症 例

若年女性の肺硬化性血管腫の1例

小久保光治, 杉本 浩志, 野垣 晴彦^{*1}石川 真^{*1}, 酒井 聡^{*1}廣瀬 一^{*}, 下川 邦泰^{*2}

要 旨

21歳, 女性の肺硬化性血管腫の1例を経験した. 本症例は肺硬化性血管腫としては若年である. 術前胸部X線写真, 胸部CTでは縦隔腫瘍様の像を呈していた. 肺硬化性血管腫の鑑別診断の一つに縦隔腫瘍をあげる必要がある.

索引用語: 肺硬化性血管腫, 若年女性

sclerosing hemangioma of the lung, young lady

はじめに

肺硬化性血管腫は比較的稀な疾患で, 中年以上の女性に多い. 我々は21歳女性の肺硬化性血管腫を経験したので報告する.

症 例

症 例: 21歳, 女性.

主 訴: 胸部X線写真上異常陰影.

家族歴・既往歴: 特記すべき事なし.

現病歴: 1990年5月, 健康診断時の胸部X線写真で, 右肺野に異常陰影を指摘された. 同年7月精査のため本院第2内科に入院した. 現在まで特に自覚症状はない.

現 症: 身長164 cm, 体重50 kg, 胸部・腹部, 異常所見なし.

血液検査: 貧血なく, 肝機能正常, 血中セロトニン値正常.

胸部単純X線写真 (Fig. 1): 右中下肺野に右心陰影に接して, 45×45 mm 大の腫瘤陰影を

認める. 腫瘤の辺縁は平滑で内部構造は均一である.

胸部 CT (Fig. 2): 右心房に接して 34.5 × 40 mm 大の腫瘍が右肺野に認められる. 辺縁明瞭で内部構造はやや不均一, CT値は28であった. 腫瘍と右心房の間には low density area が認められた. 造影CTでは腫瘍壁は増強されないが, 内部構造の不均一さが増強された.

胸部 MRI: 胸部CTと同様に辺縁明瞭で内部構造やや不均一な腫瘍陰影が認められた.

気管支動脈造影: 流入動脈は肋間動脈と共通幹をなしている右気管支動脈であり, hyper-vascular に濃染される. 気管支動脈の中断・不整像はなく, 血管は腫瘍の表面を這うように走行し, メロンの網目状の分布をしていた.

気管支鏡検査では B7 入口部より約 1 cm 末梢に圧排閉塞が認められ, 経気管支肺生検では, hyperplastic な細胞を認めるが, malignant cell は認めなかった. 縦隔腫瘍も否定できないが, 肺腫瘍の術前診断にて1990年7月24日手術を施行した.

手術所見: 右前側方切開, 第5肋間にて開胸した. 腫瘍はS7にあり, 鶏卵大で弾性軟で, 表面平滑であった. 周囲肺実質への浸潤なく, 心臓に接する部位では縦隔側に突出していた. 術

美濃病院 外科,

^{*1}岐阜大学医学部 外科学第1講座

^{*2}岐阜大学 臨床検査学講座

原稿受付1993年1月28日

原稿採択1993年3月29日

Fig. 1 Chest X-ray on admission showing a tumor shadow in the right lower lung field.

Fig. 2 Chest CT scan shows a round tumor adjacent to the heart.

Fig. 3 Cut surface of the tumor.

中迅速検査にて悪性所見なく、S7区域切除を施行した。

摘出標本所見 (Fig. 3) : 腫瘍は $50 \times 40 \times 30$ mm 大で、表面平滑弾性軟である。剖面は灰白色充実性で一部に出血巣が認められた。

病理組織学的検査 (Fig. 4) : 腫瘍は主に淡明細胞の増殖からなる充実性の部分と赤血球に富む血管腔様部からなる。充実性部分の細胞は

小型円形核を中心に豊富な好酸性の胞体を有する細胞である。血管腔様部では血管腔を被うように円柱上皮がみられる。免疫組織学的検査所見では血管腫瘍のマーカーとしての第VIII因子関連抗原は認められなかった。

電子顕微鏡所見 (Fig. 5) : 比較的小型で円形～立方型の腫瘍細胞が増殖しており、fibrous な結合組織および基質で囲まれた血管腔が多数形

Fig. 4 Histological features of the tumor
(a) H. E. $\times 25$ (b) H. E. $\times 100$
The tumor consists mainly of solid area.
Blood lake are also present focally.

