

●症 例

高周波スネアを用いて気管支鏡下に切除した気管支過誤腫の8例

瀧川 雄貴 佐藤 賢 光宗 翔
 岩本 佳隆 工藤健一郎 藤原 慶一

要旨：気管支過誤腫は稀な呼吸器良性腫瘍である。わが国において、気管支鏡下に気管支過誤腫を切除した単一施設での複数症例報告はほとんどない。2016年から2020年の5年間に気管支腫瘍に対して高周波スネアで切除し気管支過誤腫と診断した8例を経験した。5例が軟骨型であった。合併症は1例に術後に軽症肺炎を発症し、1例に切除断端の肉芽形成を認めた。切除後の気管支過誤腫の再発は認めなかった。

キーワード：気管支過誤腫, 硬性気管支鏡, 気管支鏡下切除, 高周波スネア, アルゴンプラズマ凝固
 Endobronchial hamartoma (EH), Rigid bronchoscope, Bronchoscopic resection,
 High-frequency electrosurgical snaring, Argon plasma coagulation (APC)

緒 言

気管支過誤腫 (endobronchial hamartoma : EH) は非常に稀である。EHは腫瘍径が小さいときにはCT検診などで偶発的に発見されることが多く、腫瘍の増大に伴って呼吸困難、血痰などの症状を呈して発見されることもある。わが国において、気管支鏡下でEHを切除した単一施設での症例報告は非常に少ない。2016年から2020年に気管支鏡下に切除したEH 8例を経験したため、文献的考察を加えて報告する。

症 例

症例は2016年4月1日から2020年3月31日までの5年間に、岡山医療センター呼吸器内科にて気管支鏡下に切除したEHの8例である (Table 1)。男性6例、女性2例、最高齢は82歳で、平均年齢は68.4歳であった。6例に労作時呼吸困難・血痰・咳嗽などの症状が認められ、無症状の2例は、径7mmの小さな腫瘍であった。平均径は12.1mmで、最大の腫瘍は径23mmであった。当院では術前の経気管支生検は施行していない。5例は紹介医にてすでに経気管支生検が行われていたが、術前診断でEHと診断されていたのは【症例6】のみであった。当院で施行した切除術の組織標本の病理診断結果は全例EHの

確定診断で、軟骨型は5例、非軟骨型は3例であった。

気管支内視鏡所見としては、Fig. 1に示すようにポリリーブ状で白色から黄白色、灰白色を呈しており、多結節状であった。症例によっては表面の血管の拡張、蛇行が目立つ腫瘍もあった。

7例 (【症例1~7】) は全身麻酔下の硬性気管支鏡下に切除術を施行し、1例 (【症例8】) は軟性気管支鏡下に高周波スネアで切除を行った。【症例2】のみ術前に腫瘍基部にエタノール局所注射 (0.3mLを3回施行) を行った。当院2例目の症例であり、CTで14mmと比較的大きな腫瘍であったため、エタノール局所注射による腫瘍縮小効果を期待した。

硬性気管支鏡治療を【症例1~7】に施行した。全身麻酔下に自発呼吸を残しながら硬性気管支鏡を挿入し、軟性気管支鏡を用いて切除を行った。基本治療として、高周波スネア (通電時間はすべて1秒以下) で切除を行ったが、腫瘍径が大きく腫瘍基部が確認できないEHに対しては、安全のために一括切除を避け、分割切除を施行した。腫瘍の遺残がある場合は、ホットバイオプシー鉗子を用いて鈍的に除去することで、完全切除を目標とした。切除後に出血を認めた際や、断端の処理が不十分であった際にはアルゴンプラズマ凝固 (argon plasma coagulation : APC) を用いて処置を行った。切除した腫瘍は硬性気管支鏡を介して摘出し、病理診断を依頼した。平均手術時間は53.9分であり、時間を要した【症例4, 7】は径の大きいEHであった。いずれの症例も再発は本報告時点では認められていない。

