

先天性肺嚢腫の1例

星野 皓

都立清瀬小児病院 (院長 庄司常次)

岡 治 道

結核予防会結核研究所顧問

受付 昭和 46 年 11 月 8 日

A CASE REPORT ON CONGENITAL LUNG CYST*

Akira HOSHINO and Harumichi OKA

(Received for publication November 8, 1971)

The bronchiectatic pulmonary cysts are usually considered as the congenital origin. But in many cases of these pulmonary cysts the origin is not definitely determined pathologically due to the pulmonary infections.

Authors reported a case of a nine years old girl whose cyst of the left upper lobe was resected.

The resected specimens were investigated from the histopathological view point. No picture of inflammation was seen and the bronchiectatic cyst was not connected with the main bronchus.

Moreover the expiratory obstructive emphysema was recognized on the left upper lobe.

From above findings it was assumed that the origin of the case was congenital.

いとぐち

肺嚢胞症 (あるいは肺嚢腫症) のうち、気管支拡張性のものは一般に先天性に起因するものとされている。しかし一方、これらの嚢腫はほとんどつねに感染が加わって発見される場合が多く¹⁾、また出生後の肺の発育過程の欠損状態に気管支の閉塞が起こって初めて、肺嚢胞症ができるという Mayer, Rappaport²⁾ の説もあり、必ずしも先天性のもののみとはいえない。われわれがさきに調べた 15 例の肺嚢胞症の検討³⁾ では、そのほとんどが炎症をみており、その気管支の変化が嚢胞形成の原因として十分に考えられることを病理組織学的に明らかにした。

したがって、先天性という以上完全に炎症像の否定しうるような病理組織学的所見をもつたものでなければな

らない。

著者らは最近炎症を伴わない先天性肺嚢腫と推定される症例を経験したので、報告する。

症例：[] 9.7 歳、女子。

主要病歴：昭和 38 年 6 月、6 歳のとき感冒様症状があり、咳はなかなかとれず、胸部に「ラ」音が聞かれ、白血球数 17,600 であつたという。当時「ツ」反応は 18 × 15 (+)、赤沈 1 時間値 16 mm、寒冷凝集反応 256 倍、喀痰中の結核菌陰性で、胸部「レ」線所見では左上肺野内側に異常陰影が発見された (図 1)。当時、異型肺炎という診断を受け、同年 8 月には「レ」線上軽快したといわれた。しかしそのときのフィルムを再検してみると、6 月のときと変わつていとは思われない。

昭和 40 年 7 月に、学校集検にてふたたび胸部「レ」線所見で、前と同じ位置に異常陰影を指摘され、肺結核

* From the Metropolitan Kiyose Children's Hospital, Kiyose-shi, Tokyo 180-04 Japan.

の疑いで化学療法をすすめられ、ヒドラジッドを約 11 カ月間服用したが、その陰影は治療後も変わらず、昭和 41 年 6 月清瀬小児病院に入院した。

入院後の経過:「ツ」反応は $\frac{+}{13 \times 14}$ (H), 赤沈 1 時間値 7 mm。胃洗浄液の結核菌培養はつねに陰性。末梢血検査では、赤血球 481×10^4 , 白血球 9,800, ザーリ 84 %, 血液像にとくに異常を認めない。

患児の一般状態は年齢相応であり、外見上および理学的所見に異常を認めない。

入院時の胸部「レ」線所見では、左上肺野にはほぼ 20×30 mm の橢円形の陰影を認めており、前回発見時のそれよりやや大きくなっている (図 2)。その陰影の内側、すなわち縦隔面との間に明るいとこがみられている。断層写真では、後面より 7 cm の所にもつともはつきりと認められ、この陰影はキノコのような形で肺門部から上外方に突出している (図 3)。これは切除肺で第 3 区域の C に相当している。

入院後ヒドラジッドおよびパスの併用を行ない、約 3 カ月間経過をみたが、陰影に変わりはなく、9 月 2 日撮影のもの (図 4) では、ただ周辺のブラ様の明るさが著しく認められている。

