Tracheopathia osteoplastica 例

久保井敬之・岡本茉莉子・大日向由光
杉田 邦洋・塙 力哉*・牧本 一男*

A Case of Tracheopathia Osteoplastica

Takayuki Kuboi, Mariko Okamoto, Yoshimitsu Ohinata and Kunihiro Sugita
(Saiseikai Nakatsu Hospital)

Rikiya Hanawa and Kazuo Makimoto
(Osaka Medical College)

A 58-year-old man presented with abnormal sensation of his pharynx and larynx. He had experienced this symptom for 9 months, since the inspiration of an irritant gas.

A flexible fiberoptic examination showed an irregular, brownish nodular lesion in the subglottic region, except for the membranous portion. Physical, laboratory and other examinations showed no abnormal findings, except that the blood sugar was high and an old pulmonary tuberculosis nodule was suspected on the chest computed tomography.

Under general anesthesia, biopsy of the nodular lesion was performed through a microscope. Submucosal bony deposits were found in the biopsy specimens. We then diagnosed this case as tracheopathia osteoplastica. Although the cause of this disease is unknown, we believe that the inspiration of the irritant gas played a part in the formation of the nodular lesion in the patient.

Key words : tracheopathia osteoplastica, irritant gas, flexible fiberoptic examination, nodular lesion

はじめに

tracheobronchopathia osteochondroplastica (以下 TBOC と略)は気管や気管支壁内に骨ないしは軟骨が異所性に増生する比較的まれな疾患であり, その成因・病態は今なお不明な点が多い. TBOC は1857年に Wilks¹⁾ が “Ossific deposits on the larynx, trachea and bronchi” として初めて報告し, Aschoff²⁾ がこれを tracheopathia osteoplastica と命名している. 現在までに欧米では370例以上, 本邦でも1938年の城所³⁾ の報告以来130例あまりの報告がある⁴⁾. 今回, 我々は可燃性の有毒ガスを吸い込んだ後に咽頭の不快症状が出現して受診し, 発見された1例を経験したので若干の文献的考察を加えてこれ

を報告する.

症 例

症例: 58歳, 男性.

主訴: 咽頭部不快感.

家族歴: 兄, 子 肺結核.

既往歴: C型肝炎, 糖尿病, 不整脈, 腎結石, 痛風.

仕事歴: 家具の塗装などを10年以上.

喫煙歴: 20本/日×35年.

現病歴: 平成6年12月にウレタン, ポリエステル(家具の塗装用)を燃やした際に燃焼ガスを偶然に吸い込み, その直後より咽頭部の不快感が出現した. 平成7年9月

に同症状が軽減しないため近医耳鼻咽喉科を受診し、鼻腔から気管内壁にかけての粘膜のびらん状変化と声門下の腫瘤を発見され、精査加療目的にて当科へ紹介受診となった。

初診時の所見：撓性内視鏡検査では鼻腔から連続的に下咽頭、喉頭の粘膜に発赤、びらん状変化を認め、右声帯に血腫様のポリープ、声門下腔～3気管輪に表面が不整に隆起する淡い褐色調の腫瘤を認めた(図1)。ポリープ摘出と声門下腫瘤の生検目的にて平成7年11月15日入院となった。入院時検査所見：白血球 7000/mm³、赤沈値 80 mm/時、CRP 0.32 mg/dl、ツベルクリン反応 14 × 11 mm、水胞、硬結形成なし(弱陽性)胸部聴診では雑音を聴取しなかった。喀痰検査では一般細菌・結核菌培養、細胞診、結核菌 PCR (polymerase chain reaction) 法はいずれも陰性、その他の血液生化学検査では異常を認めなかった。胸部X線写真、胸部 CT (図2)では右肺尖部に陳旧性肺結核を疑わせる所見(収縮と線維化を伴う硬化像)を認め、気管、気管支には明らかな異常を認めなかった。平成7年11月27日全身麻酔下にて顕微鏡下喉頭微細手術を施行した。経口挿管は容易であった。声帯ポリープを除去後、声門下の腫瘤を鉗除した。声門下の腫瘤の外表所見は淡い褐色調を呈し、表面がやや不整に隆起し、非常に硬く鉗子での標本採取はやや困難であった。声門下の腫瘤の病理組織所見(図3)はやや異形性を示す呼吸上皮の増生と気管粘膜下に骨組織を認めた。ポリープには特筆すべき所見はなかった。以上より声門下の腫瘤を tracheopathia osteoplastica (以下 TO と略)

