

●症 例

珪酸吸入に起因すると考えられた bronchial anthracofibrosis の1例

星野 佑貴 島村 壮 井手秀一郎
増田 和記 石原 裕

要旨：症例は86歳，元石材業の男性，労作時呼吸困難で受診した。胸部画像では典型的な珪肺の所見はなかったが，肺門・縦隔リンパ節腫大，気管支血管束の肥厚，右B³の閉塞を認めた。18F-FDG PETでは腫大したリンパ節に18F-FDGの集積を，気管支鏡では閉塞部を含め広範な炭粉沈着を認めた。閉塞部の生検と縦隔リンパ節の穿刺細胞診で悪性所見はなく，bronchial anthracofibrosisと診断した。剖検で炭粉沈着を伴って腫大したリンパ節から気管支上皮に連続する炎症性細胞を認めた。元素分析で多量の珪酸が認められ，発病の原因と考えられた。

キーワード：Bronchial anthracofibrosis (BAF)，珪肺
Silicosis

緒 言

気管支鏡検査時にみられる気管支上皮の黒色の色素沈着は気管支壁内のリンパ装置に沈着した炭粉が上皮から透見されたものとされている¹⁾。また，炭粉沈着した気管支が狭窄～閉塞する病態はbronchial anthracofibrosis (BAF)と称される²⁾。当初は結核に伴うものとされたが，バイオマス燃料の室内での燃焼³⁾や職業性の粉塵吸入⁴⁾⁵⁾との関連も示唆されている。また，18F-FDG PETにて腫大したリンパ節に18F-FDGの集積がみられ⁶⁾⁷⁾，悪性疾患との鑑別が問題となる。今回我々は本病態を呈した患者の剖検病理標本の解析から若干の知見を得たので報告する。

症 例

患者：86歳，男性。

主訴：労作時呼吸困難。

既往歴：特発性血小板減少性紫斑病 (idiopathic thrombocytopenic purpura：ITP)。

生活歴：職業は元石材業。喫煙歴は不明。バイオマスの使用なし。

現病歴：ITPの治療後で当院血液・腫瘍内科で経過観察中であったが，2～3ヶ月前からの労作時呼吸困難のた

め20XX年8月当科を紹介受診した。

初診時現症：身長150cm，体重46kg，血圧117/60mmHg，脈拍80/min，経皮的動脈血酸素飽和度97%（室内気）。心音整，呼吸音清，下腿浮腫なし。

検査所見：白血球4,180/μL，CRP 1.61mg/dL，腫瘍マーカーではSCC 1.60ng/mL，ProGRP 88.7pg/mLと軽度上昇していた。スパイロメトリーに異常は認められなかった。

画像所見：胸部単純X線では，左右肺門部から末梢に広がる浸潤陰影～すりガラス陰影を，胸部CTでは両側の肺門・縦隔リンパ節の腫大と肺門部を中心とした気管支血管束の肥厚，右肺B³の閉塞，微細な粒状影の散在を認めた (Fig. 1A)。

臨床経過：以上から右肺門部に原発した肺癌と肺門・縦隔リンパ節への浸潤が疑われた。気管支鏡では閉塞した右上葉B³入口部を含めて (Fig. 1B)炭粉沈着を複数個所の気管支上皮に認めた。右B³閉塞部の生検結果は炎症性肉芽組織であり，洗浄液の抗酸菌培養は陰性であった。しかし，その後の18F-FDG PETで腫大したリンパ節に著しい集積を認めた (Fig. 1C)ため，超音波気管支鏡ガイド下針生検による#7リンパ節の穿刺細胞診を行ったが，悪性所見は認められなかった。以上から，BAFと診断し，経過観察の方針とした。

その後，20XX年10月にITPが再発し，20XX+1年1月に死去，篤志献体された。解剖学実習後に右肺の病変部分の病理学的評価を行った。

肉眼的には右上葉気管支周囲のリンパ節は全体が黒色となり (Fig. 2A)，右上葉B³は肥厚した気管支上皮によ

連絡先：石原 裕

〒409-3898 山梨県中央市下河東1110

山梨大学医学部循環器・呼吸器内科

(E-mail: ihiroshi@yamanashi.ac.jp)

(Received 18 Aug 2020/Accepted 30 Oct 2020)

