

●症 例

両側に発生した胸郭内慢性拡張性血腫の1例

横関 万里^a 武内 裕希^a 村元 美帆^a
 宮原 隆成^a 境澤 隆夫^b 江口 隆^c

要旨：胸郭内慢性拡張性血腫（chronic expanding hematoma：CEH）は胸部外傷や結核罹患後の患者に発生し、通常は片側性で両側発生の報告はない。今回我々は、Ⅱ型呼吸不全を呈し、原因疾患を特定できない両側胸郭内CEHの症例を経験した。左側血腫除去術を施行し、二酸化炭素貯留の軽減を得た。呼吸不全に陥ってから外科治療は困難であり、診断した時点で治療を検討することが重要だと考える。

キーワード：慢性拡張性血腫，両側，Ⅱ型呼吸不全

Chronic expanding hematoma (CEH), Bilateral, Type II respiratory failure

緒 言

慢性拡張性血腫（chronic expanding hematoma：CEH）は硬膜下血腫をはじめ、あらゆる臓器に発生しうる疾患である。胸腔内CEHは胸部外傷や結核罹患後の患者に発生し、通常片側性である。今回我々は、原因となる基礎疾患を特定できず、Ⅱ型呼吸不全を呈した両側胸郭内CEHの患者を経験した。若干の文献的考察とともに報告する。

症 例

患者：60歳，男性。

主訴：呼吸困難，血痰。

既往歴：皮膚筋炎，両側胸水（30歳）。

喫煙歴：20本/日×39年間。

飲酒歴：0.5合/日。

職歴：運転手。

現病歴：20XX-30年，全身関節痛とレイノー症状を自覚し，A病院で皮膚筋炎と診断され，3ヶ月間ステロイドを内服した。その際に両側少量胸水を指摘され，両側胸腔穿刺を行われたが原因特定されなかった。その後ステロイドは漸減中止された。20XX-15年，検診胸部

X線写真で両側胸水を指摘され，B病院で経過観察が開始された。20XX-2年，労作時呼吸困難と血痰が出現した。20XX年10月，呼吸困難が増悪したため12月近医を受診したが，経皮的酸素飽和度（SpO₂）（室内気）が70%に低下しており，当院に搬送され入院した。

入院時現症：身長160cm，体重49.5kg，意識清明，体温36.5℃，脈拍96回/分・整，血圧143/109mmHg，呼吸数33回/分，SpO₂79%（室内気）。眼瞼結膜貧血なし，眼球結膜黄染なし。表在リンパ節触知せず。両手指に機械工の手を認める。呼吸音両側低下，心音整。腹部は平坦・軟，圧痛なし。下腿浮腫なし。神経学的異常所見なし。

入院時検査所見（Table 1）：血液検査ではCRP軽度上昇を認めた。腫瘍マーカーの上昇を認めなかった。KL-6 949U/mLと高値であった。抗核抗体正常，疾患標識抗体は抗CCP抗体と抗SS-A抗体のみ高値であった。T-SPOT®.TB（T-SPOT）は陰性だった。動脈血液ガス分析ではpH低下，PaO₂低下とPaCO₂上昇を認め，Ⅱ型呼吸不全を呈していた。呼吸機能検査では著明な拘束性障害を認めた。左胸腔穿刺でリンパ球優位の滲出性胸水を認め，細胞診では血性背景に壊死物質や好中球が散見され悪性所見を認めず，一般細菌・抗酸菌培養は陰性であった。

画像所見：入院時胸部X線写真（Fig. 1A）では両側胸膜肥厚と左肺透過性低下を認め，12年前（Fig. 1B）と比較して増悪していた。胸部造影CTでは肥厚した被膜に被包された巨大腫瘤影を両側下葉に認め（Fig. 2A），6年前（Fig. 2B）に比し増大していた。両側第12肋間動脈からの造影剤漏出を疑われた（Fig. 2A）。入院3ヶ月前より指摘されていた左上葉浸潤影（Fig. 2D）は，入院時には拡大していた（Fig. 2C）。胸部造影MRIで右胸腔腫瘍

