症 例

胸腔鏡下に摘出した前縦隔気管支原性嚢胞の1例

横殿順記念病院外科

横 殿 公 誉 久 保 義 郎

症例は63歳、女性。2016年12月に全身倦怠感を主訴に当院を受診。胸部CT検査で前縦隔腫瘍を認め、精査・加療目的に2017年1月に入院となった。胸部CT検査では前縦隔に30×20mm大の嚢胞性病変を認め、胸部MRI検査ではT1強調画像で筋肉と比較し等信号、T2強調画像で僅かに高信号であった。胸腺嚢胞または嚢胞性胸腺腫を疑い、胸腔鏡下に摘出した。病理学的に退縮した胸腺内に嚢胞性病変を認め、内腔面に気管支腺の存在を認めた。前縦隔気管支原性嚢胞と診断された。今回われわれは前縦隔に発生した気管支原性嚢胞の1例を経験したので、若干の文献的検討を加え報告する。

索引用語：気管支原性嚢胞，前縦隔，胸腔鏡

はじめに

気管支原性嚢胞は、呼吸器発生の際に気管原基の異常出芽や分離・迷入の結果生じる疾患であり、縦隔に発生する先天性疾患の中で最も頻度が高い¹⁾。発生部位としては気管、気管支に接して中・後縦隔に発生することが多く、前縦隔に発生することはまれである²⁾。今回われわれは前縦隔に発生した気管支原性嚢胞の1例を経験したので、若干の文献的考察を加え報告する。

症 例

患者：63歳、女性。

主訴：全身倦怠感。

既往歴：特記事項なし。

家族歴・嗜好歴：特記事項なし。

現病歴：2016年12月に全身倦怠感を主訴に当院を受診。胸部CT検査で前縦隔腫瘍を認め、2017年1月に精査・加療目的に入院となった。

入院時現症：身長165.2cm、体重50.1kg、血圧101/61mmHg、脈拍70回/分、体温36.9℃、SpO2% (room air) 99%。表在リンパ節触知せず。胸腹部に異常所見なし。

血液生化学検査：WBC 4,410/ μ lと正常範囲内であったが、CRP 1.452mg/dlと炎症反応の上昇を認めた。その他、血液・生化学・凝固能検査に異常は認めな

った。腫瘍マーカーは基準範囲内、抗アセチルコリン抗体は陰性であった。

胸部X線検査：肺野、縦隔に明らかな異常所見は認めなかった (Fig. 1)。

胸部CT検査：前縦隔、大動脈前面に境界明瞭な3.0×2.0cm大の嚢胞性病変を認めた。嚢胞内部のCT値は45HUで、造影効果は認めなかった (Fig. 2)。

胸部MRI検査：嚢胞性病変はT1強調画像で筋肉と比較し等信号、T2強調画像で内部不均一、僅かに高

Fig. 1 胸部X線検査：肺野、縦隔に明らかな異常所見は認めなかった。

2019年2月15日受付 2019年8月12日採用

〈所属施設住所〉

〒733-0013 広島市西区横川新町8-21

Fig. 2 胸部CT検査 (a : 水平断, b : 矢状断) : 前縦隔, 大動脈前面に境界明瞭な3.0×2.0cm大の嚢胞性病変を認めた.

信号であった (Fig. 3).

PET-CT検査: 病変には有意なFDGの集積は認めなかった.

以上より胸腺嚢胞または嚢胞性胸腺腫を疑い, 手術を施行した.

手術所見: 硬膜外麻酔, 全身麻酔下, 左側臥位で手術を開始した. 第7肋間中腋窩線上に12mmのカメラポートを挿入し, 胸腔鏡を挿入し, 第4肋間に3cmの前側方小開胸, 第6肋間後腋窩線上に12mmのポートを挿入した. 胸腔鏡下に嚢胞性病変を含む胸腺を切除した. 手術時間は145分, 出血量は35gであった (Fig.

Fig. 3 胸部MRI検査 (a : T1強調画像, b : T2強調画像) : 嚢胞性病変はT1強調画像で筋肉と比較し等信号, T2強調画像で内部不均一, 僅かに高信号であった.

Fig. 4 手術所見 (点線: 切除線) : 前縦隔に灰色の嚢胞性病変 (矢印) を認めた. 嚢胞性病変 (矢印) を含む胸腺 (矢頭) を切除した.

4).

