

後腹膜鏡下手術にて摘除した横隔膜原発気管支原生嚢胞の1例

田中 隆造, 星 昭夫, 山口 茜, 野中 遥奈
 新田 聡, 古城 公佑, 南雲 義之, 池田 篤史
 松岡 妙子, 木村 友和, 神鳥 周也, 和久 夏井
 根来 宏光, 小島 崇宏, 河合 弘二, 西山 博之
 筑波大学附属病院腎泌尿器外科

A CASE OF RETROPERITONEAL BRONCHOGENIC CYST SUCCESSFULLY RESECTED WITH RETROPERITONEOSCOPIC SURGERY

Takazo TANAKA, Akio HOSHI, Akane YAMAGUCHI, Haruna NONAKA,
 Satoshi NITTA, Kosuke KOJO, Yoshiyuki NAGUMO, Atsushi IKEDA,
 Taeko MATSUOKA, Tomokazu KIMURA, Shuya KANDORI, Natsui WAKU,
 Hiromitsu NEGORO, Takahiro KOJIMA, Koji KAWAI and Hiroyuki NISHIYAMA
The Department of Urology, University of Tsukuba Hospital

A 32-year-old woman was referred to our hospital for consultation with a suspected left adrenal tumor detected by ultrasonography at a health check. Computed tomography and magnetic resonance imaging revealed a 3 × 1 × 4 cm multilocular cystic mass arising from the diaphragmatic crura, suggesting a retroperitoneal bronchogenic cyst. The patient underwent excision of the cyst and adjacent diaphragm using a retroperitoneoscopic approach. Retroperitoneal bronchogenic cysts are rare. We review the cases of 26 patients who underwent laparoscopic resection of a retroperitoneal bronchogenic cyst.

(Hinyokika Kyo 66: 307-311, 2020 DOI: 10.14989/ActaUrolJap_66_9_307)

Key words: Bronchogenic cyst, Retroperitoneoscopic, Diaphragm

緒 言

気管支原生嚢胞は前腸由来の呼吸器原基から異常発生した肺芽に由来する良性腫瘍である^{1,2)}。気管支原生嚢胞は一般的には縦隔内や胸腔内に発生することが多く、治療は外科的摘除が主に行われる。一方で稀ではあるが異常発生した肺芽が横隔膜の形成される胎生7週以前に後腹膜腔に迷入することで、後腹膜腔にも発生しうるとされている³⁾。今回われわれは、後腹膜腔に発生した気管支原生嚢胞に対し、後腹膜鏡下手術にて横隔膜との合併切除を要した症例を経験したので、若干の文献的考察を加え報告する。

症 例

患 者：32歳，女性

主 訴：腹部超音波検査にて異常を指摘

既往歴：喘息

現病歴：初めて受けた健康診断の腹部超音波検査にて左副腎腫瘍を指摘され、当院を紹介受診した。

初診時現症：身長 160 cm，体重 66.3 kg，血圧 120/70 mmHg，脈拍 80回/分，体温 36.5℃。腹部は平坦・軟で腫瘍などは触知しなかった。

血液生化学検査：WBC 5,700/mm³，Hb 11.5 g/dl，

Plt 178 × 10³/mm³，CRP <0.03 mg/dl，BUN 13.0 mg/dl，Cre 0.64 mg/dl，Alb 4.7 g/dl と特記所見なし。各種感染症検査は陰性。エピネフリン 22 pg/ml，ノルエピネフリン 210 pg/ml，ドパミン ≤ 20 ng/ml，



Fig. 1. A coronal image on an abdominal contrast-enhanced CT scan. Note that the tumor (arrow) is in contact with the diaphragm.

s-IL2R 208 U/mlと正常範囲だった。

造影 CT 所見：左副腎周囲に石灰化を伴う $34 \times 13 \times 39$ mm の造影効果の乏しい嚢胞性腫瘍を認めた。腫瘍と腎および副腎との境界は明瞭であった。腫瘍の頭側端は横隔膜と密に接触していた (Fig. 1)。