図1 撓性内視鏡検査

声門下腔に不整に隆起する淡い褐色の腫瘤(矢印)を認めた。

図2 胸部 CT

陳旧性肺結核を疑わせる所見を認めた。

図3 病理組織所見(HE 染色, 20倍)

気管粘膜下に骨組織を認めた。

と診断した。生検後、約11カ月経過した現在、外来にて経過観察中であるが、鼻、咽頭粘膜のびらん状変化は若干改善するも声門下腫瘤には撓性内視鏡検査上変化がみられていない。また、咽頭部の不快感も改善はみられるものの消失はしていない。

考 察

tracheobronchopathia osteochondroplastica (TBOC) という名称は、Secrest ら⁵⁾によって初めて用いられ、これは総称的の意味をもっている。現在では一般に病変の拡がりや病理組織学的所見より9種類に分類(表1)され⁴⁾、症例に即した命名がなされている。鈴木ら⁴⁾によ

表1 tracheobronchopathia osteochondroplastica の分類⁴⁾

tracheobronchopathia osteochondroplastica	(TBOC)
tracheobronchopathia osteoplastica	(TBO)
tracheobronchopathia chondroplastica	(TBC)
tracheopathia osteochondroplastica	(TOC)
tracheopathia osteoplastica	(TO)
tracheopathia chondroplastica	(TC)
bronchopathia osteochondroplastica	(BOC)
bronchopathia osteoplastica	(BO)
bronchopathia chondroplastica	(BC)

ると、本邦の過去の病理学的に確定診断の得られた報告例110例のうちTBOが33例と最も多く、次いでTBOC 25例、TO 23例、TOC 18例となっており、これらが全体の約90%を占めている。今回の症例について著者らはTOと診断したが、実際にはfiberoptic bronchoscope (以下FBSと略)なども施行していないため、気管支の病変および軟骨組織の増生の有無や病変の拡がりとははっきりしておらず、必ずしも正確な診断とはいえないかもしれない。過去の報告例についても、確認できた範囲内でつけられた病名であることも各疾患の頻度に偏りがみられている一因と思われる。

発見頻度についてはFBS施行時においてLundgrenら⁶⁾は2180例中9例(0.4%)、林ら⁷⁾は6600例中4例(0.06%)、藤本ら⁸⁾は1200例中3例(0.25%)であったと報告しているが、Eimind⁹⁾は25000例中で1例も発見されなかったと報告しており、それぞれの施設に集まる疾患の特殊性などにより発見頻度に相違がみられるようである。

鈴木ら⁴⁾は本邦の過去の報告を集計した結果、本症の年齢分布は30～84歳で平均年齢は61.2歳、男女比は1.4対1であったとしている。

病因については様々な推測がなされており、慢性炎症説¹⁾、異形成説¹⁰⁾、化学的刺激説¹¹⁾、代謝異常説¹²⁾、先天奇形説¹³⁾、アミロイドーシス説¹⁴⁾、結核・梅毒説¹⁵⁾、外軟骨腫説¹⁶⁾、前癌状態説¹⁷⁾などがあり、一致した見解はない。今回、我々の経験した1例は、化学物質を吸い込んだ直後から咽頭の不快症状が出現して数カ月後に受診して発見されたものである。10年以上にわたり、家具の塗装の仕事がされていたが、燃焼ガスを吸い込んだのは今回が初めてとのことであり、これが原因である可能性も考えられる。Jepsonら¹¹⁾も4カ月間製油工場で働

き、刺激性のガスを吸っていて喀痰、咳、呼吸困難などの症状を呈してきたために受診した患者においてTOを発見したと報告している。そして、彼らの症例では他に誘因はなく、この化学刺激が本疾患発生に関与しているのではないかと推定している。従って、同様の現病歴をもつ患者を診察する場合には、本疾患も念頭におく必要があると思われる。我々の症例では胸部CT上、陳旧性肺結核の存在する可能性が指摘され、結核との関連性も否定できない。また、我々の症例では確認できなかったが、本症にリウマチ因子陽性の症例が多い¹⁸⁾との報告や、気管支肺胞洗浄液検査を施行した結果CD4/CD8比が低下していたとの報告¹⁹⁾もあり、免疫系の障害が関与している可能性も考えられている。症例を蓄積し、今後解明していく必要があると思われる。

