

後腹膜に発生した気管支原性嚢胞

青柳 岳大¹, 加藤陽一郎¹, 露久保敬嗣¹, 田村 大地¹
 大澤 泰介¹, 松浦 朋彦¹, 加藤 廉平¹, 前川 滋克¹
 兼平 貢¹, 高田 亮¹, 杉村 淳¹, 阿部 貴弥¹
 菅井 有², 小原 航¹

¹岩手医科大学泌尿器科学講座, ²岩手医科大学病理診断学講座

A CASE OF RETROPERITONEAL BRONCHOGENIC CYST

Takahiro AOYAGI¹, Yoichiro KATO¹, Takashi TSUYUKUBO¹, Daichi TAMURA¹,
 Taisuke OSAWA¹, Tomohiko MATSUURA¹, Renpei KATO¹, Shigekatsu MAEKAWA¹,
 Mitsugu KANEHIRA¹, Ryo TAKATA¹, Jun SUGIMURA¹, Takaya ABE¹,
 Tamotsu SUGAI² and Wataru OBARA¹

¹The Department of Urology, Iwate Medical University

²The Department of Diagnostic Pathology, Iwate Medical University School of Medicine

A 75-year-old male visited a clinic with the chief complaint of pollakiuria. A computed tomography scan revealed, a left adrenal mass, and the patient was then referred to our hospital. Since a malignant tumor could not be ruled out. We performed laparoscopic left adrenal resection. Postoperative histopathological findings revealed the mass to be a bronchogenic cyst, which had no continuity with the normal adrenal gland. The postoperative course was uneventful, and recurrence has not been observed. Retroperitoneal bronchogenic cysts are rare and often difficult to diagnose preoperatively using imaging studies.

(Hinyokika Kiyō 68 : 47-51, 2022 DOI: 10.14989/ActaUrolJap_68_2_47)

Key words : Adrenal gland mass, Bronchogenic cyst, Retroperitoneal, Laparoscopic surgery

緒 言

気管支原性嚢胞は胎生期に気管支原基の一部が分離し異所性組織に迷入することにより発生する。縦隔に生じることが多いが、稀に後腹膜に発生する。後腹膜気管支嚢胞は、術前に副腎腫瘍との鑑別に苦慮することがある。今回、副腎腫瘍の術前診断のもと手術を施行し、術後病理組織検査から後腹膜気管支嚢胞と診断された症例を経験したので報告する。

症 例

患者 : 75歳, 男性

主訴 : なし

現病歴 : 頻尿を主訴に前医受診。スクリーニングのCT画像検査から、左副腎に径5 cmの腫瘍が認められたため、当院紹介受診となった。

既往歴 : 高血圧症

家族歴 : 特記事項なし

入院時現症 : 身長 160 cm, 体重 52.7 kg, BMI 20.5 kg/m² 腋下温 36.6°C, 血圧 139/83 mmHg, 脈拍 74 bpm, 腹部 平坦・軟, 圧痛なし

血液生化学検査所見 : WBC 5.99×10³/μl, RBC 502×10⁴/μl, Hb 15.0 g/dl, Hct 45.6%, PLT 220×10³/

μl, Na 141 mmol/l, K 4.1 mmol/l, Cl 105 mmol/l, Ca 9.5 mg/dl, BUN 16.0 mg/dl, Cre 0.63 mg/dl, eGFR ≥90 ml/min/1.73 m², UA 4.5 mg/dl, AST 22 U/l, ALT 26 U/l, LD 142 U/l, γGT 21 U/l, ALP 192 U/l, CRP ≤0.1 mg/dl, 血糖 103 mg/dl, ACTH 22.0 pg/ml, コルチゾール 14.7 μg/dl, DHEA-S 108 μg/dl, ノルアドレナリン 0.98 pg/ml, アドレナリン 0.05 pg/ml, ドーパミン <0.02 pg/ml, CEA 2.4 ng/ml, SCC 0.6 ng/ml, SLX 31 U/ml, PRO-GRP 39.4 pg/ml, 可溶性 IL-2R 427 U/ml, AFP 3.1 ng/ml, HCG ≤1.0 mIU/ml, HCG-βsub unit ≤0.1 ng/ml.