昭和 41 年 10 月 3 日、当院外科にて守屋荒夫医師の執刀のもとに、左上葉切除を受けた。開胸時、肺肋膜の癒着は上葉外側面の囊腫に関係のない部分に認められたが、囊腫付近および不規則な異常溝には癒着をみなかつた。

上葉表面には異常な分葉傾向が明らかで、不規則な深い溝が多くみられている。図 5 および図 6 は切除肺を外側面および内側面よりみたものであり、この外側面でも明らかのように I + II と III との区域の間に横に深い溝があり、溝の底は囊腫に接しており、この溝にも肋膜に癒着は認められず、また III 区域と IV 区域との間にも深い溝があつて分葉傾向を示している。

病理所見: 切除した左上葉を前額面で切つてゆき、囊腫のもつともはつきり認められるにいたつた所の部分が図 7 であり、この囊腫部分の組織標本が図 8 である。この囊状に拡張した気管支は肺門からのどの気管支ともつながつておらず、組織学的にも炎症性変化はみられなかつた。組織写真図 8 の矢印の部分には囊腫壁に接して外側に先天性と思われる細気管支の密集がみられる。写真 9 の囊腫腔内には流動性の透明なうすい粘液性の液が満ちていて、残存している部分では、液内に脱落した上皮細胞がみられるが、炎症性の細胞は全くみえない。

囊腫壁は組織学的にほとんど正常に近く、軟骨の不整に散在する気管支構造を示しているが、筋層は萎縮の形であり、弾力線維は不規則に壁に平行して走っている。軟骨の一部は骨基質を思わせる層状構造を示している。

粘膜炎にはリンパ球の集団をみない。気管支粘膜は正

常にみるように軟骨の両端に存在し、萎縮形でもなく、また萎縮もない。

囊腫の外側の肺胞はいずれも切面では円形に拡張し、切除材料に割を入れても、正常肺のように収縮しない。すなわち側副気路によつて呼吸閉塞性の気腫を起こしていたことが知られる。これらの気腫部にもならん炎症像は認められない (図 10)。

以上の病理所見を小括すると、次のようである。

- 1) 標本に炎症像が全くみられないこと。
 - 2) 癒着のない肺に不規則で明らかな分葉がみられること。
 - 3) 囊腫、すなわち気管支腔に粘液が充満していて、この気管支が肺門からの気管支につながりをもつておらず、この変化は炎症によつて起こつたものでないこと。
- 以上のことより、先天性肺囊腫と考えられた。

考 案

本邦における肺囊胞の文献で、表題に「先天性」という言葉を用いてあるのは、私どもの調べた約 100 題の論文中 10 題であつた。もちろんこの題を付さなくとも、気管支性の囊胞はほとんどが先天性のもりで書かれている。

しかし先天性とする病理組織学的根拠は必ずしも得られていない。それは大部分が炎症をくり返しているために気管支の変化が著しく、そのため囊胞の形成が先天性か否か不明となつている場合が多いからである。Mayer および Rappaport²⁾ は生後肺の発育過程中的欠損状態に気管支の閉塞が感染あるいはアレルギーによつて起こり、その結果肺囊胞ができるということを述べている。

感染はきわめて早期にも起こりうるものであり、植田⁴⁾ は生後 13 日目の肺囊胞症の切除例で、すでに *Staphylococcus aureus* による感染を認めている。したがつて先天性という言葉は病理組織学的所見に基づいて、炎症を伴わない場合にのみ推定されうるものである。

私どもの肺囊胞症の切除肺を検討し、そのほとんどが感染を経過したものであることを報告したが³⁾、その中で囊胞の成因を病理組織学的に次のように分類した。1) 潰瘍性気管支炎によるもの、2) 気管支炎、気管支周囲炎の結果、気管支周囲の癒痕収縮による大きい気管支の狭窄によるもの、3) 閉塞性細気管支炎によるもの、4) Bulla およびその感染症、5) 気管支拡張症が 1 肺葉全部に先行して、それに感染症を伴つたもの、6) 不明の感染症。これらのうち 1), 2), 3) のものは感染のくり返しにより、むしろ後天的に炎症によつて囊胞形成がみられたのではないかと考えられるのである。また 5) では気管支拡張症が先行しており、これは先天性の欠損状態に感染が加わつて囊胞形成をもたらしたものと考えられるのである。もちろん 1)~3) も先天性の欠損があ

