

—臨床医のために—

嚢胞性縦隔腫瘍の診断と治療

特に気管支性嚢胞について

平田 知己¹ 小泉 潔¹ 原口 秀司¹ 平井 恭二¹
 三上 徹¹ 福島 光浩¹ 窪倉 浩敏¹ 岡田 大輔¹
 吉野 直之¹ 川本 雅司² 田中 茂夫¹

日本医科大学外科学第2教室¹

日本医科大学病理学第1教室²

Management of Congenital Mediastinal Cysts
 Especially for Mediastinal Bronchogenic Cyst

Tomomi Hirata¹, Kiyoshi Koizumi¹, Shyuji Haraguchi¹, Kyoji Hirai¹, Iwao Mikami¹,
 Mitsuhiro Fukushima¹, Hirotoshi Kubokura¹, Daisuke Okada¹, Naoyuki Yoshino¹,
 Masashi Kawamoto² and Shigeo Tanaka¹
 Second Department of Surgery¹ and First Department of Pathology², Nippon Medical School

はじめに

先天性嚢腫は真正腫瘍というよりは、胎生期に生じる組織奇形と考えられ、種々の縦隔臓器に由来して発生するが、従来から縦隔腫瘍として取り扱われている。中でも気管支性嚢腫の発生頻度が最も多く、病理組織学的にはほとんどが良性であるが、まれに悪性像を呈する症例や感染、気管支と瘻孔を有する症例などもあり、その診断と治療において慎重を期するべきである。

1. 先天性嚢腫の発生頻度、分類

本邦の縦隔腫瘍のうち胸腺腫が最も多く、ついで神経性腫瘍、先天性嚢腫の順となっている。これらに続いて多いのは奇形腫、リンパ性腫瘍、縦隔内甲状腺腫の順である。先天性嚢腫の縦隔腫瘍に占める割合は10%前後であり、診断の向上とともに近年増加傾向にある。先天性嚢腫は気管支性嚢腫、心嚢嚢腫、消化管嚢腫、髄膜嚢腫、胸膜嚢腫、胸管嚢腫、鰓弓性嚢腫、上皮性嚢腫、血液嚢腫などに分類されるのが通常である。

2. 気管支性嚢腫の発生の病態

気管支性嚢腫は胎生初期の気管・気管支の発生・分岐異常によって起こる先天性の胸腔内嚢胞と考えられている。肺は胎生第4週に、前腸腹側へ肺芽として発生し、直ちに2つの瘤状隆起（気管支芽）となり、ついで右は3枝、左は2枝に分岐して肺葉気管支を形成する。胎生6カ月には樹枝状分岐を重ねて17次気管支まで分岐する。その分岐は出生後も続き、24次分岐が完成するのは8歳ごろと言われている。発生時期の違いにより周辺組織の形成がほとんどみられない早い時期に発生する縦隔気管支性嚢腫と、肺実質が形成される胎生後期に発生する肺内気管支性嚢腫に分かれる¹。縦隔型75～85%、肺内型が15～25%の比率で発生する。薄壁単房性嚢腫で気管分岐部周辺に発生することが多く、気管・気管支と索状物で連結するが、通常は内腔との交通はない。病理学的には、嚢胞壁は絨毛上皮、気管支腺、軟骨、平滑筋、弾性繊維から構成される。粘稠なクリーム状の内容物で満たされ、感染を合併すると気管支との交通を生じ、空気で置換されたり、膿性化することがある²。

3. 気管支性嚢腫の好発部位

①傍気管部、②気管分岐部、③肺門部、④傍食道部などに多くみられ、食道壁内に存在するもの、横隔膜に接して存在するもの³、心嚢内に発生した症例⁴も報告されている。

Correspondence to Tomomi Hirata, Second Department of Surgery, Nippon Medical School, 1-1-5 Sendagi, Bunkyo-ku, Tokyo, 113-8603, Japan.
 email: hirata_tomomi@surg2@nms.ac.jp
 Journal Website (<http://www.nms.ac.jp/jnms/>)

4. 症状

存在部位によっては無症状で経過するが、感染を伴いやすく、感染併発例では咳嗽、膿痰、血痰、息切れなどの症状がみられる。新生児症例ではチェックバルブ機構により嚢胞が急速に拡大（緊張性嚢胞）し、重篤な呼吸困難をきたすことがあり、緊急手術となる症例も少なくない。気管・気管分岐部のものは気道の圧迫症状を起こしやすく、呼吸困難や胸痛などの症状が特徴的である。傍食道型では嚥下困難がみられることが多い⁵。

5. 診断

質的診断は必ずしも容易ではなく、CT や MRI による診断が必要となる。腫瘍内部の構造物の判定には CT 値が有用とされる。脂肪組織は -40～-60 Haunsfield unit (HU)、嚢腫性病変は 0～20 HU、実質性病変は 40 HU 以上³とされているが、嚢腫の内容物によって必ずしもこのように限定されないため、読影上充実性腫瘍として診断される可能性がある。嚢腫か実質性かの診断には MRI による診断が有用である。T1 強調画像では低信号で液面形成が観察されることがあり、T2 強調画像では、周囲臓器との境界は明瞭で球形