画像所見 : 造影CT検査では左副腎に径52 mmの腫瘍を認めた。内部は造影効果を認めず比較的高吸収であった。内部には点状高吸収、辺縁には石灰化が散見された (Fig. 1a, b)。MRI検査では内部はT1WIで高信号を呈し、かつ脂肪成分を認めず (Fig. 2a), T2WIで低信号を呈していた (Fig. 2b)。また、壁に点在する石灰化を伴っていた。

臨床経過 : 上記血液検査および画像所見より臨床診断は非機能性副腎腫瘍とし、悪性病変の可能性が否定できないことから手術の方針とし、経腹的腹腔鏡下左副腎摘除術を施行した。

右半側臥位に体位をとり、腹直筋左外縁・左肋骨弓

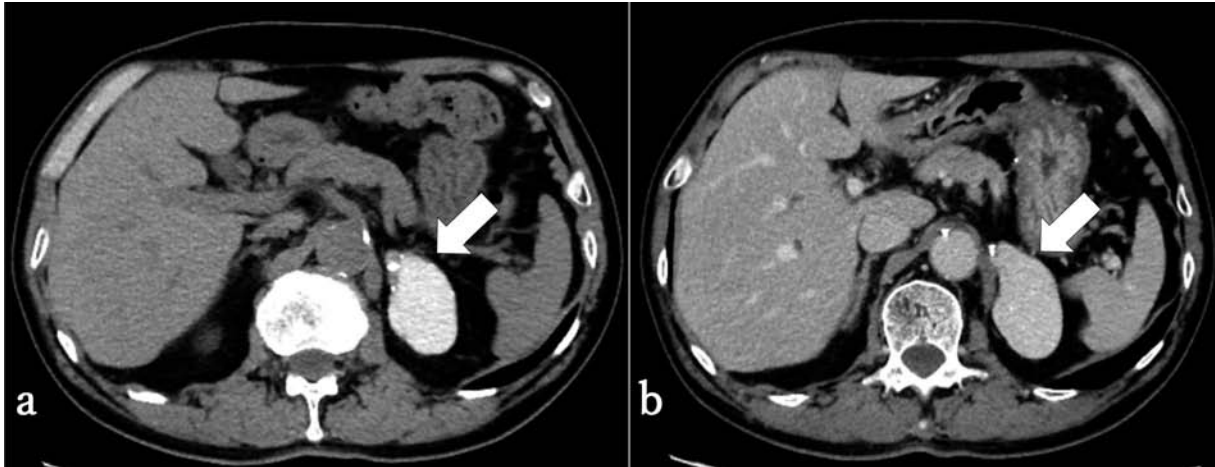


Fig. 1. Computed tomography (CT). a. (Plain): CT revealed a left adrenal gland mass (white arrow) 52 mm in diameter showing internal uniform high absorbance with marginal calcification. b. (Contrast-enhanced): No enhancement was observed inside the mass (white arrow).