軟性気管支鏡治療を【症例8】のみ施行した。ミダゾラム (midazolam) 2mg, フェンタニル (fentanyl) 0.04mg

連絡先：佐藤 賢

〒701-1192 岡山県岡山市北区田益1711-1

独立行政法人国立病院機構岡山医療センター呼吸器内科

(E-mail: 04centersato@gmail.com)

(Received 6 Sep 2021/ Accepted 7 Jan 2022)

Table 1 Characteristics of patients

Case	Year	Gender	Age	Symptom	Location	Polyp size	Therapy	Complication	Recurrence	Preoperative diagnosis	Pathological diagnosis	Bronchoscope
1	2016	M	82	Bloody sputum	Rt middle lobe	7 mm	Snare, hot biopsy forceps	Pneumonia	None	Not examined	Cartilaginous	Rigid, flexible
2	2016	M	75	Bloody sputum	Proximal area of Rt lower lobe	14 mm	EI, Snare, APC	Granulation tissue formation	None	No evidence of malignancy	Lipomatous	Rigid, flexible
3	2017	F	74	None	Proximal area of Lt lower lobe	7 mm	Snare	None	None	Myxoma	Cartilaginous	Rigid, flexible
4	2017	M	62	Cough	Proximal area of Rt upper lobe	23 mm	Snare, APC	None	None	Not examined	Cartilaginous	Rigid, flexible
5	2017	F	56	Cough	Rt middle lobe	12 mm	Snare, APC	None	None	Lipoma	Lipomatous	Rigid, flexible
6	2018	M	55	DOE	Proximal area of Lt upper lobe	12 mm	Snare, APC	None	None	Hamartoma	Cartilaginous	Rigid, flexible
7	2020	M	70	DOE	Proximal area of Rt lower lobe	15 mm	Snare, APC, hot biopsy forceps	None	None	No evidence of malignancy	Cartilaginous	Rigid, flexible
8	2020	M	73	None	S ³ of Lt upper lobe	7 mm	Snare	None	None	Not examined	Lipomatous	Flexible

Rt: right-sided, Lt: left-sided, EI: ethanol injection, Snare: high-frequency electrocautery snaring, APC: argon plasma coagulation, DOE: dyspnea on exertion.

