CASE REPORT

左上葉気管支分岐異常領域に発生した肺癌に対する1手術例

富田栄美子¹・福原謙二郎¹・高瀬直人²・
塚本吉胤³・明石章則¹

A Resected Case of Lung Cancer with a Displaced Anomalous Bronchus of the Left Upper Lobe

Emiko Tomita¹; Kenjiro Fukuhara¹; Naoto Takase²;
Yoshitane Tsukamoto³; Akinori Akashi¹

¹Department of General Thoracic Surgery, ²Department of Respiratory Medicine, ³Department of Pathology, Takarazuka City Hospital, Japan.

ABSTRACT — Background. The frequency of anomalous bronchus has been increasing in recent years with the improvement of bronchoscopy and computed tomography (CT) modalities; however, a displaced anomalous bronchus is a rare disorder of the left upper lobe. We herein report a case of surgery for lung cancer with a displaced anomalous bronchus of the left upper lobe. **Case.** Chest CT showed a 19-mm nodule in the left S¹⁺² when a 76-year-old man underwent catheterization surgery for a heart attack at the previous hospital. Bronchoscopy did not reveal any malignancy. He was referred to our hospital due to a strong suspicion that the nodule was primary lung cancer (cT1bN0M0 Stage IA2). Three-dimensional chest CT for the preoperative examination revealed a displaced anomalous left B¹⁺² arising from the left main bronchus and a lack of the left B⁶. VATS S¹⁺²a + b segmentectomy was performed, and a final diagnosis of poorly differentiated squamous cell carcinoma (pT2aN0M0 Stage IB) was made. No recurrence had occurred by 3.5 years after surgery. **Conclusion.** The standard surgery for lung cancer with a displaced anomalous bronchus has not yet been established. However, the present case suggests that segmentectomy of the relevant section of a displaced anomalous bronchus is a reasonable approach, and ND2a-1 is preferable for lung cancer with a displaced anomalous bronchus of the left upper lobe, although the anatomical position and surgical margin to the side of the fused fissure must be considered.

(JLCC. 2020;60:60-65)

KEY WORDS — Bronchial anomaly, Displaced anomalous bronchus, Lung cancer, Surgery

Corresponding author: Emiko Tomita.

Received October 10, 2019; accepted November 30, 2019.

要旨 — 背景. 近年の3D-CTや気管支鏡検査の精度向上によって気管支分岐異常を指摘される機会は増えているが、左上葉気管支分岐異常の報告は依然として稀である。今回、我々は左上葉気管支分岐異常を伴った肺癌に対して胸腔鏡下に手術を行ったので報告する。**症例.** 76歳の男性。前医で急性心筋梗塞の治療時に施行した胸部CTで左肺尖部に19 mm大の結節影を指摘された。左上葉肺癌(cT1bN0M0 Stage IA2)を疑い、気管支鏡検査を施行したが診断に至らず、当院を受診した。術前に3D-CTを作成したところ、前医では指摘されていなかった

左B¹⁺²の転位性分岐異常と左B⁶欠損を認めた。術中診断で原発性肺癌と診断したが、併存症を鑑みて縮小手術を選択し左S¹⁺²a + b亜区域切除を行った。術後3.5年が経過したが再発を認めていない。**結論.** 左上葉気管支分岐異常領域に発生する肺癌は稀で、術式について一定の見解はないが、亜区域切除も術式の一つとして許容される可能性があると考えられた。また、リンパ節郭清に関しては、解剖学的にも近接する上縦隔リンパ節郭清は行う方が望ましいと考えられた。

索引用語 — 気管支分岐異常, 転位気管支, 肺癌, 手術

はじめに

近年、3D-CT や気管支鏡検査の精度向上によって気管支分岐異常を指摘される機会は増えているが、左上葉気管支分岐異常の報告は依然として稀である。今回、我々は左上葉気管支分岐異常を伴った肺癌に対して胸腔鏡下手術を行ったので、文献的考察を加えてこれを報告する。

症 例

症例：76 歳，男性。

主訴：胸部異常陰影。

Figure 1. Chest CT showed a 19-mm nodule in the left S¹⁺².

