

## ●症 例

## 内視鏡的治療に加え外科的治療介入を要した気管支グロムス腫瘍の1例

下村 巖<sup>a</sup> 橋本 大<sup>a</sup> 設楽 将之<sup>b</sup>  
 棚橋 雅幸<sup>b</sup> 丹羽 宏<sup>b</sup> 中村 秀範<sup>a</sup>

要旨：症例は73歳、男性。持続する咳嗽に対して前医で胸部単純CTを施行し、気管支腫瘍を疑う所見を認めた。精査目的に当院紹介となり、気管支鏡検査を施行したところ左肺下葉支を閉塞する腫瘍を認め、同部位より生検を行った。病理組織学的検索にて小型類円形細胞の集簇像を認め、免疫染色にてグロムス腫瘍と診断した。硬性鏡による高周波スネア、レーザー治療を試みたが完全切除は困難であり、左肺下葉管状切除術を追加施行し経過良好である。気管支グロムス腫瘍はまれであると考え、文献的考察を含め報告する。

キーワード：グロムス腫瘍、気管支

Glomus tumor, Bronchus

## 緒 言

グロムス腫瘍は爪床、指趾などに好発する神経筋血管装置由来の腫瘍であり、軟部組織以外に発生することはきわめてまれであるとされている。今回、我々は気管支原発グロムス腫瘍と診断し、内視鏡的高周波スネア治療・外科的切除を施行した1例を経験したため、文献的考察を加えて報告する。

## 症 例

患者：73歳、男性。

主訴：咳嗽。

家族歴：特記事項なし。

既往歴：甲状腺腫、糖尿病、脂質異常症、白内障。

生活歴：喫煙40本/日×53年、飲酒なし。

現病歴：2013年8月頃より咳嗽あり。対処薬にて経過をみていたものの症状改善がみられず、近医で施行した胸部単純CTにて左気管支内の腫瘍性病変を疑う所見を認めたため紹介受診となった。

入院時現症：身長159.5cm、体重61.5kg、体温37.0℃、脈拍70/min・整、血圧154/76mmHg、経皮的動脈血酸素飽和度(SpO<sub>2</sub>)94%(室内気)。心音・呼吸音ともに

異常所見なし。

入院時検査所見：軽度の肝障害、胆道系酵素、HbA1cの上昇を認めた。明らかな腫瘍マーカーの上昇は認めなかった。

胸部単純X線所見：明らかな異常所見なし。

胸部単純CT所見(Fig. 1)：左肺上葉・下葉気管支分岐部から下葉気管支内にかけて18×14mm大の腫瘍性病変を認めた。

頭部造影MRI所見：粗大な腫瘍性病変を認めなかった。

FDG-PET所見(Fig. 2)：左肺主気管支遠位部から下葉気管支内に腫瘍性病変を認め、同部位にmaximum standardized uptake value (SUVmax) 3.1の集積を認めた。

気管支鏡検査所見(Fig. 3A)：下葉を閉塞するように白色調の腫瘍を認め、上葉支は開通がみられた。病変は下葉支より発生していると考えられ、同病変より生検を施行した。

生検病理所見：表面はびらん状で、小型類円形細胞の集簇像を認めた。免疫組織化学的には、chromogranin A陰性、synaptophysin陰性、CD56陰性、cytokeratin陰性、TTF-1陰性、平滑筋actin(α-SMA)陽性、vimentin一部陽性であり、グロムス腫瘍の可能性が高いと診断した。

入院後経過：グロムス腫瘍は一般に良性腫瘍であり、画像および内視鏡所見から、気管支粘膜内に有茎性に局限している可能性があると考え、また確定診断を再度試みるため、高周波スネア治療の適応と判断した。全身麻酔硬性鏡下に左下葉入口部の腫瘍に対して高周波スネ

連絡先：下村 巖

〒430-0906 静岡県浜松市中区住吉2-12-12

<sup>a</sup> 聖隷浜松病院呼吸器内科

<sup>b</sup> 聖隷三方原病院呼吸器センター外科

(E-mail: shimomurail225@gmail.com)

(Received 4 Mar 2016/Accepted 26 Aug 2016)

