

●症 例

巨大肺嚢胞と気管支粘膜の毛細血管拡張を伴った肺過誤腫の1例

尾下 豪人^a 熊田 高志^b 吉岡 宏治^a
池上 靖彦^a 宮原 栄治^b 山岡 直樹^a

要旨：症例は68歳の女性。胸部画像検査にて偶然に左肺上葉の腫瘍を発見された。胸部CT所見からは肺過誤腫が疑われたが、腫瘍の末梢側に巨大肺嚢胞を伴い、気管支鏡検査では腫瘍近傍の気管支粘膜に著明な毛細血管拡張を認めた。腫瘍径が大きく、気胸や感染、喀血などの危険性があると考え、胸腔鏡下左肺上葉切除術を施行した。良性腫瘍が疑われる症例であっても腫瘍径が大きい場合には周囲組織の圧排によってさまざまな合併病変をきたすことがあるため、外科的切除を検討すべきである。

キーワード：肺過誤腫、毛細血管拡張、肺嚢胞、エアートラッピング

Pulmonary hamartoma, Telangiectasia, Pulmonary cyst, Air trapping

緒 言

肺過誤腫は肺良性腫瘍のなかで最も高頻度にみられ、無症状のことがほとんどのため、偶発的発見が多い。画像所見では内部の脂肪濃度やポップコーン状の石灰化が典型的である¹⁾。

我々は画像検査で偶然に発見され、外科的切除によって確定診断を得た肺過誤腫の1例を経験した。近傍の巨大肺嚢胞、気管支粘膜の毛細血管拡張 (telangiectasia) という比較的稀な所見を伴っていたため報告する。

症 例

患者：68歳，女性。

主訴：なし。

現病歴：健診を受けておらず、40年間以上胸部画像検査を受けたことがなかった。5日前に右季肋部痛があり、前医を受診し、腹部CTで胆石症と診断された。同時に施行された胸部単純X線写真にて左肺腫瘍影を指摘された。肺腫瘍影の精査目的に当院を紹介され、受診した。

既往歴：なし。

家族歴：特記事項なし。

アレルギー歴：なし。

生活歴：喫煙なし。飲酒なし。職業は自営業。

入院時身体所見：身長162cm，体重44kg，体温36.1℃，血圧138/78mmHg，脈拍78回/分・整，呼吸数16回/分，SpO₂ 98%（室内気）。胸部聴診では心雑音なく，呼吸音も清。腹部，四肢に異常所見なし。

入院時検査所見：白血球数，CRPは基準値内であり，炎症所見を認めなかった。肝腎機能に異常を認めず，CEA，CYFRA，ProGRPは基準値内だった。呼吸機能検査では，VC 2.97L，%VC 107.6%，FEV₁ 2.56L，%FEV₁ 111.7%と拘束性換気障害，閉塞性換気障害ともに認めず，%DL_{co} 120.5%と拡散能も正常であった。

入院時画像所見：胸部単純X線写真では，左中肺野に約4cmの腫瘍影を認めた（Fig. 1）。胸部単純CTの軸位断では左肺上葉に最大径4cmの腫瘍影を認め，内部には石灰化や脂肪濃度を示す部分を伴っていた（Fig. 2A）。矢状断では腫瘍辺縁部に気管支の巻き込みを認めた。腫瘍影の近傍には複数の嚢胞性病変がみられ，縦隔側には約7cmの巨大嚢胞を認めた（Fig. 2B）。肺門・縦隔に有意なリンパ節腫大は認めなかった。

臨床経過：CT所見からは過誤腫が疑われたが，腫瘍径が大きいことに加え，嚢胞性病変の存在，辺縁が不整なことからは悪性腫瘍の鑑別も必要と考えられた。気管支鏡検査を施行したところ，左舌区支と上区支の分岐角は開大し，B³入口部の粘膜に著明な毛細血管拡張を認め，一部は瘤状に隆起しており，拡張・蛇行した血管と考えられた（Fig. 3）。可視範囲外の末梢にも同様の血管拡張病変が存在する可能性が否定できず，出血の危険性があると判断し，生検や擦過などの侵襲的処置は行わずに終了した。造影CTを施行したところ，腫瘍には造影