病理組織検査: 切除した組織内には嚢胞性病変を認め, 周囲に退縮した胸腺組織が島状に存在した. 胸腺と嚢胞性病変の境界は比較的明瞭であった. 嚢胞性病

Fig. 5 病理組織学的所見 (a : H.E.染色×5, b : H.E.染色×40) : 切除した組織内には嚢胞性病変を認め、周囲に退縮した胸腺組織 (矢印) が島状に存在した。嚢胞性病変の内腔面に気管支腺 (矢頭) の存在を認めた。

変の内腔面に気管支腺の存在を認めた。また、軟骨組織は認められなかった。以上より、前縦隔気管支原性嚢胞と診断された (Fig. 5)。

術後経過：術後経過良好で術後10日目に退院した。術前に認めていた全身倦怠感認めず、術後17カ月著変を認めていない。

考 察

気管支原性嚢胞は、胎生期における原始前腸からの異常発芽や分枝によって発生する先天性疾患であり、胎生4週までに発生すれば気管、気管分岐部付近の縦隔に存在し、胎生4週以降に発生すれば肺内に存在するとされる³⁾。縦隔に発生する気管支原性嚢胞の発生部位の分類としては傍気管、気管分岐部、肺門、傍食道、その他の5つに分けられるが、気管、気管支に接して中・後縦隔に発生することが多く、前縦隔、胸腺内に発生することは比較的まれである²⁾。胸腺は第3咽頭弓内胚葉の上皮の一部から生み出され、上皮から切り離されて、腹側そしてさらに後方へ移動しながら

成長し、心臓上部へ移動する⁴⁾。胎生4週までに発生した気管支原性嚢胞が胸腺の発生過程に迷入したと推測される。

医学中央雑誌 (1983-2018年) で“気管支原性嚢胞”もしくは“気管支嚢胞”“前縦隔”“胸腺”をキーワードに検索しえた限り (会議録を除く)、本邦報告例は自験例を含めて14例であった^{5)~16)}。臨床的特徴をまとめると、性別は男性5例、女性9例で年齢は39~71歳で平均57歳であった。症状は無症状が最も多く12例、他、全身倦怠感1例、頻拍発作1例、腫瘍径は1.7~5.5cm、平均3.1cm (2例は不明) であった。自験例においては元来健康であったが術前に全身倦怠感の出現を認めた。血液検査では炎症反応の上昇を認めたが、画像検査では前縦隔腫瘍以外の胸腹部に明らかな異常所見は認めなかった。病理組織検査では嚢胞内の炎症の所見は認められなかったため、嚢胞内の炎症を生じる機序は明確ではないが、気道との微小な交通を介して嚢胞内に軽微な感染が起こり症状を引き起こした可能性が考えられた。

診断に関しては、CT検査とMRI検査が用いられることが多い。縦隔嚢胞性病変の典型的なCT所見は内部均一な水吸収値 (CT値：0-20HU) で、造影効果を認めず、MRI検査ではT1強調画像では内容液の性状により変化するが、T2強調画像で高信号を呈するとされる¹⁷⁾。Kanemitsuらは気管支原性嚢胞に対するCT検査とMRI検査の診断能に関する比較検討を行い、CT検査の診断率が69.2%に対して、MRI検査ではT2強調画像で高信号を示すのが特徴的なことにより診断率が100%であったと述べている¹⁸⁾。しかし、気管支原性嚢胞が前縦隔に存在する場合には鑑別困難な場合が多く、自験例も含めた本邦報告例においては術前に胸腺嚢胞や胸腺腫と診断されている例が多い。前縦隔に発生した嚢胞性病変の場合に、典型的な縦隔嚢胞性病変と比較し、CT値が高い、またMRIのT1強調画像で信号が上昇するなどの画像所見を示す場合は気管支原性嚢胞を鑑別に挙げる必要があると考えられる¹⁷⁾。

気管支原性嚢胞の治療に関しては、感染・縦隔炎などの合併症や悪性化の報告例もあり、全例に手術適応があるとされる¹⁹⁾²⁰⁾。

前縦隔発生の嚢胞性病変では心膜嚢胞や胸腺嚢胞などが代表的であり¹⁷⁾、無症状の場合は経過観察も十分にあり得るが、非典型的な画像所見を示した場合には気管支原性嚢胞も鑑別の一つに挙げ、診断的治療とし

て低侵襲な胸腔鏡下手術を行うことが有用な手段であると考えられた。その際、嚢胞の完全切除は必須であり、周囲臓器との癒着などにより手術操作に難渋する場合は、開胸に移行することも肝要と思われた。

