

●症 例

肺の組織破壊および喀血をきたした縦隔内膵仮性嚢胞の1例

須藤 悠太^{a,b} 齋藤 淳^{a,b} 上村幸二郎^{a,b}
吉川 匠^{a,b} 高橋 弘毅^a 北田 順也^b

要旨：症例は35歳，男性．アルコール性急性膵炎を繰り返し近医に通院していたが，喀血と両側胸水を認め，当科入院．胸部造影CTで右下葉にすりガラス陰影を伴う気腫性変化と膵臓から縦隔に達する嚢胞を認めた．縦隔内膵仮性嚢胞により膵気管支瘻を形成し，膵酵素作用により肺組織の破壊が起こり，喀血が起きたと考えられた．慢性膵炎の合併症に縦隔内膵仮性嚢胞があり，膵性胸水が生じることは知られているが，喀血をきたした症例の報告は乏しく，肺組織を破壊し気腫性変化を認めた症例の報告はなかった．貴重な1例と思われ考察を加えて報告する．

キーワード：縦隔内膵仮性嚢胞，喀血，肺の組織破壊，膵性胸水，エラスターゼ
Mediastinal pancreatic pseudocyst, Hemoptysis,
Damage to the lung, Pancreatic pleural effusion, Elastase

緒 言

慢性膵炎の合併症の一つに縦隔内膵仮性嚢胞があるが，比較的まれな疾患である．膵性胸水や喀血を合併した症例の報告は散見されるが^{1)~8)}，我々が検索した範囲では肺組織を破壊し気腫性変化を認めた症例の報告はなかった．今回，我々は肺の組織破壊および喀血をきたした縦隔内膵仮性嚢胞の1例を経験したので報告する．

症 例

患者：35歳，男性．

主訴：喀血．

既往歴：アルコール依存症，アルコール性慢性膵炎，アトピー性皮膚炎．

家族歴：特記事項なし．

生活歴：20歳よりビール10L以上/日．

職業歴：居酒屋勤務（居酒屋で一日中飲酒）．

喫煙歴：20本/日×15年間（現在も喫煙中）．

現病歴：2006年からアルコール性急性膵炎を数回発症し，近医消化器内科で保存的に加療されていた．2013

年3月に両側胸水が出現したため当科を紹介受診となり，胸水コントロール目的に入院となった．胸腔穿刺でアミラーゼが著明に高値（7,642 IU/L）であり，アルコール性慢性膵炎による膵性胸水の診断となった．消化器内科で膵炎の治療を行い，入院に伴う禁酒により胸水は自然消失したため，経過観察となった．2013年5月から通院を自己中断していたが，2015年3月下旬から左胸痛と咳嗽が出現したため，当科を再紹介となった．胸部単純CTにて左胸水を認め，膵性胸水と判断し外来で経過観察を再開したが，同年6月下旬から喀血が出現し，胸部造影CT再検にて，以前には認めなかった気腫性変化とすりガラス陰影を右下葉に認めたため，精査加療目的に当科に入院となった．

入院時身体所見：身長162cm，体重40.2kg，体温37.2℃，血圧128/72mmHg，脈拍76回/min，経皮的動脈血酸素飽和度（SpO₂）96%（room air），呼吸音清，腹部は平坦で圧痛はなし，その他一般身体所見・神経学的所見に異常なし．

血液検査所見（表1A）：血清アミラーゼ213 IU/L，リパーゼ134 U/Lと高値を示した．右胸水所見（表1B）：胸水アミラーゼ値は7,642 IU/Lと著明に上昇していた．

画像所見：入院3ヶ月前の胸部単純CT（図1A）では左胸水を認めるが，右下葉に異常所見は認めなかった．入院時胸腹部造影CT（図1B，C）にて右下葉縦隔側に以前には存在していなかった気腫性変化が出現し，その周囲には血液の吸い込み像と考えられるすりガラス陰影を認めた．縦隔条件（図1D~F）では，膵臓から縦隔内

連絡先：須藤 悠太

〒060-8543 北海道札幌市中央区南1条西16丁目291

^a札幌医科大学医学部呼吸器・アレルギー内科学講座

^b旭川赤十字病院呼吸器内科

(E-mail: soleard@yahoo.co.jp)

(Received 30 Oct 2016/Accepted 27 Dec 2016)

