

## 胃壁内に発生した気管支原性嚢胞の1例

小野田市立病院外科

藤井 雅和 沖野 基規 藤岡顕太郎 山下 勝之

症例は59歳の女性。主訴は心窩部痛。1996年4月下旬に心窩部痛が著しく、近医に緊急入院となった。精査の結果、急性胆嚢炎および腹腔内嚢胞の診断で、当院紹介入院となった。手術は、胆嚢摘出後に、嚢胞を胃の漿膜筋層とともに、一部胃粘膜もつけて摘出した。術後の病理組織学的診断で、Bronchogenic cystと判明した。術後約6年半経過した現在も再発はない。Bronchogenic cystは発生学的に原始前腸に由来する先天性嚢胞である。良性疾患ではあるが、術前の確定診断は困難であり、悪性腫瘍合併の報告もあることから、外科手術の適応とされている。Bronchogenic cystの腹腔内発生頻度は非常にまれであり、今日までの本邦報告例に、本症例を含め7例について、文献的考察を加えた。

### はじめに

Bronchogenic cystは発生学的に原始前腸に由来する先天性嚢胞であり、胎生4週目に呼吸器原基より異常発芽・分離した肺芽が気管支系との連続性を欠くことにより発生すると考えられている<sup>1)</sup>。胸腔内、縦隔内に発生することが多く、横隔膜以下、特に腹腔内に発生することは極めてまれである。また、術前の画像診断が困難であり、外科的摘出後に診断のつくことが多い。今回我々は、嚢胞性疾患の術前診断のもとに切除された、胃壁内発生Bronchogenic cystの1例を経験したので報告する。

### 症 例

症例：59歳，女性

主訴：心窩部痛

現病歴：1996年4月中旬に心窩部痛を訴え、近医を受診。保存的治療で改善した。1996年4月下旬に再度、心窩部痛が出現したため、近医に緊急入院となった。精査の結果急性胆嚢炎および腹腔内嚢胞の診断で保存的治療がなされた後、手術目的で当院紹介入院となった。

既往歴：20歳 虫垂切除術 57歳 急性腹症で入院（保存的に治癒）。

家族歴：特記すべき事項なし。

入院時所見：腹部は平坦・軟で腸蠕動音は聴取できた。圧痛・筋性防御はなかった。腹部に腫瘤は触知しなかった。

Fig. 1 Abdominal CT scan shows a 4.5cm cystic lesion. The border is clear and the lesion is regular. a: plain film. b: enhanced film.

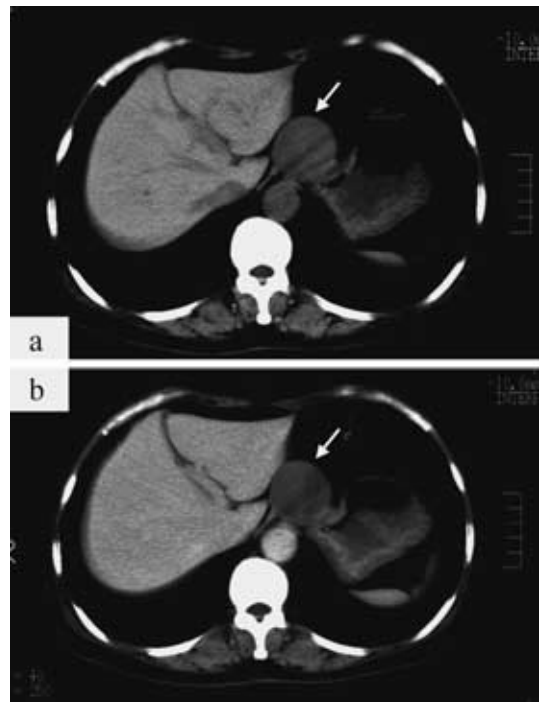
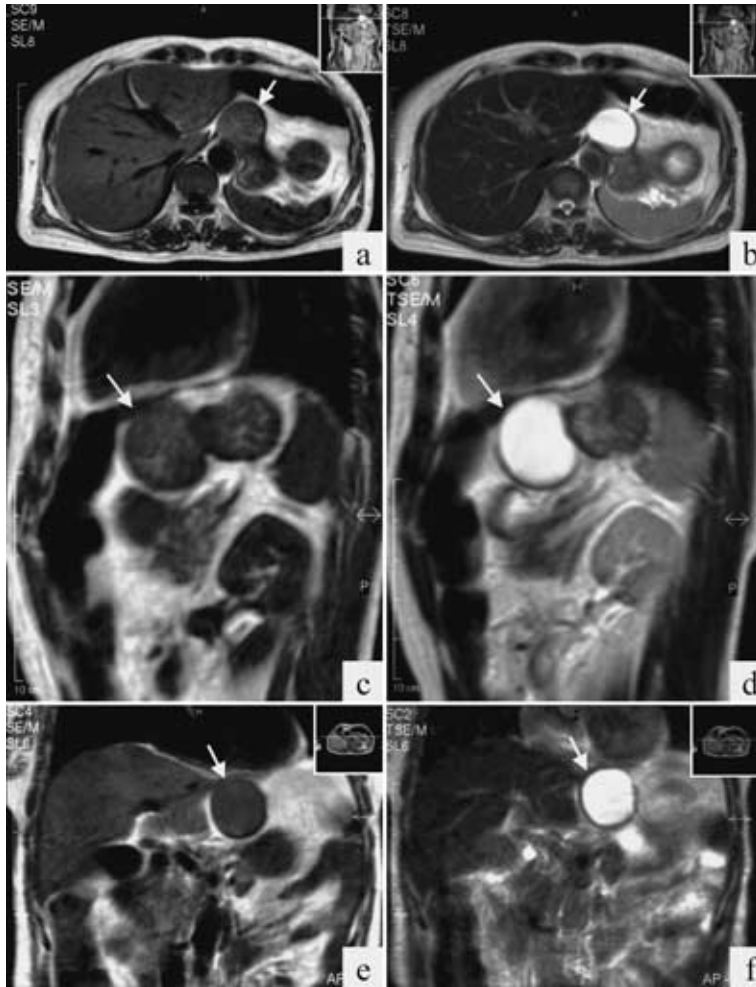