つたかもしれないが、すでに証明しうるものが失われたものと考えられる。したがって逆に炎症性変化の全く認められない症例を求めるのが、むしろまれである。すなわち本例のように 1) 炎症が全く認められず、癒着のない肺に不規則で明らかな分葉がみられ、3) 囊腫、すなわち気管支腔に粘液が充満しており、この気管支が肺門からの気管支につながりをもつておらず、この変化は炎症によつて起こつたものでないこと。これらの点より、先天性肺囊腫を推定したのであり、このような先天性の形成異常と思われる所見の症例にのみ、先天性という名称を与えるべきであろうと考える。

最近 Reza Vaghei⁵⁾ は 13 歳および 36 歳の 2 症例で左肺上葉の、気管支閉塞があつて気管支性の囊胞を作り、さらに私どもの症例のように左上葉に気腫ができた症例を報告している。この症例はともに左上葉に認められているが、Boyden⁶⁾によれば、肺における先天性異常のもつとも普通にみられるのは左上葉であるという。また左上葉の気腫は側副気路によつて呼吸閉塞性に起因するものであつて、これらの気腫部にもならぬ炎症像は認められなかつた。

治療について、Brünner¹⁾ は 93 例の肺囊胞症につき、切除例、非切除例につき臨床的検討を行なつているが、切除例のほうが非切除例に比し、その予後が良好であり、かつ年齢の若いものほど良好であるとして切除をすすめている。

おわりに

肺囊胞症（あるいは肺囊腫症）のうち気管支拡張性の

ものは、一般に先天性と考えられているが、病理組織学的に検討した場合、ほとんどが感染を認め、その炎症像のため、先天性と決めえない場合が多い。私どもは 9 歳の少女で左上肺野に「レ」線上囊腫陰影を認め、切除を行ない、病理学的検査を行なつたところ、気管支拡張性の囊腫には粘液が充満し、肺門からのつながりをもつておらず、しかも炎症像をまったく有しておらないことより、先天性の囊腫と推定した。なお左上葉は側副気路による呼吸閉塞性の気腫が認められた。

稿を終るに当たり、当院外科守屋医長の切除時所見を借用したことに感謝します。

本論文の要旨は第 75 回日本結核病学会関東支部、第 11 回日本胸部疾患学会関東地方会合同学会にて発表した（昭和 44 年 4 月 19 日）。

文 献

- 1) Brünner, S.: Lung Cysts (A Clinical Radiological Study). Munksgaard, Copenhagen, 1964.
- 2) Mayer, E. and Rappaport, I.: Diseases of the Chest 21: 146, 1952.
- 3) 星野皓 他: 日本胸部臨床, 29, 616, 昭 45.
- 4) 植田隆 他: 胸部外科, 20, 678, 昭 42.
- 5) Reza Vaghei.: Chest, 57: 91, 1970.
- 6) Boyden, E. A.: Segmental anomaly of the lungs, a study of the patterns of the segmental bronchi and related pulmonary vessels. McGraw-Hill, New York, 1955.



Fig. 1. Roentgenogram at time of discovery (15. VI. 1963)

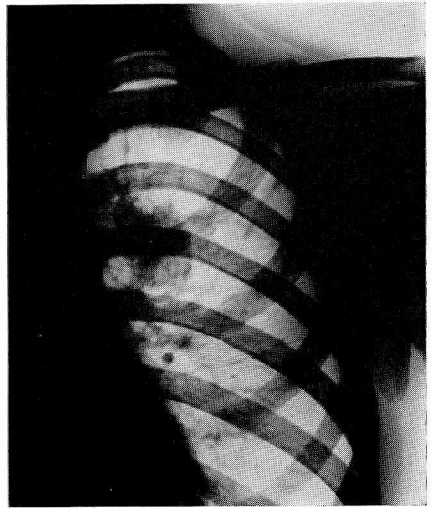


Fig. 2. Roentgenogram on admission (16. VI. 1966)