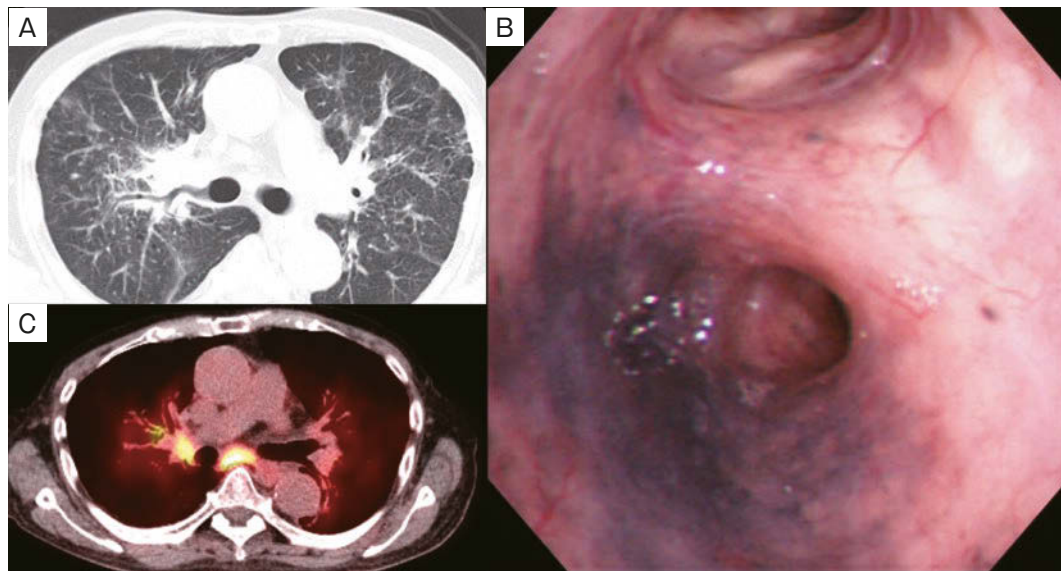


Fig. 1 Imaging findings. (A) Chest CT. Bilateral hilar and mediastinal lymphadenopathy, and thickening of bronchovascular bundles and resulting obstruction of right B³ are shown. Scattered micronodules are also seen. (B) Bronchoscopic finding. Extensive black pigmentation of bronchial epithelium and obstruction of right B³ are observed. (C) ¹⁸F-FDG PET. Intensive uptake of ¹⁸F-FDG into the hilar and mediastinal lymph nodes is observed.

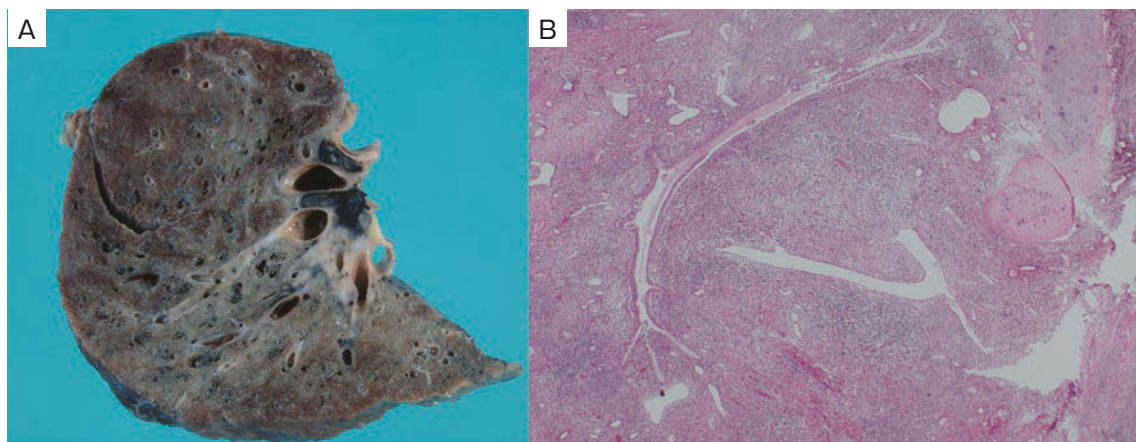


Fig. 2 Macroscopic and pathological findings of the right upper lobe. (A) Horizontal section shows enlarged hilar lymph nodes with prominent anthracosis and obstruction of right B³. (B) Right B³ is obstructed by epithelium thickened by infiltration of pigment-laden macrophages and other inflammatory cells. These cells are continuously distributed between lymph nodes and epithelium.

り閉塞していた。組織像をFig. 2Bに示す。リンパ節では正常構造は失われ、マクロファージ、リンパ球の集簇が認められた。気管支内腔を閉塞している部分の気管支上皮には炭粉を貪食したマクロファージやリンパ球、線維細胞が多数認められ、浮腫状に肥厚していた。また、これら炎症細胞は軟骨の間を通してリンパ節と気管支上皮との間で連続していた。これらの変化は職業性に吸入していた珪酸を主とした粉塵によるものと考えられたが、珪肺の典型的な所見はなかったためElectron probe micro-analyzer with wavelength-dispersive spectrometerによ

り病変部分の元素分析を行ったところ (Fig. 3), 酸素 (30.3wt%) と珪素 (36.9wt%) が多く検出され、珪酸が本症例のBAFの原因であることが確認された。