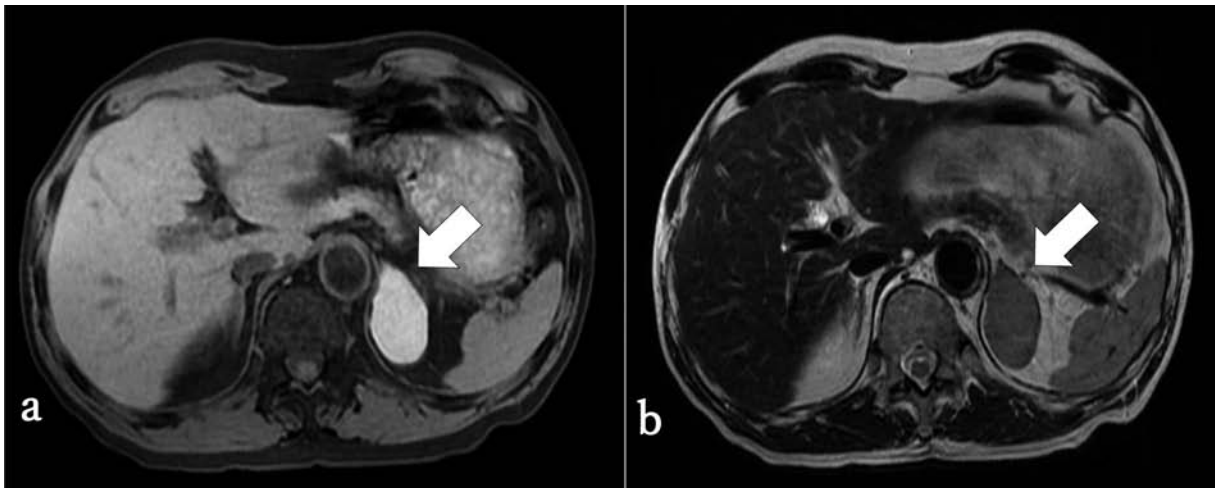


Fig. 2. Magnetic resonance imaging (MRI). a. T1-weighted image (T1WI): The mass presented with a strong signal (white arrow). b. T2-weighted image (T2WI): The mass presented with a weak signal (white arrow).

下の2横指尾側にカメラポート，正中側に左手用，外側に右手用，助手用ポート（いずれも12 mm）を設置し手術開始。脾臓を脱転し，脾尾部と副腎の間を剥離したところ，後腹膜背側に腫瘤を認めた。左副腎とともに鈍的に剥離し，カメラポートを左側方向に30 mmまで延長して摘出した（手術時間2時間18分，出血量68 ml）。癒着は軽微で特記すべき術中合併症は認めなかった。

摘出検体は，黄褐色のやや粘稠な膿汁様物質が充満していることが確認できた（Fig. 3）。術後，合併症を認めず経過し，術後7日目に退院となった。

病理検査所見において摘出標本は正常気管支と同様の組織のみで構成された嚢胞性病変が指摘され，正常副腎との連続性は認められなかった（Fig. 4）。以上の結果から気管支原性嚢胞の病理診断となった。また，悪性所見は認めなかった。



Fig. 3. Macroscopic appearance. The mass was diagnosed as a cystic lesion having a sectioned smooth surface and was 30 × 15 mm in size. It contained a dark-brown liquid having a high coefficient of viscosity.

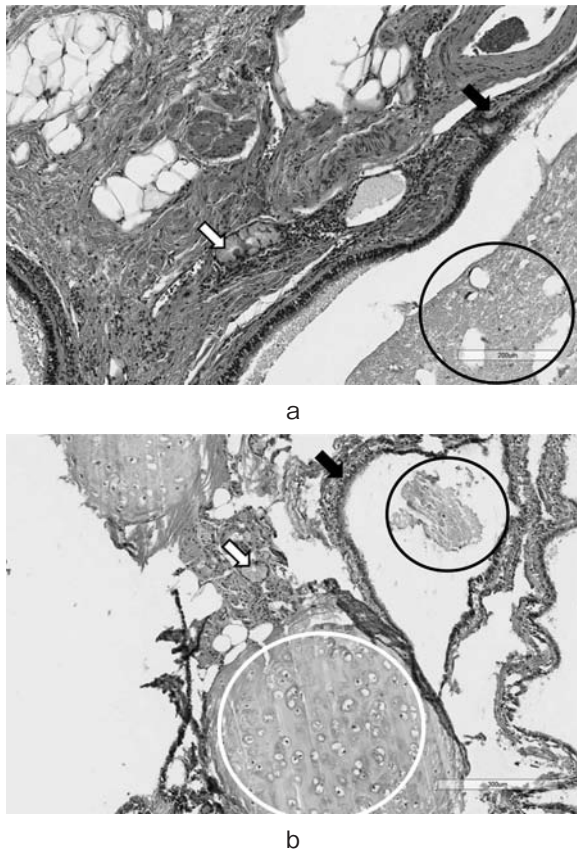


Fig. 4. Microscopic appearance. a. (Hematoxylin-eosin (HE) stain 100×): The cystic lumen was lined with multilayered ciliated columnar epithelium (black arrow) and the vicinity had a glandular system (white and black arrow), cartilage tissue (white circle), and smooth muscle of the bronchial gland (black arrow) that resembled viscous liquid (black circle). No malignant findings were noted. b. (HE stain 100×): Same as in a.

