症 例

肺癌を合併した肺底動脈体動脈起始症の1例

梅森 君樹, 小谷 一敏, 鷺尾 一浩, 牧原 重喜

要 旨

症例は70歳, 男性. 主訴は血痰. 胸部 X-p にて右下肺野に半円状陰影と網状陰影を認め, 胸部 CT にて S⁸に4.0×3.4 cm 大の腫瘤影と S¹⁰に網状影を認めた. 経気管支肺生検で B⁸から扁平上皮癌と診断し, 手術を施行した. 横隔膜から S¹⁰に流入する太さ10 mm の異常動脈を認め, 肺底動脈体動脈起始症と診断し, 異常動脈を根部で処理し右下葉切除術を施行した. 病理組織学所見では, S¹⁰を中心とした異常動脈の灌流域は高度の肺高血圧症の所見を認めた. 現在, 術後経過は順調である.

肺底動脈体動脈起始症は稀な病態であり, また肺癌を合併した報告例はなく, 極めて稀な症例と思われたので報告した.

索引用語: 肺底動脈体動脈起始症, Pryce I 型肺分画症, 肺癌, 肺高血圧症
anomalous systemic arterial supply to the basal lung, intralobar pulmonary sequestration (Pryce type I), lung cancer, pulmonary hypertension

はじめに

肺底動脈体動脈起始症は稀な病態であり, 血痰, 咯血を主訴として発見されることが多い. 今回我々は, 同一肺葉内に肺癌と肺底動脈体動脈起始症を合併した1例を経験したので若干の文献的考察を加えて報告する.

症 例

患 者: 70歳, 男性.

主 訴: 血痰.

現病歴: 1999年7月10日血痰を認め, 近医を受診したところ, 胸部 CT 検査にて右下葉に異常陰影を指摘され, 当院へ紹介入院となった.

家族歴: 特記事項なし.

既往歴: 糖尿病, 高血圧にて内服治療中.

喫煙歴: 80本×25年.

入院時現症: 身長170 cm, 体重80 kg, 体温36.3°C,

脈拍70/min 整, 血圧150/80mmHg で理学的所見上, 異常を認めなかった.

検査所見: 入院時血液学的検査, 生化学検査, 血液ガス検査, 腫瘍マーカーで異常を認めなかった.

胸部単純X線写真: 右下肺野に半円状陰影と網状陰影を認めた (Fig. 1a).

胸部 CT 検査: S⁸に4.0×3.4 cm 大の腫瘤陰影を認め (Fig. 1b), また S¹⁰に血管の拡張像とその末梢の網状影を認めた (Fig. 1c).

気管支鏡検査: 底区気管支の粘膜面に軽度の発赤がみられたが, 気管支の分岐は正常であった. B⁸からの生検で扁平上皮癌と診断した. B¹⁰からのブラシ及び洗浄細胞診では, Class I の診断であった.

手術所見: 右後側方切開, 第5肋骨床にて開胸した. S⁸に癌と思われる径4 cm 大の腫瘤を認めた. 次に下葉切除にうつったが, 肺靱帯内に拍動を感じたため慎重に剥離すると, 横隔膜から S¹⁰に流入する太さ10 mm の動脈を認めた (Fig. 2), 肺門部, 葉間部においては, 気管支, 肺動静脈に異常を認めず, S⁶および肺底区にも正常肺動脈の分岐が見られた. 明らかな分画肺は認めなかった. 異常動脈を根部で処理し右下葉切除

Fig. 1 a: Chest X-ray film showed a mass in the right lower lung on admission.

b: Chest CT scan showed a tumor mass located in the S⁸.

c: Chest CT scan showed an infiltrative shadow in the S¹⁰ of the right lower lobe.

Fig. 2 Operative findings showing an aberrant artery originating from diaphragm which supplied right basal lung was observed (arrow).