ないしは卵円形のきわめて高信号の腫瘍として描出されることが特徴的な所見である^{6,7}。しかしながら内容物に脂肪成分や出血を伴う場合は T1 でも T2 でも液面形成を確認することが困難となり、二層性の液面形成を示す場合、蛋白成分を含むことが示唆される⁷。MRI により質的診断は向上したが、良悪性を診断する画像的根拠はなく、部位によっては経皮または経気管支鏡的な吸引針細胞診が、診断を兼ねた治療として行われることがある。

6. 治療

気管支性嚢腫の手術適応は、1) 嚢胞内の気泡の存在、2) 穿刺吸引細胞診で悪性細胞の証明、3) 症状の進行、4) 経過観察中の腫瘍の増大、5) 肺内気管支性嚢胞などが挙げられる⁸ (Table. 1)。悪性の可能性が極めて低いことから経過観察することもあるが、悪性化

Table 1 Operative indication for bronchogenic cyst

1. An air-fluid level in the cyst
2. The presence of malignant cells in the aspirate or biopsy
3. The development of symptoms
4. Enlargement or recurrence of cyst on follow-up examination
5. Intrapulmonary cyst

(Bolton et al, 1992)



Fig. 1 Enhanced chest CT revealed a cystic tumor in the posterior mediastinum

Table 2 Six cases of bronchogenic cyst (1995–1999)

	Age	Gender	Symptom	Type(site)	Operative approach	Operative procedure	Complication recurrence
Case 1	26	Female	Chest Oppression	Esophageal Submucosa	Thoracoscopic Surgery	Complete resection	No No
Case 2	53	Female	Abnormal Shadow	Esophageal Submucosa	VATS	Complete resection	No No
Case 3	36	Female	Dysphagia	Para-esophageal	VATS	Complete resection	No No
Case 4	68	Female	Abnormal Shadow	Para-tracheal	Median Sternotomy	Complete resection	No No
Case 5	69	Male	Abnormal Shadow	Para-tracheal	Median Sternotomy	Complete resection	No No
Case 6	19	Female	Abnormal Shadow	Para-esophageal	Thoracoscopic Surgery	Complete resection	Chylo-thorax No

VATS: Video Assisted Thoracic Surgery.

の報告例もみられる⁹。腫瘍の全摘が好ましいが、悪性でないことが確認できれば縦隔臓器との癒着の問題などがある場合、嚢胞開放術¹⁰ およびレーザー焼灼や嚢胞内エタノール注入¹¹ などの治療も報告されている。不完全切除例においては長期の経過観察が必要である。しかしながら気管支との交通、あるいは癒着が高度な症例では、気管支壁との剥離や切離に際して気管支損傷を起こさないように注意する必要がある。気管支損傷をきたした場合には一般的に損傷部の直接縫合が可能である。また、食道壁内に存在した嚢胞では食道筋層を切開して摘出しなければならないので、食道粘膜損傷を起こす可能性があり、気管支の場合と同様に直接縫合閉鎖を行う必要がある¹²。胸腔鏡の普及により低侵襲手術が可能となったことから現時点では、胸腔鏡補助下腫瘍摘出術が診断を兼ねた治療となることが多い。しかしながら胸腔鏡補助下腫瘍摘出術も万

能の外科的治療ではなく、癒着、気管支損傷や出血により定型的開胸に変更する症例も少なくない¹³。

7. 予後

最近の報告例では死亡例はなく、嚢胞の完全切除が行われれば再発は認めない。当教室の切除症例においても再発は認めていない。不完全切除例では十分な経過観察が必要である。

8. 当教室での手術症例の検討

当教室で 1995～1999 年の間に CT および MRI が施行された気管支性嚢腫は 6 例であった (Table. 2)。同時期に手術した縦隔腫瘍は 51 例で気管支嚢腫の割合は 11.8% を占めていた。男女比は 1:5 と女性に多く、平均年齢は 45.2 歳 (19～69 歳)、有症状例は 2 例 (33.3

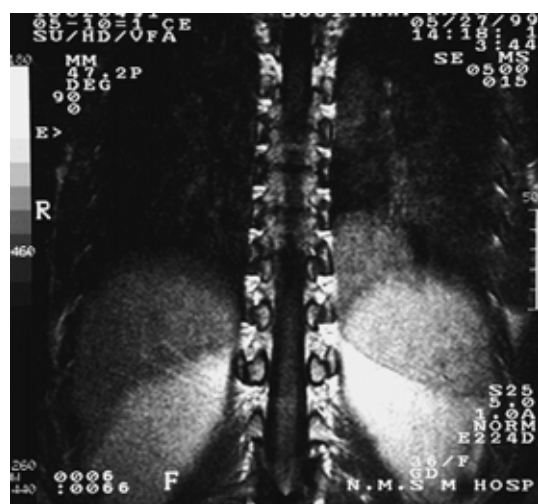


Fig. 2 T1 Weighted MRI showed a low intensity tumor surrounded thoracic vertebrae, diaphragm and left lower lung.



