

## ●症 例

## CEA 高値とリンパ節へのFDG集積を伴ったアレルギー性気管支肺真菌症の1例

川床 健司 森脇 篤史 吉田 誠

要旨：症例は47歳女性。発熱を主訴に受診した。胸部CTで左肺浸潤影，中枢性気管支拡張，粘液栓を認め，アレルギー性気管支肺真菌症 (allergic bronchopulmonary mycosis : ABPM) が疑われた。しかし，血清CEA高値，肺門・縦隔リンパ節腫大などの所見より，肺癌を含む他疾患と鑑別が必要であった。FDG-PET/CTで同部位に集積を認めたが，気管支鏡検査では悪性所見を認めず，ABPMとしてプレドニゾロン (prednisolone) の治療を開始したところ，画像所見の改善とCEA低下を認めた。ABPMでもFDG集積を伴う肺門・縦隔リンパ節腫大やCEA高値をきたしうる。

キーワード：アレルギー性気管支肺真菌症，癌胎児性抗原，肺門・縦隔リンパ節，

<sup>18</sup>F-fluorodeoxyglucose positron emission tomography/computed tomography (FDG-PET/CT)  
Allergic bronchopulmonary mycosis (ABPM), Carcinoembryonic antigen (CEA),  
Hilar and mediastinal lymph nodes

## 緒 言

アレルギー性気管支肺真菌症 (allergic bronchopulmonary mycosis : ABPM) は気道に腐生した真菌によって引き起こされる，I型・III型アレルギー性反応が引き起こす気道・肺疾患である。

胸部CTの特徴的な画像所見としては，中枢性気管支拡張や高濃度領域を有する粘液栓などがある<sup>1)</sup>。今回我々は，胸部CT所見で中枢性気管支拡張や粘液栓を認めるとともに，肺門・縦隔リンパ節が腫大しており，また<sup>18</sup>F-fluorodeoxyglucose positron emission tomography/computed tomography (FDG-PET/CT) では同部位にFDGの強い集積を認め，血清CEAが高値であることから，肺癌などの鑑別に難渋した症例を経験したため，報告する。

## 症 例

患者：47歳，女性。

主訴：発熱，咳嗽。

現病歴：小児喘息の既往があり，24歳頃から喘息症状が再燃した。2年前に近医で撮影された胸部CTで，肺

門・縦隔リンパ節腫大は認めず，気管支拡張や粘液栓，無気肺を認めたため，気管支喘息，ABPM疑いにて通院中であった。11日前より発熱を認め，近医を受診した。対症療法にて解熱したが，2日前より再度発熱を認めたため，当院受診，同日入院となった。

既往歴：アレルギー性鼻炎。

喫煙歴：なし。

入院時現症：意識清明。身長158.0cm。体重53.0kg。体温38.4℃，血圧93/54mmHg，脈拍96回/分・整。SpO<sub>2</sub>95% (室内気)。呼吸音清明。心音に異常を認めず。

入院時検査所見：末梢血好酸球数が1,867/μL，血清総IgE値が915IU/mLと上昇しており，特異的IgE抗体については，*Aspergillus fumigatus*で陽性所見が認められた。*A. fumigatus*に対する沈降抗体検査は陰性であった。CEAが30.3ng/mLと上昇していたが，便潜血は陰性であり，T-SPOT®.TBも陰性であった。可溶性IL-2レセプターは636U/mLと軽度上昇していた。

胸部単純X線写真：左中下肺野に浸潤影を認めた。

胸部単純CT (Fig. 1)：左肺舌区から下葉に浸潤影，気管支拡張を認めた。気管支内や浸潤影の内部に高吸収域が認められ，粘液栓が疑われた。肺門・縦隔リンパ節腫大が多発していた。

FDG-PET/CT (Fig. 2)：左肺下葉の浸潤影にSUVmax 15.2，左肺門部，左上部下気管傍リンパ節などにSUVmax 8.4の集積を認めた。

気管支鏡検査：左肺下葉枝に黄褐色の粘液栓を認めた。左肺B<sup>8</sup>から擦過，洗浄，経気管支肺生検 (transbron-

連絡先：川床 健司

〒811-1394 福岡県福岡市南区屋形原4-39-1

独立行政法人国立病院機構福岡病院呼吸器内科

(E-mail: k.kawatoko0606@gmail.com)

(Received 16 Jul 2022/Accepted 19 Dec 2022)



Fig. 1 Chest computed tomography (CT) showed infiltrative shadows, central bronchiectasis (A, arrow) and a mucus plug (B, arrow) in the lingula and lower lobes of the left lung, and hilar and mediastinal lymphadenopathy (C, arrows).

