたが，リンパ球分画は 8.8% と正常範囲であった。

入院後経過：ぶどう膜炎，血清 ACE 活性高値，両側肺門縦隔リンパ節腫大からサルコイドーシスを疑い，経

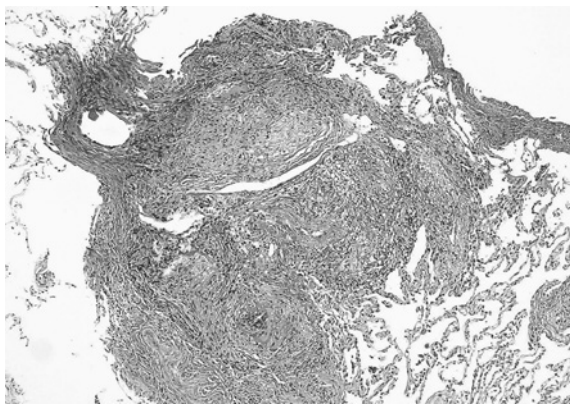
気管支肺生検および経気管支リンパ節吸引生検を行い，ともに非乾酪壊死性の類上皮細胞肉芽腫を認め (Fig. 3)，サ症と診断した。経過中，腎機能の悪化を認めたため，腎生検も施行し同様に類上皮細胞肉芽腫を認めた。胸背部痛に加え FDG-PET にて胸膜に一致した広範な集積亢進を認めたことから，胸膜病変の存在を強く疑った。胸背部痛は激烈で，消炎鎮痛剤では十分な効果が得られなかった。また，腎機能の急速な悪化を認めていたため，プレドニゾン 30mg/日の投与を開始した。治療開始後，腎機能は改善傾向を認め，胸背部痛は消失した。糖尿病などプレドニゾンによる合併症も特に認めなかった。治療開始 2 カ月後に治療評価を行い，胸部 CT (Fig. 4A, 4B) では粒状影，胸膜直下の結節性病変は縮小した。FDG-PET では治療開始前に認めた集積亢進はほぼ消失していた (Fig. 4C)。治療開始 4 カ月後現在，再燃を示唆する所見なく，プレドニゾン漸減加療中である。

## 考 察

サ症における胸膜病変の報告は HRCT の普及に伴い増加傾向にあり，検出頻度は胸膜下病変も含めると 38.5~83% とされる<sup>1)~3)</sup>。一方で，Beekman ら<sup>6)</sup>はサ症患者で認められた胸膜病変が必ずしもサ症による病変ではない可能性があることを強調している。近年，胸腔鏡を用いた胸膜生検による報告例<sup>7)~9)</sup>も認められるようになってきたが，報告数は多くはない。これは，胸膜生検を必要とする症例が少ないことや組織診断の多くはリンパ節生検や経気管支肺生検によってなされていることが



**Fig. 2** A) Chest CT obtained using lung window settings on admission showing diffuse small nodular opacities and subpleural nodules, mainly oriented in the left upper lobe (S<sup>1+2</sup>). B) Chest CT obtained using mediastinal window settings on admission showing bilateral hilar and mediastinal lymphadenopathy. C) FDG-PET imaging on admission showing intense FDG uptake in bilateral peripheral lung parenchyma spread widely along the pleura (arrows) and right inguinal lymph nodes, and high uptake in the hilar and mediastinal lymph nodes.



**Fig. 3** Hematoxylin-eosin staining of the trans-bronchial lung biopsy specimen showing epithelioid cell granuloma ( $\times 100$ ).

理由の1つとして考えられ、臨床上、胸膜病変の診断はしばしば困難とされる。

Soskelら<sup>10)</sup>はサ症における胸膜病変を、胸膜肥厚、胸膜結節、胸水、気胸、乳び胸、大量胸水、血胸、その他に分類しており、胸膜肥厚が最多で、大量胸水貯留例などでは、ステロイド薬が使用されている。また胸膜病変

を伴ったサ症48例のうち、X線病期がIII期の症例が35.4% (17例)、IV期の症例が14.6% (7例)と高い割合を占め、胸膜病変を呈する症例の半数が進行例や何年も経過した例であるとしている。本症例はII期の症例で、胸部CTでは明らかな胸膜病変を検出できず、非典型的であった。更には亜急性の経過で胸痛を伴う胸膜病変を認めており、このような症例の報告はまれである<sup>11)12)</sup>。

本症例では、胸膜病変の組織所見は得られていないが、他の複数臓器で類上皮細胞肉芽腫を認めたこと、胸膜病変を呈する他疾患を示唆する所見を認めなかったこと、胸背部痛とFDG-PETにおける胸膜の広範な集積亢進像がステロイド治療後にともに改善したことから、サ症による胸膜病変と判断した。