MRI 所見：腫瘍は嚢胞性であり、隔壁を伴っていた。また、嚢胞壁の一部に肥厚を認めた。嚢胞内容は T1, T2 強調像とも高信号であり、タンパク成分豊富な液体貯留と考えられた。腎との境界は明瞭であったが、横隔膜脚との境界は不明瞭であり、一部一体化している所見を認めた (Fig. 2a, b)。

上記検査所見より横隔膜脚原発気管支原性嚢胞と診断した。腫瘍は腎背側に存在することから、腫瘍が術野正面となる後腹膜鏡下手術を選択した。

手術所見：後腹膜鏡下副腎摘除術に準じ手術を施行した。体位は右側臥位とし肋骨弓下縁に定型的 3 ポートを置いた。後腹膜腔をバルーンにて拡張し flank pad を除去した後、外側円錐筋膜を切開し、Gerota 筋膜

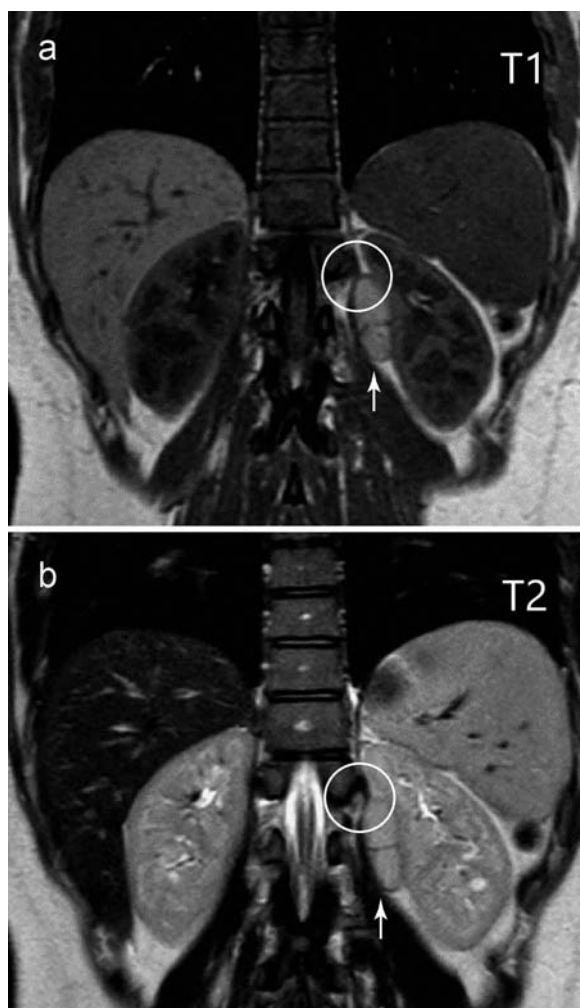


Fig. 2. Coronal T1-weighted (a) and T2-weighted (b) images on abdominal MRI. There was a cystic tumor (arrow) in close contact with the diaphragm (open circle). The tumor may have originated in the diaphragm.