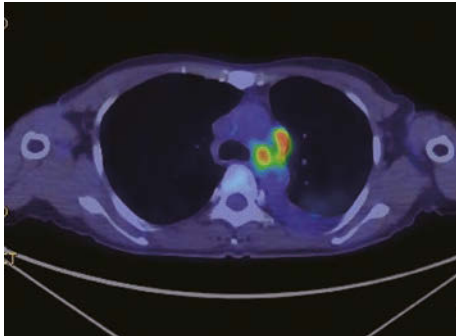


Fig. 2 Positron emission tomography (PET)/CT shows high  $^{18}\text{F}$ -fluorodeoxyglucose (FDG) uptake in the hilar and mediastinal lymph nodes.

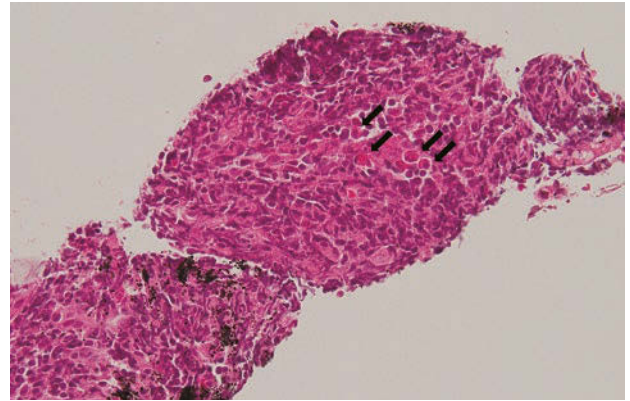


Fig. 3 The pathology of the lymph node biopsy showed a few eosinophils (arrows). Neither granulomas, fungal hyphae, nor Charcot-Leyden crystals were found in the specimen.

chial lung biopsy : TBLB), 縦隔リンパ節 #4L に超音波気管支鏡ガイド下針生検 (endobronchial ultrasound-guided transbronchial needle aspiration : EBUS-TBNA) を施行した. TBLB 検体では, 気管支壁や上皮組織に好酸球浸潤, 粘液を含む分泌液中にも好酸球が認められた. 器質化の所見は認めなかった. EBUS-TBNA 検体では, リンパ組織の一部に好酸球が認められた (Fig. 3). 各検体から, 悪性所見, 肉芽腫や真菌菌糸, シャルコー・ライデン結晶は認めなかった. 喀痰, 気管支洗浄液の培養, 細胞診にて真菌, 抗酸菌は検出されなかった.

臨床経過 : 入院後, 細菌性肺炎の診断にてセフトキシム (cefotaxime : CTX)  $2\text{g} \times 2/\text{日}$  による治療を開始した. 一方で血清 CEA 高値であり, 肺門・縦隔リンパ節腫大も多発しており, 肺癌などを鑑別に FDG-PET/CT を施行した. 左肺下葉の浸潤影, 肺門・縦隔リンパ節に FDG 集積を認め, 第 15 病日に気管支鏡検査を施行した. その後も抗菌薬を継続し, 炎症所見が低下したため第 19 病日で終了とし, 第 23 病日に退院とした. 病理検査では悪性所見を認めず経過観察の方針としたが, 第 67 病日の胸部 CT にて左肺下葉の浸潤影は改善傾向にあったが, 舌区の浸潤影は残存し, リンパ節腫大は不変であった. 血清学的検査, 病理所見, 気管支擦過・洗浄液の抗酸菌検