Fig. 2 Abdominal MR image shows a 4.5cm lesion. The T<sub>1</sub>-weighted image is of low intensity and the T<sub>2</sub>-weighted image is of high intensity. a : T<sub>1</sub>-weighted horizontal image, b : T<sub>2</sub>-weighted horizontal image, c : T<sub>1</sub>-weighted sagittal image, d : T<sub>2</sub>-weighted sagittal image, e : T<sub>1</sub>-weighted coronal image, f : T<sub>2</sub>-weighted coronal image.



近医入院時，血液生化学検査：RBC  $404 \times 10^{10}/l$ ，Hb 12.8 g/dl，WBC  $4,900 \times 10^6/l$ ，Plt  $17.3 \times 10^9/l$ ，CRP 0.08mg/dl と基準値内であったが，空腹時血糖値 125mg/dl，GOT 1,041 IU/l，GPT 565 IU/l，T-bil 1.3mg/dl，LDH 753 IU/l，ALP 395 IU/l， $\gamma$ -GTP 233 IU/l，血清アマラーゼ値 396 IU/l，リパーゼ 1,760 IU/l と上昇しており胆膵系疾患が考えられた．しかし，当院入院時の血液生化学検査では前医での加療により基準値内に改善

していた．

胸・腹部 X 線写真：特に異常所見なし．

術前超音波検査：胆嚢内には小結石が充満しており，強い acoustic shadow を呈していた．腹腔内嚢胞は描出できなかった．

術前 computed tomography(CT)：胃小彎側前壁と肝左葉の間に，径約 4.5cm のほぼ円形で境界明瞭，内部均一な腫瘤像を認めた．造影 CT では辺縁は造影されていたが，内部は造影されてい

Fig. 3 ERCP image shows no stone in the common bile duct and main pancreatic duct but many stones in the gall bladder. The abdominal cyst does not lead into the main pancreatic duct.



Fig. 4 The cyst wall is covered with white epithelium but part of the lesion is brown, and yellowish brown mucus is contained within.