既往歴：虚血性心疾患，心房細動。

家族歴：特記事項なし。

喫煙歴：20 本/日×56 年。

入院時現症：PS 2，Fletcher-Hugh-Jones 分類 2。

現病歴：急性心筋梗塞治療時に胸部 CT 検査を施行し，左上葉に結節陰影を指摘された。前医で気管支鏡検査を行うも診断に至らず，診断と加療目的に当科を受診した。原発性肺癌 cT1bN0M0 cStage IA2 を疑い，手術を予定した。

胸部 X 線：左肺尖部に 20 mm 大の結節陰影を認めた。

胸部 CT (Figure 1~4)：左 S¹⁺² に 19 mm 大の結節陰影を認めた。3D 画像を作成したところ，左気管支の転位分岐異常を認めた。左第一上葉支として B¹⁺² が左主気管支から直接分岐し，左第二上葉支として B³⁺⁴⁺⁵，左下葉支として B⁸⁺⁹⁺¹⁰ に分岐していた。B⁶ は欠損していた。肺の分葉も気管支分岐に準じていたが，B⁶ 欠損に伴い減じた S⁶ を補うように S¹⁺² を認めた。通常，左肺動脈は左主気管支の前方から後方にまたいで 2nd carina を下行するところ，左肺動脈は左主気管支前面を走行し，B¹⁺² が左肺動脈の背面から分岐していた。左主肺動脈根部から A^{1+2a} と A^{1+2b} と A³⁺⁵ が分岐し，A^{1+2c} は A³⁺⁵ よりも末梢側から分岐していた。V^{1+2a+b} は上肺静脈へ還流していたが，V^{1+2c} は下肺静脈へ還流していた。

PET-CT：左主病変に SUVmax 7.8 の FDG 集積を認

Figure 2. CT with multiplanar reconstruction showed the displaced anomalous bronchus and lobulation of the lung.

Figure 3. The left B^{1+2} diverged from the left main bronchus directly and rose to S^{1+2} behind the left pulmonary artery.

Figure 4. Virtual bronchoscopy showed B^{1+2} branches from the left main bronchus.

めた。主病変以外に集積を認めず、気管支分岐異常以外の合併奇形も認めなかった。

呼吸機能検査：肺活量 2650 ml (68.8%)，一秒量 1790 ml (60.8%)，DLco 7.02 ml/min/mmHg (50.8%)。

腫瘍マーカー：CEA 11.5 ng/ml。

手術所見：胸腔鏡下に手術を開始した。炎症性変化を疑う癒着を認め、腫瘍周辺の癒着に関しては胸壁浸潤を危惧し、壁側胸膜を合併切除した。 S^{1+2} と S^{3-5} 間は完全分葉で肺動脈も透見できたが、その他の葉間は不全分葉で

肺表面にわずかな陥凹を伴うのみであった。低肺機能かつ肺尖部末梢に位置する小型病変だったため、切除距離を確保できることを確認の上、 $S^{1+2}a+b$ 区域切除術を選択した。肺門部背側の縦隔胸膜を切開し、 B^{1+2} の分岐を確認した。次に完全過分葉していた S^{1+2} と S^{3-5} 間から $V^{1+2}a+b$ ， $A^{1+2}a$ ， $A^{1+2}b$ ， $B^{1+2}a+b$ の順に切離した。最後に亜区域間を自動縫合器で切離した。迅速診断にて非小細胞肺癌と診断したため、上縦隔郭清(2a-1群)し、手術を終了した。手術時間は220分、出血量は100 ml

Table 1. Previous Reports of Lung Cancer Surgery with a Displaced Bronchus of the Left Upper Lobe