査の結果から, 抗酸菌感染やリンパ腫などの他疾患を疑う所見は乏しく, 気管支鏡検査前後で提出した喀痰および気管支洗浄液の培養検査で糸状菌は確認できなかったものの, 喘息症状, 末梢血好酸球数と血清総 IgE の増加, アスペルギルス特異的 IgE 陽性, 胸部 CT にて中枢性気管支拡張および high-attenuation mucus (HAM) を認めたため, ABPM の診断にて第 71 病日からプレドニゾロン (prednisolone : PSL)  $25\text{mg}/\text{日}$  の内服を開始した. その後, 左肺の浸潤影は軽快し, 肺門・縦隔リンパ節も縮小した. CEA も正常範囲内まで低下し, IgE は治療開始半年で  $225\text{IU}/\text{mL}$  と低下傾向であったため, PSL を  $2.5\text{mg}/\text{日}$  まで漸減した.

## 考 察

ABPM の原因真菌としては *A. fumigatus* が多く, その際にはアレルギー性気管支肺アスペルギルス症 (allergic bronchopulmonary aspergillosis : ABPA) と呼ばれる. ABPA の診断には Rosenberg<sup>2)</sup> や Greenberger<sup>3)</sup>, International Society for Human and Animal Mycology

(ISHAM) 診断基準<sup>4)</sup>が用いられているが、感度が低く診断基準を満たさないという問題点がある。そのため、厚生労働科学研究の一環として設置されたABPMの研究班から新しい診断基準が報告された<sup>5)</sup>。診断基準は10項目からなり、①喘息、②末梢血好酸球数 $\geq 500/\text{mm}^3$ 、③血清総IgE $\geq 417\text{IU/mL}$ 、④糸状菌に対する即時型皮膚反応あるいは特異的IgE陽性、⑤糸状菌に対する沈降抗体あるいは特異的IgG陽性、⑥喀痰・気管支洗浄液で糸状菌培養陽性、⑦粘液栓内の糸状菌染色陽性、⑧CTで中枢性気管支拡張、⑨粘液栓喀出の既往あるいはCT・気管支鏡で中枢気管支内粘液栓あり、⑩CTで粘液栓の濃度上昇を挙げ、6項目以上を満たせばABPMと診断できるとした。本症例では、従来の診断基準は満たさなかったが、上記10項目中7項目を満たしており、PSLへの治療反応も良好であった。

本症例では、CEAの高値、肺門・縦隔のリンパ節腫大、FDGの集積を認め、肺癌を含む他疾患を鑑別に気管支鏡検査を施行した。ABPAではFDGの強い集積を認めることがあり、炎症性病変でも偽陽性を呈することがある<sup>6)7)</sup>。要因として、新生血管や線維芽細胞などで構成される肉芽組織、免疫細胞などにFDGが集積する点が挙げられる<sup>8)</sup>。本症例では、肺病変、肺門・縦隔リンパ節にFDGが集積しており、同部位に強い炎症が生じていたのではと推定される。また、ABPAでCEAが高値になることも報告されている<sup>9)~13)</sup>。粘液栓を有する喘息や浸潤影を呈するABPAにおいてCEAが高値になり、粘液栓や浸潤影が改善するとCEAが低下することからも、局所の炎症による気道上皮細胞の活性化と傷害、粘液栓による気道粘液のクリアランス低下などが原因と推察され<sup>9)</sup>、本症例でも、粘液栓・浸潤影の改善に伴いCEAは正常範囲まで低下した。一方、ABPAでリンパ節が腫大する報告は稀であり、本症例ではリンパ節腫大に加え、同部位にFDGの集積を認め、CEAも $30.3\text{ng/mL}$ と他の報告<sup>9)13)</sup>と比較して高値であったことから、悪性疾患が疑われた。ABPAでリンパ節が腫大する報告は少ないが、病理所見で悪性所見や他の肉芽腫性疾患を疑う所見を認めず、PSLでの治療開始後のCTで縮小していたため、リンパ節腫大もABPMに伴う病変と判断した。

本症例では、喘息症状、好酸球や血清総IgEの増加、CT所見からABPMが疑われたが、CEA値やFDG-PET/CTの結果から、肺癌やリンパ増殖性疾患、他の肉芽腫性疾患などを鑑別に気管支鏡検査を行うことは必要であったと考えられる。一方で、ABPMでもCEA上昇やFDGの集積、肺門・縦隔リンパ節が腫大する可能性も念頭に置き、治療経過をみる必要があると考えられる。