表1 入院時検査所見

A. 血液所見			B. 胸水所見				
血算		生化学	血清		TP	3.9 g/dl	
WBC	7,090/ μ l	TP	5.6 g/dl	CRP	5.94 mg/dl	ALB	2.1 g/dl
Neut	53.8%	Alb	2.8 g/dl	CEA	3.8 ng/ml	LDH	433 IU/L
Lym	16.8%	T-Bil	0.2 mg/dl	CA19-9	2.9 μ U/ml	AMY	7,642 IU/L
Mon	6.0%	AST	16 IU/L	SCC	0.6 ng/ml	GLU	97 mg/dl
Eos	21.9%	ALT	10 IU/L	Pro-GRP	16.4 pg/ml	CEA	5.2 ng/ml
Bas	0.2%	ALP	223 IU/L	KL-6	479 U/ml	CA19-9	253.2 IU/ml
RBC	3.58×10^6 / μ l	LDH	172 IU/L	SP-D	77.4 ng/ml	比重	1.027
Hb	9.3 g/dl	CK	50 IU/L	PR3-ANCA	0 IU/ml	リバルタ	(+)
MCV	79.9 fl	BUN	5.2 mg/dl	MPO-ANCA	0 IU/ml	ADA	16.3 IU/L
MCH	25.9 pg	Cr	0.62 mg/dl			ヒアルロン酸	7,480 ng/ml
Ht	28.6%	Na	139 mEq/L	凝固		総細胞数	2,866/ μ l
Plt	33.6×10^3 / μ l	K	3.7 mEq/L	PT%	88%	好中球	1,553/ μ l
		Cl	104 mEq/L	APTT	27.3 s	リンパ球	286/ μ l
		Ca	8.0 mg/dl				
		HbA1c	5.8%				
		AMY	213 IU/L				
		LIP	134 U/L				

にまで達する多房性の嚢胞を認めた。

臨床経過：咯血の原因精査のため入院第2病日に気管支鏡検査を実施した。右底幹にわずかに血液の付着を認めたが、明らかな出血源は確認できなかった。胸腹部造影CTでは臍体尾部から縦隔内まで達する多房性の嚢胞を認め、食道裂孔を介して縦隔内まで達していた(図1D, E, F)。画像所見および患者の既往歴より慢性臍炎による縦隔内臍仮性嚢胞を疑い、消化器内科に精査を依頼した。磁気共鳴胆管臍管造影[magnetic resonance cholangiopancreatography (MRCP), 図2A]にて不規則に拡張した主臍管と嚢胞の交通を認め、臍液の一部は肺内への漏出を認めた。内視鏡的逆行性胆道臍管造影[endoscopic retrograde cholangiopancreatography (ERCP), 図2B]では、臍体部の主臍管に狭窄像とMRCP同様に主臍管と嚢胞の交通を認めたが、造影剤の注入圧が弱く(急性臍炎のリスクが高く、臍管と縦隔内仮性嚢胞が造影される程度の圧で注入)、肺内への造影剤の漏出は認めなかった。検査結果から、慢性臍炎の急性増悪による縦隔内臍仮性嚢胞の診断となった。嚢胞内の減圧目的に臍管と交通のある縦隔内臍仮性嚢胞内に経鼻臍管ドレーナージュチューブを留置し、臍外分泌抑制作用を有するソマトスタチンアナログであるオクトレオチド(octreotide) 200 μ g/dayを投与した。入院第15病日に撮影した胸腹部造影CT(図3)では右下葉の気腫性変化は残存していたものの、すりガラス陰影は消失し、縦隔内の嚢胞は著明な縮小を認め、両側胸水は消失していた。咯血の再燃もなく、血清アミラーゼ値74 IU/Lと正常値まで低下したため入院第20病日に退院となった。

考 察

縦隔内臍仮性嚢胞はまれな疾患であり、我が国では40例程度報告されているが、咯血をきたした症例の報告は乏しく¹⁾、肺組織を破壊し気腫性変化を認めた症例の報告はなかった。Cameronら²⁾によると、臍管破綻が臍前面に起これば、腹腔内に内臍瘻を形成して臍性腹水を生じるが、臍管破綻が臍後面に起これば、臍液が仮性嚢胞を形成しつつ後腹膜から食道裂孔や大動脈裂孔を通り縦隔内まで達するとされている。本症例では毎日10L以上に及ぶビールの飲酒があり、アルコール性慢性臍炎の急性増悪を繰り返し、仮性嚢胞を形成し、後腹膜から食道裂孔の脆弱部を経て縦隔内に進展したと考えられた。臍性胸水は慢性ないし反復性の臍炎に合併し、臍胸膜瘻を介して臍液が直接胸腔内に流入することにより生じるとされているが²⁾、胸水中には血液や滲出液が混入しているため臍酵素濃度はそれほど高くはないとされている³⁾。縦隔内臍仮性嚢胞に咯血もしくは血痰を合併した症例の多くは、臍性胸水により臓側胸膜の破綻が起これば、気管支胸膜瘻が形成され、咯血や血痰が出現したとされているが^{4)~8)}、胸水中の臍酵素濃度はそれほど高くないため、肺の組織破壊にまでは至らなかったと推測される。本症例では禁酒指導されていたにもかかわらず大量飲酒を繰り返し、さらに通院も自己中断したため、長期間にわたり慢性臍炎の急性増悪を繰り返し、嚢胞と胸膜の一部で癒着が起これば臍気管支瘻が形成されたと考えられた。臍気管支瘻が形成されたことにより、高濃度の臍酵素を含んだ臍液が直接肺内に流入することとなり、肺