Author (Year)	Age/ Sex	Preoperative detection of anomalous Br	Displaced Br	Position of displaced Br	Proce- dure	Lymph node dissection	Hyperlobulation of section of anomalous Br	Other anomaly	Histology	Tumor size	Stage	Outcome
Motohashi (1995)	52/F	Yes	B ^{1+2a}	N.D.	LP	ND2a-2	N.D.	N.D.	Sq	N.D.	T2N2M1	POD 10 M alive
Shimamoto (2008)	81/F	Yes	B ¹⁺²	behind MPA	S ¹⁺²	N.D.	N.D.	none	Ad	25 mm	T1N0M0	POD 10 M alive
Tarukawa (2010)	65/M	Yes	B ¹⁺³	behind MPA	S ¹⁺³	ND1b	Yes	none	LCNEC	26 mm	T2aN1	POD 5 M death
Tsukioka (2011)	62/F	Yes	B ¹⁺²	behind MPA	LUL	ND2a-1	N.D.	none	Ad	25 mm	T1bN0	N.D.
Ikuta (2013)	83/M	Yes	B ¹⁺²	behind MPA	LUL	ND1b	Yes	V ¹⁺² into LPV	Sq	35 mm	T2aN0	N.D.
Katayama (2013)	55/M	Yes	B ¹⁺³	behind MPA	S ¹⁺³	ND1a	Yes	none	Ad	9 mm	T1aN0	POD 14 M alive
Asakura (2014)	52/M	Yes	B ¹⁺²	behind MPA	LUL	ND2a-2	Yes	none	Ad	20 mm	T2aN0	POD 12 M alive
Kawano (2014)	59/M	Yes	B ¹⁺³	behind MPA	S ¹⁺³	ND2a-1	Yes	none	Sq	15 mm	T1aN0	POD 18 M alive
Yaginuma (2015)	63/F	Yes	B ¹⁺³	behind MPA	S ¹⁺³	ND2a-1	Yes	N.D.	Ad	26 mm	T1bN0	N.D.
Onuki (2016)	83/F	No	B ¹⁺²	behind MPA	LUL	N.D.	Yes	none	Ad	19 mm	T1aN0	N.D.
Chiba (2016)	57/M	Yes	B ¹⁺³	behind MPA	S ¹⁺³	ND2a-1	Yes	none	Ad	14 mm	T1aN0	POD 34 M alive
Osawa (2018)	69/F	Yes	B ¹⁺²⁺⁶	behind MPA	S ¹⁺²⁺⁶	ND2a-1	Yes	none	Ad	30 mm	N.D.	N.D.
Osawa (2018)	72/M	No	B ¹⁺²	behind MPA	S ¹⁺²	N.D.	Yes	N.D.	N.D.	N.D.	N.D.	N.D.
Osawa (2018)	68/M	Yes	B ¹⁺²	behind MPA	LUL	N.D.	Yes	N.D.	N.D.	N.D.	N.D.	N.D.
Osawa (2018)	74/M	Yes	B ¹⁺²	behind MPA	S ¹⁺²	N.D.	Yes	N.D.	N.D.	N.D.	N.D.	N.D.
Hayashi (2018)	78/M	No	B ¹⁺³	behind MPA	S ¹⁺³	ND2a-1	Yes	V ¹⁺² into LPV	Ad	30 mm	T1cN2	POD 12 M alive
Present case	76/M	Yes	B ¹⁺²	behind MPA	S ¹⁺²	ND2a-1	Yes	V ¹⁺² into LPV	Sq	21 mm	T2aN0	POD 38 M alive

Br = bronchus, LP = left pneumonectomy, MPA = main pulmonary artery, N.D. = not described, LPV = lower pulmonary vein, POD = postoperative day.