考 察

気管支原性嚢胞自体の発生頻度は全縦隔腫瘍の4.4~6.1%^{1,2)}, うち嚢胞性腫瘍の55.4%と稀ではないものの、ほとんどが縦隔内や肺内に発生し、横隔膜

下に発生した報告は少ない³⁾。

胎生期における気管支の発生過程では、胎生4週頃に前腸腹側より肺芽が発生し、のちに胸膜腔を形成する心膜腹膜管に気管支芽をのばすことで気管支を形成する。この時期に前腸より異常発芽・分離した結果、気管支原性嚢胞を発生すると考えられている⁴⁾。

胎生7週までに、胸膜腹膜腔は腹膜ヒダ・食道背側間膜・横中隔が癒合し横隔膜が形成されることで、胸膜腔と腹膜腔に分離される。胎生4週以前に発生すれば縦隔内、4週以降に発生すれば肺内に存在する。横隔膜下に発生するためには、横隔膜が形成される胎生7週頃までに異常肺芽が発芽・分離し、かつ心膜腹膜管を通り横隔膜下に迷入していることが条件となる⁵⁾。

病理学的な特徴としては発生を同じくする気管支壁に類似しており、嚢胞壁は平滑筋・気管支腺・軟骨組織を含み、嚢胞壁内腔を線毛円柱上皮が裏打ちしている²⁾。線毛円柱上皮・平滑筋・気管支腺・軟骨がすべてそろっている症例は少なく、大畑らの肺・縦隔気管支嚢腫の集計によれば、全体の21.5%のみである²⁾。

本邦で検索しえた横隔膜下に生じた気管支原性嚢胞の症例は42例あり、自験例を含めた43例を検討した(Table)。平均年齢は48.3歳、性別は男性21例、女性22例と性差はなく、嚢胞の大きさは平均66.7mm(22~180mm)であった。発生部位は左副腎近傍16例(自験例含む)、左横隔膜下8例、胃体部後面7例、左腎上方2例、左腎外側1例、左後腹膜1例、左横隔膜脚1例、臍体部近傍1例と、本症例と同様に左側に発生することが多い。右側発生例は、臍頭部近傍2例^{17,22)}、臍頭部下背側1例⁹⁾、上行結腸近傍1例¹⁰⁾、右横隔膜下1例²⁴⁾の計5例のみであった。左側に発生することが多い理由としては、①肝原基の存在により右側への迷入が妨げられる、②食道背側間膜に迷入した肺芽が食道の成長に従い尾側へ移動する、③右側大動脈消失による血液供給の減少などが推察されている⁶⁾。

Table. Summary of 43 patients with a bronchogenic cyst found below the diaphragm

年齢	中央値 48.3歳 (26-76歳)
性別	男性 21例, 女性 22例
腫瘍径	中央値 67.1 mm (22-180 mm)
発生部位	右側 5例 左側 38例
内訳	臍頭部近傍2例, 臍頭部下背側1例, 上行結腸近傍1例, 右横隔膜下1例 左副腎近傍16例, 左横隔膜下8例, 胃体部後面7例, 左腎上方2例, 左腎外側1例, 左後腹膜1例, 左横隔膜脚1例, 臍体部近傍1例
術前診断	気管支原性嚢胞2例, 後腹膜腫瘍15例, 副腎腫瘍4例, 嚢胞性腫瘍6例, 副腎嚢胞3例, 悪性嚢胞性後腹膜腫瘍2例, 臍嚢胞性腫瘍2例, 仮性臍嚢胞1例, 胃粘膜下腫瘍1例, 胃重複嚢胞1例, 詳細不明6例
手術方法・アプローチ	開腹腫瘍摘出術31例, 腹腔鏡下腫瘍摘出術6例, 腹腔鏡下左副腎摘出術2例, 開腹幽門輪温存臍頭十二指腸切除術2例, 後腹膜鏡下腫瘍摘出術1例, 開腹開窓ドレナージおよび大網充填術1例
良悪性	良性 40例, 悪性 3例
嚢胞穿刺	非施行 38例, 施行 5例 (うち1例で悪性)

