

●画像診断

肺静脈瘤を合併したアレルギー性気管支肺真菌症の1例

尾下 豪人 緒方 美里 井上亜沙美
佐野 由佳 吉岡 宏治 池上 靖彦

要旨：症例は過去にアレルギー性気管支肺真菌症を疑われた67歳の女性。検診で胸部単純X線写真の異常を指摘されて再診した。胸部単純CTでは中枢性気管支拡張，気管内粘液栓とともに左肺下葉に増大傾向を示す結節影を認めた。造影CTを施行したところ，左肺下葉の結節影には肺静脈との連続性と造影効果を認めた。左肺下葉切除術を施行され，肺静脈瘤と最終診断された。粘液栓と血管病変はいずれも辺縁平滑な結節影を示すため，造影効果，気管支や血管との連続性，内部のCT値に着目して鑑別する必要がある。

キーワード：肺静脈瘤，アレルギー性気管支肺真菌症，高吸収粘液栓

Pulmonary varix, Allergic bronchopulmonary mycosis (ABPM),
High attenuation mucus (HAM)

緒言

肺静脈瘤は比較的稀な疾患であり，一部分に限局した肺静脈の拡張と定義されている¹⁾。多くの症例は治療を要さないが，過去には静脈瘤内の血栓形成により脳塞栓をきたした症例や，気管支や胸腔内へ破裂した症例も報告されている¹⁾²⁾。一方，アレルギー性気管支肺真菌症 (allergic bronchopulmonary mycosis : ABPM) は，気道内に腐生した真菌によって引き起こされるアレルギー性気道・肺疾患である³⁾。わが国では高吸収粘液栓 (high attenuation mucus : HAM) を含む10項目からなるABPM臨床診断基準が作成され，高い精度でABPMを診断できることが報告されている⁴⁾。

我々は肺静脈瘤を合併したABPMの1例を経験した。粘液栓と血管病変の鑑別について示唆に富む症例であったため報告する。

症例

患者：67歳，女性。

主訴：胸部異常陰影。

現病歴：20XX-12年4月に喘息症状が悪化したため当院を受診し，胸部CTで中枢性気管支拡張所見，HAM，

血液検査にて非特異的IgE高値 (908IU/mL)，好酸球増多 (1,942/ μ L)などを指摘された。ABPMを疑われたが，気管支鏡検査やステロイド薬投与の同意が得られず，確定診断には至らなかった。気管支喘息に対して外来治療を受け，肺病変は画像的に増悪と消退を繰り返したが，症状は乏しかった。20XX-9年には患者の希望があり，当院から近医に転医して喘息治療が継続された。20XX年9月に検診の胸部単純X線写真にて異常陰影を指摘されたため，当院を受診した。

既往歴：気管支喘息 (小児期から)。

家族歴：特記事項なし。

生活歴：喫煙は5本/dayを7年間 (27歳まで)。飲酒なし。職業は販売員。

身体所見：体温36.7℃，血圧143/81mmHg，脈拍67回/分・整，呼吸数14回/分，SpO₂98% (室内気)。胸部聴診では心雑音はなく，呼吸音も清。腹部，四肢に異常は認めなかった。

検査所見：血液検査では非特異的IgEが3,420IU/mLと高値であった。また，追加提出したアスペルギルス特異的IgEが陽性だった。

画像所見：胸部単純X線写真では，20XX-9年の画像にも認められる右上肺野の索状影，右下肺野の軌道状陰影に加え，左下肺野に腫瘤影を新たに認めた (Fig. 1)。胸部単純CT (Fig. 2) では，肺野条件でびまん性に気管支拡張や気管支壁肥厚を認めた。また，縦隔条件で内部平均CT値が70~80HUとやや高吸収を示す結節影が散在していたが，左肺下葉肺門側に平均CT値が26HUの結節影を認めた。

連絡先：尾下 豪人

〒730-0822 広島県広島市中区吉島東3-2-33

国家公務員共済組合連合会吉島病院呼吸器内科

(E-mail: oshita1978@gmail.com)

(Received 23 Jun 2022/ Accepted 4 Aug 2022)

臨床経過：胸部CT縦隔条件で高吸収域を示す結節影は粘液栓と考えられたが、左肺下葉肺門側の結節影は内部高吸収域を示さず、20XX-10年の胸部単純CTと比較すると同病変は明らかに増大していた (Fig. 3)。腫瘍性病変や血管病変との鑑別が必要と考え、1週間後の再診時に造影剤による副作用の危険性を説明し、同意を得たうえで造影CTを施行した。左肺下葉肺門側の結節影には肺静脈と同程度の造影効果を認め (Fig. 4A)、3-D再構