本症の症状は咳嗽、血痰、喀痰、発熱などが多いとされている⁴⁾⁸⁾が、骨様結節の自然喀出例の報告もみられる²⁰⁾。我々の症例は咽頭部の不快感を主訴として受診したものであった。しかし、同症状は刺激性ガスを吸入した直後より生じたことや、職業上、日常的に鼻、咽頭粘膜に慢性刺激を受けていると思われることなどより本症と咽頭部の不快感の関連性は不明である。一般に、本症を発見されるきっかけは以前は剖検によって偶然発見される例が多かったが、最近ではFBS検査施行時が多い。この他には間接喉頭鏡施行時²¹⁾、胸部X線異常、全身麻酔時の挿管困難^{22)～24)}などで偶然に見つかるものもあり、臨床医の本疾患に対する認識と注意深い観察が重要と思われる。

病変部位は膜様部を除く気管の下部3分の2に多いといわれているが、鈴木ら⁴⁾、藤本ら⁸⁾の集計では半数以上の報告例では気管上部にも病変を認めたとしている。我々の症例では患者の協力が得られず、FBSを施行し

ていないが、頸部・胸部 CT では気管の下部以下には少なくとも骨組織の増生は認めなかった。しかし、声門下に発見された病変も小さく、剖検によらなければ正確な病変部位の決定は困難¹⁹⁾であると思われた。

組織像は気管や気管支の上皮下に異所性に骨、軟骨組織が存在することが特徴的で、骨組織にはハーバー氏管や骨髄がみられることもある²⁵⁾。また、半数近くの例で扁平上皮化生や炎症細胞浸潤もみられる⁸⁾。

合併症としては従来より悪性腫瘍の合併率が高い⁸⁾といわれている。鈴木ら⁴⁾の行った本邦の過去の症例の集計でも134例中24例(17.9%)に悪性腫瘍の合併を認めており、このうちの11例が肺癌である。中原ら²⁶⁾によると肺癌の中では組織型は腺癌が多い。しかし、肺癌との関連性については、本症を8年～10年間の経過観察した結果、悪性化しなかったとの報告^{26)～28)}があること、本邦では癌の組織中にTBOCを示唆する所見を認めたとする報告が今までにないこと、さらに、本疾患が発見されるのは何らかの呼吸器疾患の精査を目的としたFBS施行時に高率であることから本症の悪性腫瘍合併の頻度は必ずしも高いとはいえないかもしれず、また、本症の悪性化についても現在のところ否定的との意見が多い¹⁹⁾²⁷⁾。

既往歴としては肺炎、慢性副鼻腔炎、肺結核、気管支拡張症、気管支炎などの気道炎症性疾患が多い⁴⁾⁸⁾ようであるが、この点についてもFBS施行時などに発見される症例が多いことからその意義は不詳である。

診断は特徴的な気管支鏡所見⁴⁾⁸⁾によって容易との意見がある。主に膜様部を除く気管、気管支壁に半米粒大の黄白色ないし白色の結節が散在、または数珠状に連なったり、鍾乳洞様に融合し存在し、生検では切除時に骨、軟骨様に硬いことが特徴とされている。また、これらの結節を覆う粘膜は正常であることが多いといわれている²³⁾。このような特徴的な所見があるとはいえ、本症はまれな疾患であり、日常の臨床で遭遇する機会は極めて少ないため、現実には本症を視診のみで診断することは容易ではないと想像される。従って本症を気管・気管支の病変としての認識をもって日常の診療を行う必要があると思われる。我々の症例では、患者の協力が得られず、現在までFBSは施行できていない。

その他の検査としてはCTが有用^{29)～32)}との報告が多く、気管壁に骨と同等の濃度を有する結節が内腔に突出する所見などが特徴的とされているが、我々の症例のよ