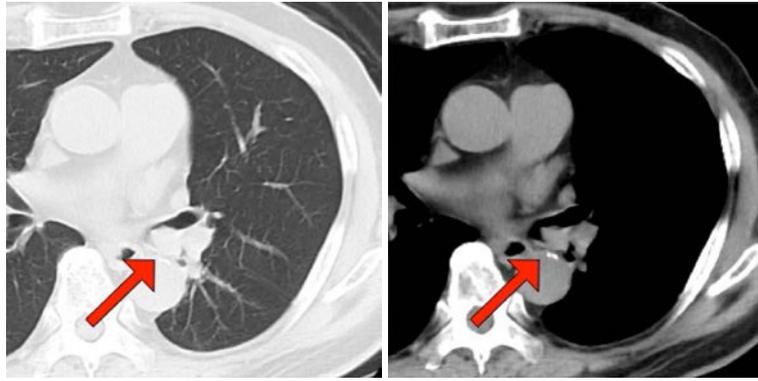


Fig. 1 A chest plain CT image showed a 18×14 mm mass in the left inferior lobar bronchus.



Fig. 2 A FDG-PET scan showed increased uptake (SUVmax = 3.1) in the mass lesion in the left inferior lobar bronchus.

ア、半導体レーザーによる切除を試みた (Fig. 3B, C)。しかし、完全切除は困難であったため、6日後に左肺下葉管状切除術を追加施行した。術後経過は良好であり、外来経過観察となっている。

最終病理診断：腫瘍の大きさは17×12×8 mmであった。病変はB6と肺底区の分岐部から発生していた (Fig. 4A)。気管支上皮から壁内に腫瘍は進展しており、比較的均一な類円形の核を有する腫瘍細胞の増殖が小血管周囲性にみられた。有糸分裂活性は4/50 high power fields (HPF) 程度に認められ、明らかな異型核分裂像は認められなかった (Fig. 4B, C)。免疫組織学的には、上記生検と同様の結果に加え、h-caldesmon 陽性、desmin 一部陽性となり、グロムス腫瘍と診断された (Fig. 4D)。

## 考 察

Massonら<sup>1)</sup>によって初めて報告されたグロムス腫瘍は、

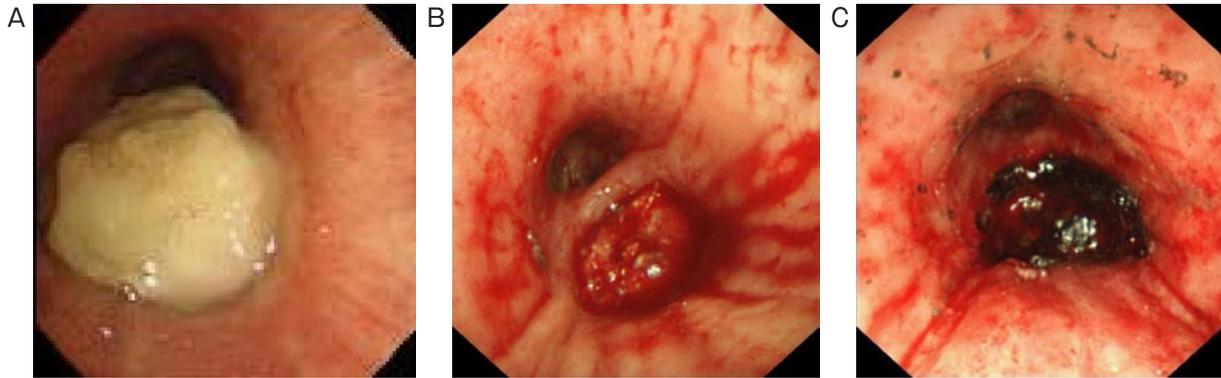
グロムス小体を発生母地とする、多くは良性の生物学的態度を示す腫瘍である。グロムス小体は、末梢の動静脈吻合部の血管周囲に存在する特殊な平滑筋細胞であるグロムス細胞よりなり、末梢循環制御や体温調節の機能を有している。グロムス腫瘍はまれであり、軟部組織腫瘍500例をまとめた報告においてその頻度は1.6%とされる<sup>2)</sup>。気管・気管支グロムス腫瘍は非常にまれだが、24例をまとめた検討では、発症年齢は平均52歳とされ、性別は男性に多い。本症例は73歳と高齢であり、過去の報告と比較しても比較的高齢である。発生部位としては気管が最も多く、左右主気管支にもみられる<sup>3)</sup>。肺野型のグロムス腫瘍は我が国において十数例が報告されている。