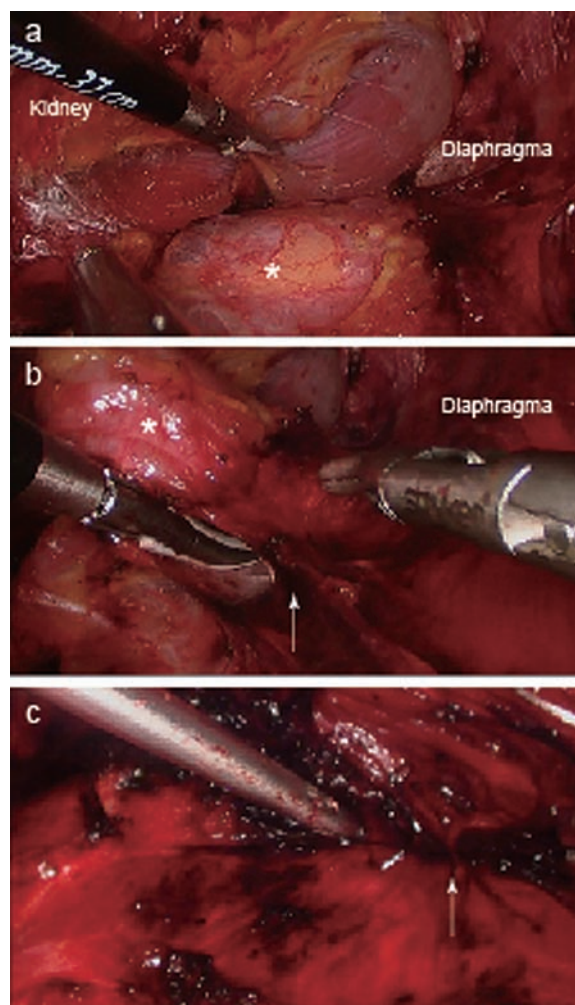


Fig. 3. Intraoperative findings of the retroperitoneoscopic surgery. (a, b) The tumor (asterisk) is firmly adhered to the diaphragm (arrow). (c) The defect in the diaphragm (arrow) was sutured.

後葉の層で左腎および左副腎を挙上すると、術野正面に横隔膜に接した腫瘍を認めた (Fig. 3a)。腫瘍は Gerota 筋膜の背側に存在し、Gerota 筋膜との癒着を認めなかった。腫瘍背側は横隔膜と強固に癒着しており、可動性は乏しかった。このため、腫瘍に接する横隔膜脚を合併切除した (Fig. 3b)。横隔膜および胸膜に 2 cm 程度の欠損が生じたため、3-0 吸収糸にて鏡視下に縫合閉鎖した (Fig. 3c)。

胸膜が完全に閉鎖されていることを確認し、胸腔ドレーンは置かず後腹膜腔ドレーンのみ留置し手術を終了した。手術時間165分、気腹時間140分、出血は少量であった。標本肉眼所見は単房性嚢胞状病変に占められており、骨、軟骨組織が触知され、腫瘍内は内部が白色の粘液成分で満たされていた。気管支原性嚢胞に典型的所見であった (Fig. 4)。

病理組織学的所見：腫瘍内容液の細胞診では悪性所見は認めなかった。標本にて硬く触知された枝状の組織は骨、軟骨で構成されていた。嚢胞内は多列線毛上

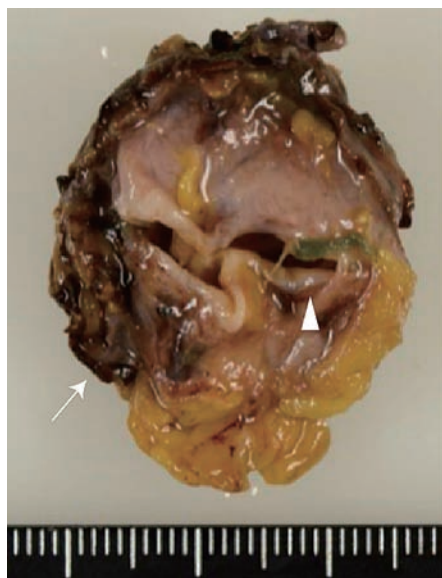


Fig. 4. Macroscopic findings of the tumor. Note the diaphragm adhered to the tumor (arrow). A branched calcified lesion was found in the cystic tumor (arrowhead).

