

後腹膜腔に発生した異所性気管支嚢胞悪性化の1例

矢掛町国民健康保険病院外科

大橋龍一郎 原 浩平 松田 英祐

気管支嚢胞が腹部に発生することはきわめてまれである。我々は後腹膜腫瘍として発見された異所性気管支嚢胞悪性化の1例を経験したので報告する。症例は69歳の女性で、腹部膨満感を主訴に来院した。腹部CT検査では左横隔膜直下から左腎上極にかけて嚢胞状腫瘍陰影を認めた。嚢胞内部は液体貯留と思われる低吸収域が主体であったが、一部に実質部が認められた。経皮的腫瘍穿刺にて多量の粘液状排液がみられ、細胞診はclass Vであった。血清腫瘍マーカーはCEAとCA 125が高値であった。悪性嚢胞性後腹膜腫瘍の術前診断で、開腹手術を行った。腫瘍は後腹膜腔に存在し、横隔膜、後腹壁、脾、腎、副腎との剥離は容易で腫瘍核出術を行った。摘出標本の組織像は、充実部では粘液腺癌を呈し気管支嚢胞が後腹膜腔に発生して悪性化したものと診断した。手術後に腫瘍マーカーは正常化した。

はじめに

気管支嚢胞は原始腸管の前腸から気管支が分離する際に生じる奇形で、ほとんどは縦隔内に発生する。異所性には皮膚などに発生することがあるが、腹部に発生することはきわめてまれである^{1)~3)}。我々は術前診断困難な後腹膜腫瘍として発見された異所性気管支嚢胞悪性化の1例を経験したので報告する。

症 例

患者：69歳、女性

主訴：腹部膨満感

家族歴・既往歴：特記事項なし。

現病歴：平成9年12月頃より左側腹部に膨満感を感じはじめた。自覚症状が増悪してきたため平成10年3月4日当院を受診し、腹部CT検査で後腹膜腫瘍を発見されたため精査目的に入院した。

入院時現症：体格・栄養は中等度。結膜に黄疸貧血は認めず、呼吸音心音とも正常であった。腹部は軟で圧痛や腹水はみられなかった。上腹部では左肋弓下に小児頭大で弾性硬、表面平滑な腫瘍の下縁を触知した。腫瘍の上縁は肋骨の背側にあるため触知できなかった。腸雑音は正常で肝脾は触知しなかった。

血液生化学検査所見：腫瘍マーカーはCEA：30 ng/ml、CA 125：54.8U/ulと高値で、AFP：3ng/ml、CA19 9：6U/ml、DUPAN 2：25U/ml以下は正

Fig. 1 Abdominal CT scan showed a large cystic mass shadow below the left diaphragm (a) The cystic wall contained unclearly defined solid portions which were slightly enhanced by contrast medium (b)



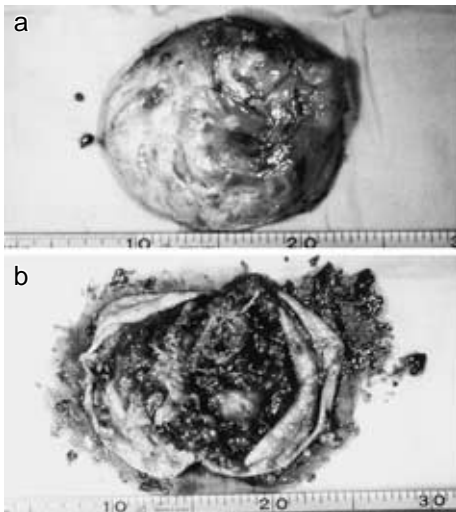
常であった。他の血液生化学検査には異常はみられなかった。

腹部CT検査：左横隔膜直下から左腎上極にかけて

Fig. 2 Abdominal US showed that the cyst contained not only fluid but also floating contents.