うに病変が小さい場合もあると思われ、あくまで補助診断である。しかし、病変の拡がりや程度を把握する上で重要な検査と考えられる。また、胸部レントゲン検査の有用性は現在では乏しい³¹⁾³³⁾と考えられている。

鑑別疾患としては過誤腫、悪性腫瘍の転移、気管、気管支アミロイドーシスの終末像、結核、サルコイドーシス、ウェゲナー肉芽腫、気管支結石などが挙げられる⁸⁾³⁴⁾が、本疾患の認識があればいずれも前述の特徴的な気管支鏡所見で鑑別は比較的容易⁸⁾と考えられている。

治療は、ほとんどが合併症の治療と、炎症に対してはステロイドなどの抗炎症剤、感染症に対しては抗生物質の投与などの対症療法が基本とされている。実際には無症状の症例が多く、気管支鏡による経過観察のみでよいことが多い⁸⁾。しかし、気管、気管支の狭窄が高度となり閉塞性肺炎を続発した症例⁵⁾や呼吸不全で死亡した症例¹⁴⁾もある。従って前述の悪性腫瘍の合併の可能性もあることからこれらを考慮に入れて定期的な経過観察を行う必要があると考えられる。また、まれながら病変が急速に進行して短期間に気管上幹をほぼ閉塞した例³⁵⁾などもあり、経過によっては早期に外科的治療を要することがあることも留意しておく必要があると思われる。

まとめ

本症はまれな疾患でありしかも良好な経過をたどることが多いが、現在なおその病態は十分には解明されていない。我々臨床医は、気管・気管支の病変の1つとして本症を認識し、本症の発見と病態の解明に努める必要があると思われる。

参考文献

- 1) Wilks S : Ossific deposits on the larynx, trachea and bronchi. *Tr Path Soc* 8 : 88, 1857.
- 2) Aschoff L : Uber Tracheopathia Osteoplastica. *Verh Dtsch Path Ges* 14 : 125, 1910.
- 3) 城所信五郎, 湯浅光雄 : Tracheobronchopathia osteochondroplastica. *耳喉* 11 : 694, 1938.
- 4) 鈴木政美, 竹生田勝次, 西蔭 渡, 他 : Tracheobronchopathia osteoplastica の 1 症例. *耳喉頭頸* 68 : 702～705, 1996.
- 5) Secrest PG, Kendig TA and Beland AJ : Tracheobronchopathia osteochondroplastica. *Am J Med* 36 : 815～818, 1964.
- 6) Lundgren R and Stjernberg NL : Tracheobronchopathia osteochondroplastica ; a clinical bronchoscopic and spi-