後腹膜気管支嚢胞ではCT・MRI所見が診断の一助となる場合がある。典型例としては、CTで辺縁平滑、境界明瞭な腫瘍として認められ、MRIでは嚢胞性疾患としてT1強調像でlow intensity、T2強調像でhigh intensityを示す⁷⁾。しかし、CTでは嚢胞内容の高Ca濃度、高蛋白濃度、出血、高粘稠性、炎症などにより様々なCT値となり、MRIでも同様の理由で典型的所見となる症例ばかりではないため、充実性腫瘍との鑑別は困難となることがある⁸⁾。一般的に頻度が非常に少ないために鑑別に挙げられないことも多く、術前診断は困難であるといえる。また、これら画像検査において腫瘍は副腎や睪臓と接していることがあり、自験例のように副腎腫瘍や²⁰⁾、あるいは睪臓より発生した腫瘍として手術に臨んだ症例も報告されている⁹⁾。43例中で術前に気管支原性嚢胞と診断できていたのは2例のみであった。

手術方法は、2003年までは開腹による方法が主流であったが、以降は自験例を含め10例の体腔鏡手術が行われ、うち10例は経腹膜到達法^{8,13-16,18-20)}、1例は後腹膜到達法²¹⁾が行われている。実際に体腔鏡手術を行った症例の腫瘍径はIshikawaら²¹⁾の後腹膜鏡下腫瘍摘出術の症例で92mm、腹腔鏡下では自験例の52mmが最大であったが、いずれの症例でも術中に大きなイベントの発生は報告されていない。周囲への進展が明らかではなく、上記の腫瘍径以下の症例であれば、術後早期の社会復帰や整容のために施設による習熟度に応じて腹腔鏡手術を考慮してもよいと考える。

術前の確定診断のために嚢胞穿刺を行った例が43例中5例あったが^{11,12,20,23,25)}、いずれも確定診断には至っておらず、また3例の術後病理組織的所見で悪性所見を含む症例¹⁰⁻¹²⁾を認めており、播種や腹膜炎、出血のリスクを考えると嚢胞穿刺は推奨できない¹²⁾。

本症例では、画像検査で内部点状石灰化および壁の石灰化を伴う充実性成分が指摘され、成熟奇形腫や悪性腫瘍が否定しえなかった。播種のリスクを考慮して嚢胞穿刺は回避した。術後早期の社会復帰と整容の問題も考慮し、経腹アプローチでの腹腔鏡下副腎腫瘍摘除術を施行した。

結 語

当初、左副腎腫瘍として治療した結果、後腹膜気管支原性嚢胞との確定診断に至った症例を経験した。今後さらなる症例の蓄積が必要ではあるが、術前診断で本症例が鑑別に挙げられ、かつ対側副腎に何らかの問題があるような場合、正常副腎の温存を考慮してもよいものと考えられる。