連絡先：横関 万里

〒381-1231 長野県長野市松代町松代183

^a 長野厚生連長野市松代総合病院呼吸器内科

^b 同 総合診療科

^c 信州大学医学部附属病院呼吸器外科

(E-mail: msasabayashi@yahoo.co.jp)

(Received 16 Apr 2023/Accepted 17 Aug 2023)

Table 1 Laboratory data on admission

Hematology		KL-6	949 U/mL	Arterial blood gas (under 5 L oxygen inhalation using mask)		Left pleural effusion	
RBC	394 × 10 ⁴ /μL	SP-A	56.9 ng/mL	pH	7.268	Color	reddish brown
Hb	13 g/dL	SP-D	152 ng/mL	PaO ₂	90.5 Torr	pH	7.08
WBC	7,500 /μL	IgG	1,478 mg/dL	PaCO ₂	64.0 Torr	TP	4.9 g/dL
Plt	24.4 × 10 ⁴ /μL	IgG4	186 mg/dL	HCO ₃ ⁻	28.3 mmol/L	Alb	3.0 g/dL
ESR	15/49 mm/hr	C ₃	89 mg/dL	Pulmonary function tests		LDH	4,221 U/L
Chemistry		C ₄	22 mg/dL	VC	1.16 L	Glu	7 mg/dL
TP	6.5 g/mL	CH ₅₀	43.5 U/mL	%VC	32.6 %	CEA	2.3 ng/mL
Alb	3.3 g/mL	Antinuclear antibody	×40	FVC	1.02 L	ADA	59.3 U/L
CK	142 U/L	PR3-ANCA	1.0 > U/mL	%FVC	29.1 %	Neutrophil	29.8 %
LDH	363 U/L	MPO-ANCA	1.0 > U/mL	FEV ₁	1.00 L	Lymphocyte	54.3 %
AST	33 U/L	Anti-RNP antibody	2.0 > U/mL	%FEV ₁	34.5 %	Eosinophil	2.8 %
ALT	17 U/L	Anti-CCP antibody	262 U/mL	FEV ₁ /FVC	98.04 %	Monocyte	13.1 %
BUN	33 mg/dL	Anti-Scl-70 antibody	1.0 > U/mL			Bacteria	negative
Cr	0.67 mg/dL	Anti-SS-A antibody	513 U/mL			Acid-fast bacilli	negative
CRP	1.5 mg/dL	Anti-SS-B antibody	11.1 U/mL			Cytology	class II
T-SPOT®.TB	negative	Anti-ARS antibody	negative				