考 察

典型的な珪肺の画像所見は、上肺優位のびまん性小粒状結節、これらの融合した進行性塊状巣、肺門部リンパ節の卵殻状石灰化である。これ以外にも気管支周囲の腫大したリンパ節から炎症や線維化反応がリンパ節の被膜を越えて周囲の気管支壁や気管支周囲組織に及びこれを

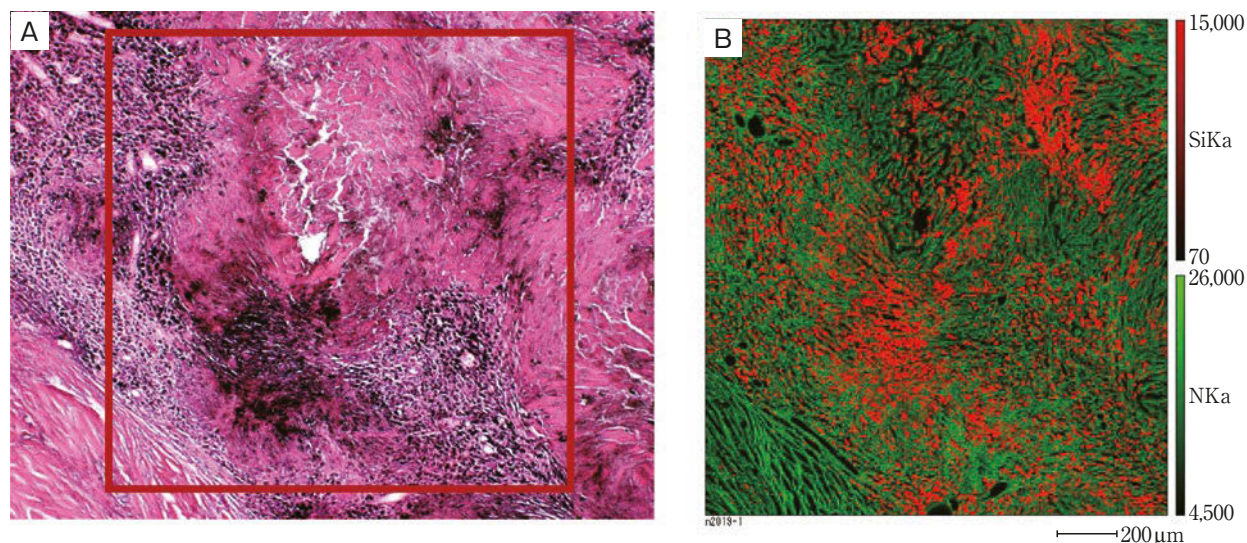


Fig. 3 Microscopic findings. (A) Black pigments are seen inside and outside the macrophages. (B) Electron probe micro-analyzer with wavelength-dispersive spectrometer image of the lesion which is squared in Fig. 3A. Orange dots indicating silica are seen in the site where black pigments are abundant.

変形・狭窄することが以前から知られており⁸⁾⁹⁾、BAFの概念が提唱されてからはこの所見はBAFと記載されている⁴⁾⁵⁾。

また、本症例のように珪酸吸入歴があっても典型的な珪肺の所見を呈さないことがあり、その場合リンパ節の珪肺結節が珪酸吸入の唯一の所見であることがある⁸⁾という。また、珪酸吸入歴さえない患者においても肺門リンパ節に珪酸が存在し、その量は珪肺と診断された患者と同程度であったとの報告がある¹⁰⁾。以上から、本症例は典型的な珪肺の画像所見はなかったが、職歴と元素分析から珪酸吸入によりBAFを生じたものと考えられた。本症例のように吸入歴があるが典型的な珪肺の病像を呈さない場合はもちろんのこと、吸入歴さえない場合にも珪肺にみられるものと同じ機序でBAFを生じる可能性が否定できず、特に結核の有病率が低く、バイオマスも使用しない地域でのBAFでは、その可能性を考慮する必要があると考えられた。

本症例では粉塵を貪食したマクロファージ等の炎症細胞が気管支周囲の腫大したリンパ節から肥厚した気管支上皮にかけて連続的に分布していた。これは、これまでに言われているように⁸⁾⁹⁾末梢気道で粉塵を貪食したマクロファージ等の炎症細胞がリンパ節に集簇し、ここから近接した気管支上皮に遊走して黒色の色調のもととなるという炭粉沈着の発生機序を支持するものである。また、活性化したマクロファージは種々のサイトカインを産生し、気管支上皮を肥厚させるに至ったものと考えられた⁴⁾。

