症 例

Three-dimensional Computed Tomography (3DCT) が術前評価に有用であった不顕性感染を繰り返した先天性気管支閉鎖症の1切除例

池谷 美穂^{*1}, 永島 宗晃^{*1}, 中野 祥子^{*2*3}
高瀬 貴章^{*1}, 川島 修^{*1}

要 旨

不顕性感染を繰り返し広範囲な炎症を伴っていたため手術療法を選択した先天性気管支閉鎖症の1例を経験したので報告する。症例は41歳女性。幼少期に複数回の肺炎の既往あり。健診にて胸部異常影を指摘され当科紹介。胸部CTではB2は盲端であり、S2領域はair trappingや粘液栓を認めた。小葉間隙は分葉不全があり中葉の一部にも同様の所見を確認。気管支鏡検査にてB2の途絶を認め気管支閉鎖症と診断した。不顕性感染を繰り返していたため本人家族と相談の上、手術の方針とした。右上葉・中葉の一部が連続性に硬化し、葉間面からの操作は困難であり、Fissureless techniqueにて右上葉切除、中葉部分合併切除を施行した。術後経過は良好である。先天性気管支閉鎖症では局所の感染のため分葉不全を呈することが多い。MDCTの各種画像は診断、炎症の術前評価に加え、分葉不全や血管走行の把握、念入りの術前シミュレーションに非常に有用であった。

索引用語：先天性気管支閉鎖症 (Congenital bronchial atresia), MDCT, 3DCT
congenital bronchial atresia, MDCT, 3DCT

1. はじめに

先天性気管支閉鎖症は局所の感染を繰り返す比較的稀な気管支形成異常症である。胎生期の気管支動脈の血流障害により生じ、気管支の閉鎖とその末梢の粘液貯留および周囲の限局性の気腫化が特徴といわれている¹⁾。感染を繰り返す場合は手術適応となる²⁾が、頻回の炎症に伴い癒着やリンパ節の腫大、他肺葉への炎症の波及などにより手術難易度は比較的高い。今回、健診異常により発見され、不顕性感染を繰り返していた先天性気管支閉鎖症に対し、術前のcomputed tomography (CT)を施行し、分

葉不全による中葉への病変の進展が確認されたため診断のみならず術前シミュレーションに各種画像が有用であった症例を経験したので報告する。

2. 症例

症 例：41歳、女性。

主 訴：胸部異常影。

既往歴：幼少期に複数回の肺炎の既往あり。肺結核の既往なし。粉塵の曝露歴なし。

喫煙歴：なし。

家族歴：肺結核の既往なし。その他特記事項なし。

現病歴：入職時の健康診断にて胸部異常影を指摘され前医受診。喀痰検査にて抗酸菌塗抹陰性であり確定診断目的に当院紹介受診。

入院時現症：身長153 cm、体重45 kg、体温36.5℃、脈拍72回/分、整、血圧104/60 mmHg、SpO2 97% (room air)。呼吸困難、咳嗽、喀痰は認めなかった。

入院時検査所見：血液検査にて特記すべき異常所見な

^{*1}独立行政法人国立病院機構渋川医療センター呼吸器外科

^{*2}同 放射線診断科

^{*3}がん研有明病院核医学部

原稿受付 2020年7月5日

原稿採択 2020年10月7日

本論文の要旨は第37回日本呼吸器外科学会学術集会にて発表した。

し、白血球 6200/ μ L、好中球 69%、CRP 0.3 mg/dL。喀痰検査では一般細菌、抗酸菌どちらも陰性。

胸部 X 線所見：右中肺野に浸潤影や気管支拡張像、空洞が認められる (Fig. 1)。

胸部造影 CT 所見：胸部造影 CT の 1 mm 厚再構成画像の横断像では B2 気管支は中枢で盲端となっており (Fig. 2a)，S2 領域は air trapping や気管支拡張や嚢胞形成、粘液栓が認められた (Fig. 2b)。また 3 mm 厚再構成画像の冠状断像 (Fig. 2c) および矢状断像 (Fig. 2d) 小葉間裂は分葉不全があり、中葉の一部への病変の進展が確認された。中葉の炎症は肺門部まで広がってはいなかった。Three dimensional (3D) 再構成による 3D bronchography (Fig. 3) では、B2 気管支が盲端となり中枢気管支とは連続しない像が明瞭に描出されている。