連絡先：尾下 豪人

〒730-0822 広島県広島市中区吉島東3-2-33

^a 国家公務員共済組合連合会吉島病院呼吸器内科

^b 同 呼吸器外科

(E-mail: oshita1978@gmail.com)

(Received 22 Nov 2022 / Accepted 27 Jan 2023)

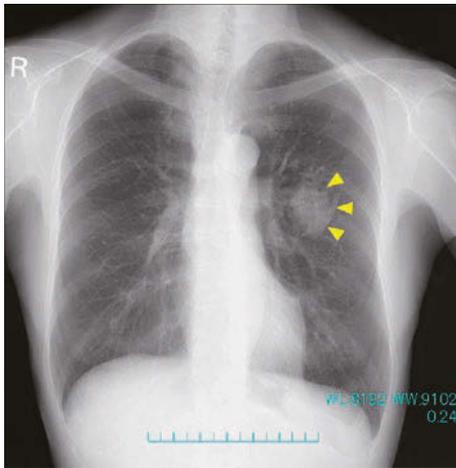


Fig. 1 Chest radiograph revealed a nodular shadow (yellow arrowheads) in the left middle lung field.

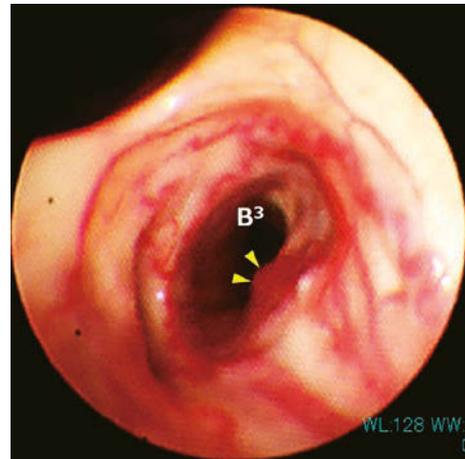


Fig. 3 Bronchoscopic findings of the left upper lobe bronchus. Marked telangiectasia and aneurysmal blood vessels (yellow arrowheads) were observed in the orifice of the left B³.

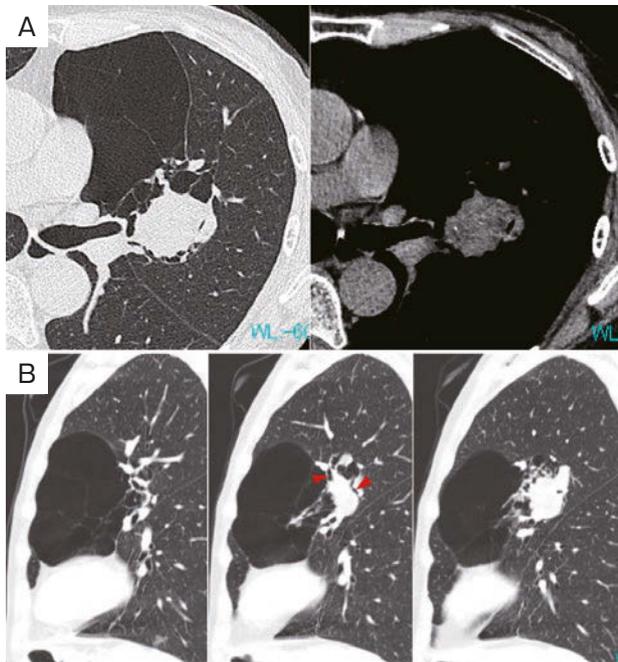


Fig. 2 Unenhanced chest computed tomography (CT). (A) The transversal section of the chest CT revealed a tumor shadow and giant pulmonary cyst in the upper lobe of the left lung. Moreover, CT using the mediastinal window setting suggested that the tumor contained fatty and calcified components. (B) Sagittal section chest CT showed bronchial involvement (red arrowheads) at the margin of the tumor and a giant cyst in front of the tumor.