術を施行した。

標本所見: 大きさ4.0×3.5×3.5 cmの境界明瞭な充実性の病変で、断面は白色、一部乳白色調を呈し、壊死や空洞形成は認めなかった (Fig. 3a)。異常動脈は肺内で分岐を繰り返して急速に細い動脈となり、その灌流域は周囲とは明らかに異なった性状を示し、5×5×10 cm程度に不規則に広がっていた。肺組織は多数の嚢胞形成により蜂窩状を呈し、多量の粘液が充満している嚢胞もみられた。炭粉沈着も強くみられた。異常動脈は壁の肥厚と硬化、内腔の狭小化がみられた。周囲正常部との境界は比較的明瞭であるが、両者を分け

隔てる胸膜や被膜はみられなかった (Fig. 3b)。

病理所見: 中心部の一部にのみ、癌真珠のみられる明らかな扁平上皮癌の像がみられたが、全体的には低分化型扁平上皮癌が大半を占めた (Fig. 4a)。

異常動脈は内膜の線維化、硝子化、石灰化、コレステリンの沈着が目立ち、中膜が筋性肥大し、内腔が狭小化していた。異常動脈の灌流域では、ほとんどの肺胞腔が拡大、嚢胞化し、肥厚した肺胞壁や細気管支壁には繊維化や平滑筋の増生がみられた。間質には炭粉沈着が目立つほか、ヘモジデリンを貪食したマクロファージの集簇像もみられ、高度の肺高血圧所見を呈していた (Fig. 4b)。

考 察

肺底動脈大動脈起始症は大動脈から分岐した異常動脈が正常肺底区内に流入し正常肺静脈に環流されるが、気管支は正常に保たれる先天性奇形である。Pryce¹⁾は1946年、肺分画症を3型に分類した。異常動脈が正常肺組織に灌流するものをI型、正常肺組織並びに気管支肺組織の分離された分画肺組織に灌流するものをII型、分画肺組織にのみ灌流するものをIII型とした。Sadeら²⁾は、sequestration spectrumの概念を提唱し、分画肺をもたないPryce I型を肺分画症より分離し本症と呼ぶことを提唱し、現在その名称が定着している^{3,4)}本症の発生病理に関しては、Pryceの先天性牽引

Fig. 3 a: Macroscopic findings of the resected tumor.

b: Macroscopic findings of the resected S¹⁰ of the right lower lobe.

Fig. 4 a: Microscopic findings (H. E. stain, $\times 200$). Lung cancer (Poorly differentiated squamous cell carcinoma).

b: Microscopic findings (H. E. stain, $\times 40$). Aberrant artery which revealed atherosclerotic changes such as intimal hypertrophy was noted. Alveolar structure revealed cystic change.

説や Gerle ら⁵⁾の前腸分化時の発生異常説などの胎生期の異常を唱える説や後天性炎症説を唱えるものもあり、未だ統一した見解が得られていない。

本邦でこれまでに報告された肺底動脈体動脈起始症は、我々の検索し得た範囲では、自験例を含めて51例である⁶⁾。年齢は1歳～70歳(平均35.3歳)で、比較的若年者に多く、自験例は最高齢者であった。男性37例、女性14例。左右別では右:左=8:43と圧倒的に左側に多い。本症は、肺高血圧に起因する咯血や、動静脈瘻、嚢胞形成、気道狭窄による感染、左-左シャントによる心不全などをきたす可能性が指摘されており、全例手術適応があると考えられる。術式としては、4例に異常動脈と肺動脈の吻合、3例に区域切除が行われている以外は全例下葉切除が施行されている。肺底動脈体動脈起始症と肺癌の合併例の報告例はこれまでなく、

肺分画症と肺癌の合併例の報告は過去に5例報告されているのみである⁷⁻¹¹⁾うち2例は分画肺外の気管支内腫瘍であり、鏡視下に生検を施行し、術前診断されている。3例は分画肺内に発生した肺癌であり、いずれも癌の術前診断には至っておらず、術後病理組織検査にて癌の存在が初めて確認されている。組織学的分類は扁平上皮癌2例、腺癌1例であった。一部の肺癌は肺の嚢胞壁から発生するが、自験例は異常動脈の灌流域と肺癌は同一肺葉内に存在していたが、連続性は認められなかった。異常動脈の灌流域は肺高血圧症から肺の嚢胞性変化を呈していたが、肺癌の存在する部位には嚢胞性変化は認めなかった。