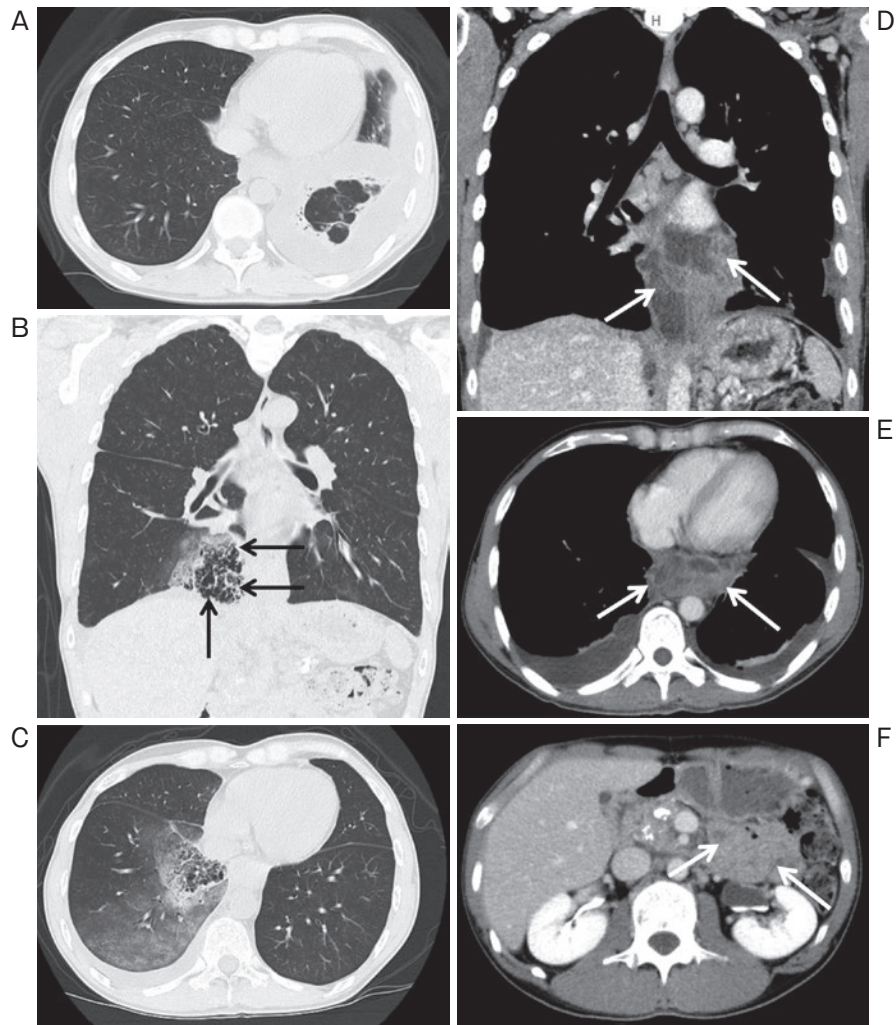


図1 (A) 入院3ヶ月前の胸部単純CT. 左胸水を認めるが、右下葉に明らかな異常所見は認めない。(B, C) 入院時胸腹部造影CT. 右下葉縦隔側に気腫性変化とその周囲にすりガラス陰影を認める。嚢胞と胸膜の間にはairや胸水はなく、癒着していることが疑われる(矢印)。(D, E, F) 膣体尾部から縦隔内に達する多房性の嚢胞を認める(矢印)。

