

後腹膜腫瘍として加療された気管支原性嚢胞の1例

松崎 恭介, 奥見 雅由, 吉田 康幸

吉岡 巖, 辻村 晃, 野々村祝夫

大阪大学大学院医学系研究科器官制御外科学 (泌尿器科学)

A CASE OF BRONCHOGENIC CYST TREATED
AS RETROPERITONEAL TUMOR

Kyosuke MATSUZAKI, Masayoshi OKUMI, Yasuyuki YOSHIDA,

Iwao YOSHIOKA, Akira TSUJIMURA, Norio NONOMURA

The Department of Urology, Osaka University Graduate School of Medicine

A 66-year-old man presented with a retroperitoneal mass found in a routine medical examination. He had no complaints and no medical history. Computed tomography (CT) and magnetic resonance imaging (MRI) showed a cystic mass in the retroperitoneal space, attached to the left crus of the diaphragm, 5.5 cm in size. Retroperitoneal cystic tumor was diagnosed, and transperitoneal tumor resection was performed. Pathological findings revealed a cyst wall lined with ciliated epithelium and cartilage, diagnosed as a retroperitoneal bronchogenic cyst. The patient was in good health at 12 months after the surgery with no evidence of recurrence.

(Hinyokika Kiyo 59 : 715-718, 2013)

Key words : Bronchogenic cyst, Retroperitoneal

緒 言

気管支原性嚢胞は前腸由来の呼吸器原器から異常発芽した肺芽に由来する。気管・気管支から分離した肺芽と気管支との交通が遮断されることにより発生するため、通常は縦隔内や胸腔内にみられ、腹部領域での発生の報告は少ない。今回われわれは後腹膜に生じた稀な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 : 66歳, 男性

主 訴 : 後腹膜腫瘍精査

既往歴 : 特記事項なし

現病歴 : 2011年1月健診のCTで胃体部背側に約5 cm大の嚢胞性腫瘍を指摘。左横隔膜脚または後腹膜原発の嚢胞性腫瘍と診断され、当科紹介受診となった。

現 症 : 身長 158 cm, 体重 57 kg.

身体所見に特記すべき異常認めず。

入院時検査所見 : 血液検査は WBC 9,400/mm³, RBC 421×10⁴/mm³, Hb 13.7 g/dl, Ht 40.4%, PLT 209×10³/mm³, CRP 1.18 mg/dl, Cr 1.21 mg/dl, BUN 24 mg/dl, Alb 3.5 g/dl と異常を認めず。腫瘍マーカーではNSEのみ16.7 ng/ml (基準値13.8 ng/ml以下)と軽度高値であり、その他CEA, SCC,



Fig. 1. Abdominal computed tomography revealed a cystic mass, attached to the crus of diaphragm, 5.5 cm in size.

CA19-9などは正常範囲内であった。各種副腎ホルモン値も正常範囲内であった。

画像所見 : 腹部CTでは左横隔膜下、左副腎に接して長径5.5 cmの嚢胞性腫瘍を認めた (Fig. 1)。腹部MRIでは同部位にT1強調でやや高信号、T2強調で高信号の嚢胞性腫瘍を認めた (Fig. 2a)。またその尾側で左副腎を同定することができ (Fig. 2b)、副腎由来の腫瘍であることは否定的であった。MRI所見より内容液が出血あるいは水より高蛋白質な成分を含んだ嚢胞性疾患、特にparaganglioma, neurogenic tumor, lymphangiomaなどが鑑別疾患として考えられた。