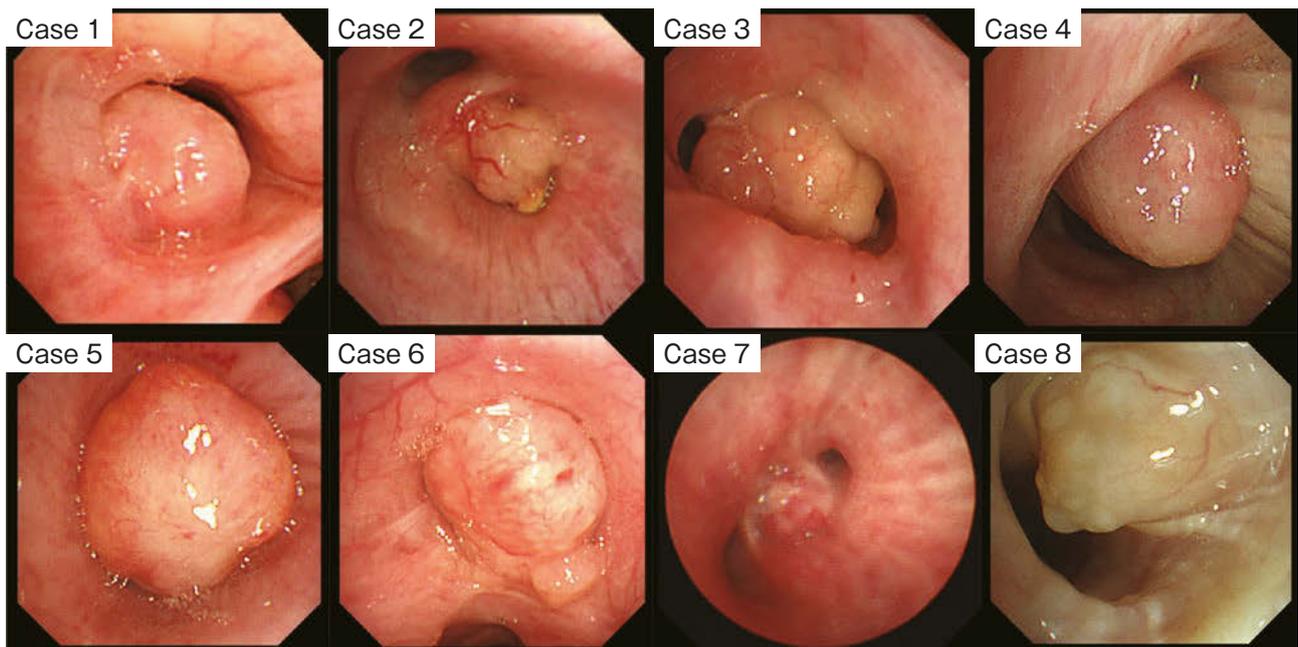


Fig. 1 Eight cases of endobronchial hamartoma. Bronchoscopy findings show a white, yellowish-white, or gray-white polypoid bronchial tumor.

による鎮静下に、内径8mmの挿管チューブ（カフなし）にて気道確保を実施し、高周波スネアを用いて一括切除を施行した。内視鏡的に出血や腫瘍遺残を認めなかった。手術時間は32分で終了した。その後の再発は本報告時点では認められていない。

短期合併症として肺炎が1例と肉芽形成が1例あった。【症例1】は切除術が施行された翌日に発熱し、胸部単純X線写真にて右下肺野に浸潤影を認め、右下葉肺炎と診

断した。【症例2】は4ヶ月後のCTでEHの再発が疑われたため気管支鏡検査を施行した。右下葉支入口部左壁にポリープ状の軟らかい腫瘤を認めた。遺残断端からの再発と考え、軟性気管支鏡下にスネア切除、APCによる断端の焼灼を行った。切除標本の病理組織学的診断では、EH切除後の断端に発生した炎症性肉芽腫であった。

考 察

EHは非常に稀で、肺過誤腫の1.4%と報告されている¹⁾。EHは組織学的には軟骨組織が優位な軟骨型、筋組織と結合組織が主たる基質となっている非軟骨型に分類され、軟骨型が圧倒的に多いとされる²⁾。EHの上皮は正常気管支に覆われ、組織が硬く生検鉗子が滑りやすいため、十分な生検組織の採取が困難である症例が多い。そのため術前診断率が低いと考えられ、実際に切除前にEHと組織学的診断が得られた例は14.8%と報告される³⁾。当院では、経過や画像などから全例でEHなどの良性腫瘍が疑われていたが、切除前に正しい組織学的診断が得られていた症例は1例(12.5%)のみであった。

治療は気管支鏡による気管支鏡下切除と外科的切除に分けられるが、自験例では比較的気管支の中枢側に位置していたため、全例で低侵襲な気管支鏡下切除が可能と判断した。なお、気管支鏡治療としては、APC、レーザー焼灼術、ホットバイオプシー鉗子などの鉗子切除、高周波スネア、エタノール局所注射療法などの有効性が報告されている。近年の海外の文献ではクライオセラピーによるEHの切除が報告⁴⁾⁵⁾されており、わが国での報告も今後期待される。気管支内腫瘍に対し気管支鏡下切除術を施行したところ、肺実質への進展も確認された肺過誤腫の症例⁶⁾もあり、治療方針の決定には呼吸器外科医師とのカンファレンスを行い、詳細な検討が必要である。