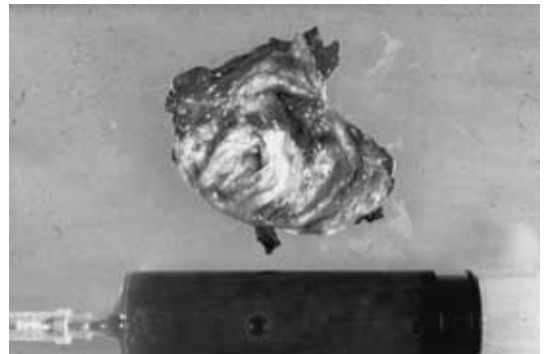
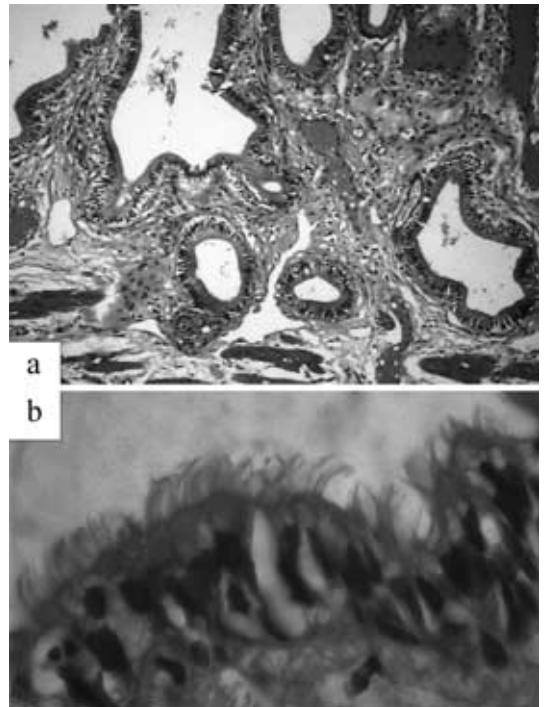


Fig. 5 Histopathologically, the cyst is covered with ciliated columnar epithelium and contains smooth muscle and glands.

a : H. E. staining  $\times 40$  b : H. E. staining  $\times 1000$



かった。膵臓との交通の存在は不明であった。また、胆嚢内には結石の充満像を認めた (Fig. 1)。

術前 magnetic resonance imaging (MRI) : 胃小彎側前壁と肝左葉の間に、径約 4.5cm のほぼ円形で境界明瞭、周囲に隔壁を持った腫瘤像を認めた。T<sub>1</sub> 強調像で low intensity, T<sub>2</sub> 強調像で high intensity であった。膵臓との交通の存在は不明であった (Fig. 2)。

内視鏡的逆行性膵胆管造影 (ERCP) : 膵管・総胆管に拡張像・壁の不整はなく、結石も存在しなかった。胆嚢内に小結石が多数存在し充満していた。嚢胞には造影剤の交通はなかった (Fig. 3)。

手術所見 : 原発巣不明の腹腔内嚢胞の診断で、上腹部正中切開で開腹した。嚢胞は弾性軟で胃体上部小彎側にあり胃漿膜に包まれていた。また、胆石の充満した胆嚢も認めた。まず、順行性に胆嚢摘出術を行った。続いて嚢胞を摘出することとし、嚢胞と胃の境界の漿膜を切除した後、胃小彎側の筋層と嚢胞を鋭的・鈍的に剥離していった。一部粘膜と連続した部分があり、同部は粘膜とともに胃壁全層を嚢胞につけて摘出した。胃は層々

に縫合閉鎖した。

摘出標本 : 嚢胞は球状であり、1層の白色の上皮に覆われた真性嚢胞であった。内側面に一部褐色調の部分も認められた。内容液は黄褐色に混濁

Table 1 Reported case of bronchogenic cyst in abdomen in Japan

	Author	Age, Sex	Chief complaint	Location	CT	MRI	Preoperative diagnosis
1	Ishihara. M <sup>2)</sup>	36 y.o. M	dysphagia	intra-abdominal esophagus	low density	none	liver cyst
2	Takeshita. K <sup>3)</sup>	53 y.o. M	left back pain	gastric lesser curvature	low density	none	abscess in gastric wall
3	Ogasahara. K <sup>4)</sup>	60 y.o. M	dysphagia	intra-abdominal esophagus	low density	T1 high intensity T2 high intensity	cystic lesion
4	Hase. N <sup>5)</sup>	16 y.o. F	epigastralgia fever vomiting	gastric lesser curvature	low density	T1 low intensity T2 high intensity	cystic lesion
5	Betsunou. H <sup>6)</sup>	67 y.o. F	none	gastric greater curvature	low density	T1 iso intensity T2 high intensity	non-functioning adrenal tumor
6	Nagase. F <sup>7)</sup>	36 y.o. M	epigastralgia back pain	pancreatic head	low density	T1 high intensity T2 high intensity	pancreatic cyst
7	Ours	59 y.o. F	epigastraloyeA- uu J9gia	gastric lesser curvature	low density	T1 low intensity T2 high intensity	cystic lesion

しており、粘調であった (Fig. 4)。

病理組織学的診断：嚢胞壁は絨毛円柱上皮で覆われており、腺組織を有し、壁下層には線維性筋性組織が発達しており、Bronchogenic cyst と診断された。軟骨組織は認めなかった (Fig. 5)。