成画像では肺静脈との連続性が確認できた (Fig. 4B)。同病変に連続する拡張肺動脈は認めなかったため、肺動脈静脈奇形は否定的であり、肺静脈瘤を疑った。患者の希望でA病院呼吸器外科に転医し、胸腔鏡補助下左肺下葉切除術が施行された。切除組織では肺静脈の囊状拡張を認め、肺静脈瘤と診断された。瘤部分には静脈壁の菲薄化と平滑筋や弾性線維の減少がみられた。

考 察

本症例はABPMの経過中に粘液栓に混じって増大傾向を示す結節影を認め、肺静脈瘤と診断した。なお、本症例を2019年に作成されたABPMの診断基準⁴⁾に照らすと、気管支喘息、末梢血好酸球数 $500/\mu\text{L}$ 以上、血清総IgE値 417IU/mL 以上、糸状菌に対する特異的IgE陽性、中枢性気管支拡張、気管支内粘液栓、HAMの7項目を満たし、ABPMの確定診断例と考えられた。

粘液栓と血管病変はいずれも単純CTで辺縁平滑な結節影を呈する。造影CTでの造影効果を評価すれば一目瞭然だが、本症例のように喘息を合併する患者では造影剤による副作用の危険性が高いため、実施に際しては慎重さが求められる。単純CTでも病変と血管あるいは気管支の連続性を評価することで、血管病変を鑑別することは可能である。その際には軸位断だけでなく、矢状断、冠状断、3-D再構成画像による評価も有用である⁵⁾。一方、本症例のように同一症例に粘液栓と血管病変が混在した場合、個々の病変について周囲構造物との連続性の評価を怠ってしまうと診断の遅れにつながりかねない。これ

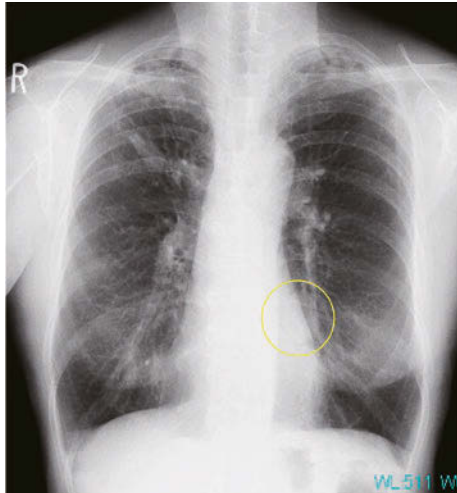


Fig. 1 Chest radiography. Chest radiography showed a trabecular shadow in the upper right lung field, tram-line shadows in the lower right lung field, and a mass shadow (yellow circle) in the lower left lung field.

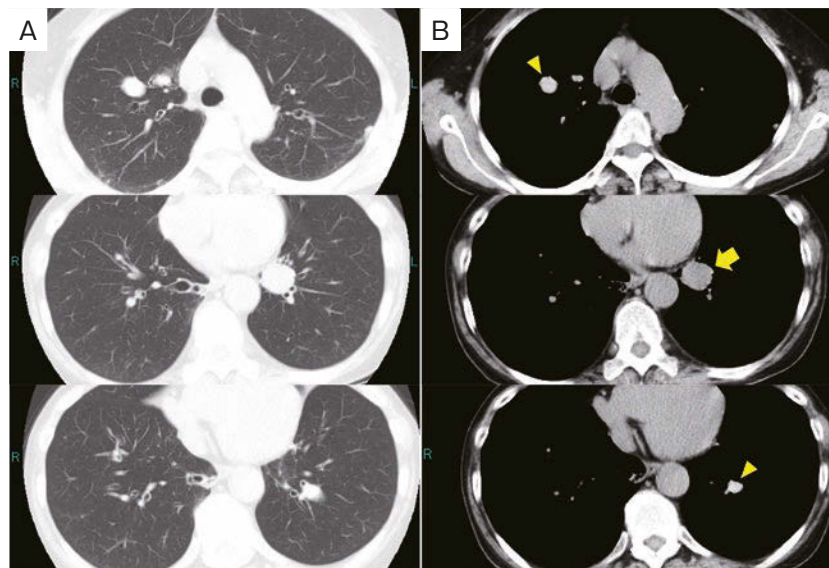


Fig. 2 Computed tomography (CT). (A) Chest CT (pulmonary window setting) showed central bronchiectasis in both lungs. (B) Chest CT (mediastinal window setting) revealed multiple high attenuation mucoid impaction (yellow arrowheads) in both lungs and a nodular shadow (yellow arrow) in the lower lobe of the left lung.