皮に被われており, 粘液産生を認めた。以上から気管支原生囊胞との病理診断に至った (Fig. 5a, b)。囊胞周囲には脂肪組織および横紋筋組織が付着しており, 横隔膜と連続していた。

術後経過: 合併症なく術後4日で退院した。術後7カ月の時点で再発などは認めていない。

考 察

気管支原生囊胞の術前診断では CT および MRI による画像評価が重要である。典型的な画像所見としては造影効果に乏しいこと, 石灰化を伴うこと, 嚢胞性腫瘍であることなどが挙げられるが, 特徴的な所見に乏しく術前診断が困難な症例も多い。自験例では, 腫瘍の局在から, 非機能性の副腎線種を鑑別に挙げていた。しかし, 内部の枝状石灰化構造があること, タンパク成分豊富な液体貯留を認めること, さらに横隔膜との連続性が MRI で確認されたことにより気管支原生囊胞の術前診断に至った。気管支原生囊胞の術前診断に至らなかった症例では非機能性の副腎腫瘍と診断し, 悪性の可能性も否定出来ないことから手術を行った報告⁵⁾, paraganglioma, neurogenic tumor, lymphangioma を鑑別に挙げて手術を行った報告⁶⁾がある。また, 気管支原生囊胞は悪性例の報告もあり⁷⁾, 術前診断に至った症例であっても外科的摘除が治療の基本と考えられる。

後腹膜原発気管支原生囊胞に対する手術療法は経後腹膜到達法による開腹手術が主であるが, 体腔鏡手術の報告もある。われわれが検索しえた後腹膜原発気管支原生囊胞のうち, 体腔鏡手術を施行した26例を Table

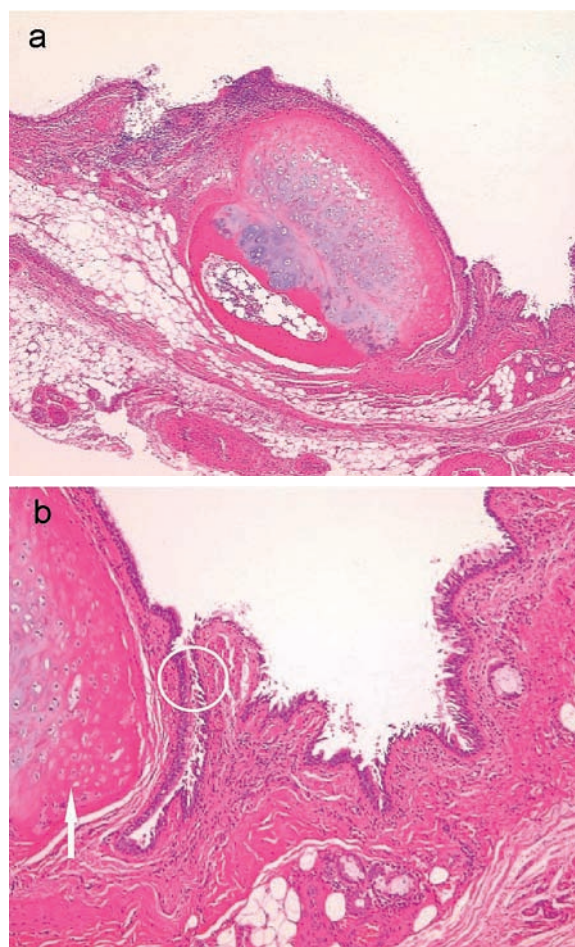


Fig. 5. Microscopic images of the tumor. (a) The tumor contained bone and cartilage (arrow) (H & E stain, $\times 40$). (b) The inner surface of the tumor was covered with pseudostratified ciliated epithelium, and mucus production (open circle) was found (H & E stain, $\times 100$).