サ症において、FDG-PETは<sup>67</sup>Gaシンチよりも診断の精度が高く<sup>13)</sup>、診断のみならず病勢評価にも有用<sup>14)</sup>で、心臓サ症を中心に報告がなされてきた<sup>15)</sup>。しかし、心臓以外の肺外病変について我々が検索した限りでは、神経、骨、筋肉、皮膚、肝臓、脾臓などでの報告<sup>16)~19)</sup>がそれぞれ数例散見される程度で、胸膜病変についてはこれまでに報告がない。またHoitsmaら<sup>4)</sup>はサ症患者821例の26.9%に胸痛を認めたと報告している。胸痛の原因とし

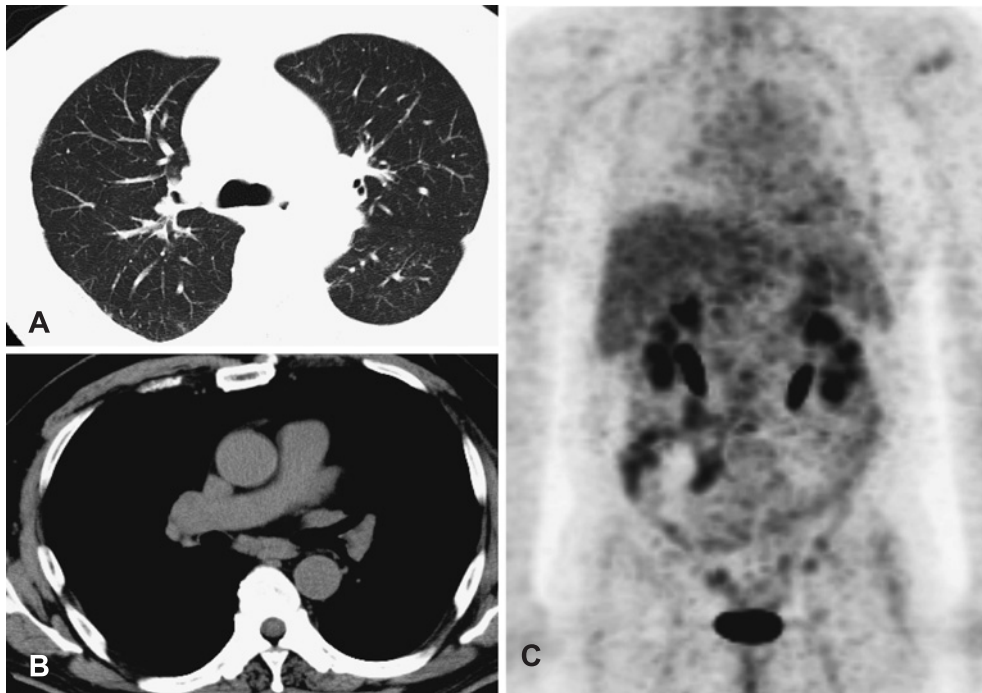


Fig. 4 A) Chest CT obtained using lung window settings 2 months after treatment showing slightly improved diffuse small nodular opacities and subpleural nodules in the left upper lobe (S<sup>1+2</sup>). B) Chest CT obtained using mediastinal window settings 2 months after treatment showing improvement of bilateral and mediastinal lymphadenopathy. C) FDG-PET imaging 2 months after treatment showing no abnormal intense FDG uptake.

て胸膜病変による胸膜刺激症状や縦隔肺門リンパ節腫大による胸郭構造の変形<sup>20)</sup>、小径線維ニューロパチー<sup>21)</sup>などが示唆されているが、特異的所見に乏しく原因不明とされることが多い。本症例における胸膜病変については、胸部 CT 所見のみでは、サ症や胸背部痛との関連性を十分に説明できるものではなかった。しかし、FDG-PETにて胸膜に沿った集積亢進を認め、更にはステロイド治療によって集積亢進の所見と胸背部痛がともに改善したことから、胸背部痛は胸膜病変由来であり、胸膜病変はサ症によるものである可能性が高いと考えられた。よって、FDG-PETの施行は、胸痛を呈したサ症における胸膜病変の診断や胸膜病変における病勢評価に有用であり、更には胸部 CT では検出し得ない病変を検出できる可能性を有することが示唆された。今後更なる症例の蓄積により、サ症の胸膜病変における FDG-PET の意義が明らかにされることが期待される。

謝辞：北海道大学病院第二内科の工藤立史先生、望月俊雄先生、同院病理部の道免寛充先生に深謝いたします。

#### 引用文献

1) 西村浩一, 泉 孝英, 北市正則, 他. サルコイドーシス肺野病変の X 線 CT による検討. 日胸疾会誌

1987; 25: 888—895.