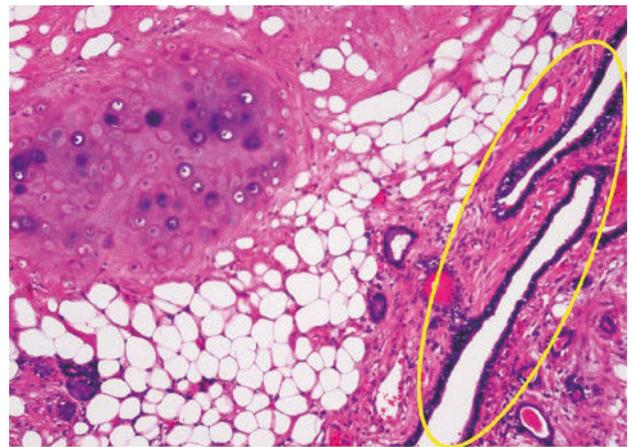


Fig. 4 Histopathological findings of the resected tumor. The tumor consisted of adipose, cartilage, and smooth muscle tissues. Involvement of bronchioles was also detected inside the tumor (yellow circle).

効果がみられたが、肺動脈瘤や蔓状血管腫などの血管性病変は否定的だった。FDG-PETでは腫瘍に集積亢進は認めなかった。以上の精査の結果、やはり肺過誤腫が疑われたものの、将来的に気胸、感染、咯血などを合併す

る危険性があると考え、患者の同意を得て手術療法を選択した。初診から約1ヶ月後に胸腔鏡下左肺上葉切除術を施行した。上葉縦隔側に径約5cmの肺嚢胞を認め、縦隔との癒着を認めた。腫瘍は舌区支と上区支に挟まれるように存在し、嚢胞と腫瘍を含めて上葉を切除した。術後経過は良好であり、術後7日目に退院した。摘出組織の病理組織学的検査で、径4cmの腫瘍内には軟骨、脂肪、平滑筋組織が増生しており、細気管支上皮の巻き込みも認めた (Fig. 4)。異型細胞は認めず、肺過誤腫と確定診断した。過誤腫末梢側には巨大な気腫性嚢胞を認め、嚢胞壁に異型細胞や間葉系細胞を認めなかった。また、過誤腫近傍に集簇する小嚢胞には気管支壁を認め、嚢状に

拡張した気管支であることが示唆された。

考 察

肺過誤腫は緩徐に発育する良性腫瘍である²⁾。末梢発症例では中枢気管支との交通がみられないため、気管支鏡による病理診断は困難³⁾だが、画像的に診断可能であるため、切除されずにCTで経過観察されることも多い。しかし、肺癌との合併例も報告⁴⁾⁵⁾されていることから、増大の早い症例や腫瘍径が大きい症例では外科的手術による確定診断が検討される。

本症例の特筆すべき点は2点あり、1点目は気管支鏡内腔観察において腫瘍近傍の気管支粘膜に著明な毛細血管拡張があり、一部で瘤状の隆起を認めたことである。気管支粘膜の血管拡張病変としては、サルコイドーシスにおいて観察される網目状毛細血管怒張がよく知られている⁶⁾。他に多発血管炎性肉芽腫症⁷⁾、CREST症候群⁸⁾、気管支動脈瘤⁹⁾、僧帽弁狭窄症¹⁰⁾でも血管拡張病変の報告があるが、検索しえた範囲で肺過誤腫における報告はなかった。

荒井らは気管支粘膜下の血管が拡張・蛇行して瘤状の隆起を呈した3症例を報告し、炎症による二次的変化と推測している¹¹⁾。また、同病変に対する生検の結果、大量出血を起こしたとも報告している。本症例の毛細血管拡張は過誤腫からの圧排によって炎症や血行障害をきたして形成されたと推測される。肺過誤腫においても血管拡張病変を合併することがあり、気管支鏡検査を行う際には注意深い内腔観察が必要である。