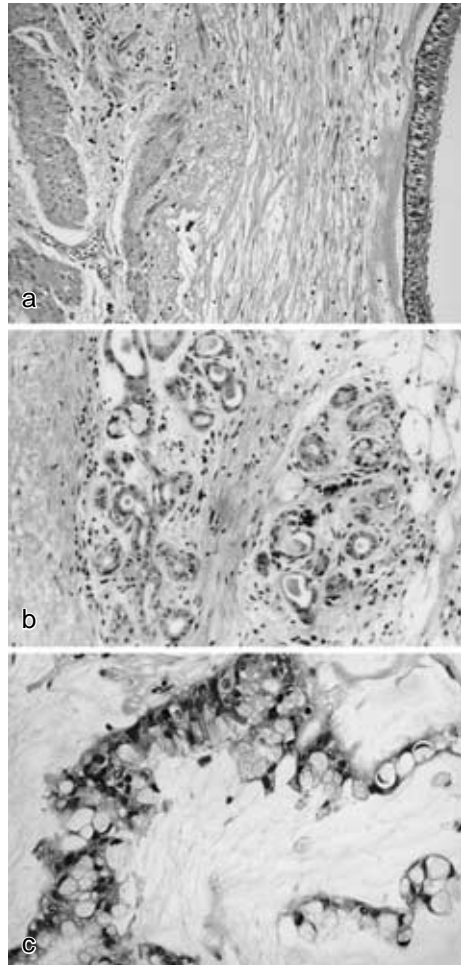


Fig. 3 The resected specimen showed encapsulated cystic tumor (a). The cyst contained reddish gelatinous contents. There were solid tumor lesions and firm processes in the inside of the cyst (b)



16 × 12cm の嚢胞状腫瘍陰影を認めた．腫瘍辺縁は平滑であったが嚢胞壁の厚さは不均一であった．腫瘍内部は液体貯留と思われる低吸収域が主体であったが，

Fig. 4 Histological examination showed that ciliated columnar cells covered the inside of the cysts (a : HE stain , × 20) and seromucous glands were observed among smooth muscle cells (b : HE stain , × 100). There was mucinous adenocarcinoma in the solid portion of a bronchogenic cyst (c : HE stain , × 200)



壁肥厚部に連続して実質部と思われる不整形の高吸収域部分が認められた (Fig. 1a). 造影 CT では嚢胞壁が軽度造影されるのみであった (Fig. 1b).

腹部超音波検査：嚢胞内部には貯留液と思われる低エコー域とともに，やや高エコーな浮遊物が認められた (Fig. 2).