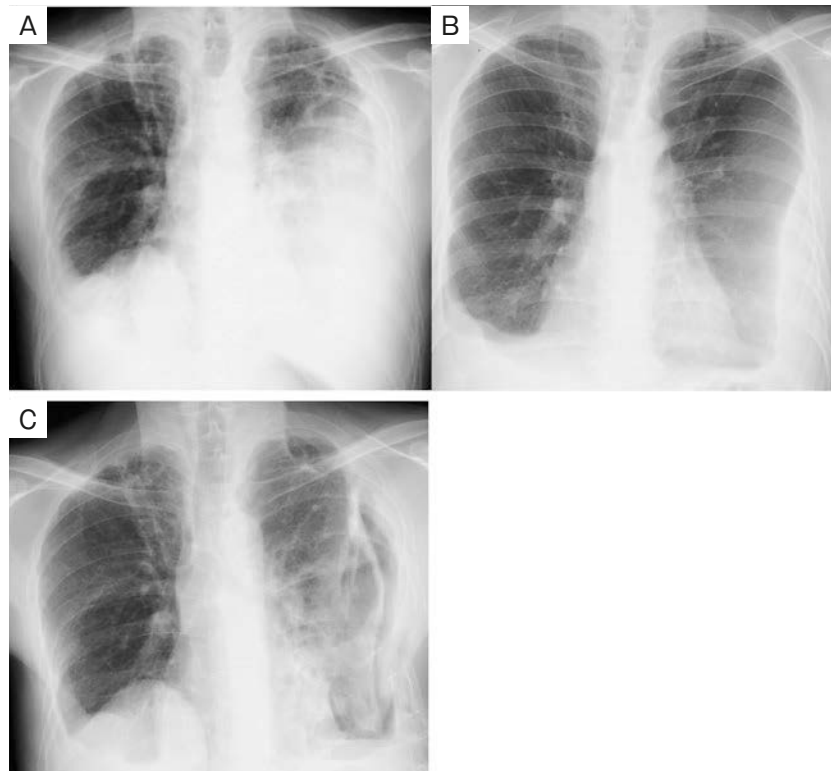


Fig. 1 Chest radiograph (CR). (A) CR on admission showing decreased left lung permeability and bilateral pleural thickening. (B) CR 12 years before admission showing bilateral pleural thickening. (C) CR 18 days after surgery showing improved air inclusion of the left lung.

の内部は大部分T2強調画像で低信号を示し古い血腫、
 辺縁は淡い高信号を示し比較的新しい血腫と考えられ
 た。左側は中心部がT1強調画像で淡い高信号を、T2強
 調画像で強い高信号を示し、血性胸水貯留と考えられ、
 辺縁部に新旧の血腫が認められた (Fig. 3)。

入院後経過：入院日より非侵襲的陽圧換気療法 (non-
 invasive positive pressure ventilation : NPPV) を開始
 した。呼吸不全の原因として両側胸腔内腫瘍による拘束
 性肺機能障害に加え、CT所見で左上葉浸潤影が3ヶ月間
 に進行し、KL-6、抗CCP抗体、抗SS-A抗体高値である