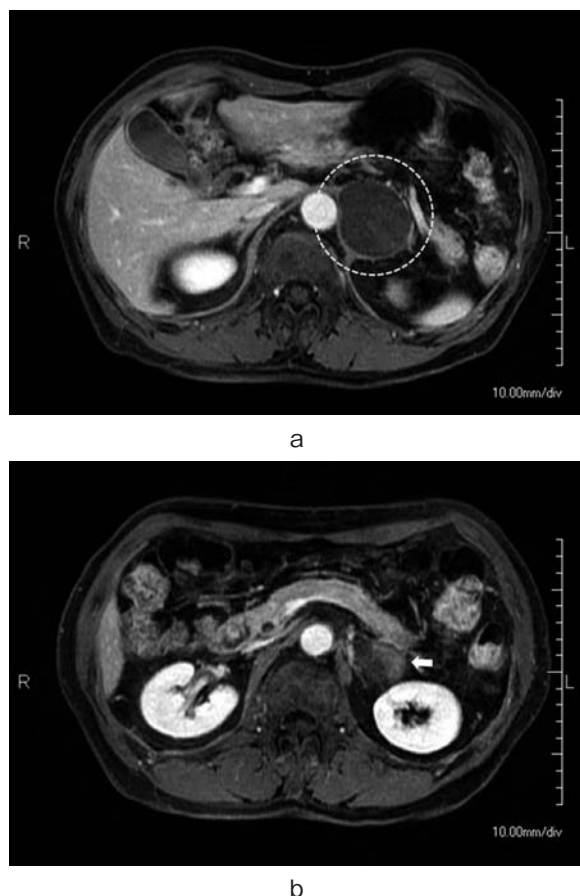


Fig. 2. Magnetic resonance imaging examination (T1WI) showed a low intensity mass (a), apart from the left adrenal gland (white arrow) (b).

入院後経過：2011年4月 chevron 切開による経腹的腫瘍摘除術を施行した。腫瘍は表面平滑であったが、背側で一部横隔膜と癒着していたため、横隔膜の一部を付着させる形で摘出した。手術時間は3時間49分、出血量は350 mlであった。

病理組織診断：肉眼的に表面平滑の嚢胞性腫瘍 (Fig. 3a, b) であった。内容液は黄色・粘液調であり、細胞診は陰性であった。嚢胞内壁は平滑、均一であり (Fig. 3c) 組織学的には横隔膜の横紋筋に接して、多列線毛上皮に覆われ、一部に軟骨、気管支腺様の構造を伴った嚢胞を認めた (Fig. 4a~c)。以上より後腹膜気管支原性嚢胞と診断した。

術後経過：術前軽度高値であったNSE値には手術による変化は認められなかった。現在術後12カ月を経過し、外来にて再発なく経過観察中である。

考 察

気管支原性嚢胞は呼吸器原基の肺芽が異常分離し、横隔膜が形成される胎生7週以前に心腹膜管を通り後腹膜に迷入することで発生すると言われている¹⁾。異常肺芽の迷入部位として多くは縦隔だが、稀に腹腔、

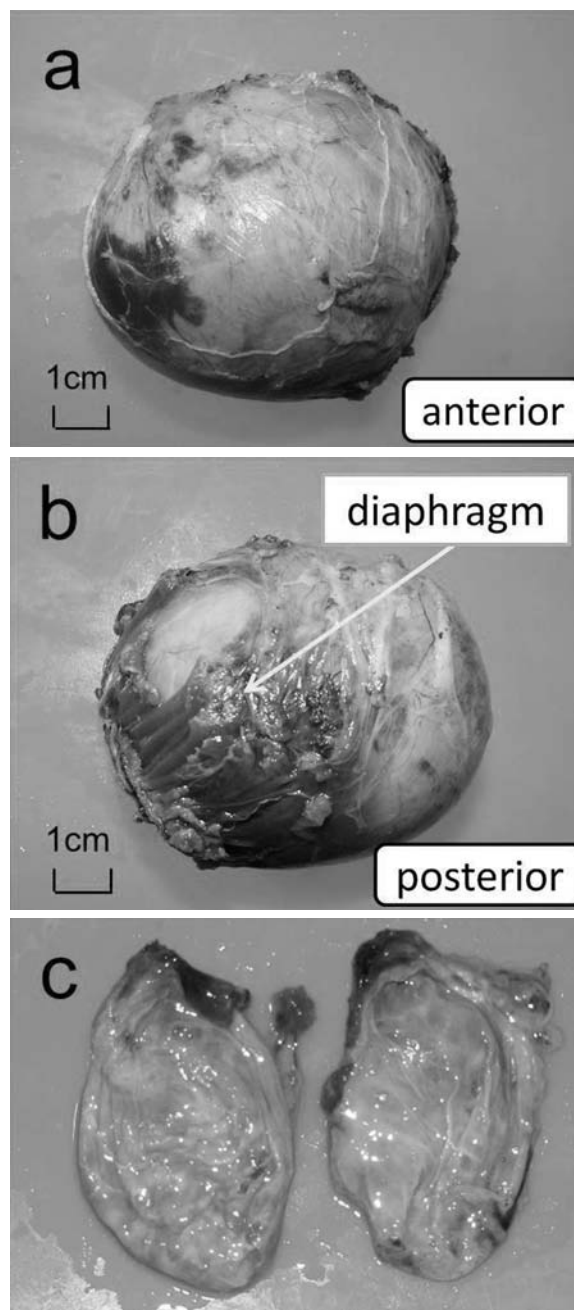
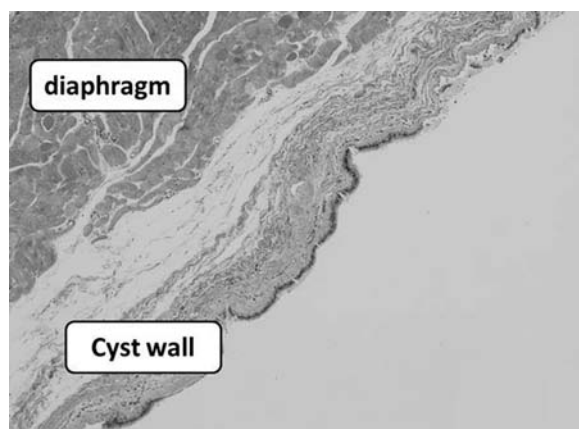