1 にまとめた。

年齢は8歳から75歳まで幅広く, 中央値は40.5歳であった。男女比は1:1.6と, やや女性に多かった。左側25例, 右側1例であり, 96%が左側発生であった。後腹膜原発気管支原生囊胞の大部分が左側発生である要因としては胎生3週頃に生じる肝原基により右側への迷入が妨げられるためと推測されている⁴⁾。

病変部位に関しては副腎, 後腹膜など記載は報告により様々であったが, 全例が副腎周囲に発生していた。到達法は経腹膜到達法18例, 後腹膜到達法8例であり, 経腹膜到達法が主に選択されていた。到達法の実施については詳細な記載がなくその根拠は定かでないが, 通常の腹腔鏡下腎・副腎摘除術では経腹膜到達法が選択されることが多いため⁸⁾と推測される。自験例では腫瘍が腎上極背側に位置しており, 後腹膜鏡下手術を選択すれば腫瘍が術野正面になる利点があることから, 同術式を選択した。

自験例では術前画像所見, 術中所見および病理所見

Table 1. Reported cases of laparoscopic and retroperitoneoscopic approaches for resection of bronchogenic cyst

症例	著者名 (報告年) (参考文献)	年齢	性別	左右	部位	腫瘍径	手術方法	手術 時間 (分)	術前診断
1	Akos MB (2006) (22)	18	F	Left	Supraadrenal	8	Lap	nr	Adrenal adenoma
2	Chu PY (2007) (23)	55	M	Left	Adrenal	4	Lap	nr	nr
3	Minei S (2007) (24)	39	M	Left	Adrenal	4.5	Lap	144	nr
4	Terry NE (2007) (25)	75	F	Left	Lateral adrenal gland	5	Lap	nr	Benign adenoma
5	Obando J (2009) (26)	67	M	Left	Adrenal	3.9	Lap	nr	nr
6	El Youssef R (2010) (27)	44	M	Left	Adrenal	3.1	Lap	nr	nr
7	Rud O (2010) (28)	51	F	Left	Adrenal	3	Lap	nr	Retroperitoneal tumor
8	Powell G (2012) (29)	50	M	Left	Periadrenal	2.3	Lap	nr	Retroperitoneal tumor
9	Cai Y (2012) (30)	50	F	Left	Adrenal	3	Lap	nr	nr
10	Tokuda N (1997) (31)	24	F	Left	Supraadrenal	3	Lap	nr	Pheocromocytoma
11	Ishizuka O (2004) (32)	36	M	Left	Adrenal	5	Lap	nr	Ganglion
12	Roma A (2008) (33)	40	M	Left	Adrenal	6.2	Lap	nr	Metastatic teratoma
13	Yamamoto S (2006) (34)	32	F	Left	Retroperitoneal (near the stomach)	2.5	Lap	nr	Cystic mass
14	Maehira H (2014) (35)	56	F	Left	Retroperitoneal (near the stomach)	3.7	Lap	104	GIST
15	Aoyama K (2015) (10)	59	M	Left	Adrenal	4.5	Lap	80	Adrenal adenoma
16	Terasaka T (2014) (11)	27	M	Left	Adrenal	5	Lap	nr	nr
17	Yamakawa J (2015) (36)	53	F	Left	Adrenal	3	Lap	nr	Lymphangioma
18	Hashine K (2004) (16)	30	M	Left	Adrenal	4	Lap	245	Adrenal cyst
19	McCrystal DJ (2002) (17)	8	F	Left	Adrenal	4	Retrop	45	nr
20	McCrystal DJ (2002) (17)	15	M	Left	Adrenal	5.5	Retrop	55	nr
21	Ishikawa T (2003) (18)	41	F	Left	Adrenal	9.2	Retrop	nr	Bronchogenic cyst
22	O' Neal PB (2012) (20)	23	F	Left	Adrenal	4.8	Retrop	nr	Adrenal tumor
23	Jannasch O (2013) (9)	50	M	Left	Adrenal	5	Retrop	nr	nr
24	Alguraan Z (2012) (21)	23	F	Right	Adrenal	nr	Retrop	nr	nr
25	Kouno M (2013) (14)	51	F	Left	Adrenal	4	Retrop	210	Retroperitoneal tumor
26	Chung JM (2009) (19)	41	F	Left	Adrenal	4.8	Retrop	nr	Adrenal tumor
27	自験例	32	F	Left	Adrenal	3.9	Retrop	165	Bronchogenic cyst

Lap: laparoscopic, Retrop: retroperitoneoscopic, nr: not reported, GIST: gastrointestinal stromal tumor.