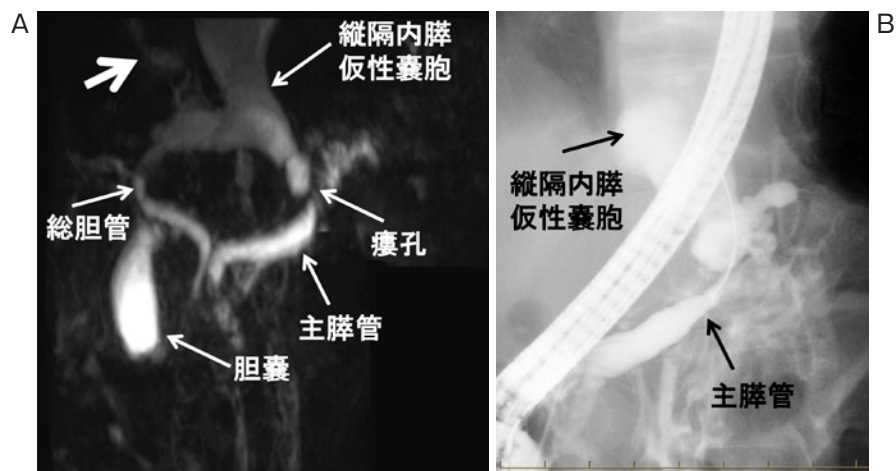


図2 (A) MRCP. 不規則に拡張した主膵管と嚢胞の交通を認める。肺内にわずかに膵液の漏出を認めた(太矢印)。(B) ERCP. 膣体部の主膵管に強い狭窄と狭窄部の背側上方の嚢胞内に造影剤の漏出を認める。

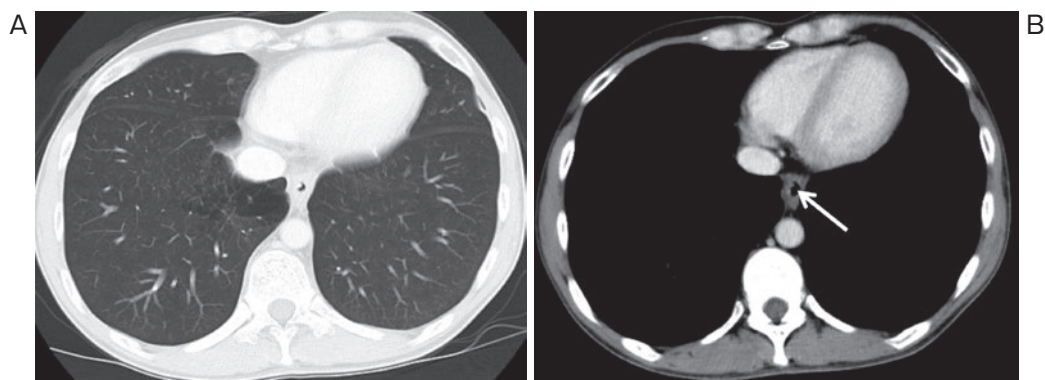


図3 入院第15病日の胸腹部造影CT。(A) 右下葉に気腫性変化は残存しているものの、すりガラス陰影は消失している。(B) 治療前に認められた多房性の嚢胞は消失し(矢印)、両側胸水も消失していた。

の組織破壊にまで至ったと推察された。Kobayashiら⁹⁾によれば、マウスの気管支内にエラスターゼを注入すると、肺気腫が形成されることが報告されており、臍液中にはエラスターゼが大量に含まれていることから、本症例で認められた肺の組織破壊は高濃度のエラスターゼの作用により形成されたものと考えられる。また α -1アンチトリプシン欠乏症では、エラスターゼを主としたプロテアーゼにより肺胞を構成する主要な結合組織であるエラスチンが破壊され、気腫性変化が形成されると考えられており¹⁰⁾、臍液中には多数の消化酵素が含まれているが、肺の組織を破壊するにはエラスターゼの作用が必要と考えられる。臍性胸水を生じた症例のほとんどは、速やかに外科的もしくは内科的治療を行っているため、本症例のように数年間にわたり無治療で経過した症例はまれであると思われる。縦隔内臍仮性嚢胞の治療に関して、ランダム化比較試験の報告はないが、嚢胞内減圧と臍液産生抑制が重要とされ、臍外分泌機能を抑制するソマトスタチン誘導体や内視鏡的臍管ドレナージが有効とされている¹¹⁾¹²⁾。以前は外科的手術が勧められてきたが、最近ではソマトスタチン誘導体であるオクトレオチドによる内科的治療が試みられ、奏効した症例が散見される¹²⁾¹³⁾。ただし、内科的治療で胸水が消失しない場合や嚢胞内出血などを合併している場合は外科的手術を検討すべきであり³⁾¹⁴⁾、本症例でも内科的治療で咯血と両側胸水が改善しなかった場合には外科的手術の適応であったと考えられた。また治療により縦隔内嚢胞が消失しても、飲酒により再発することが予想されるので、禁酒と患者指導もきわめて大切と思われる。縦隔内臍仮性嚢胞により肺の組織破壊をきたした症例は検索したかぎりでは認められず、貴重な経験と考え報告した。