主要症状として明らかな症状を認めないものもあり、咳嗽・血痰といった症状を呈するものは気管や中枢部気管支に腫瘍が存在する場合が多い<sup>4)</sup>。

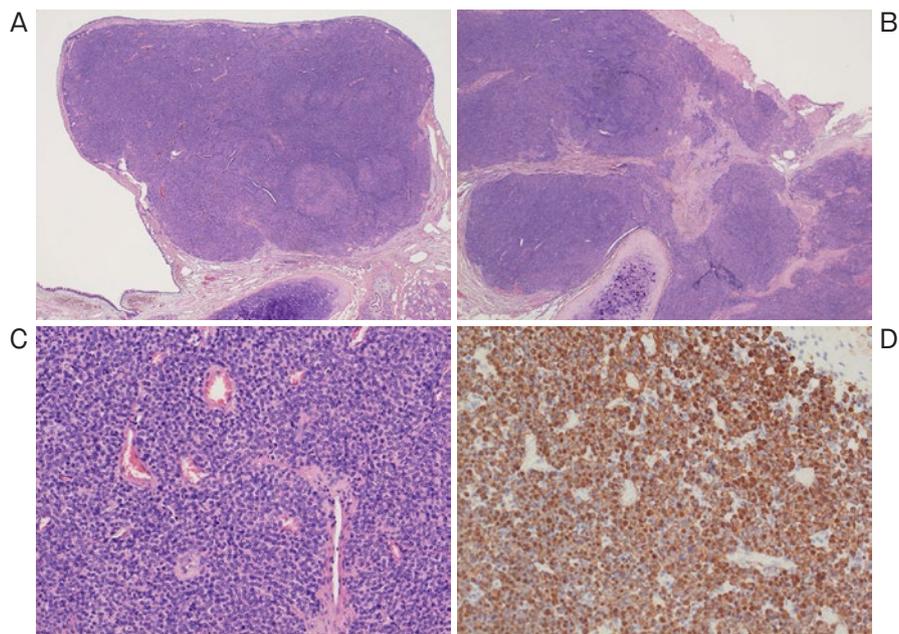
確定診断は病理組織学的になされる。好酸性の細胞質と卵円核を有する均一な円型細胞である腫瘍細胞が、細小血管の周囲に均一に増殖する。免疫組織学的にはα-SMA、vimentin 陽性といった平滑筋様の性格を有する<sup>5)</sup>。本症例においてもこの特徴を確認できた。

鑑別診断としては、カルチノイド、血管周皮腫などが挙げられる。カルチノイドとは、神経内分泌細胞マーカーである chromogranin A, synaptophysin, CD56 がそれぞれ陰性であることから鑑別可能と考えられ、血管周皮腫とは、CD34, cytokeratin が陰性であることより鑑別可能である<sup>6)</sup>。

グロムス腫瘍は大部分が良性腫瘍であるが、悪性例もまれにみられる。悪性度に応じて病理組織学的にグロムス腫瘍を glomus tumor proper type, glomangioma, glomangiomyoma と分類するものもみられる<sup>7)</sup>。Folpeらは52例のグロムス腫瘍について、その大きさ、発生部位、有糸分裂活性や異型性を元に悪性度の検討を行い、① malignant glomus tumor, ② symplastic glomus tu-



**Fig. 3** (A) A bronchoscopic examination showed a white polypoid mass in the left inferior lobar bronchus. (B) Bronchoscopic view after high-frequency electrocautery snaring therapy. (C) Bronchoscopic view after laser therapy.



**Fig. 4** (A) The resected tumor size was 17×12×8 mm (hematoxylin-eosin stain, ×20). (B) The tumor extended to the tract epithelium. (C) Relatively uniform small cells with oval nuclei were growing around the small vessels (hematoxylin-eosin stain, ×200). (D) The immunohistochemical staining showed that the tumor cells were positive for  $\alpha$ -SMA (×200).

mor, ③ glomus tumor of uncertain malignant potential, ④ glomangiomas の4つに分類した<sup>8)</sup>. 本症例は、この分類に準拠すると、著明な有糸分裂活性と異型性は認められなかったものの、気管支は深部発生 (deep location) となるため uncertain malignant potential に分類されたと考えられた。