Fig. 3. Macroscopic appearances showed a smooth surface tumor (a) (b). Internal fluid looked yellowish, and the cytology was negative. The internal cyst wall was also smooth (c).

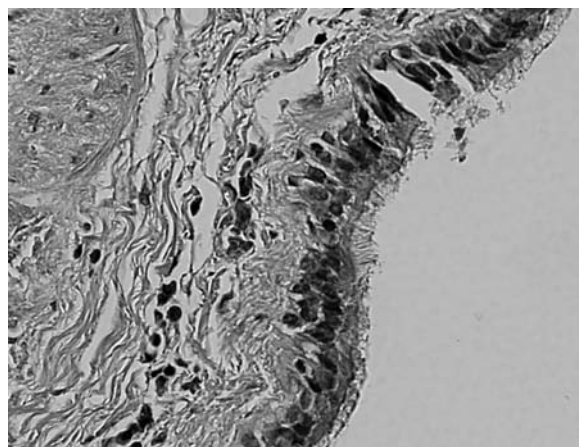
後腹膜、食道、皮膚などにも発生すると報告されている¹⁾。内容液は水様～粘液様など様々で、そのため画像に特異的な所見はなく、術前に確定診断することは困難と言われている²⁾。きわめて稀だが、悪性の報告例も散見される^{3~5)}。

本邦ではわれわれが調べた限り、自験例を含め77例の報告があった (Table 1)。年齢中央値は46歳、性差はなく、腫瘍径は2~18 cmであった。

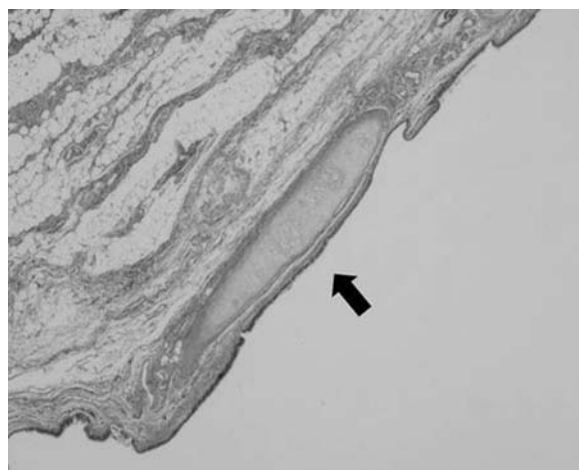
発生部位に関しては、各報告により表現は様々 (左腎上極近傍16例、左副腎近傍14例、胃体部背側10例な



a



b



c

Fig. 4. Microscopic appearance of the cyst wall consisting of pseudostratified ciliated epithelium (a): HE stain $\times 100$, (b): HE stain $\times 400$, and cartilage (black arrow) (c).

Table 1. The summary of seventy seven cases of retroperitoneal bronchogenic cyst reported in Japan

年齢	中央値46歳 (17-76歳)
性別	男性39例, 女性38例
腫瘍径	中央値 4.5 cm (2-18 cm)
部位	右側 7 例, 左側70例
症状	腹・腰背部痛32例, 症状なし28例, 腹部膨隆 3 例, 不明 4 例, その他10例

ど)であるが, 体の右側左側で分類した場合, 右側 7 例に対して左側70例と大半は左側発生であった。これは胎生 3 週頃に生じる肝原基により右側への迷入が妨げられているためと推測されている。前述の通り術前診断は非常に困難とされており, 術前に診断が付いていた症例は 2 例のみであり^{6,7)}, 鑑別疾患に挙がっていたものを含めても数例認めるのみで⁸⁾はほとすべての症例で本症例のように後腹膜腫瘍や嚢胞性腫瘍として加療されている。また大半は周囲との癒着なく摘除できているが, 本症例のように周囲臓器(横隔膜や副腎など)との癒着により合併切除した例は 8 例あり, うち横隔膜 1 例⁹⁾, 副腎 2 例^{10,11)}, 横隔膜 + 副腎 1 例¹²⁾, それ以外では悪性のため脾体尾部 + 脾臓摘除したものや³⁾, 10 cm を超える大きな腫瘍において左腎静脈 + 左副腎 + 胃 + 小腸部分切除した症例⁸⁾や結腸合併切除した症例¹³⁾も認めた。