気管支鏡検査所見：B2 の途絶を認めた (Fig. 4)。盲端部より 2 ヶ所生検を行ったが、悪性所見は認められなかった。

手術所見：手術は右側方切開第 4 肋間開胸にてアプローチした。胸壁と右上葉には軽度の索状癒着を認めたため、可及的に癒着解除を行った。繰り返す炎症の波及により右上葉および中葉の一部が連続性に硬化し、葉間面からの肺門部操作は困難であった。そのため術前シミュレーション通り Fissureless technique にて右上葉切除を行う方針とした。肺門部前方、縦隔側より剥離をすすめ、右主肺動脈、上肺静脈を露出させた。炎症性に腫大した肺門部リンパ節を注意深く脈管より剥離した上で、上葉肺静脈、上肺動脈幹、上葉気管支を、それぞれ自動縫合器を用いて切離した。最後に炎症性に硬化している肺を一塊にして (Fig. 5a)、炎症の範囲を 3DCT と触診で確認しながら肺実質を自動縫合器および電気メスを用いて切離し (Fig. 5b, Fig. 5c)、右上葉切除、中葉部分合併切除を完遂した (Fig. 5d)。手術時間 154 分、出血量 50 mL であった。

術後経過：術後経過は良好で、術後第 2 病日に胸腔ドレーン抜去、第 5 病日に退院となった。現在術後 2 年、炎症の再燃もなく経過している。

術後胸部単純 CT：残存中葉に炎症の波及はなく、遺残がないことが確認された (Fig. 6a, Fig. 6b)。

病理所見：手術標本において中葉への癒着、炎症の波及を認めた (Fig. 7)。B1, B3 の気管支いずれにも連続しない気管支が肺門側気管支分岐部よりひろがり、閉塞した気管支の像であり、B2 が盲端であることが確認され

Fig. 1 A chest radiograph showed a consolidation, bronchial dilation (arrow), and cavitary lesion (arrowhead) in the right middle lung field.

た。閉塞した気管支の内部には壊死、膿瘍があり、周囲肺胞内にも膿瘍、壊死、泡沫細胞の充満像がひろがっていた。線維化にいたった間質はリンパ球の集簇がみられた。閉塞した気管支には軟骨形成、気管支腺を認めた。リンパ節に悪性像はみられなかった。以上より、先天性気管支閉鎖症の診断に至った。

3. 考察

先天性気管支閉鎖症は気管支が閉塞・欠損する疾患である。胎生期に何らかの原因で気管支動脈の血流が障害されることにより気管支閉鎖が生じる¹⁾と言われている。先天的な気管支の閉鎖とその末梢の粘液貯留を伴った気管支拡張が特徴とされ、1953 年に Ramsay らが初めて報告した³⁾。定義としては、①肺門からの気管支分岐に欠損が認められる、②欠損した気管支の末梢側は拡張し、この気管支に支配される肺野領域が存在する、③肺動脈が閉鎖末梢気管支の支配領域に分布する、④大循環から分岐する aberrant artery が存在しない、の以上の 4 つがあげられる⁴⁾。本症例ではすべてを満たしていた。

気管支鏡、気管支造影で気管支の閉塞または欠損所見が認められると気管支閉鎖症の診断は確定する。本症例

Fig. 2

- a Chest contrast computed tomography (1-mm-thick slices) showed occlusion of central B2 (arrow).
 b MDCT showed the trapped air and bronchodilation with cysts and mucocoeles (arrow).
 c MDCT of the coronal section showed incomplete lobulation (arrow).
 d MDCT of the sagittal section showed incomplete lobulation and inflammatory changes in the lung fields of S2 and a part of the middle lobe (arrow).