- 2) 荒川昭彦, 鍋島光子, 高橋陸正, 他. サルコイドーシス肺野病変の CT 所見と Tuengerthal 改定分類. 日本臨床 1994; 52: 1521—1524.
- 3) Hashimoto M, Watanabe O, Sato K, et al. The CT findings of pulmonary sarcoidosis. *Tohoku J Exp Med* 1996; 179: 259—266.
- 4) Hoitsma E, De Vries J, van Santen-Hoeufft M, et al. Impact of pain in a Dutch sarcoidosis patient population. *Sarcoidosis Vasc Diffuse Lung Dis* 2003; 20: 33—39.
- 5) Lewis PJ, Salama A. Uptake of fluorine-18-fluorodeoxyglucose in sarcoidosis. *J Nucl Med* 1994; 39: 1647—1649.
- 6) Beekman JF, Zimmet SM, Chun BK, et al. Spectrum of pleural involvement in sarcoidosis. *Arch Intern Med* 1976; 136: 323—330.
- 7) 門脇麻衣子, 飴島慎吾, 藤田匡邦, 他. 胸水貯留を認めたサルコイドーシスの 1 例. 気管支学 2003; 25: 300—305.
- 8) 杉野圭史, 木村一博, 廣井眞弓, 他. 胸腔鏡下に胸膜・肺病変を確認した胸膜サルコイドーシスの 1 症例. 日呼吸会誌 2007; 44: 838—843.

- 9) 柴田雅彦, 笠松紀雄, 橋爪一光, 他. 胸腔鏡にて診断が得られたサルコイドーシス胸膜炎の1例. 気管支学 2008; 30: 139—143.
- 10) Soskel NT, Sharma OP. Pleural involvement in sarcoidosis. *Curr Opin Pulm Med* 2000; 6: 455—468.
- 11) Gardiner IT, Uff JS. Acute pleurisy in sarcoidosis. *Thorax* 1978; 33: 124—127.
- 12) 宮地敦子, 今野秀洋, 山崎万里子, 他. 胸膜肥厚を特徴とした肺サルコイドーシスの1症例. 日呼吸会誌 2005; 43: 308—312.
- 13) Nishiyama Y, Yamamoto Y, Fukunaga K, et al. Comparative evaluation of 18F-FDG PET and 67Ga scintigraphy in patients with sarcoidosis. *J Nucl Med* 2006; 47: 1571—1576.
- 14) Milman N, Mortensen J, Sloth C, et al. Fluorodeoxyglucose PET scan in pulmonary sarcoidosis during treatment with Inhaled and oral corticosteroids. *Respiration* 2003; 70: 408—413.
- 15) Ishimaru S, Tsujino I, Takei T, et al. Focal uptake on 18F-fluoro-2-deoxyglucose positron emission tomography images indicates cardiac involvement of sarcoidosis. 2005; 26: 1538—1543.
- 16) Lewis PJ, Salama A. Uptake of fluorine-18-fluorodeoxyglucose in sarcoidosis. *J Nucl Med* 1994; 35: 1647—1649.
- 17) Dubey N, Miletich RS, Wasay M, et al. Role of fluorodeoxyglucose positron emission tomography in the diagnosis of neurosarcoidosis. *J Neurol Sci* 2002; 205: 77—81.
- 18) Nguyen BD. F-18 FDG PET imaging of disseminated sarcoidosis. *Clin Nucl Med* 2007; 32: 53—54.
- 19) Kaira K, Oriuchi N, Otani Y, et al. Diagnostic usefulness of fluorine-18-alpha-methyltyrosine positron emission tomography in combination with 18F-fluorodeoxyglucose in sarcoidosis patients. *Chest* 2007; 131: 1019—1027.
- 20) Hendrick DJ, Blackwood RA, Black JM. Chest pain in the presentation of sarcoidosis. *Br J Dis Chest* 1976; 70: 206—210.
- 21) Hoitsma E, Marziniak M, Faber CG, et al. Small fibre neuropathy in sarcoidosis. *Lancet* 2002; 359: 2085—2086.

### Abstract

#### Usefulness of fluorodeoxyglucose-positron emission tomography in a case of pleural sarcoidosis

Takeshi Hattori, Satoshi Konno, Takashi Inomata, Yasuyuki Nasuhara,  
Tomoko Betsuyaku and Masaharu Nishimura

First Department of Medicine, Hokkaido University School of Medicine

**Background:** Pleural sarcoidosis is not a rare disease, and some patients with sarcoidosis experience chest pain, although the cause is often unknown. Various studies have indicated that fluorodeoxyglucose-positron emission tomography (FDG-PET) is useful for diagnosing and monitoring sarcoidosis. **Case:** A 62-year-old man noted left-side dominant chest and back pain, although chest computed tomography (CT) revealed no abnormalities. Two months later, chest and back pain rapidly increased in severity and blurred vision appeared. In addition to uveitis, renal dysfunction was observed and chest CT on admission revealed enlargement of bilateral hilar/mediastinal lymph nodes and diffuse small nodular opacities and subpleural nodules, mainly in the segment of the left upper lobe (S<sup>1+3</sup>). FDG-PET revealed intense FDG uptake in bilateral peripheral lung parenchyma, spread widely along the subpleura and right inguinal lymph nodes with high uptake in the hilar and mediastinal lymph nodes. Sarcoidosis was diagnosed by transbronchial lung biopsy and renal biopsy. Oral corticosteroid treatment was performed due to persistent chest and back pain and rapid progression of renal dysfunction. Chest and back pain immediately disappeared and renal function improved. Follow-up FDG-PET performed 2 months after corticosteroid treatment revealed no areas of intense FDG uptake.