だった。

病理所見：摘出肺内に 21 mm 大の poorly differentiated squamous cell carcinoma を認めた。リンパ節転移は認めなかったが、胸膜浸潤を認めたため (p11), pT2aN0M0 Stage IB と診断した。

術後経過：術後 2 日目に胸腔ドレーンを抜去し、術後 7 日目に退院した。術後補助療法は施行しなかった。術後 3.5 年が経過したが再発は認めていない。

考 察

気管支分岐異常は Foster-Carter により、気管支が本来の分岐位置から離れて分岐する転位気管支と、正常の気管支分岐に加えて過剰な気管支が分岐する過剰気管支に分類される。¹ 本症例は転位気管支に相当する。気管支分岐異常の発生頻度は 0.64% と言われ、右上葉に関するものが 75% を占め左上葉に関するものは稀である。右上葉は気管や右主気管支との距離が近い一方、左上葉は気管や左気管支と大動脈弓や左鎖骨下動脈によって隔離されているという解剖学的特徴が原因と考えられている。

今回、我々が左上葉気管支分岐異常領域に発生した肺癌の手術例について文献検索したところ、自験例も含めて 17 例の報告を認めた²⁻¹⁴ (Table 1)。

解剖学的特徴として、17 例中 16 例で異常気管支が中樞側へ転位し肺動脈の背側を迂回している点と、左上葉の前方過分葉を伴う点が共通していた。馬渡ら¹⁵は左肺 211 例の検討で、左上葉に単独の前方過分葉を認めた症例は 19 例 (9%) だったと報告しており、左上葉の過分葉は珍しい所見ではないが、馬渡らは 2 cm 以上の切れ込みを伴う症例を過分葉と定義しており、肺門に達する明瞭な過分葉はやはり稀であると考えられる。

施行術式は、17 例中 11 例において気管支分岐異常区域の切除を行い、5 例で左上葉切除に相応する S¹⁻⁵ 切除を行い、1 例は全摘を行っていた。病変の進行度や所在、患者背景によって切除範囲は決定されていたが、気管支分岐異常区域の切除を選択した根拠として明瞭な過分葉を挙げている症例もあった。過分葉を伴う独立した区域の切除は胸膜を隔てた切除であり、通常の区域切除に比べて局所再発の頻度は低いと考えられる。ただし、自験例のように B⁶ が欠損し尾側にまで気管支分岐異常領域の肺を認めるなどの予期せぬ変形を認めることもあるので、区域間切除には注意が必要である。

リンパ節郭清範囲については、17 例中 11 例に記載があり、第 2a-1 群郭清を行った症例は 6 例、第 2a-2 群郭清を行った症例は 2 例、第 1b 群郭清を行った症例は 2 例、第 1a 群郭清を行った症例は 1 例だった。リンパ節転移を認めた症例は 3 例で、1 例は肺門と大動脈下リンパ節転移、1 例は肺門リンパ節転移、1 例は縦隔リンパ節転移と

の記載のみで詳細不明だった。自験例では B¹⁺² が長く、その分岐根部を確認するために肺動脈背側から大動脈下の組織を広範に剥離する必要があり、結果的に縮小手術であったが上縦隔郭清を行い、転移は認めなかった。

今回、我々は気管支分岐異常に関して、区域気管支の枝読みに難渋した。左主肺動脈の背側から左第一上葉支は分岐しており、気管支分岐異常が存在することは明らかであったが、この左第一上葉支に含まれる区域気管支の振り分けについては意見が分かれた。当初我々は、左 B⁶ は欠損しておらず、左第一上葉支は B¹⁺²⁺⁶ であると考え、腫瘍から距離が得られることを確認の上、S¹⁺² 区域切除を選択したと考えていた。下肺静脈に還流する肺静脈分枝を認め、これを V⁶ と考えていたが、これは左気管支分岐異常に関して稀な肺静脈奇形ではなく、17 例中 3 例に認めた。また、自験例では S¹⁺²/S⁶ (S^{1+2a+b}/S^{1+2c}) 間に上肺静脈へ還流する分枝も認めた。第 33 回日本呼吸器外科学会総会で発表した際に、B⁶ は欠損であり、B⁶ と考えていた気管支を B^{1+2c} とし、左第一上葉支は B¹⁺² とした方が妥当ではないかとの指摘を受け、今回の報告では左第一上葉支を B¹⁺² として報告した。