から横隔膜原発と考えられ、横隔膜合併切除を要した。鏡視下に横隔膜欠損部の縫合を要したが、欠損部は術野の正面であり問題なく縫合閉鎖が可能であった。一方、諸家の報告では、他臓器の合併切除（横隔膜、副腎）を行った報告も散見される。その多くが、開腹手術での報告であるが^{6,15)}、腹腔鏡手術で胃壁の一部を合併切除した症例¹⁴⁾、左副腎を合併切除した症例¹⁶⁾の報告があった。

気管支原生嚢胞は良性腫瘍であるが、少数ながら再発が報告されており、完全摘除が肝要である¹³⁾。後腹膜鏡下手術は術野正面に腫瘍を視認できること、良好な拡大視野で摘除が行えることから有用な術式であると考えられる。

結 語

横隔膜原発気管支原生嚢胞の1例を経験した。横隔膜合併切除を要したが、後腹膜鏡下手術にて腫瘍摘除および横隔膜縫合閉鎖を完遂できた。

文 献

- 1) Itoh H, Shitamura T, Kataoka H, et al.: Retroperitoneal bronchogenic cyst: report of a case and literature review. *Pathol Int* **49**: 152-155, 1999
- 2) Haddadin WJ, Reid R, Jindal RM, et al.: A retroperitoneal bronchogenic cyst: a rare cause of a mass in the adrenal region. *J Clin Pathol* **54**: 801-802, 2001
- 3) Menke H, Roher H D, Gabbert H, et al.: A rare cause of a retroperitoneal mass. *Eur J Surg* **163**: 311-314, 1997
- 4) 高橋則雄, 村上房夫, 梅田弘幸, ほか: 後腹膜気管支嚢胞の1例. *日泌尿会誌* **93**: 583-587, 2002
- 5) 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. *内分泌甲状腺外会誌* **32**: 201-204, 2015
- 6) 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生嚢胞の1例. *泌尿紀要* **59**: 715-718, 2013