文 献

- 1) 寺松 孝, 山本博昭, 伊藤元彦: 縦隔腫瘍に関する全国集計—第1編縦隔腫瘍全国集計—. 日胸外会誌 **24**: 264-269, 1976
- 2) 大畑正昭, 飯田 守, 新野晃敏, ほか: 肺・縦隔気管支嚢胞の病態と組織学的検討 I. 日胸臨 **41**: 185-197, 1982
- 3) 正岡 昭, 山口貞夫, 森 隆, ほか: 縦隔外科全国集計. 日胸外会誌 **19**: 1289-1300, 1971
- 4) Miller RF, Graub M and Pashuck ET: Bronchogenic cysts; anomalies resulting from maldevelopment of the primitive foregut and midgut. Am J Roentgenol Radium Ther Nucl Med **70**: 771-785, 1953
- 5) Rogers LF and Osmer JC: Bronchogenic cyst: a review of 46 cases. AJR Am J Roentgenol **91**: 273-283, 1964
- 6) 藤森英希, 常塚宣男, 田中伸佳: 後縦隔と後腹膜に重複発生した気管支嚢胞の1例. 石川中病医誌 **34**: 49-51, 2012
- 7) 前平博充, 川村泰一, 坂東悦郎, ほか: 腹腔鏡下に摘出した後腹膜気管支原性嚢胞の1例. 日内視鏡外会誌 **19**: 165-172, 2014
- 8) 山川純一, 木村泰生, 岸 真示, ほか: 腹腔鏡下に摘出した後腹膜原発気管支嚢胞の1例. 外科 **77**: 939-942, 2015
- 9) 梶原顕彦, 松村英仁, 倉部輝久, ほか: 後腹膜に発生した気管支性嚢胞の1例. 臨放 **45**: 886-891, 2000
- 10) Sullivan SM, Okada S, Kudo M, et al.: A retroperitoneal bronchogenic cyst with malignant change. Pathol Int **49**: 338-341, 1999
- 11) 大橋龍一郎, 原 浩平, 松田英祐: 後腹膜腔に発生した異所性気管支嚢胞悪性化の1例. 日消外会誌 **34**: 36-40, 2001
- 12) 江口英利, 大東弘明, 石川 治, ほか: 後腹膜に発生した気管支嚢胞腺癌の1例. 日消外会誌 **37**: 584-589, 2004
- 13) 青山広希, 久留宮康浩, 世古口 英, ほか: 後腹膜気管支嚢胞の1例. 臨外 **70**: 481-485, 2015
- 14) 柴田雅央, 武内 大, 中西賢一, ほか: 副腎腫瘍との鑑別が困難であった後腹膜気管支嚢胞の1例. 日内分泌・甲状腺外会誌 **32**: 201-204, 2015
- 15) 河野 充, 南村和宏, 藤川 敦, ほか: 腹腔鏡下に摘出した後腹膜気管支原性嚢胞の1例. 泌尿紀要 **59**: 359-361, 2013
- 16) 松崎恭介, 奥見雅由, 吉田康幸, ほか: 後腹膜腫瘍として加療された気管支原性嚢胞の1例. 泌尿紀要 **59**: 715-718, 2013
- 17) 石川 原, 土師誠二, 中居卓也, ほか: 巨大後腹膜気管支嚢胞の1例. 日臨外会誌 **70**: 239-242, 2009
- 18) Minei S, Igarashi T and Hirano D: A case of retroperitoneal bronchogenic cyst treated by laparoscopic surgery. 泌尿紀要 **53**: 171-174, 2007
- 19) 山本 滋, 林 秀和, 岡 正朗, ほか: 腹腔鏡下

- で摘出した後腹膜 Bronchogenic cyst の 1 例. 手術 **60** : 653-657, 2006
- 20) 橋根勝義, 東 浩二, 小泉貴裕, ほか : 後腹膜気管支嚢胞の 1 例. 西日泌尿 **66** : 511-513, 2004
- 21) Ishikawa T, Kawabata G, Okada H, et al. : Retroperitoneal bronchogenic cyst managed with retroperitoneoscopic surgery. J Urol **169** : 1078-1079, 2003
- 22) 長瀬文孝, 宮田充樹, 春日井邦夫, ほか : 膈頭部に認めた気管支嚢胞の 1 例. Gastroenterol Endosc **42** : 1857-1863, 2000
- 23) 桑原健一, 古川善也, 刈屋憲次, ほか : 後腹膜気管支嚢胞の 1 例. 臨と研 **76** : 1337-1339, 1999
- 24) 小鹿猛郎, 向山憲男, 都築豊徳 : 横隔膜直下, 後腹膜に発生した気管支性嚢胞の 1 切除例. 胸部外科 **49** : 505-507, 1996
- 25) 田中 晃, 若杉英之, 今村浩一郎, ほか : 後腹膜腔に発生した気管支性嚢胞の 1 例. 診断と治療 **2** : 137-140, 1984

(Received on March 8, 2021)
(Accepted on October 5, 2021)