腹部血管造影検査：腫瘍部に新生血管陰影は認められず，栄養動脈も不明であった．

術前，経皮的に腫瘍を穿刺したところ多量の粘液状

Table 1 Summary of patients with abdominal bronchogenic cysts

Author	Age/Sex	Size (cm)	Symptoms	Locaton
Miller et al. (1953)	0/F	5	abdominal mass	anterior to pancreas
Dewing et al. (1956)	56/F	4	epigastralgia	gastric wall
Gensler et al. (1966)	46/F	8	hemospotum	gastric wall
Pai et al. (1972)	60/M	9	nausea, abdominal pain	posterior to stomach
Tanaka et al. (1984)	59/M	6.5	epigastralgia, vomiting	posterior to stomach
Sumiyoshi et al. (1985)	59/M	6	epigastralgia, vomiting	superior to pancreas
Ishihara et al. (1987)	36/M	7	abdominal fullness	abdominal esophageal wall
Coselli et al. (1987)	35/F	3.5	epigastralgia	superior to pancreas
Shireman et al. (1987)	61/F	6	dysphagia	gastric wall
Keohane et al. (1988)	64/F	15	epigastralgia	posterior to stomach
Takeshita et al. (1990)	53/M	6.7	left back pain	posterior to stomach
Takeshita et al. (1990)	26/F	7.5	left hypochondralgia	posterior to stomach
Foerater et al. (1991)	35/M	10	abdominal pain	superior to left adrenal gland
Swanson et al. (1991)	4/F	2.1	abdominal fullness	superior to left adrenal gland
Kohzaki et al. (1993)	41/F	2	epigastralgia	anterosuperior to pancreas
Bechade et al. (1993)	19/M	3	dysphagia	adherent to abdominal esophagus
Fischbach et al. (1994)	12/M	1.5	none	adjacent to diaphragm
Barrande et al. (1994)	54/F	5	hypertension	superior to left kidney
Resl et al. (1996)	21/M	4	none	near left adrenal gland
Hase et al. (1996)	16/F	3.5	epigastralgia, fever	adjacent to diaphragm
Ojika et al. (1996)	62/M	2.2	none	gastric wall
Menke et al. (1997)	35/F	8	epigastralgia, back pain	superior to left adrenal gland
Kajiya et al. (1997)	72/M	3.5	abdominal fullness	near left adrenal gland
Tokuda et al. (1997)	24/F	3	none	superior to left kidney
Doggett et al. (1997)	44/M	10	abdominal pain	superior to left adrenal gland
Cetinkursun et al. (1997)	1/F	5	recurrent urinary tract infections	superior to pancreatic tail
Buckley et al. (1998)	46/F	4	epigastralgia, weight loss	superior to left adrenal gland
Itoh et al. (1999)	46/F	8	abdominal pain	adjacent to diaphragm
Sullivan et al. (1999)	55/F	10	abdominal discomfort	attached to ascending colon
Present Case (2000)	69/F	17	abdominal fullness	superior to left kidney

排液がみられ、細胞診は class V (mucinous adenocarcinoma) であった。悪性嚢胞性後腹膜腫瘍の術前診断で、同年3月30日に開腹手術を行った。

手術所見：左傍腹直筋切開で開腹した。腫瘍は後腹膜腔に存在し、横隔膜から腎上極レベルに達していた。横隔膜、腹壁、脾、腎、副腎と腫瘍の剥離は容易で腫瘍摘出術を行った。動脈は後腹壁から feeding されており、drainage vein は左腎静脈に注いでいた。

摘出標本肉眼所見：腫瘍の大きさは17×13cmで、表面はよく被膜化されていた。腫瘍内部には、いちごゼリー状の内容物が充満しており粘液と凝固した血液が混じたものと思われた。剖面所見では大きな嚢胞内に12×10cmの範囲で灰白色粘糊性の充実部を認めた。他に小指頭大の小さい嚢胞も数個みられた。また、嚢胞壁の一部には石灰化を伴う固い突起状部分も存在した (Fig. 3a , b)。

病理組織学的所見：充実部は粘液産生の強い mucinous adenocarcinoma 像を示し、壁内浸潤が認められた。非充実部では上皮が剥離し、異物反応、石灰化およびコレステリンの沈着を認めたが明らかな癌細胞はみられなかった。腫瘍の辺縁には小嚢胞があり、その内面は絨毛円柱上皮に覆われていた。また、その周囲は平滑筋細胞束に囲まれており、気管支腺組織と思われる良性腺組織を少数認めた。軟骨組織はないものの気管支壁を模倣したものと考えられ、気管支嚢胞が後腹膜腔に発生し悪性化したものと診断した (Fig. 4a , b , c)。

術後経過：手術後 CEA , CA 125は正常化した。患者は術後経過良好で34病日目に退院した。現在、術後2年2か月が経過したが再発徴候はみられず外来通院中である。

考 察

気管支嚢胞が腹腔内に発生する頻度はきわめて低く、現在までの報告例は自験例を含めて30例 (Table 1)^{2)~11)}で、このうち、悪性の組織像を呈したのは Sullivan ら⁴⁾と自験例の2例のみであった。報告例30例の内訳は、性別が男性12例、女性18例であった。年齢は40歳から70歳が多かったが、新生児から高齢者まで各年齢層に幅広く分布していた。発見時に他の奇形を合併していたのは Miller ら¹⁾の1例のみであった。腫瘍の大きさは10cm 以下の症例が大部分であったが、報告例中では我々の症例が最大で17cm であった。いずれの症例でも腫瘍は嚢胞状の形態を示していた。腫瘍が腹部症状によって発見されたのは21例で、腹部以外の自覚症状で発見されたのは5例、自覚症状がなく偶然発見されたのは4例であった。腫瘍の発生部位は自験例を含む24例が左横隔膜下と腎上極の間で胃の背側であった。このうちの2例は腫瘍と胃の間に瘻孔を形成していたが、他の22例は他臓器との交通はみられなかった。残る6例のうち、5例は胃壁内または腹部食道壁内に存在し、1例は上行結腸に接して存在していた。