当院で施行した8例のうち7例は、全身麻酔下に硬性気管支鏡を挿入して、切除を行った。EHは悪性腫瘍と比較し、出血リスクは低いが、腫瘍切除後の出血時の処置の操作性や、視野の確保、また腫瘍切除後に安全に体外に摘出できるように硬性気管支鏡下に気道確保を行っておくメリットは大きい。軟性気管支鏡下切除のメリットは、低侵襲、短時間で切除が終了できることが挙げられるが、デメリットとして使用可能な処置器具が限定的で、出血時のリスク、切除組織の回収などの問題点が挙げられる。当院では全例高周波スネアを用いて、腫瘍切除を行い、必要時にはAPCを用いて止血処置、腫瘍断端の焼灼、腫瘍除去を行った。高周波スネアを用いた切除法の最も適した形態はポリープ状・有茎性で、正常気管支上皮に覆われた腫瘍の診断、治療目的でも使用が推奨されることから、EHには良い適応と考えられる。高周波スネアで処置することができれば、大きな組織を短時間で切除可能であり、EHのように正常気管支上皮に覆われた腫瘍では病理組織学的診断でも大変有利である。一方、大きな組織が一括して切除できるため、標本を回収する準備が必要である。生検鉗子、バスケット把持鉗子などの把持鉗子を準備しておくことが望ましい⁷⁾。当院

では腫瘍径が大きく、腫瘍基部が確認できない腫瘍に対しては、盲目的な通電による気管支表面の損傷などがないうような安全性の確保のために分割切除を施行している。また、一括切除を行った場合は声帯を通過する際に腫瘍が嵌頓しないように注意が必要である。実際に気管腫瘍切除後、摘出の際に気管切開を要した例の報告もある⁸⁾ため、このような観点から腫瘍径が大きい場合には、硬性気管支鏡の挿入で安全な気道確保が可能となり、把持力の強力な硬性鏡鉗子の使用により腫瘍切除後の体外摘出が容易となるため、メリットは大きいと考えられる。

高周波スネアによる切除後、切除断端の遺残の程度が大きい場合はEH再発が懸念されるためAPCを用いて断端の焼灼を行い、断端からの出血を認めた場合も止血目的の焼灼を施行した。Nd-YAGレーザーと比較すると腫瘍除去能力は劣るが、止血においては優れており、気管支穿孔のリスクが少ない。安全性が高いとされるAPCではあるが、非常に少ない合併症として高周波電流での発火、気道熱傷、気管・気管支穿孔、瘻孔形成、縦隔気腫、空気塞栓などには注意が必要である⁹⁾。当院では経鼻酸素投与4L/分以下または吸入酸素濃度40%以下の状態でAPCを使用している。また同様に、高周波スネアの一括切除のみでは断端が遺残する可能性があり、腫瘍遺残の程度が大きい場合はホットバイオプシー鉗子を用いて鈍的に除去を行った。止血処置はAPCの方が容易であり、適宜使い分ける必要がある²⁾⁷⁾。

当院の気道インターベンション治療では悪性腫瘍の気管転移などに対して腫瘍縮小効果を期待してエタノール局所注射を事前に行ってから切除することもあるが、エタノール局所注射が軟骨型EHに有効であった例がわが国で1995年に報告されている¹⁰⁾。森によると軟骨組織内へのエタノール注入は不可能であるが、軟骨型EHは全体が壊死を生じることは考えにくいいため、支持組織の壊死脱落とともに軟骨組織も脱落して腫瘍が縮小し、根治的治療法となる可能性があるとして述べられていた。自験例では【症例2】において、腫瘍径が14mmと比較的大きい腫瘍であったため、術前にエタノール局所注射を施行した。2日後の硬性気管支鏡下切除時には注入前より腫瘍径が腫大していたことから、1例のみではあるが有用とはいえなかったため、以降の症例では施行していない。また、本症例は唯一EH切除断端に肉芽形成を認めたが、エタノール局所注射と肉芽形成との関連は不明である。

Abdel Hadyら¹¹⁾が1960～2016年にEH切除を施行した報告の756例を検討した文献では、気管支鏡下切除を行った1例のみに気胸での死亡報告があったが、基本的には安全に施行できたことが報告されている。再発例については、2002年のCosíoら¹²⁾の報告では47例中4例(8.5%)、2010年のKimら¹³⁾の報告では17例中1例(5.9%)