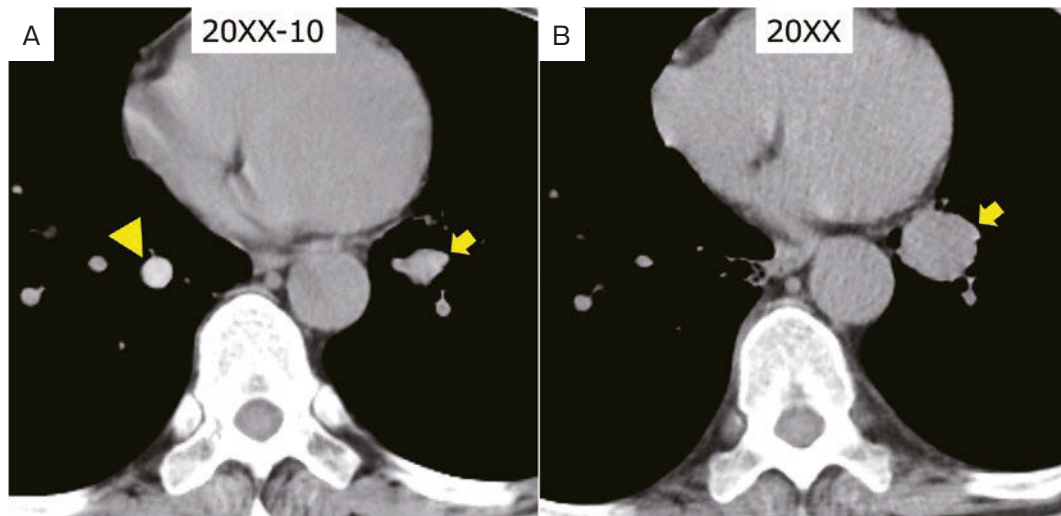


Fig. 3 Comparison of chest CT taken 10 years ago and at revisit. (A) Chest CT scan taken 10 years ago showed high attenuation muroid impaction (yellow arrowhead, average CT value 95 HU) in the lower lobe of the right lung. (B) Chest CT scan at revisit revealed an increase in the nodular shadow (yellow arrow, average CT value 26 HU) in the lower lobe of the left lung.

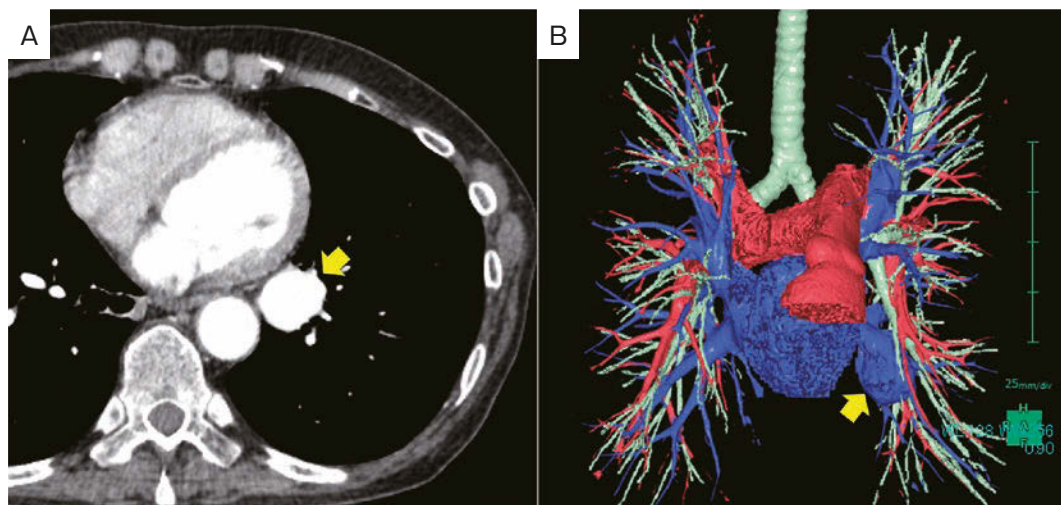


Fig. 4 Contrast-enhanced CT scan with three-dimensional volumetric imaging. (A) Contrast-enhanced CT revealed a highly enhanced nodule (yellow arrow). (B) Three-dimensional CT demonstrated that the nodular lesions were continuous with the left pulmonary vein (yellow arrow).