気管支嚢胞が腹部に発生する機序は不明であるが、2つの可能性が考えられている。1つは前腸から呼吸器原基が発生する時期にはまだ横隔膜が形成されていないため、奇形として発生した気管支嚢胞が胸腹膜管を通過して後腹膜腔に迷入した可能性である。もつ一つは腹腔内組織が teratomatous な変化によって気管支嚢胞様の組織構造に変化した可能性である。横隔膜は気管支が食道から分離した後に隔膜として登場する。気管支嚢胞が横隔膜に発生した症例¹²⁾¹³⁾や横隔膜を介して胸腹腔の両者にまたがって dumbbell 状に発生した症例¹⁴⁾も報告されていることから、横隔膜形成前に組織が迷入したという前者の可能性が高いものと考えられている²⁾³⁾¹¹⁾。今回の集計結果では自験例を含めて大部分の症例は左横隔膜下の後腹膜腔に存在しており、また胃壁内に発生した症例でも全例が胃弓隆部後壁に存在していることから、左横隔膜下は気管支嚢胞が迷入しやすい部位であろうと推察される。

縦隔に発生したものを含めても気管支嚢胞が悪性化することはまれで、嚢胞壁に carcinoma や sarcoma がみられた報告例は少数しかない¹⁵⁾。腹部に発生した気管支嚢胞が悪性所見を示したのは Sullivan ら⁴⁾の症例に続き自験例が2例目である。彼らの症例では solid な部分はなく嚢胞壁そのものに papillary adenocarcinoma がみられたが、自験例では solid な部分に mucin-

nous adenocarcinoma が認められた。腫瘍マーカーについては気管支嚢胞内貯留液の CA19 9, CEA, CA 125などが上昇していた報告が多い¹³⁾¹⁶⁾。また血清では CEA, CA19 9の上昇例が報告されている¹⁰⁾¹³⁾¹⁶⁾。自験例では嚢胞内貯留液の検査は行っていないが、血清の CEA, CA125が高値であり、嚢胞切除後に正常値となった。気管支嚢胞の大部分は良性腫瘍であるため完全切除によって治癒可能であるが、まれに良性腫瘍であっても再発例の報告がある¹⁷⁾¹⁸⁾。今回の症例は悪性の組織像を呈しており、再発の早期発見のために厳重な経過観察が必要と考える。