術後経過：経過良好で術後 16 日目に退院し、約 6 年半経過した現在も再発なく存命中である。

### 考 察

Bronchogenic cyst の多くは肺内や縦隔内など胸部に存在し、腹部に発生することは非常にまれである。そのほとんどが後腹膜に発生しており、1984 年以降医学中央雑誌で検索しえた限りでは、腹腔内発生は腹部食道 2 例、胃小彎側 2 例、胃大彎側 1 例、臍頭部 1 例の計 6 例のみである<sup>2)~7)</sup> (Table 1)。

正常発生では、胎生 4 週目に達すると、肺芽が前腸の腹側壁から膨らみ出し、尾側に拡張していき、その後前腸から分離し、気管・気管支を形成する。

Bronchogenic cyst の発生は、横隔膜の形成が始まる胎生 7 週目以前に、肺・気管支との連続性を欠いた異常発芽、異常分離が生じ、肺芽が腹部に移動することに起因すると考えられている<sup>8)9)</sup>。また Braffman ら<sup>10)</sup>は呼吸器原基より異常発芽・異常分離した肺芽が、気管気管支との連続性を欠き、前腸の背方部からなる食道と接着し、食道が尾側に成長するのに伴って、肺芽自体も尾側に移動す

るためであろうと説明している。

主訴に特徴的なものはなく、病変部位が腹部食道であれば嚥下困難、胃小彎側であれば心窩部痛、臍頭部なら上腹部痛、背部痛など Bronchogenic cyst の存在部位によってさまざまな症状を認めた。また、時に症状を認めないこともあり、他病変の精査のときに偶然発見されたものもある。本症例も心窩部痛を主訴としたが、急性胆嚢炎、胆石症によるものと考えられ、その精査中に Bronchogenic cyst が偶然発見されたものであった。

画像診断では、CT で辺縁平滑、境界明瞭で内部に均一な density を持つ腫瘤として認められるが、内容物の蛋白濃度やカルシウム、鉄、炎症の有無などでさまざまな CT 値をとる。また、MRI においても、嚢胞性疾患の典型例である T<sub>1</sub> 強調像で low intensity、T<sub>2</sub> 強調像で high intensity となる例ばかりでなく、T<sub>1</sub> 強調像、T<sub>2</sub> 強調像とも high intensity となることもあり、画像診断で確定診断することは困難とされている<sup>3)7)9)</sup>。腹腔内発生の 6 例中、CT では全例 low density であったが、一部に不均一な内部 density を持つものも認められた。また、MRI は 4 例に施行されており、T<sub>1</sub> 強調像では 2 例が high intensity、1 例が iso intensity、1 例が low intensity、T<sub>2</sub> 強調像では 4 例すべてが high intensity であり、一定の傾向はなく、多様である。本症例では CT、MRI とも典型的な嚢胞性疾患の画像を呈しており、腹腔内嚢胞と診断されて

いたが、Bronchogenic cyst の診断は摘出標本の病理組織学的所見により確定した。

理学的所見，画像診断から Bronchogenic cyst と術前に診断することは非常に困難であり，腹腔内発生 の 6 例中術前から Bronchogenic cyst と診断されていた症例はない。肝嚢胞 1 例，胃壁膿瘍 1 例，脾嚢胞性腫瘍 1 例，内分泌非活性左副腎腫瘍 1 例，嚢胞性疾患 2 例の術前診断であった。本症例も術前確定診断はされておらず，原発巣不明の腹腔内嚢胞として手術が施行された。

Bronchogenic cyst の病理組織学的診断においては気管支正常組織である線毛円柱上皮，粘液腺，平滑筋線維，線維性組織，弾性組織，軟骨を含むとされている。しかし，線毛円柱上皮は全例認めるものの，すべての構成物がそろっている例はむしろ少なく，Bagwell らは 42 例中軟骨は 6 例，平滑筋は 31 例，腺組織は 10 例にしか認められず，また中島らは 15 例中軟骨は 3 例，平滑筋は 9 例，腺組織は 10 例にしか認められなかったと報告している<sup>11)12)</sup>。腹腔内発生 の 6 例中平滑筋は 4 例，軟骨は 3 例にしか認めなかった。軟骨や腺組織を含まない不完全型気管支原性嚢胞の場合，食道嚢胞や胃十二指腸嚢胞，異所性気管支肺分画症との病理学的鑑別が非常に困難とされている<sup>4)7)</sup>。本症例も軟骨は認めなかったものの，線毛円柱上皮，平滑筋，腺組織を認め，内部に黄褐色の粘調な内容を認めたため Bronchogenic cyst と診断された。