まで粘液栓と血管病変の鑑別に焦点を当てた報告は乏しく、教訓的な症例と考えられた。

また、ABPMによる粘液栓と血管病変の鑑別点として、単純CT縦隔条件における内部のCT値も一助となることがある。ABPMによる粘液栓は約半数で傍脊椎筋よりも高吸収（CT値で70HU）を示し⁶⁾、ABPMの診断における有用性が高い。特に再燃例やIgE高値例ではHAMが認められることが多いとの報告もあり⁷⁾、本症例の粘液栓でも高吸収が認められた。一方、左肺下葉に増大した肺静脈瘤には内部高吸収域を認めず、血管病変を疑う一因

となった。

本症例においてABPMによる慢性気道炎症と気道の構造破壊が肺静脈瘤の発症に関与したのかどうかは興味深い点である。肺静脈瘤の発症様式としては先天性と後天性があり、後天性では僧帽弁機能異常などによる肺静脈圧亢進が重要とされている^{8)~10)}。心疾患を合併しない症例は基本的に予後良好とされ、治療対象にならないことが多い⁸⁾。しかし、心疾患がないにもかかわらず増大傾向を示して手術を施行された症例報告もあり、その報告では先天的もしくはなんらかの後天的な要因により、中

膜平滑筋の菲薄化や脆弱性が存在し、正常な肺静脈圧で瘤化したと推測されている¹¹⁾。本症例も心疾患はなかったが肺静脈瘤は緩徐に増大し、手術検体で静脈壁の菲薄化、脆弱化が認められた。検索した範囲でABPMと肺静脈瘤の合併例は報告がなく、因果関係は不明である。

肺静脈瘤の治療方針には明確なものはなく、心疾患の有無、瘤の変化、患者の合併症、全身状態、希望などを勘案して症例ごとに決定する必要がある。前述どおり心疾患のない症例では治療を要さないことが多いが、本症例は瘤が大きく、増大傾向も顕著であったため、将来的な瘤破裂や血栓症合併の危険性が否定できないと考え、手術療法を選択した。

以上、肺静脈瘤を合併したABPMの1例を報告した。粘液栓と血管病変の鑑別には注意を要し、造影効果、気管支あるいは血管との連続性、内部のCT値などから鑑別する必要がある。

謝辞：本論文の執筆にあたりご指導をいただいた、当院院長の山岡直樹先生に深謝します。

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) Batram C, et al. Pulmonary varices. *Br J Radiol* 1971; 44: 927-35.

- 2) Arnett JC Jr, et al. Pulmonary varix. *Thorax* 1976; 31: 107-12.
- 3) Asano K, et al. Allergic bronchopulmonary mycosis — pathophysiology, histology, diagnosis, and treatment. *Asia Pac Allergy* 2018; 8: e24.
- 4) Asano K, et al. New clinical diagnostic criteria for allergic bronchopulmonary aspergillosis/mycosis and its validation. *J Allergy Clin Immunol* 2021; 147: 1261-8.
- 5) 安西 誠, 他. 3-D CT画像が診断上有用であった肺静脈瘤の1例. *日呼吸会誌* 2011; 49: 619-22.
- 6) Oguma T, et al. Allergic bronchopulmonary aspergillosis in Japan: a nationwide survey. *Allergol Int* 2018; 67: 79-84.
- 7) Agarwal R, et al. Clinical significance of hyperattenuating mucoid impaction in allergic bronchopulmonary aspergillosis: an analysis of 155 patients. *Chest* 2007; 132: 1183-90.
- 8) 厚地良彦, 他. Pulmonary varix—その臨床的意義. *心臓* 1974; 6: 1529-35.
- 9) Shida T, et al. Pulmonary varices associated with mitral valve disease: a case report and survey of the literature. *Ann Thorac Surg* 1982; 34: 452-6.
- 10) 伊藤重範, 他. 僧帽弁膜症に伴った肺静脈瘤の1例. *心臓* 1989; 21: 1356-60.
- 11) 下川秀彦, 他. 右肺静脈瘤に対し右S^{9,10}区域切除を施行した1例. *日呼外会誌* 2016; 30: 69-74.

Abstract

A case of allergic bronchopulmonary mycosis with pulmonary varix

Hideto Oshita, Misato Ogata, Asami Inoue, Yuka Sano,
Koji Yoshioka and Yasuhiko Ikegami

Department of Respiratory Medicine, Federation of National Public Service
and Affiliated Personnel Mutual Aid Associations, Yoshijima Hospital

A 67-year-old woman who was previously suspected of having allergic bronchopulmonary mycosis (ABPM) returned to our hospital because of chest radiograph abnormalities. Chest computed tomography (CT) showed central bronchiectasis and mucous plugs, as well as increased nodular shadowing in the lower lobe of the left lung. Contrast-enhanced CT confirmed the continuity of the nodular shadow of the left lung with the pulmonary veins and the contrast-enhanced effect. She underwent a left lower lobectomy and was finally diagnosed with pulmonary varix. Since both vascular lesions and mucous plugs due to ABPM can exhibit smooth nodular shadows, they should be differentiated by focusing on the contrast effect, continuity with bronchi or blood vessels, and internal CT values.