治療としては外科的切除、内視鏡的切除、放射線治療が主に行われており、photodynamic therapy や cryotherapy を行ったとする報告もみられる<sup>9)</sup>. 本症例では、気管支鏡検査の生検によりglomus腫瘍の診断が得ら

れ、気管支壁外性の進展性はないと考えられたため内視鏡下高周波スネア治療、レーザー治療を試みたが、完全切除が困難であり外科的治療介入を要した。glomus腫瘍はその多くが良性であり、外科的切除が治療として選択されることが大部分である<sup>10)</sup>. しかし、限局した病変についてはより低侵襲な内視鏡的治療が選択されることもある<sup>11)</sup>. 本症例のように、明らかな悪性腫瘍と判断されない場合、また、画像、気管支鏡所見より完全切除の可能性がある場合には、やはり低侵襲の治療を検討することが望ましいと考えられる。

気管・気管支グロムス腫瘍はきわめてまれであり、臨床所見に乏しい場合も多く、診断に苦慮する。気管・気管支腫瘍を認めた場合、鑑別の一つとして考慮する必要があり、腫瘍の性状に応じた治療法の選択が望まれる。

本論文の要旨は、第108回日本呼吸器学会東海地方学会(2015年11月、岐阜)において報告した。

謝辞：本症例の病理所見についてご教示いただきました。当院病理診断部の新井義文先生、大月寛郎先生に深謝いたします。

著者のCOI (conflicts of interest) 開示：本論文発表内容に関して特に申告なし。

### 引用文献

- 1) Masson P. Le glomus neuromyo-arterial des regions tactiles et ses tumeurs. *Lyon Chir* 1924; 21: 257-80.
- 2) SHUGART RR, et al. GLOMUS TUMOR. *Surg Gynecol Obstet* 1963; 117: 334-40.
- 3) 稲葉 恵, 他. 気管支グロムス腫瘍の1例. *日呼吸会誌* 2010; 48: 303-6.
- 4) Oizumi S, et al. A rare case of bronchial glomus tumor. *Respiration* 2001; 68: 95-8.
- 5) Ariizumi Y, et al. A primary pulmonary glomus tumor: a case report and review of the literature. *Case Rep Pathol* 2012; 2012: 782304.
- 6) Gaertner EM, et al. Pulmonary and mediastinal glomus tumors: report of five cases including a pulmonary glomangiosarcoma: a clinicopathologic study with literature review. *Am J Surg Pathol* 2000; 24: 1105-14.
- 7) Katabami M, et al. Bronchogenic glomangiomyoma with local intravenous infiltration. *Eur Respir J* 2006; 28: 1060-4.
- 8) Folpe AL, et al. Atypical and malignant glomus tumors: analysis of 52 cases, with a proposal for the reclassification of glomus tumors. *Am J Surg Pathol* 2001; 25: 1-12.
- 9) Koskinen SK, et al. Glomus tumor of the trachea. *Eur Radiol* 1998; 8: 364-6.
- 10) De Cocker J, et al. Intrapulmonary glomus tumor in a young woman. *Interact Cardiovasc Thorac Surg* 2008; 7: 1191-3.
- 11) Vailati P, et al. Endoscopic removal of a right main bronchus glomus tumor. *Monaldi Arch Chest Dis* 2004; 61: 117-9.

### Abstract

#### A case of bronchial glomus tumor

Iwao Shimomura<sup>a</sup>, Dai Hashimoto<sup>a</sup>, Masayuki Shitara<sup>b</sup>,  
Masayuki Tanahashi<sup>b</sup>, Hiroshi Niwa<sup>b</sup> and Hidenori Nakamura<sup>a</sup>

<sup>a</sup>Department of Respiratory Medicine, Seirei Hamamatsu General Hospital

<sup>b</sup>Division of Thoracic Surgery, Respiratory Disease Center, Seirei Mikatahara General Hospital

A 73-year-old male presented with cough. A chest CT showed a mass in the left inferior lobar bronchus. A bronchoscopic examination demonstrated a polypoid white-colored tumor in the left lobar bronchus. A biopsy was performed, and it showed an accumulation of small rounded cells; we diagnosed glomus tumor immunohistochemically. Endoscopic high-frequency electrosurgical snaring and laser therapy were performed, but the tumor was unresectable. Furthermore, he received a left lower sleeve lobectomy, and the postoperative course is uneventful. We herein report this rare case and provide a review of the previous literature.