Bronchogenic cyst は，術前の確定診断は困難で，悪性腫瘍を合併したとの報告もあり，また嚢胞縫縮術のみでは再発例もあることから，外科的切除が望ましい<sup>13)~15)</sup>。完全切除例では再発はないと報告されている<sup>5)</sup>。

Bronchogenic cyst は多くは肺内や縦隔内など胸部に存在し，腹部の発生頻度は非常に低い。しかし，術前診断のつかない腹部の嚢胞性疾患の場合，鑑別診断の 1 つとして挙げうると思われた。

## 文 献

- 1) Maier HC : Bronchogenic cyst of the mediastinum. *Ann Surg* 127 : 476-502, 1948
- 2) 石原昌清, 玉城政弘, 当山勝徳ほか : 腹部食道壁に迷入した Bronchogenic Cyst の 1 手術例. *沖繩医学会誌* 24 : 21-24, 1987
- 3) 竹下浩二, 渡辺信之, 佐藤 明ほか : Abdominal bronchogenic cyst の 2 例. *臨放線* 35 : 1069-1072, 1990
- 4) 小笠原敬三, 瓜生原健嗣, 花木宏治ほか : 腹部食道壁内に発生した気管支原性嚢胞の 1 例. *日臨外医学会誌* 54 : 2817-2821, 1993
- 5) 長谷尚子, 柏原 昶, 大木 篤ほか : 興味ある超音波検査所見を呈し，内溶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
- 6) 別納弘法, 此元竜雄, 原岡正志ほか : 腹腔鏡により摘出し得た気管支原性嚢胞の 1 例. *大分病医誌* 29 : 155-157, 2000
- 7) 長瀬文孝, 宮田充樹, 春日井邦ほか : 膈頭部に認められた気管支嚢胞の 1 例. *Gastroenterol Endosc* 42 : 1857-1863, 2000
- 8) Sander TW : ラングマン人体発生学. 安田峯生, 沢野十蔵訳. 第 8 版. メディカル・サイエンス・インターナショナル, 東京, 2001, p241-249
- 9) 柳瀬 晃, 末松 哲, 磯辺 真ほか : 後腹膜に発生した bronchogenic cyst の 1 例. *日臨外医学会誌* 57 : 1220-1225, 1996
- 10) Braffman B, Keller R, Gendal ES et al : Subdiaphragmatic bronchogenic cyst with gastric communication. *Gastrointest Radiol* 13 : 309-311, 1988
- 11) Bagwell CE, Schiffman RJ : Subcutaneous bronchogenic cysts. *J Pediatr Surg* 23 : 993-995, 1988
- 12) 中島洋子, 緒方茂寛, 新垣 実ほか : 皮下に発生した気管支原性嚢胞の 1 例. *形成外科* 39 : 485-490, 1996
- 13) 大塚憲雄, 大熊利忠, 本郷弘昭ほか : 縦隔気管支性嚢腫に腺癌を認めた 1 例. *癌の臨* 31 : 1941-1985
- 14) Murphy JJ, Blair GK, Fraser GC et al : Rhabdomyosarcoma Arising Within Congenital Pulmonary Cysts, Report of Three Cases. *J Pediatr Surg* 27 : 1364-1367, 1992
- 15) 松尾 聡, 内山貴堯, 君野孝二ほか : 気管支性嚢腫切除例の検討. *大分病医誌* 19 : 52-57, 1990

## A Case of Bronchogenic Cyst of the Stomach

Masakazu Fujii, Motonori Okino, Kentaro Fujioka and Katsuyuki Yamashita  
Department of Surgery, Onoda City Hospital

A 59-year-old woman, admitted our hospital for epigastralgia, was diagnosed as having acute cholecystitis and an abdominal cyst. She had been treated with medication at another hospital. We performed a cholecystectomy and then cut the border between the stomach and the abdominal cyst. We removed the cyst with a part of the gastric mucosa after separating the cyst from the muscle of stomach. The histological diagnosis was a bronchogenic cyst. The patient has remained in good health during the approximate 6.5 years since surgery. The bronchogenic cyst is a congenital cyst that arises from a developmental aberration of the primitive foregut. The bronchogenic cyst is benign, but surgery is indicated because preoperative diagnosis is very difficult and there is a possibility of complicating malignancy. A bronchogenic cyst in the abdomen is uncommon ; only 7 cases including ours have been reported in Japan.

Key words : bronchogenic cyst, cyst in stomach, abdominal cyst

[ Jpn J Gastroenterol Surg 37 : 388 393, 2004 ]

Reprint requests : Masakazu Fujii Department of Surgery, Onoda City Hospital  
1863 1, Higashitakatamari, Onoda-shi, 756 0094 JAPAN

---