異常動脈の存在は術前には診断がつかず、肺切離時に発見された。左側であれば下行大動脈より分岐している症例が大半であるため、開胸時に発見は比較的簡

単であるが、右側の場合は、腹部大動脈や横隔膜面より流入するため確認は左側よりは一般的に困難である。自験例の場合、もし安易に肺靱帯を電気メスで切離していれば大出血をきたしていたと考えられた。また術前の血痰も異常動脈の灌流域が高度の肺高血圧所見を呈していたことより、癌の部位よりは、この部位からの出血と考えられた。今後は自験例のような症例もあることを念頭に置き、肺癌手術時、特に肺靱帯切離時には十分注意する必要があると思われる。

文 献

- 1) Pryce DM: Lower accessory pulmonary artery with intralobar sequestration of lung; a report of seven cases. *J Pathol Bact* **58**: 457-467, 1946.
- 2) Sade RM, Clouse M, Ellis FH Jr: The spectrum of pulmonary sequestration. *Ann Thorac Surg* **18**: 644-658, 1974.
- 3) 増田浩一, 飯島庸介, 平島尚武, 他: Scimitar syndrome 様所見を呈した1例. *胸部外科* **29**: 295-299, 1976.
- 4) 加藤真司, 永田昌久, 塩井健介, 他: 左肺底区動脈起始異常の1例. *日胸外会誌* **38**: 154-159, 1990.
- 5) Gerle RD, Jaretzki A III, Ashley CA, et al: Congenital bronchopulmonary foregut malformation; Pulmonary sequestration communicating with the gastrointestinal malformation. *N Eng J Med* **278**: 1413-1419, 1968.
- 6) 山本一道, 上野孝男, 池田敏和, 他: 動悸, 側胸部痛を主訴とした肺底動脈下行大動脈起始症に左肺底区区域切除を施行した1例. *胸部外科* **53**: 972-975, 2000.
- 7) Juettner FM, Printer HH, Friehs GB, et al: Bronchial carcinoid arising in intralobar bronchopulmonary sequestration with vascular supply from the left gastric artery. *J Thorac Cardiovasc Surg* **90**: 25-28, 1985.
- 8) 森田克哉, 清水淳三, 荒能義彦, 他: 管状左上区切除+左下葉分画肺切除により肺機能を温存した肺門部早期肺癌症例. *胸部外科* **47**: 112-114, 1994.
- 9) Bell-Thomson J, Missier P, Sommers SC: Lung carcinoma arising in bronchopulmonary sequestration. *Cancer* **44**: 290-291, 1988.
- 10) Gatzinsky P, Olling S: A case of carcinoma in intralobar pulmonary sequestration. *Thorac Cardiovasc Surg* **36**: 290-291, 1988.
- 11) Hertzog P, Rouleau J, Marcou J: Cancer epidermoide developpe sur une sequestration. *J Franc Med Chir Thor* **17**: 33-38, 1968.

A case report of anomalous systemic arterial supply to normal basal segments of the right lower lobe with lung cancer

Yoshiki Umemori, Kazutoshi Kotani, Kazuhiro Washio, Shigeki Makihara

Department of Thoracic Surgery, National Sanyo Hospital

A 70-year-old man with an abnormal shadow in the S⁸ of the right lung was diagnosed to have pulmonary squamous cell carcinoma by TBLB. Under thoracotomy, an aberrant artery branching from the diaphragm was found feeding the S¹⁰ of the right lower lobe and a right lower lobectomy (ND2a) was performed. In our case, the final diagnosis was made during the surgical operation. Histological examination of the S¹⁰ revealed pulmonary hypertension.