成されている。腫瘍細胞は円形の核を有し、細胞質は明調なものと暗調なものが見られます。血管腔は明らかに内皮細胞を伴うものと、内皮細胞を認めず腫瘍細胞間に形成されたものとがある。

術後経過良好で、術後2年7カ月の現在再発を認めていない。

考 案

肺の硬化性血管腫は Liebow と Hubbel¹⁾ により始めて報告された比較的稀な肺腫瘍である。彼らはその成因を血管の増殖によるものと考え硬化性血管腫と命名した。その後血管腫説や炎症性肉芽腫説も出たが、現在は免疫組織学的所見、電子顕微鏡所見より肺胞上皮細胞由来の pneumocytoma であるとの説が有力になってきている²⁻⁵⁾。したがって最近肺のいわゆる硬化性血管腫と報告されている例が多い。

Fig. 5 Electron microscopy of the tumor.

本疾患は一般に中年以上の女性に多いと報告されている。木村ら⁶⁾の報告によれば、本邦報告196例の年齢は7～76歳、平均年齢46歳で20歳以下の若年者は7例のみである。また性別では女性が142例と女性に多い。本症例は21歳であり、いわゆる硬化性血管腫の好発年齢に比し若年と考えられる。

本症例は光学顕微鏡所見でいわゆる硬化性血管腫に特徴である淡明細胞の増殖および赤血球に富む血管腔様部分を認め、免疫組織学的検査でも、第VIII因子関連抗原を認めず、いわゆる硬化性血管腫と診断した。電子顕微鏡所見で上皮細胞由来である microvilli, lamellar inclusions, desmosomes, interdigitations of the cell membrane が認められることより肺胞上皮細胞由来と考えられている⁵⁾が本症例ではこれらは同定できなかった。最近では腫瘍が免疫組織学的検査で surfactant apoprotein, cytokeratin などが認められる^{3,4)}ことから、肺胞上皮細胞由来であると考えられている。

鑑別診断としては肺癌との鑑別が最も問題となるが、気管支動脈造影でのメロンの皮の網目状の血管走行が特徴的といわれている⁷⁾。本症例でも気管支動脈造影にて同様の所見を呈しており、いわゆる肺硬化性血管腫が疑われた。しかし肺過誤腫やカルチノイドでも同様な所見が見られるとの報告⁸⁾もあり、気管支動脈造影像より確定診断はできない。また経気管支肺生検による術前組織診断の報告は現在までない。また本症例は胸部X線写真、胸部CTより縦隔腫瘍も考えられた。いわゆる肺硬化性血管腫は腫瘍の発生部位が胸膜に近接していることがX線写真上の特徴とされている⁹⁾。本症例のように胸膜下の腫瘍が縦隔内に突出すると、画像診断にて縦隔腫瘍様の陰影を呈することもあり縦隔腫瘍も鑑別すべき疾患の一つと思われた。

手術は今泉ら¹⁰⁾の国内外155例の集計によれば、主に葉切除術と部分切除術が施行されている。われわれは術中迅速検査にて悪性所見が認められなかったため、肺機能温存のため凶域切除術を施行した。いわゆる硬化性血管腫は良性腫瘍とされているが、リンパ節転移、播種性再発も報告^{10,11)}されており、low malignancyな腫瘍と考えられるので区域切除術以上の手術が望ましいと考えられる。また術後厳重な経過観察も必要である。