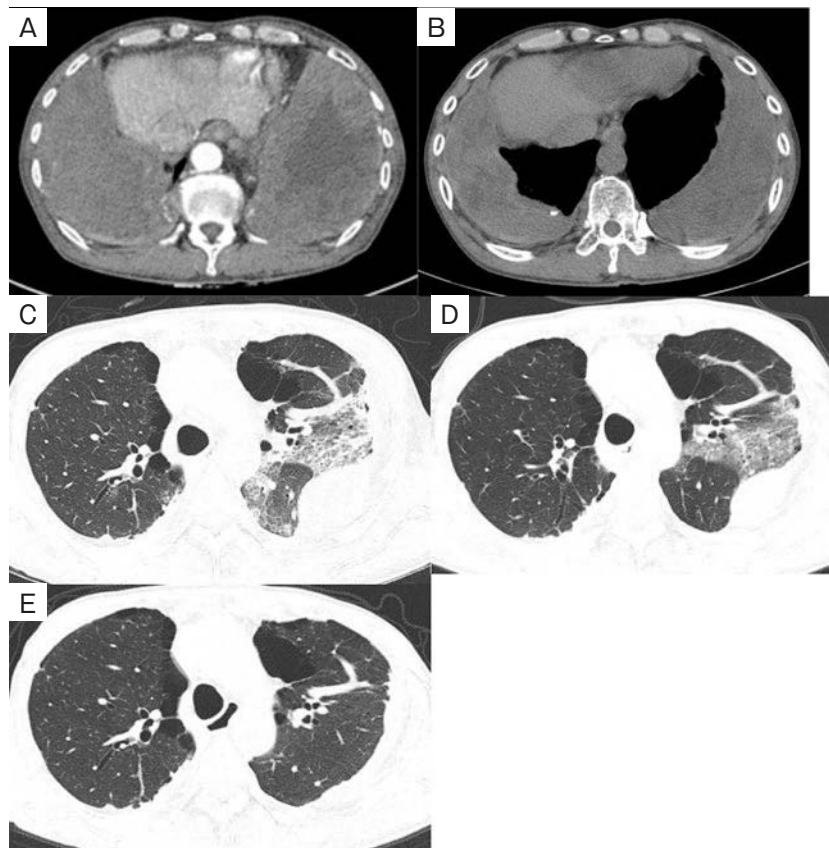


Fig. 2 Computed tomography (CT). (A) Chest contrast-enhanced CT on admission revealed large mass shadows on both lower lobes of the lungs encapsulated by a thickened film that increased over time. Leakage of contrast agent from both 12th intercostal arteries was suspected. (B) CT 6 years before admission showing bilateral pleural thickening. (C) CT on admission revealed expansion of the left upper lobe infiltration shadow, which had been indicated 3 months before admission. (D) CT 3 months before admission revealed a left upper lobe infiltration shadow. (E) CT 3 months after surgery showed that the left upper lobe infiltration shadow had disappeared.

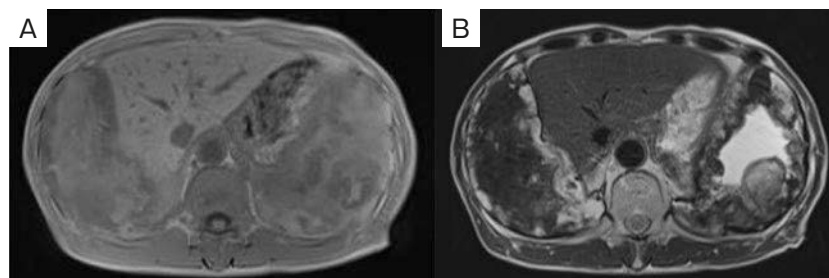


Fig. 3 Magnetic resonance imaging (MRI). (A) T1-weighted image. (B) T2-weighted image. Chest contrast-enhanced T2-weighted MRI showed low intensity inside the right intrathoracic mass, indicating an old hematoma, and pale hyperintensity of the margin, indicating a relatively new hematoma. Chest contrast-enhanced MRI revealed pale hyperintensity on T1-weighted images and a strong hyperintensity on T2-weighted images in the center of the left intrathoracic mass, which was believed to be accumulated bloody pleural effusion. Both new and old hematomas were observed in the marginal area.