- rometric study. *Chest* **80** : 706~709, 1981.
- 7) 林 清二, 荒井六郎, 久保田馨, 他 : Tracheobronchopathia osteochondroplastica の 4 症例. 気管支学 **8** : 636~641, 1986.
- 8) 藤本公則, 隈部 力, 藤東寛行, 他 : Tracheobronchopathia Osteoplastica — 自験 2 例と本邦報告 86 例の文献的考察 —. 気管支学 **13** : 650~658, 1991.
- 9) Eimind K : Tracheobronchopathia osteochondroplastica. *Nord Med* **72** : 1029, 1964.
- 10) Dalgaard JB : Lung cancer and tracheopathia chondro-osteoplastica. *Nord Med* **53** : 572~575, 1955.
- 11) Jepson O and Sorensen H : Tracheopathia osteoplastica and ozena. *Acta Otolaryngol* **51** : 79~83, 1960.
- 12) Hempel KJ and Glaser A : Zur pathogenese der tracheopathia chondro-osteoplastica. *Virchow Arch* **331** : 36~50, 1958.
- 13) Ribbert DR : Uber die Entstehung der Geschwulste. *Dtsch Med Wschr* **21** : 24~26, 1895.
- 14) Sakula A : Tracheopathia osteoplastica, its relationship to primary tracheobronchial amyloidosis. *Thorax* **23** : 105~110, 1968.
- 15) Bowen DAL : Tracheopathia osteoplastica. *J Clin Pathol* **12** : 435~439, 1959.
- 16) Virchow R : Die krankhaften geschwulste. p 443, Hirschward, Berlin, 1963.
- 17) 加藤秀男, Lochon B, 北本 治 : フレキシブル・ファイバー・ブロンコスコーピーにて発見した Bronchopathia chondroplastica の一例 — 肺癌(腺癌)と合併したと推定される一例 —. 日気食会報 **26** : 222~225, 1975.
- 18) 久 育男, 立本圭吾, 西山康之, 他 : 喘鳴を主訴とした Tracheopathia Osteoplastica の 1 症例. 耳喉頭頸 **67** : 428~431, 1995.
- 19) 池田剛司, 南方良章, 乾 宏行, 他 : 肺腺癌の合併により葉切除を施行した Tracheobronchopathia osteochondroplastica の 1 例. 気管支学 **15** : 55~61, 1993.
- 20) 中村 晋, 田原 実, 北見 翼, 他 : Flexible Fiber Bronchoscope により診断し経過を観察した Bronchopathia Chondroplastica の症例について. 総合臨床 **23** : 171~175, 1974.
- 21) 吉次政彦, 森 一郎, 小林 勉, 他 : Tracheobronchopathia osteochondroplastica の 2 症例. 日気食会報 **44** : 305~309, 1993.
- 22) 谷口淳朗, 山本 健, 森 一郎, 他 : 気管内挿管時に遭遇した気管気管支骨化症の 1 例. 臨床麻酔 **12** : 602~606, 1988.
- 23) 香村玲子, 寺嶋雅史, 白幡真知子, 他 : 予期しない挿管困難症 tracheobronchopathia osteochondroplastica の一例. 麻酔 **34** : 1272~1274, 1985.
- 24) Smith DC, Pillai R and Gillbe CE : Tracheobronchopathia osteochondroplastica. *Anesthesia* **42** : 536~538, 1987.
- 25) Spencer H : Pathology of the Lung. 4th ed. p 747, Pergamon Press, Oxford, 1985.
- 26) 中原由紀子, 中原保治, 石田 直, 他 : 肺腺様嚢胞癌検索中に発見された Tracheobronchopathia Osteoplastica の 1 例. 肺癌 **30** : 441~445, 1990.
- 27) 宮地純樹, 久富龍夫, 小須田達夫, 他 : 10年間観察した Tracheobronchopathia osteochondroplastica の 1 例. 気管支学 **9** : 162~165, 1987.
- 28) Van Nierop MAMF, Wagenaar SS, Van den Bosch JM, et al : Tracheobronchopathia osteochondroplastica ; report of four cases. *Eur J Respir Dis* **64** : 129~133, 1983.
- 29) Onitsuka H, Hirose N, Watanabe K, et al : Computed tomography of tracheopathia osteoplastica. *AJR* **140** : 268~270, 1983.
- 30) 梶 博久, 大谷信夫, 野口哲彦, 他 : Tracheobronchopathia Osteoplastica の 2 例 — 進行例と軽症例の比較 —. 気管支学 **8** : 279~285, 1986.
- 31) Bottlet K, Nyberg DA, Clark M, et al : CT diagnosis of tracheobronchopathia osteochondroplastica. *J Comput Assist Tomogr* **7** : 324~327, 1983.
- 32) 福田 安, 小針俊行, 福田国彦, 他 : Tracheobronchopathia Osteochondroplastica の 1 例. 臨放 **29** : 401~404, 1984.
- 33) Nienhuis DM, Prakash UB and Edell ES : Tracheobronchopathia osteochondroplastica. *Ann Otol Rhinol Laryngol* **99** : 689~694, 1990.
- 34) 大久保裕雄, 成松明子, 樋口睦味, 他 : 石灰化を伴う良性気管・気管支病変の CT 像. 臨放 **35** : 839~846, 1990.
- 35) 龍沢泰彦, 青山剛和, 宮本正治, 他 : 急速な発育を呈した bronchopathia osteochondroplastica の 1 切除例. 日胸 : 331~335, 1991.
- (原稿受付 : 平成 8 年 11 月 11 日
原稿採択 : 平成 8 年 12 月 11 日
別刷請求先 : 久保井敬之
〒569 高槻市大学町 2-7
大阪医科大学耳鼻咽喉科学教室)