特筆すべき点の2点目は近傍に巨大肺嚢胞を伴ったことであり、同様の症例報告が過去に散見される¹²⁾¹³⁾。石倉らは腫瘍の増大により細気管支の不全閉塞が生じ、check valve機構によるair trappingとなるために腫瘍末梢側に肺嚢胞が形成されると推測している¹²⁾。過誤腫近傍のみに嚢胞性病変を認め、他の肺野には認めないこと、病理で腫瘍内に細気管支の巻き込みがみられたことから、本症例においても過誤腫の増大による細気管支の不全閉塞からair trappingが起これ、嚢胞が二次的に生じた可能性が高いと考えている。巨大肺嚢胞は正常肺を圧排することにより換気障害をきたしうる¹⁴⁾ほか、気胸、感染、発癌のリスクにもなるため、手術を選択する根拠の一つとなった。

以上、巨大肺嚢胞と気管支粘膜の毛細血管拡張を伴った肺過誤腫の1例を報告した。画像所見から過誤腫が疑われる症例でも、腫瘍径が大きい場合には悪性腫瘍の疑いが否定できず、また、周囲組織の圧排によってさまざまな合併病変をきたすことがあるため、外科的手術を検討すべきである。

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) Siegelman SS, et al. Pulmonary hamartoma: CT findings. *Radiology* 1986; 160: 313-7.
- 2) Hansen CP, et al. Pulmonary hamartoma. *J Thorac Cardiovasc Surg* 1992; 104: 674-8.
- 3) 徳永俊照, 他. 外科的切除により診断された肺過誤腫の臨床像の検討. *日呼外会誌* 2008; 22: 746-52.
- 4) 川野亮二, 他. 肺過誤腫と原発性肺癌が共存する症例の臨床的検討. *日呼外会誌* 2007; 21: 526-30.
- 5) 岡澤成祐, 他. 肺過誤腫を合併した若年発症肺癌の1例. *日呼吸会誌* 2011; 49: 349-54.
- 6) 岡嶋克則, 他. BHLを認めず、著明な高カルシウム血症を認めたサルコイドーシスの1例. *日呼吸会誌* 1999; 37: 214-8.
- 7) 須藤晃彦, 他. 気管支病変が主であったWegener肉芽腫症の1例. *気管支学* 2001; 23: 468-72.
- 8) 坂本匡一, 他. 気管支内腔に末梢血管拡張を認めCREST症候群が疑われた1例. *気管支学* 1998; 20: 484-8.
- 9) 下川路伊亮, 他. 肺動脈と直接連結した特発性気管支動脈瘤. *日呼吸会誌* 2008; 46: 202-5.
- 10) 田垣 茂, 他. 心疾患患者の気管支粘膜下血管所見. *気管支学* 1984; 6: 483-8.
- 11) 荒井他嘉司, 他. 気管支動脈拡張による気管支粘膜隆起の内視鏡所見と生検後大量出血. *気管支学* 1990; 12: 496-501.
- 12) 石倉久嗣, 他. 肺線維平滑筋腫性過誤腫の1例. *日呼外会誌* 1998; 12: 832-6.
- 13) 椎野王久, 他. 嚢胞性病変を伴う肺脂肪腫性過誤腫の1切除例. *日呼外会誌* 2014; 28: 521-5.
- 14) 八木一之, 他. 巨大肺嚢胞症の外科的治療成績. *日呼外会誌* 1991; 5: 36-44.

Abstract**A case of pulmonary hamartoma with a giant pulmonary cyst and telangiectasia in the bronchial mucosa**

Hideto Oshita^a, Takashi Kumada^b, Koji Yoshioka^a,
Yasuhiko Ikegami^a, Eiji Miyahara^b and Naoki Yamaoka^a

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

^bDepartment of Respiratory Surgery, Federation of National Public Service
and Affiliated Personnel Mutual Aid Associations, Yoshijima Hospital

A 68-year-old woman was accidentally found to have a tumor in the upper lobe of the left lung on chest imaging. Chest computed tomography findings suggested a pulmonary hamartoma; however, a giant pulmonary cyst was detected on the peripheral side of the tumor. Bronchoscopy revealed marked telangiectasia in the bronchial mucosa near the tumor. Because of the large size of the tumor and the risk of developing pneumothorax, infection, or hemoptysis, a thoracoscopic left upper lobectomy was performed. Even when a benign tumor is suspected, if the tumor is large, it may cause various complications due to compression of the surrounding tissue. Hence, surgical resection should be considered.