BAFで肺門・縦隔リンパ節に¹⁸F-FDGが集積する機序

は明らかではない。¹⁸F-FDGは代謝の亢進した炎症性細胞、特にマクロファージに集積することが実験的に示されており¹¹⁾、また、珪肺において進行性塊状巣に¹⁸F-FDGの集積がみられること¹²⁾から、本症例では珪酸等を貪食して活性化しリンパ節に集簇した多数のマクロファージに¹⁸F-FDGが集積していたものと推測された。ただし、進行性塊状巣に¹⁸F-FDG集積のない例もあり¹³⁾、珪酸吸入に伴うマクロファージの活動性は症例ごとに異なるようである。BAFをきたすような症例ではマクロファージの活性はより著しいため、気管支上皮の肥厚をきたし、同時にリンパ節へ¹⁸F-FDGが集積したものと考えられた。

謝辞：元素分析を行っていただいた新潟大学呼吸器・感染症内科 菊地利明教授、西新潟中央病院呼吸器内科 森山寛史先生、篤志献体からの病理標本を作製していただいた本学解剖学講座構造生物学教室、人体病理学講座に感謝いたします。

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

引用文献

- 1) 日本呼吸器内視鏡学会編. 気管支鏡 臨床医のためのテクニックと画像診断 第2版. 2008; 84.
- 2) Chung MP, et al. Bronchial stenosis due to anthracofibrosis. *Chest* 1998; 113: 344-50.
- 3) Pilaniya V, et al. Occurrence of bronchial anthracofibrosis in respiratory symptomatics with exposure to biomass fuel smoke. *Adv Respir Med* 2017; 85: 127-35.

- 4) Wynn GJ, et al. Anthracofibrosis, bronchial stenosis with overlying anthracotic mucosa: possibly a new occupational lung disorder. *Chest* 2008; 134: 1069-73.
- 5) Naccache JM, et al. Anthracofibrosis attributed to mixed mineral dust exposure: report of three cases. *Thorax* 2008; 63: 655-7.
- 6) Kim MA, et al. False-positive FDG-PET and bronchial anthracofibrosis. *J Thorac Oncol* 2012; 7: 1474.
- 7) Choi HY, et al. Bronchial anthracofibrosis: a potential false-positive finding on F-18 FDG PET. *Ann Nucl Med* 2012; 26: 681-3.
- 8) Silicosis and Silicate Disease Committee. Diseases associated with exposure to silica and nonfibrous silicate minerals. *Arch Pathol Lab Med* 1988; 112: 673-720.
- 9) Kampalath BN, et al. Obliterative central bronchitis due to mineral dust in patients with pneumoconiosis. *Arch Pathol Lab Med* 1998; 122: 56-62.
- 10) Tosi P, et al. Silicotic lymph node lesions in non-occupationally exposed lung carcinoma patients. *Eur J Respir Dis* 1986; 68: 362-9.
- 11) Kubota R, et al. Intratumoral distribution of fluorine-18-fluorodeoxyglucose in vivo: high accumulation in macrophages and granulation tissues studied by microautoradiography. *J Nucl Med* 1992; 33: 1972-80.
- 12) Chung SY, et al. ¹⁸F-FDG PET imaging of progressive massive fibrosis. *Ann Nucl Med* 2010; 24: 21-7.
- 13) Bando S, et al. A case of lung cancer associated with pneumoconiosis diagnosed by fluorine-18 fluorodeoxyglucose positron emission tomography. *Ann Nucl Med* 2003; 17: 597-600.

Abstract

A case of bronchial anthracofibrosis associated with silicate inhalation

Yuki Hoshino, Sou Shimamura, Shuichirou Ide,
Kazuki Masuda and Hiroshi Ishihara

Department of Internal Medicine II, Faculty of Medicine, University of Yamanashi

Bronchial anthracofibrosis is defined as bronchial pigmentation with stenosis/obstruction observed on bronchoscopy, but its pathology remains unclear. An 86-year-old retired stonemason presented with recent onset of breathlessness. Computed tomography (CT) scan showed bilateral hilar and mediastinal lymphadenopathy and bronchial obstruction of right B³, but typical signs of silicosis were absent. Bronchoscopy revealed anthracosis on several parts of the bronchial epithelium including that on the obstructed right B³. In spite of the extensive uptake of ¹⁸F-FDG to the enlarged lymph nodes, repeated bronchoscopy could not demonstrate any sign of tuberculosis or malignancy, and a diagnosis of bronchial anthracofibrosis was made. After he died of recurrent idiopathic thrombocytopenic purpura, his right lung was examined. In the hilar lymph nodes, numerous dust-laden macrophages and other inflammatory cells were aggregated and these cells were distributed continuously to the swollen bronchial epithelium. Electron microscopical analysis demonstrated silica as a main mineral component in that lesion, which was suspected as a cause of the patient's anthracofibrosis.