結 語

胸腔鏡下に摘出した前縦隔気管支原性嚢胞の1例を経験した。前縦隔に発生した嚢胞性病変の場合、気管支原性嚢胞も鑑別の一つに挙げる必要があると考えられた。

なお、本論文の要旨を第80回日本臨床外科学会総会(2018年11月、東京)において発表した。

謝 辞

稿を終えるにあたり、本症例の病理所見に関してご指導を頂きました尾道総合病院病理研究検査科の米原修治先生に深く感謝申し上げます。

利益相反：なし

文 献

- 1) 正岡 昭, 山口貞夫, 森 隆他：縦隔外科全国統計。日胸外会誌 1971；19：1289-1300
- 2) Maier HC：Bronchogenic cysts of the mediastinum. Ann Surg 1948；127：476-502
- 3) 大畑正昭, 飯田 守, 大森一光他：肺・縦隔気管支原性嚢胞の病態と組織学的検討—II. 肺内気管支原性嚢胞について—。日胸臨 1987；46：809-821
- 4) 大久保直, 高田慎治：咽頭弓からの胸腺形成と先天性異常の発症機構。生化学 2012；84：168-176
- 5) 谷脇 聡, 田中宏紀, 船戸善彦他：胸腺に発生した気管支性嚢胞の1例。日胸疾患会誌 1997；35：201-204
- 6) 高砂敬一郎, 矢満田健, 牧内明子他：前縦隔に発生した気管支性嚢胞の2手術。胸部外科 1999；52：959-961
- 7) 谷村繁雄, 佐々木邦明, 友安 浩他：胸腺に発生した気管支原性嚢胞の1手術例。日胸臨 2000；59：30-34
- 8) 竹井清純, 中村憲二, 高橋 修：縦隔内に重複発生した気管支性嚢胞の1例。日呼外会誌 2005；19：828-832
- 9) 幸 大輔, 三谷真巳, 田中 直他：胸腺組織内に発存在した気管支嚢胞の1切除例。名古屋病紀 2006；29：23-25
- 10) 徳永俊照, 内海朝喜, 井上匡美他：前縦隔内に発生した気管支原性嚢胞の1切除例。日呼外会誌 2007；21：174-177
- 11) 有倉 潤, 本望 聡, 青木裕之他：前縦隔胸腺内に発生した気管支原性嚢胞の1例。日呼外会誌 2008；22：810-813
- 12) 春日井敏夫, 斉藤雄史：胸腺内に発生した気管支原性嚢胞の1切除例。日臨外会誌 2008；69：2212-2215
- 13) 橋本雅之, 花岡 淳, 北野晴久他：前縦隔に発生した重複気管支性嚢胞の1例。胸部外科 2014；67：1198-1200
- 14) 戸次宣史, 加藤雅人, 松本耕太郎：前縦隔胸腺内に発生した気管支原性嚢胞の1例。日呼外会誌 2105；29：531-535
- 15) 妻鹿成治：不整脈を伴った前縦隔発生した気管支原性嚢胞の1例。胸部外科 2015；68：871-873
- 16) 山梨恵次, 亀山耕太郎, 中園千晶他：胸腺嚢胞との鑑別が困難であった前縦隔気管支原性嚢胞の1例。倉敷中病年報 2017；79：127-130
- 17) 原 眞咲, 伊藤雅人, 荻野浩幸他：縦隔嚢胞性病変のCT, MRI診断。日本医放会誌 2001；61：147-155
- 18) Kanemitsu Y, Nakayama H, Asamura H, et al：Clinical features and management of bronchogenic cysts：report of 17 cases. Surg Today 1999；29：1201-1205
- 19) Kawaguchi Y, Hanaoka J, Asakura S, et al：Infected bronchogenic cyst treated with drainage followed by resection. Ann Thorac Surg 2014；98：332-334
- 20) 大塚憲雄, 大熊利忠, 本郷弘昭他：縦隔気管支嚢腫に腺癌を認めた1例。癌の臨 1985；31：1914-1918

A CASE OF THORACOSCOPIC TREATMENT FOR A BRONCHOGENIC CYST IN THE ANTERIOR MEDIASTINUM

Kimitaka MAKIDONO and Yoshiro KUBO

Department of Surgery, Memorial Jun Makidono Hospital

A 63-year-old woman who was referred to our hospital for general fatigue was found having a tumor at the anterior mediastinum on a chest CT scan. She was admitted for further examination and treatment in January 2017. The chest CT scan showed a cystic mass of 30×20mm in diameter in the anterior mediastinum. A chest MRI showed the mass, with isointensity in comparison with the muscle on T1-weighted, and slightly high intensity on T2-weighted images. Based on these findings, we preoperatively diagnosed the mass as a thymic cyst or a cystic thymoma. We performed video assisted thymectomy. Histopathology revealed the cyst lined by bronchial epithelium in the regressed thymus. It was diagnosed as bronchogenic cyst in the anterior mediastinum.

Here, we report a case of bronchogenic cyst arisen in the anterior mediastinum with a review of the literature.

Key words : bronchogenic cyst, anterior mediastinum, thoracoscopy