Fig. 3 T2 weighted MRI showed a high intensity tumor.

Table 3 Diagnosis of bronchogenic cysts(1995—1999)

	CT Diagnosis	MRI T1-weghted	MRI T2-weghted	Preoperative diagnosis
Case 1	Cyst	High	High	Bronchogenic cyst
Case 2	Cyst	Iso-high	High	Bronchogenic cyst
Case 3	Cyst	Low	High	Bronchogenic cyst
Case 4	Benign tumor	High	High	Bronchogenic cyst
Case 5	Benign tumor	Iso-high	High	Thymic cyst
Case 6	Benign tumor	Iso-high	High	Bronchogenic cyst

%)であり、その他は検診などの胸部 X-P で発見された。発生部位では食道粘膜下に発生した症例が 2 例、傍気管部 2 例、傍食道部 2 例であった。手術のアプローチとしては前縦隔に腫瘤の中心がある 2 例に対し、胸骨正中切開が施行され、その他 4 例には胸腔鏡が使用された。術後合併症を 1 例(乳び胸)に認めたが、保存的治療で改善した。全例に嚢腫の完全摘出術が施行され、現在再発を認めていない。術前の画像診断では、CT で 6 例中 3 例が充実性良性腫瘍と診断されたが、MRI では全例 T2 強調画像で高信号の境界明瞭な腫瘤として描出され、嚢胞性腫瘍の診断に有用であった。症例 3 の 32 歳女性の術前画像を供覧する。造影胸部 CT (Fig. 1) では後縦隔に造影効果のない境界明瞭な腫瘤影を認めた。MRI では T1 強調像 (Fig. 2) で低信号腫瘤として、T2 強調像 (Fig. 3) では高信号腫瘤として描出された。発生部位によっては術前、術中ともに胸腺嚢腫との鑑別が困難であった(症例 6)。Table 3 では術前診断について検討した。画像診断の向上により、術前に 6 例中 5 例が気管支性嚢腫と診断された。

References

1. Fraser RB, Pare JAP, Pare PD, Fraser RS, Stevens GP: Pulmonary abnormalities of development origin. *In* : Synoposis of Disease of the Chest, 1994; pp 675-773, WB Saunders, Philadelphia.
2. Stocker JT: Congenital and developmental diseases. *In* : Pulmonary Pathology (ed by Dail DH, Hammar SP), 1994; pp 155-190, Springer Verlag, New York.
3. 正岡 昭: 呼吸器外科, 第 2 版, 1997; pp 216-222. 南山堂, 東京.
4. Carlos HL, Gregory JS, Douglas PB, Joao ACL, Elliot KF: Intrapericardial Bronchogenic Cyst: Assessment with Magnetic Resonance Imaging and Tran esophageal Echocardiography. *Clinical Imaging* 1999; 23: 81-84.
5. 末舩恵一, 成毛韶夫, 荒井他嘉司, 吉村博邦: 呼吸器外科, 2000; pp 216-231. 朝倉書店, 東京.
6. Marin ML, Romney BM, Franco K, Grimes MM, Smith C: Bronchogenic cyst: A case report emphasizing the role of magnetic resonance imaging. *J Thorac Imaging* 1991; 5(2): 43-46.
7. Lyon RD, McAdams HP: Mediastinal bronchogenic cyst: Demonstration of a fluid-level at MR imaging. *Radiology* 1993; 186: 427-428.
8. Bolton JWR, Shahian DM: Asymptomatic bronchogenic cyst: What is the best management? *Ann. Thorac Surg* 1992; 53: 1134-1137.
9. Okada Y, Mori H, Maeda T: Congenital mediastinal Bronchogenic Cyst with Malignant Transformation. *Pathology International* 1996; 46(8): 594-600.
10. 秋山博彦, 福島光浩, 西村仁志, 山本光信: 胸腔鏡下に開放術を行った縦隔内気管支嚢腫の 1 例. *日臨外会誌* 2000; 61: 532.
11. 真崎義孝, 五味潤誠, 原口秀司, 林 晃一, 秋山博彦, 田中茂夫: 気管支嚢腫に対しエタノール注入療法を施行した 1 例. *日呼外会誌* 1997; 11: 45-48.
12. Koizumi K, Tanaka S, Haraguchi S, Akiyama H, Mikami I, Fukushima M, Kubokura H, Kawamoto M: Thoracoscopic Enuclation of a Submucosal Bronchogenic cyst of the Esophagus: Report of Two Cases. *Jpn J Surg* 1998; 28: 446-450.
13. Emmanuel M, Francois P, Azorin J: Thoracoscopic Excision of Mediastinal Bronchogenic Cysts: Results in 20 cases. *Ann Thorac Surg* 2000; 69: 1525-1528.
(受付: 2000 年 8 月 3 日)
(受理: 2000 年 8 月 23 日)