では最終的に気管支鏡にて B2 の気管支の閉塞を確認することで診断が確定された。昨今では CT 技術の進歩により、CT 画像による気管支閉鎖症の診断が可能となった⁵⁾。今日の CT は multi-detector raw CT いわゆる MDCT により撮影が行われており、短時間で volume data を取得することができる。その volume data をもとに 1 mm 厚の thin slice CT・MPR 像・3DCT bronchography を得ることが可能となった。特に 3DCT bronchography は気管の解剖・形態を直感的に認識するこ

とが容易であるため、気管の破格同定・狭窄の範囲や程度の評価に優れており⁶⁾、気管支閉鎖症の診断に適した画像といえる。本症例では thine slice CT および 3DCT bronchography において気管支閉鎖症に特徴的な画像所見が確認された。Thine slice CT (Fig. 2a, b) では気管支閉鎖症の特徴とされる気管支の閉鎖・閉鎖部の末梢の気管支拡張変化と粘液瘤およびその領域の気腫性変化⁷⁾を認めた。また CT bronchography (Fig. 3) では、B2 気管支の途絶が一目瞭然であった。

Fig. 3 Three-dimensional bronchography showed occlusion of B2 (arrow).

症状は山口らの報告⁸⁾によると、発熱 6 例 (26%)、咳嗽 5 例 (21.7%)、呼吸不全 2 例 (8.6%)、気胸 1 例 (4.3%)、咳嗽増加 1 例 (4.3%) であった。しかし近年では健診受診率が増加し、画像技術も進歩していることから、無症状の成人発見例が増加している⁴⁾。山口らの報告⁸⁾でも無症状が 8 例 (34.8%) みられている。本症例のように無症状で発見された場合は経過観察される例が多く⁴⁾、外科治療の必要性は一定の見解が示されていない。本症例においては、画像上局所に慢性感染を繰り返しており、将来的に難治性感染症へ進行することが危惧されたため、患者・家族と相談の上で外科治療を選択した。

外科治療を行う際は局所の感染を繰り返している場合が多く、癒着やリンパ節の腫大、他肺葉への炎症の波及などの影響により手術難易度は高い。本症例でも炎症の拡大に伴い上葉と中下葉の一部が一塊となり硬化していたため、葉間面からのアプローチは困難であった。そのため分葉不全の症例に有用とされている Fissureless approach にて手術を行った⁹⁾。癒着が比較的少ない肺門側より脈管処理を先行し、最後に肺実質を自動縫合器で切離する同術式は、炎症の波及の影響も受けにくく、またある程度肺実質の切離ラインを自由に設定できるため、炎症性肺炎患に対しては妥当なアプローチ方法と考えられる。一方で同アプローチは手技的にはやや煩雑で、特に葉間面より分岐する肺動脈の同定、認識には苦慮する

Fig. 4 Bronchofiberscopy showed only two regressions without the orifice of B2 (arrow).

ことが多い。さらに気管支閉鎖症は肺動脈の血管走行の異常の存在が示唆されており¹⁰⁾ 索状であるという報告もある⁸⁾ため、肺動脈の分岐パターンを術前より正確に把握しておくことが安全に手術を行う上で必要不可欠である。今回は 3DCT を用いて肺動脈の走行を確認後、念入りの術前シミュレーションを行い、肺動脈の分岐、走行を十分に理解した上で手術を安全に施行することができた。さらに本症例では Thin Slice CT・MPR 像・3DCT を組み合わせることで小葉間隙の分葉不全とそれに伴う気管支閉鎖症に伴う炎症所見の他肺葉への波及とその範囲を術前に評価することができた。そのため術前より理想的な肺実質切離ラインをシミュレーションし、術中に触診し確認することで炎症の波及した肺実質を取り残すことなく完全切除し得た。現在術後 2 年、感染の再燃無く経過している。

4. 結語

無症状ながら分葉不全を伴い炎症が広範囲にわたる先天性気管支閉鎖症の一例を経験した。手術を行うことにより炎症のコントロールを得ることができた。また正確な解剖学的知識を要する手術を施行するにあたり、MDCT によって再構成される各種画像は気管支閉鎖症の診断のみならず術前シミュレーションを行う上で非常に有用であると考えられた。

Fig. 5

- a** The inflammation was mainly in the right upper lobe (arrowhead) but it extended to the middle lobe. However, there was no inflammation at the hilum of the middle lobe (arrow).
- b** The affected lung was isolated using a stapler.
- c** The affected lung was isolated using electrocautery.
- d** The right upper lobe and part of the middle lobe affected by chronic inflammation (arrow) was totally separated from the rest of the lung.