結 語

左上葉気管支分岐異常領域に発生する小型末梢肺癌に対して、亜区域切除も縮小手術の術式の一つとして許容される可能性があると考えられた。また、リンパ節郭清に関しては、解剖学的にも近接する上縦隔リンパ節郭清は行う方が望ましいと考えられた。

本論文内容に関連する著者の利益相反：なし

本論文の要旨は第 33 回日本呼吸器外科学会総会で発表した。

REFERENCES

1. Foster-Carter AF. Broncho-pulmonary abnormalities. *Br J Tuberc Dis Chest*. 1946;40:111-124.
2. 柳沼裕嗣, 藤生浩一, 宮元秀昭. 気管支分岐異常を伴った肺癌に対する切除例. *日呼外会誌*. 2015;29:684-688.
3. 本橋新一郎, 山口 豊, 武田恒弘, 青柳壽幸, 大塚隆弘, 横須賀忠, 他. 左上葉転位亜区域気管支より発生した肺扁平上皮癌の一例. *日呼外会誌*. 1995;9:181-186.
4. 島本 亮, 高尾仁二, 児玉大志, 村嶋秀市, 庄村 心, 樽川智人, 他. 気管支分岐異常領域に発生した肺癌に対して左肺 S¹⁺² 区域切除術を施行した 1 例. *気管支支*. 2008;30:210-214.
5. 樽川智人, 金田正徳, 安達勝利. 気管支分岐異常を伴った肺大細胞神経内分泌癌 (LCNEC) の 1 例. *日呼外会誌*. 2010;24:1086-1091.
6. 月岡卓馬, 山本良二, 高濱 誠, 中嶋 隆, 多田弘人. 左

- B¹⁺²分岐異常領域に発生した肺癌の1切除例. 日呼外会誌. 2011;25:460-464.
7. 生田安司, 田村和貴, 坂本篤彦, 日高孝子. 左B¹⁺²転位気管支とV¹⁺²走行異常を伴う左上葉肺癌の1切除例. 日呼外会誌. 2013;27:729-733.
 8. Asakura K, Imanishi N, Matsuoka T, Nagai S, Matsuoka K, Ueda M, et al. Video-assisted thoracic surgery lobectomy for lung cancer with displaced b(1 + 2). *Ann Thorac Cardiovasc Surg*. 2014;20(Suppl):486-489.
 9. 川野大悟. 右主気管支・左舌区支の分岐異常と左肺動脈走行異常を伴った左上葉肺癌の1切除例. 日呼外会誌. 2014;28:505-508.
 10. 千葉直久, 富岡泰章, 戸矢崎利也, 上田雄一郎, 後藤正司, 中川達雄. 左肺上舌区域間に明瞭な過分葉を伴う肺癌に対し区域切除を施行した2例. 日呼外会誌. 2016;30:834-839.
 11. 大澤潤一郎, 伊藤宏之, 鮫島讓司, 永島琢也, 中山治彦, 池田徳彦. 気管支分岐異常(左B¹⁺²⁺⁶)を伴う肺癌の切除例. 日呼外会誌. 2018;32:847-852.
 12. Hayashi K, Motoishi M, Horimoto K, Sawai S, Hanaoka J. Left upper division segmentectomy with a simultaneous displaced bronchus and pulmonary arteriovenous anomalies: a case report. *J Cardiothorac Surg*. 2018;13:40.
 13. 小貫琢哉, 上田 翔, 山岡賢俊, 稲垣雅春. 胸腔鏡下手術中に左B¹⁺²転移気管支を診断しえた左上葉肺癌. 胸部外科. 2016;69:517-520.
 14. 片山芳彦, 草川 均, 駒田拓也, 庄村 心, 小津泰久. 右肺上葉と鏡面構造を呈した左上区に発生した肺癌. 胸部外科. 2013;66:227-229.
 15. 馬渡 徹, 越野督央, 森下清文, 渡辺 敦, 一宮康乗, 安倍十三夫, 他. 異常分葉肺における肺切除術では何に注意すべきか—その解剖学的検討—. 日呼外会誌. 2000;14:591-601.