- 7) Sullivan SM, Okada S, Kudo M, et al.: A retroperitoneal bronchogenic cyst with malignant change. *Pathol Int* **49**: 338-341, 1999
- 8) 内視鏡外科手術に関するアンケート調査. 日内視鏡外会誌 **23**: 854, 2018
- 9) Jannash O, Büschel P, Wonder C, et al.: Retroperitoneoscopic and laparoscopic removal of periaurally located bronchogenic cysts—a systematic review—. *Pol Przegl Chir* **85**: 706-713, 2013
- 10) 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
- 11) Terasaka T, Otsuka F, Ogura-Ochi K, et al.: Retroperitoneal bronchogenic cyst: a rare incidentaloma discovered in a juvenile hypertensive patient. *Hypertens Res* **37**: 595-597, 2014
- 12) 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原生嚢胞の1例. 外科 **77**: 939-942, 2015
- 13) Read CA, Moront M, Carangelo R, et al.: Recurrent bronchogenic cyst: an argument for complete surgical excision. *Arch Surg* **126**: 1306-1308, 1991
- 14) 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生嚢胞の1例. 泌尿紀要 **59**: 359-361, 2013
- 15) Govaerts K, Van Eyken P, Verswijvel G, et al.: A bronchogenic cyst, presenting as a retroperitoneal cystic mass. *Rare Tumors* **4**: e13, 2012
- 16) 橋根勝義, 東 浩二, 小泉貴裕, ほか: 後腹膜気管支原生嚢胞の1例. 西日泌尿 **66**: 511-513, 2004
- 17) McCrystal DJ and Borzi PA: Retroperitoneoscopic resection of retroperitoneal bronchogenic cysts. *Pediatr Surg Int* **18**: 375-377, 2002
- 18) Ishikawa T, Kawabata G, Okada H, et al.: Retroperitoneal bronchogenic cyst managed with laparoscopic surgery. *J Urol* **169**: 1078-1079, 2003
- 19) Chung JM, Jung MJ, Lee W, et al.: Retroperitoneal bronchogenic cyst presenting as adrenal tumor in adult successfully treated with retroperitoneal laparoscopic surgery. *Urology* **73**: e13-15, 2009
- 20) Oneal PB, Moore FD, Brookman-Amissah S, et al.: Bronchogenic cyst masquerading as an adrenal tumor: a case of mistaken identity. *Endocr Pract* **18**: e102-105, 2012
- 21) Alguraan Z, Agcaoglu O, El-Hayek K, et al.: Retroperitoneal masses mimicking adrenal tumors. *Endocr Pract* **18**: 335-341, 2012
- 22) Akos MB, Peter K, Edina N, et al.: Laparoscopic extirpation of retroperitoneal bronchogenic cyst. *Magy Seb* **59**: 37-41, 2006
- 23) Chu PY, Hwang TI, Teng TH, et al.: A retroperitoneal bronchogenic cyst successfully treated by laparoscopic surgery. *Ann Saudi Med* **27**: 199-200, 2007
- 24) 嶺井定嗣, 五十嵐智博, 平野大作, ほか: 腹腔鏡下に摘出した後腹膜気管支原生嚢胞の1例. 泌尿紀要 **53**: 171-174, 2007
- 25) Terry NE, Senkowski CK, Check W, et al.: Retroperitoneal foregut duplication cyst presenting as an adrenal mass. *Am Surg* **73**: 89-92, 2007
- 26) Obando J, Merkle E and Bean SM: A retroperitoneal bronchogenic cyst. *Clin Gastroenterol Hepatol* **7**: A24-e1, 2009
- 27) El Youssef R, Fkseriu M, Sheppard BC, et al.: Adrenal and pancreatic presentation of subdiaphragmatic retroperitoneal bronchogenic cysts. *Arch Surg* **145**: 302-304, 2010
- 28) Rud O, May M, Brookman-Amissah S, et al.: Retroperitoneal bronchogenic cysts treated by laparoscopic surgery. *Chirurg* **81**: 243-246, 2010
- 29) Powell G, Burrows C, Houghton A, et al.: An incidental peri-adrenal cystic lesion. *BMJ Case Rep*: bcr201200660, 2012
- 30) Cai Y, Guo Z, Cai Q, et al.: Bronchogenic cysts in retroperitoneal region. *Abdom Imaging* **38**: 211-214, 2013
- 31) Tokuda N, Naito S, Uozumi J, et al.: A retroperitoneal bronchogenic cyst treated with laparoscopic surgery. *J Urol* **157**: 619, 1997
- 32) Ishizuka O, Misawa K, Nakazawa M, et al.: A retroperitoneal bronchogenic cyst: laparoscopic treatment. *Urol Int* **72**: 269-270, 2004
- 33) Roma A, Varsegi M, Magi-Galluzzi C, et al.: The distinction of bronchogenic cyst from metastatic testicular teratoma: a light microscopic and immunohistochemical study. *Am J Clin Pathol* **130**: 265-273, 2008
- 34) 山本 滋, 林 秀和, 岡 正朗: 腹腔鏡手術で摘出した後腹膜 Bronchogenic cyst の1例. 手術 **60**: 653-657, 2006
- 35) 前平博允, 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生嚢胞の1例. 日鏡外会誌 **19**: 165-172, 2014
- 36) 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気管支原生嚢胞の1例. 外科 **77**: 939-942, 2015

(Received on February 25, 2020)

(Accepted on June 2, 2020)