おわりに

21歳、女性の肺硬化性血管腫の1例を経験した。本症例は肺硬化性血管腫の好発年齢としては若年である。また本症例では、胸部X線写真、胸部CTで縦隔腫瘍も否定できず、縦隔腫瘍も鑑別疾患に挙げる必要があると考えられた。

文 献

- 1) Liebow AA, Hubbel DS: Sclerosing hemangioma (histiocytoma, xanthoma) of the lung. *Cancer* **9**: 53-75, 1956.
- 2) 伊藤元彦: 肺のいわゆる“硬化性血管腫”. *呼吸* **8**: 1284-1288, 1989.
- 3) Nagata N, Dairaku M, Ishida T, Sueishi K, Tanaka K: Sclerosing haemangioma of the lung. Immunohistochemical characterization of its origin as related to surfactant apoprotein. *Cancer* **55**: 116-123, 1985.
- 4) Yousem SA, Wick MR, Singh G, Katyal SL, Manivel JC, Mills SE, Legier J: So-called sclerosing hemangiomas of lung. An immunohistochemical study supporting a respiratory epithelial origin. *Am J Surg Pathol* **12**: 582-590, 1988.
- 5) Hill GS, Eggleston JG: Electron microscopic study of so-called pulmonary sclerosing hemangioma. Report of a case suggesting epithelial origin. *Cancer* **30**: 1092-1106, 1972.
- 6) 木村寛伸, 草島義徳, 小西一朗, 平野禎介, 中村裕行, 水上陽真, 杉原政美, 島崎栄一, 高柳伊立, 八木雅夫, 宮崎逸夫: 肺硬化性血管腫の1例と本邦報告196例の文献的検討. *日臨外会誌* **49**: 1403-1408, 1988.
- 7) 石川博久, 橋本 学, 高橋栄治, 玉川芳春, 加藤敏郎, 阿部豊彦, 中村正明, 上坂佳敬: 肺硬化性血管腫の3例. *画像診断* **5**: 1234-1237, 1985.
- 8) 大岩孝司, 倉田 努: 肺過誤腫の気管支動脈造影像について. *日胸疾患会誌* **19**: 302-307, 1981.
- 9) 原 信之, 松崎義和, 吉田猛朗: 肺内良性腫瘍の臨床病理学的検討—とくに肺過誤腫および硬化性血管腫について—. *日胸臨* **37**: 40-45, 1978.
- 10) 今泉宗久, 秋山清次, 平井好三: 肺硬化性血管腫の臨床病理学的検討. *日胸疾会誌* **23**: 1308-1315, 1985.
- 11) 井上文夫, 岩本吉男, 平田祐造, 中島秀彰, 音琴要一郎, 千葉武彦, 森山正明, 綾部欣司, 中山英一: 播種性再発をきたした肺硬化性血管腫. *日胸* **45**: 411-413, 1986.
- 12) Tanaka I, Inoue M, Matsui Y, Oritsu S, Akiyama O, Takemura T, Fujiwara M, Kodama T, Shimamoto Y: A case of pneumocytoma (so-called sclerosing hemangioma) with lymph node metastasis. *Jpn J Clin Oncol* **16**: 77-86, 1986.

1) Liebow AA, Hubbel DS: Sclerosing heman-

Sclerosing hemangioma of the lung in a 21-year-old female

*Mitsuharu Kokubo, Hiroshi Sugimoto, Haruhiko Nogaki^{*1}, Makoto Ishikawa^{*1}
Satoshi Sakai^{*1}, Hajime Hirose^{*1} Kuniyasu Shimokawa^{*2}*

Department of Surgery, Mino City Hospital

^{*1} First Department of Surgery, Gifu University School of Medicine

^{*2} Department of Laboratory, Gifu University School of Medicine

A 21-year-old female was found to have a well-defined shadow in the right lung.

We could not distinguish the tumor from mediastinal tumor by chest X-ray or chest CT scan. Bronchial arteriography revealed that the tumor was in the lung. She underwent segmentectomy of right S7. Histological examination showed sclerosing hemangioma of the lung.