こと、既往歴に皮膚筋炎があったとされていたことから膠原病に伴う器質化肺炎の関与を疑った。右頬部と右前

腕より皮膚生検を行った後にステロイドパルス治療を3日間行った。その後は内服投与に切り替え、今後早期に

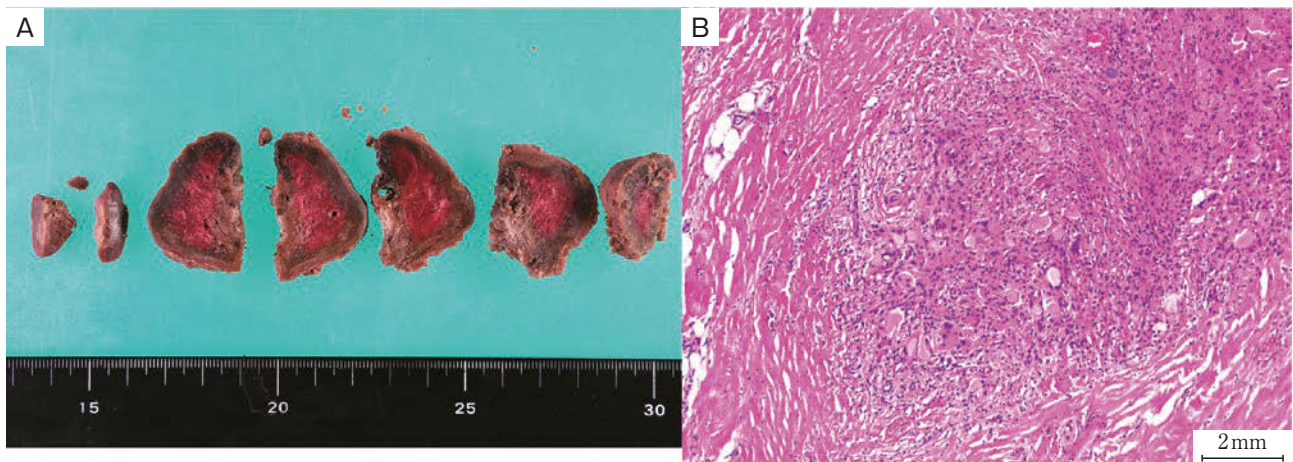


Fig. 4 Pathological findings of the resected contents of the chest. (A) Macroscopic findings revealed an organic hematoma in the thickened purulent pleura. (B) Hematoxylin-eosin staining (magnification, 20×). In the pathological specimens, the cyst wall comprised fibrous connective tissue composed of dense collagen fibers with poor cellular components. Partial infiltration of inflammatory cells and foreign body reactions were observed. However, no neoplastic lesions were noted.

外科的処置が必要になると考えて5日後に終了し、胸部CTで左上葉浸潤影の改善を認めた。皮膚生検の結果はいずれの部位でも炎症細胞浸潤は目立たず、真皮から皮下組織に強い線維化を認め、長い経過の皮膚筋炎所見を否定できなかったが、厚生労働省難病認定のための診断基準（2015年1月1日作成）を満たさず確定診断に至らなかった。第2病日に悪性リンパ腫等鑑別のため、超音波下に左胸膜生検を行った。胸膜病理所見は、フィブリン析出を伴う胸膜組織で線維性肥厚を伴い、悪性所見はなかった。以上より胸腔内CEHと診断した。外科治療が必要と判断し、他院呼吸器外科に転院した。左第3～12肋骨動脈・内胸動脈塞栓術を行った翌日に左胸腔血腫掻爬術を施行した。手術時間6時間36分を要し、出血量は840mLであった。摘出標本では肥厚した醗膜胸膜内に暗赤色の胸水と多量の器質化した血腫を認めた。病理標本では、嚢胞壁は細胞成分に乏しい密な膠原線維からなる線維性結合組織で、部分的に炎症細胞浸潤や異物反応があり、腫瘍性病変を認めなかった (Fig. 4)。手術2週間後、リハビリテーション目的に当院へ再転院した。胸部X線写真で左肺の含気が改善していた (Fig. 1C)。血液ガス検査はpH 7.347, PaO₂ 74.8mmHg, PaCO₂ 66.8mmHg (酸素0.5Lカヌラ吸入下, 臥位) であり、低酸素血症と高二酸化炭素血症は残存したがアシデミアは改善した。肺活量はVC 0.87L, %VC 24.6%と拘束性障害の改善は認めなかったが、血痰は消失し、NPPVは離脱した。在宅酸素療法を導入して自宅退院した。手術3ヶ月後の胸部CTで左上葉浸潤影は消失していた (Fig. 2E)。右側血腫摘出も必要と考えられたが、手術侵襲の大きさを考慮して、半年後の施行を検討することになった。

考 察

CEHは1980年にReidらにより提唱された疾患であり、脳や骨、脾臓などあらゆる臓器に発生し、しばしば新生物との鑑別を要する¹⁾²⁾。どの臓器に発生しても肉眼的・組織学的所見は類似しており、中心の血液塊、肉芽組織の壁、および周辺の密な線維組織からなる¹⁾。血腫が拡大する原因は、血液とその分解生成物の刺激作用により肉芽組織に増生した毛細血管から繰り返して滲出・出血が起こるためとされている¹⁾。胸腔内に発生したCEHは巨大化する傾向があり²⁾、胸腔内陰圧下での呼吸運動、心拍や咳嗽がその成長を助長するとされる³⁾。多くの症例は結核、気胸、胸部外傷、胸部手術歴等の基礎疾患を持つ⁴⁾⁵⁾。目崎ら⁶⁾の報告によれば、胸腔内CEH 61例のうち42例(69%)は結核に関連したものであったが、原因のないとされるものが1例あった。Kuronumaら²⁾や三和ら⁷⁾、末吉ら⁸⁾も明らかな既往がない症例を報告している。三和らは、患者が20歳から自動車整備、40歳から49歳まで金属加工に携わっていた影響で左胸腔内にわずかに胸水が貯留したと仮定し、このことが病態のスタートになったと推測することは可能であると考察している⁷⁾。自験例には結核罹患歴や胸部手術歴がなく、CEH形成の契機は不明であった。さらに両側胸腔内CEHはPubMed®, 医学中央雑誌を検索しても報告がなく、本症例は非常にまれな病態を呈していると考えられる。本症例で30年前に指摘された両側胸水貯留の原因は不明だが、病歴や皮膚所見から膠原病による両側胸膜炎が契機となりCEHに発展した可能性や、両側胸腔穿刺が血腫形成の契機となった可能性を考慮したが、同様の症例は報告されていない。