稿を終えるにあたり、病理学者の立場からご協力いただいた河口幸博先生に深謝いたします。

文 献

- 1) Miller RF, Graub M, Pashuck ET : Bronchogenic cysts : anomalies resulting from maldevelopment of primitive foregut and midgut. *Am J Roentgenol Radium Ther Nucl Med* 70 : 771 - 785, 1953
- 2) Sumiyoshi K, Shimizu S, Enjoji M et al : Bronchogenic cyst in the abdomen. *Virchows Arch* 408 : 93 - 98, 1985
- 3) Coselli MP, Ipolyi P, Bloss RS et al : Bronchogenic cysts above and below the diaphragm : report of eight cases. *Ann Thorac Surg* 44 : 491 - 494, 1987
- 4) Sullivan SM, Okada S, Kudo M et al : A retroperitoneal bronchogenic cyst with malignant change. *Pathol Int* 49 : 338 - 341, 1999
- 5) Itoh H, Shitamura T, Kataoka H et al : Retroperitoneal bronchogenic cyst : report of a case and literature review. *Pathol Int* 49 : 152 - 155, 1999
- 6) Buckley JA : Bronchogenic cyst appearing as a retroperitoneal mass. *AJR* 171 : 527 - 528, 1998
- 7) Cetinkursun S, Ozturk H, Celasun B et al : Isolated abdominal bronchogenic cyst : a case report. *Eur J Pediatr Surg* 7 : 103 - 105, 1997
- 8) Kajiya Y, Nakajo M, Ichinari N et al : Retroperitoneal foregut cyst. *Abdom Imaging* 22 : 111 - 113, 1997
- 9) 長谷尚子, 柏原 起, 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胞腫の1例. *日消病会誌* 93 : 594 - 598, 1996
- 10) Kohzai S, Fukuda T, Fujimoto T et al : Ciliated foregut cyst of the pancreas mimicking teratomatous tumor. *Br J Radiol* 67 : 601 - 604, 1993
- 11) Keohane ME, Schwartz I, Freed J et al : Subdiaphragmatic bronchogenic cyst with communication to the stomach : a case report. *Hum Pathol* 19 : 868 - 871, 1988

- 12) Dagenais F, Nassif E, Dery R et al : Bronchogenic cyst of right hemidiaphragm. *Ann Thorac Surg* 59 : 1235-1237, 1995
- 13) 中村昭博, 内山貴堯, 山岡憲夫ほか : 血清 CA19-9高値を伴った横隔膜気管支原性嚢胞の1切除例. *日胸外会誌* 45 : 79-83, 1997
- 14) Amenodola MA, Shirazi KK, Brooks J et al : Transdiaphragmatic bronchopulmonary foregut anomaly : "dumbbell" bronchogenic cyst. *AJR* 128 : 1165-1167, 1995
- 15) Okada Y, Mori H, Maeda T et al : Congenital mediastinal bronchogenic cyst with malignant transformation : an autopsy report. *Pathol Int* 46 : 594-600, 1996
- 16) 角 泰雄, 大野喜代志, 山崎芳郎ほか : 血清 CA19-9が高値を呈した縦隔気管支原性嚢胞の1手術例. *日胸外会誌* 46 : 110-114, 1998
- 17) 松岡勝成, 桑原正喜, 糸井和美ほか : 術後14年目に再発がみられた縦隔型気管支性嚢胞の1例. *日胸外会誌* 43 : 64-68, 1995
- 18) Read CA, Moront M, Carangelo R et al : Recurrent bronchogenic cyst : an argument for complete surgical resection. *Arch Surg* 126 : 1306-1308, 1991

A Case of Retroperitoneal Bronchogenic Cyst with Malignant Change

Ryuichiro Ohashi, Kouhei Hara and Eisuke Matsuda
Department of Surgery, Yakage Municipal Hospital

Abdominal bronchogenic cysts are rare abnormalities. We report a unique case of retroperitoneal bronchogenic cyst with malignant change. A 67 year-old woman who complained of abdominal fullness was admitted for further examination. A CT scan showed the presence of a cystic mass whose wall contained solid portions and was located below the left side of the diaphragm. Percutaneous needle aspiration from the mass yielded a large amount of mucus that contained malignant cells, and the patient's serum CEA and CA 125 levels were elevated. A diagnosis of malignant retroperitoneal cystic tumor was made and the tumor was resected. On entering the abdomen, the tumor was observed in the retroperitoneal cavity and was easily dissected from adjacent organs, including the diaphragm, posterior abdominal wall, pancreas, left kidney, and left adrenal gland. Histological examination of the resected specimen showed mucinous adenocarcinoma in the solid portion of a bronchogenic cyst. The tumor markers decreased to within their normal ranges after the operation.

Key words : abdominal bronchogenic cyst, malignant bronchogenic cyst, retroperitoneal tumor

[*Jpn J Gastroenterol Surg* 34 : 36-40, 2001]

Reprint requests : Ryuichiro Ohashi Department of Surgery, Yakage Municipal Hospital
2695 Yakage, Yakage-cho, Oda-gun, Okayama, 714-1201 JAPAN