本論文の要旨は第112回日本呼吸器学会北海道支部学術集会(2016年9月、札幌)において発表した。

謝辞：稿を終えるにあたり、診断と治療に貴重なご助言をいただいた旭川赤十字病院消化器内科、河端秀賢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) 坂本幸裕, 他. 咯血で発症し, 保存的加療が奏功した縦隔内臍仮性嚢胞の1例. 日呼吸会誌 2007; 45: 582-6.
- 2) Cameron JL. Chronic pancreatitis ascites and pancreatic pleural effusions. *Gastroenterology* 1978; 74: 134-40.
- 3) 伊藤 隼, 他. 臍性胸水を伴う縦隔内臍仮性嚢胞の2例. 日呼吸誌 2013; 2: 471-5.
- 4) Ito H, et al. Two cases of thoracopancreatic fistula in alcoholic pancreatitis: clinical and CT findings. *Radiat Med* 2002; 20: 207-11.
- 5) Tombroff M, et al. Pleural effusion with pancreaticopleural fistula. *Br Med J* 1973; 1 (5849): 330-1.
- 6) 酒井正彦, 他. 咯血および臍性胸水を合併した慢性臍炎の1例: 臍性胸水本邦例32例の検討. 日消誌 1980; 100: 1117-21.
- 7) 迫 康博, 他. 仮性臍嚢胞の左胸腔内臍液瘻による著明な臍性胸水を呈した慢性再発性臍炎の1例. 日消誌 1980; 77: 107-11.
- 8) 小江俊行, 他. 血性胸水を来した慢性臍炎の4例. 日胸疾患会誌 1979; 17: 114.
- 9) Kobayashi S, et al. A single dose of lipopolysaccharide into mice with emphysema mimics human chronic obstructive pulmonary disease exacerbation as assessed by micro-computed tomography.

- Am J Respir Cell Mol Biol 2013; 49: 971-7.
- 10) 日本呼吸器学会厚生労働科学研究費補助金呼吸不全に関する調査研究班. α 1-アンチトリプシン欠乏症診療の手引き 2016. 2016: 3-4.
 - 11) Gullo L, et al. Treatment of pancreatic pseudocysts with octreotide. Lancet 1991; 338: 540-1.
 - 12) 松本章子, 他. 繰り返し発症した縦隔内膵仮性嚢胞の1例. 日消誌 2006; 103: 432-7.
 - 13) Suga H, et al. A case of mediastinal pancreatic pseudocyst successfully treated with somatostatin analogue. Kurume Med J 2005; 52: 161-4.
 - 14) Cameron JL, et al. Internal pancreatic fistulas: pancreatic ascites and pleural effusion. Ann Surg 1976; 184: 587-93.

Abstract

A case of mediastinal pancreatic pseudocyst causing damage to the lung and hemoptysis

Yuta Sudo^{a,b}, Atsushi Saito^{a,b}, Kojiro Uemura^{a,b},
Takumi Yoshikawa^{a,b}, Hiroki Takahashi^a and Junya Kitada^b

^aDepartment of Respiratory Medicine and Allergology, Sapporo Medical University School of Medicine and Hospital

^bDepartment of Respiratory Medicine, Asahikawa Red Cross Hospital

A 35-year-old man received repeated treatments for alcoholic acute pancreatitis at a neighborhood clinic. However, hemoptysis and bilateral pleural effusion were observed; therefore he was hospitalized in our department. A chest CT revealed an emphysematous lesion with ground-glass attenuation in the right lower lobe and a cyst extending to the mediastinum from the pancreas. We believe the mediastinal pancreatic pseudocyst induced formation of a bronchopleural fistula that led to damage of the lungs subsequent to action of the pancreatic enzymes, ultimately resulting in hemoptysis. Mediastinal pancreatic pseudocyst is a complication of chronic pancreatitis. Pancreatic pleural effusion is known to occur as a result of mediastinal pancreatic pseudocyst, but there have been few reports on cases of hemoptysis, and there has been no reported case of damage to the lung with an emphysematous lesion.