Fig. 3. Tomogram (4 cm from the back) on admission (20. VI. 1966)



Fig. 4. Roentgenogram one month before the resection of the left upper lobe (2. IX. 1966)

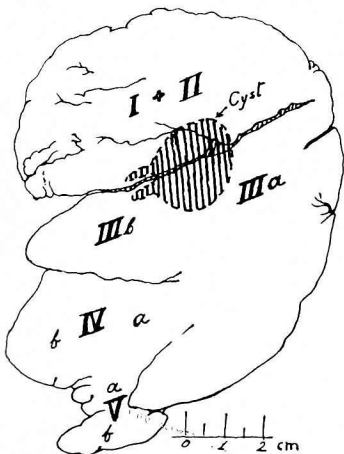


Fig. 5. The lateral surface of the left upper lobe

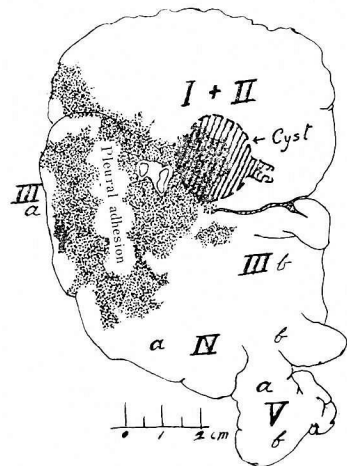


Fig. 6. The medial surface of the left upper lobe

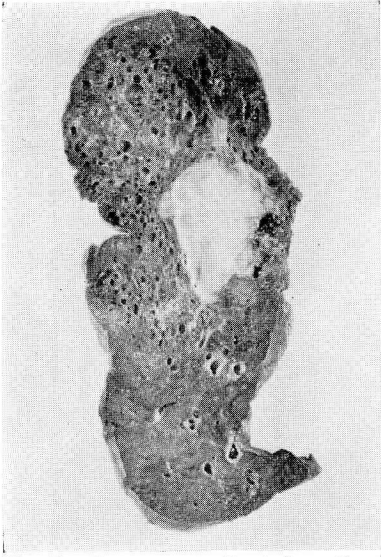


Fig. 7. Large cyst situated on the middle part of resected lung

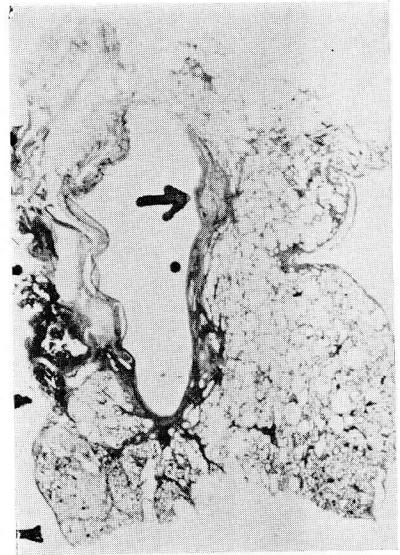


Fig. 8. Histopathologic finding of the resected cyst



Fig. 9. Cyst filled with mucous contents

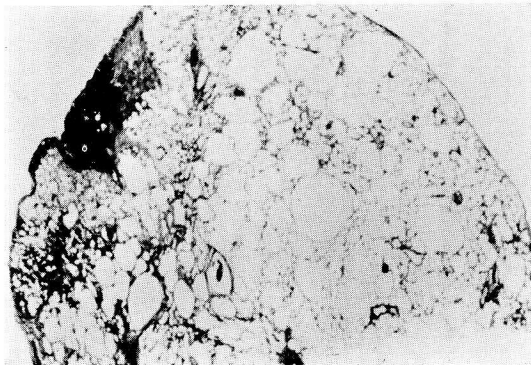


Fig. 10. The emphysematous cyst of the left upper lobe