病理学的には正常の気管支成分として軟骨, 平滑筋成分, 線毛円柱上皮を有する点が特徴的とされている。

悪性の報告は 3 例あり³⁻⁵⁾, 江口らはこれらを良性のものと比較すると, ①発生年齢が高い, ②腫瘍径が大きい, ③有症状である, と報告している⁵⁾。腫瘍マーカーに関しては, CA19-9 や CA125 が高値との報告もあるが^{3,5)}, 良性でも上昇していたとの報告もあり^{14,15)}, 一定の見解は得られていない。

悪性の報告があること, 術前診断が非常に困難であることより, 本疾患に対しては全例で外科的切除が必要と考えられる。術式に関しては本症例では横隔膜との癒着が疑われたため開腹術を選択した。しかし近年の体腔鏡視下手術の普及に伴い, 2001年以降で術式が明らかな19例中10例は後腹膜鏡が選択されており, 今後多くの症例ではその適応となりうると考えられる。

Table 2. The summary of three cases of malignant retroperitoneal bronchogenic cyst

発表者, 年	年齢, 性別	部位	腫瘍径 (cm)	組織型	腫瘍マーカー
Sullivan, 1999年	55歳, 女性	上行結腸近傍	10	腺癌	記載なし
大橋, 2001年	69歳, 女性	左腎上極近傍	17	腺癌	CEA 30, CA19-9 6, CA125 54.8
江口, 2004年	57歳, 男性	脾体部背側	8	腺癌	CEA 5.7, CA19-9 146

結 語

後腹膜気管支原生嚢胞は稀な疾患であり、文献的報告も少数である。後腹膜の嚢胞性を認めた場合、本疾患は鑑別疾患の1つになる。

本論文の要旨は第218回日本泌尿器科学会関西地方会において発表した。

文 献

- 1) Yang DM, Jung DH, Kim H, et al.: Retroperitoneal cystic masses: CT, clinical, and pathologic findings and literature review. *Radiographics* **24**: 1353-1365, 2004
- 2) 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. *臨と研究* **76**: 1337-1339, 1999
- 3) Sullivan SM, Okada S, Kudo M, et al.: A retroperitoneal bronchogenic cyst with malignant change. *Pathol Int* **49**: 338-341, 1999
- 4) 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
- 5) 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
- 6) 橋本泰司, 坂下吉弘, 高村通生, ほか: 術前診断にMRIが有用であった後腹膜気管支嚢胞の1例. *日臨外会誌* **65**: 1209-1213, 2004
- 7) 菅 隼人, 江上 格, 松島申治, ほか: 後腹膜に発生した気管支性嚢胞の1例. *日臨外会誌* **60**: 655, 1999
- 8) 関根秀樹, 白川一男, 橋本大定: 診断に苦慮した後腹膜原発巨大気管支粘膜嚢胞の1例. *日消外会誌* **7**: 1167, 2006
- 9) 小武家洋, 寺戸三千和, 藤本直浩, ほか: 後腹膜Bronchogenic cystの1例. *西日泌尿* **68**: 611, 2006
- 10) 山本秀伸, 平間元博, 岩部秀夫: 後腹膜気管支嚢胞の1例. *臨泌* **11**: 858-860, 1995
- 11) 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
- 12) 宗実 孝, 向井友一朗, 森本喜久: 後腹膜に発生した気管支原性嚢胞の1例. *日臨外会誌* **60**: 601, 1999
- 13) 三坂部温, 山本啓一郎, 葦沢龍人, ほか: 癌を合併した後腹膜の気管支原性嚢胞の1例. *日臨外会誌* **59**: 864, 1998
- 14) Itoh H, Shitamura T, Kataoka H, et al.: Retroperitoneal bronchogenic cyst: report of a case and literature review. *Pathol Int* **49**: 152-159, 1999
- 15) 長谷尚子, 柏原 赳, 大木 篤, ほか: 興味ある超音波所見を呈し、内容液アミラーゼ高値を示した腹腔内気管支嚢腫の1例. *日消病会誌* **93**: 594-598, 1996

(Received on April 23, 2013)
(Accepted on July 3, 2013)