CEHは放置すれば血腫の拡大進展により、確実に何らかの臨床症状を呈し、また血腫が大きいかほど手術による侵襲も大きくなることから診断後は速やかな治療が望まれるとされる⁹⁾¹⁰⁾。本症例は左側の血腫除去後、血液ガス検査で二酸化炭素貯留は残存するもアシデミアは改善しておりNPPVを離脱できた。しかし労作時酸素飽和度低下は改善が乏しく、残存する右側CEHに対する外科治療は、侵襲の大きさから慎重に検討する必要がある。本症例は呼吸不全に至る前に治療されることが望ましかったと考えているが、実際にどの段階で外科治療を検討すべきか明確な基準はなく、同様症例の蓄積が待たれる。

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) Reid JD, et al. Chronic expanding hematomas. A clinicopathologic entity. JAMA 1980; 244: 2441-2.
- 2) Kuronuma K, et al. Chronic expanding hematoma in the chest. Intern Med 2008; 47: 1411-4.
- 3) Ueda H, et al. Chronic expanding hematoma of thorax extended to the neck. Ann Thorac Cardiovasc Surg 2014; 20 Suppl: 535-8.
- 4) 松毛真一, 他. Chronic expanding hematoma に対する5手術例の検討. 胸部外科 2000; 53: 768-73.
- 5) Uramoto H, et al. Chronic expanding hematoma in the chest. J Cardiovasc Surg 2000; 41: 143-6.
- 6) 目崎久美, 他. 胸腔から後腹膜腔に進展した chronic expanding hematoma の1手術例. 日呼外会誌 2015; 29: 593-9.
- 7) 三和 健, 他. 肺切除を回避できた一側胸腔全体を占拠する Chronic expanding hematoma の1例. 日呼外会誌 2017; 31: 771-7.
- 8) 末吉国誉, 他. ショックを伴う外傷性血胸を発症して診断された胸腔内 Chronic Expanding Hematoma の摘出症例. 日呼外会誌 2020; 34: 240-5.
- 9) 森川洋匡, 他. 縦隔圧迫をきたした胸腔内 Chronic Expanding Hematoma の1手術例. 日呼外会誌 2007; 21: 129-32.
- 10) 宮内善広, 他. 異なる経過をたどった Chronic Expanding Hematoma の3手術例. 日呼外会誌 2013; 27: 159-63.

Abstract

A case of bilateral chronic expanding hematoma in the chest

Mari Yokoseki^a, Yuuki Takeuchi^a, Miho Muramoto^a, Takashige Miyahara^a,
Takao Sakaizawa^b and Takashi Eguchi^c

^aDepartment of Respiratory Medicine, Nagano Koseiren Nagano Matsushiro General Hospital

^bDepartment of General Medicine, Nagano Koseiren Nagano Matsushiro General Hospital

^cDepartment of Thoracic Surgery, Shinshu University Hospital

Chronic expanding hematoma (CEH) is a condition that occurs in patients after thoracic trauma or tuberculosis. Typically, it is unilateral, not bilateral. However, we encountered a case of bilateral CEH in the chest with no underlying cause. To alleviate carbon dioxide retention, we surgically removed the left-sided hematoma. As surgical intervention after respiratory failure can be challenging, it is important to consider treatment options at the onset of the disease.