Fig. 6

- a** Postoperative CT did not show inflammation in the middle lung field.
- b** Postoperative CT of the coronal section did not show inflammation in the middle lung field.

Fig. 7 Resected specimens showed occlusion of B2 (arrow). There were adhesions and chronic inflammatory changes in the upper and middle lung.

利益相反

本論文において申告する利益相反はない。

文献

1. Waddell JA, Simon G, Reid L. Bronchial atresia of the left upper lobe. *Thorax* 1965; **20**: 214-8.
2. 神崎正人, 大塚十九郎, 山本 弘. 多発閉鎖気管支を認めた気管支閉鎖症の 1 切除例. *気管支学* 2000; **22**: 534-7.
3. Ramsay BH. Mucocele of the lung due to congenital obstruction of a segmental bronchus; a case report; relationship to congenital cystic disease of the lung and to congenital bronchiectasis. *Dis Chest* 1953; **24**: 96-103.
4. 井手口周平, 城戸貴志, 赤田憲太朗, 畑 亮輔, 川口貴子, 松永崇史, 他. 健診で発見された先天性気管支閉鎖症の 1 例. *気管支学* 2017; **39**: 48-52.
5. 木田陽子, 金田俊彦, 金子正博, 藤井 宏, 富岡洋海. 3 次元 CT を用いて診断した先天性気管支閉鎖症の 1 例. *気管支学* 2013; **35**: 296-9.
6. 中野祥子, 氏田万寿夫, 対馬義人. 気道疾患のすべて—基礎から up-to-date まで—中枢気道疾患. *画像診断* 2015; **35**: 329-43.
7. Cohen AM, Solomon EH, Alfidi RJ. Computed tomography in bronchial atresia. *AJR Am J Roentgenol* 1980; **135**: 1097-9.
8. 山口 学, 古川欣也, 石田順造, 岩屋啓一, 洪 建偉, 斉藤 誠. 長期間経過観察されていた先天性気管支閉鎖症の一手術例. *日呼外会誌* 2009; **23**: 613-6.
9. Abu Akar F, Nachira D, Meacci E, Abu Asbeh Y, Shaqqura BH, Margaritora S. A solution for fissure-less fissure-last both upper and lower video-assisted thoracic surgery lobectomies? *J Thorac Dis* 2019; **11**: 50-2.
10. Nagashima T, Shimizu K, Ohtaki Y, Obayashi K, Kakegawa S, Nakazawa S, et al. An analysis of variations in the bronchovascular pattern of the right upper lobe using three-dimensional CT angiography and bronchography. *Gen Thorac Cardiovas Surg* 2015; **63**: 354-60.

A case of congenital bronchial atresia: Usefulness of preoperative multi-detector row computed tomography (MDCT) for selection of surgical procedure

Miho Ikeya^{*1}, Toshiteru Nagashima^{*1}, Sachiko Nakano^{*2*3}

Yoshiaki Takase^{*1}, Osamu Kawashima^{*1}

^{*1}Department of Thoracic Surgery, ^{*2}Department of Diagnostic Radiology, Shibukawa Medical Center

^{*3}Department of Nuclear Center, Cancer Institute Hospital

We report the case of a 41-year-old female with congenital bronchial atresia (CBA) in whom extensive inflammation led to incomplete lobulation. Her past medical history involved recurrent pneumonia in childhood. Chest MDCT showed B2 occlusion by the mucocoele, and inflammatory changes were extensive in the peripheral lung fields of S2 and a part of the middle lobe, leading to incomplete lobulation of the lobes. We diagnosed her with CBA. We performed surgical treatment to prevent recurrent infectious pulmonary complications and long-term lung alteration. It was difficult to approach the interlobular fissure because the right upper lobe and middle lobe were indurated by chronic inflammation. Using a fissureless technique, we performed right upper lobectomy and partial resection of the middle lobe in accordance with preoperative simulation by MDCT. The postoperative course was uneventful. She has remained under follow-up for 2 years with no recurrence. The incomplete lobulation and chronic recurrent inflammation in CBA make surgery approaching an interlobular fissure difficult. Images by MDCT are important to diagnose CBA, evaluate preoperative inflammation, and simulate the operation carefully.