に再発を認めている。当院では、最低12ヶ月以上の観察期間が得られているが、現時点では再発例は認められていない。高周波スネアによる切除後、APC、ホットバイオプシー鉗子による腫瘍切除、遺残断端の処置を入念に行うことで再発予防は可能であることから、断端の処理は重要であると考えられる。

高周波スネアを用いて気管支鏡下に切除したEHの8例を経験した。安全に切除でき、再発を認めておらず、気管支鏡治療は有用であった。

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) Gjevre JA, et al. Pulmonary hamartomas. *Mayo Clin Proc* 1996; 71: 14-20.
- 2) 日野弘之, 他. ホットバイオプシー鉗子とNd-YAGレーザーで内視鏡的に切除した気管支内過誤腫の1例. *気管支学* 2008; 30: 96-101.
- 3) 湯浅幸吉, 他. 気管支内過誤腫の2治験例—本邦報告62例についての臨床的検討—. *日呼外会誌* 1992; 6: 166-74.
- 4) Sim JK, et al. Two cases of diagnosis and removal of endobronchial hamartoma by cryotherapy via flexible bronchoscopy. *Tuberc Respir Dis* 2014; 76: 141-5.
- 5) Lee SH, et al. Endoscopic cryosurgical resection of pulmonary hamartoma with flexible bronchoscopy. *Korean J Thorac Cardiovasc Surg* 2011; 44: 307-10.
- 6) 窪田幸司, 他. 肺実質への進展が確認された気管支内腔型肺過誤腫の1例. *気管支学* 2020; 42: 524-8.
- 7) 門間英二, 他. 気道狭窄に対する高周波スネアとホットバイオプシー鉗子を用いた気管支鏡下電気焼灼術. *気管支学* 2003; 25: 513-9.
- 8) 神山幸一, 他. 気管支鏡下高周波スネアにて切断後体外摘出に難渋した気管腫瘍の1例. *気管支学* 1989; 11: 576-9.
- 9) 本田樹里, 他. アルゴンプラズマ凝固療法の5週間後に気管支胸腔瘻を来した肺扁平上皮癌の1例. *気管支学* 2018; 40: 134-8.
- 10) 森 公介. 純エタノール局所注入が有用であった気管支内過誤腫の1例. *気管支学* 1995; 17: 59-63.
- 11) Abdel Hady SM, et al. Is surgical resection superior to bronchoscopic resection in patients with symptomatic endobronchial hamartoma? *Interact Cardiovasc Thorac Surg* 2017; 24: 778-82.
- 12) Cosío BG, et al. Endobronchial hamartoma. *Chest* 2002; 122: 202-5.
- 13) Kim SA, et al. Bronchoscopic features and bronchoscopic intervention for endobronchial hamartoma. *Respirology* 2010; 15: 150-4.

Abstract

A study of eight cases of endobronchial hamartomas resected with bronchoscopic electro-surgical snaring

Yuki Takigawa, Ken Sato, Sho Mitsumune, Yoshitaka Iwamoto,
Kenichiro Kudo and Keiichi Fujiwara

Department of Respiratory Medicine, National Hospital Organization Okayama Medical Center

Endobronchial hamartoma (EH) is a rare disease among benign lung tumors. To the best of our knowledge, there are few Japanese reports of EHS that have been resected under rigid or flexible bronchoscopy at a single facility. Here, we describe seven cases which were resected with rigid bronchoscopy and one case of EH which was resected with flexible bronchoscopy. We used bronchoscopic electro-surgical snaring for the safe removal of the EHS. Five cases were cartilaginous hamartomas and three cases were lipomatous hamartomas. Only one case developed mild postoperative pneumonia and in another case granulation tissue formed. There were no serious complications, deaths, or recurrences. We completed endoscopic resection of all eight cases safely and report our experience with reference to the relevant literature.