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) 松瀬厚人, 他. アレルギー性気管支肺アスペルギルス症. 呼吸 2013; 32: 1188-93.
- 2) Rosenberg M, et al. Clinical and immunologic criteria for the diagnosis of allergic bronchopulmonary aspergillosis. *Ann Intern Med* 1977; 86: 405-14.
- 3) Greenberger PA, et al. Allergic bronchopulmonary aspergillosis and the evaluation of the patient with asthma. *J Allergy Clin Immunol* 1988; 81: 646-50.
- 4) Agarwal R, et al. Allergic bronchopulmonary aspergillosis: review of literature and proposal of new diagnostic and classification criteria. *Clin Exp Allergy* 2013; 43: 850-73.
- 5) Asano K, et al. New clinical diagnostic criteria for allergic bronchopulmonary aspergillosis/mycosis and its validation. *J Allergy Clin Immunol* 2021; 147: 1261-8.
- 6) 中島宏和, 他. <sup>18</sup>F-fluorodeoxyglucose-positron emission tomographyにて強い集積を認めたアレルギー性気管支肺アスペルギルス症の1例. アレルギー 2009; 58: 1426-32.
- 7) 中橋健太, 他. 肺癌と鑑別困難であったアレルギー性気管支肺アスペルギルス症の1例. 日臨外会誌 2018; 79: 989-94.
- 8) 窪田和雄. PET/CTをどう使いこなすか?—経験豊富な施設からの報告 5) 非腫瘍性全身性疾患への試み—炎症性疾患. *INNERVISION* 2012; 27: 24-8.
- 9) Noguchi T, et al. Evaluation of serum levels of carcinoembryonic antigen in allergic bronchopulmonary aspergillosis. *J Nippon Med Sch* 2013; 80: 404-9.
- 10) 前田由起子, 他. 粘液栓を伴う気管支喘息における血清および気管支肺胞洗浄液中CEA濃度. 日呼吸会誌 2004; 42: 988-93.
- 11) Takeuchi Y, et al. Allergic bronchopulmonary aspergillosis presenting with a pulmonary mass mimicking lung cancer. *Respirol Case Rep* 2013; 1: 5-7.
- 12) 竹安真季子, 他. 複数の腫瘍マーカー高値で肺腫瘍影を呈したアレルギー性気管支肺真菌症の1例. 日呼吸会誌 2014; 3: 723-6.
- 13) Yang Y, et al. Eosinophils may serve as CEA-secreting cells for allergic bronchopulmonary aspergillosis (ABPA) patients. *Sci Rep* 2021; 11: 4025.

**Abstract****A case of allergic bronchopulmonary mycosis with elevated serum CEA levels and false-positive FDG-PET/CT in the hilar and mediastinal lymph nodes**

Kenji Kawatoko, Atsushi Moriwaki and Makoto Yoshida  
Department of Respiratory Medicine, National Hospital Organization  
Fukuoka National Hospital

A 47-year-old woman presented to our hospital with a fever. Chest computed tomography (CT) showed infiltrative shadows, central bronchiectasis, and a mucus plug in the lingula and lower lobes of the left lung, suggesting allergic bronchopulmonary mycosis (ABPM). However, lung cancer first had to be ruled out based on the following findings: enlarged hilar and mediastinal lymph nodes; an elevated serum carcinoembryonic antigen (CEA) level, and high  $^{18}\text{F}$ -fluorodeoxyglucose (FDG) uptake in the hilar and mediastinal lymph nodes in positron emission tomography (PET)/CT. Bronchoscopy showed no malignant findings, and a final diagnosis of ABPM was made. After corticosteroid treatment, the hilar and mediastinal lymph nodes shrank, and the serum CEA level decreased. We present a case of ABPM with hilar and mediastinal lymphadenopathy, false-positive accumulation in FDG-PET/CT, and elevated serum CEA, which made it necessary to differentiate it from lung cancer.