

CASE REPORT

咯血で発症し気管支動脈塞栓術後に切除した末梢発生粘表皮癌の1例

小館満太郎¹・大崎敏弘¹・徳渕 浩¹・
山本英彦²・海老規之²・村上純滋³

**A Case of Peripheral Mucoepidermoid Carcinoma of the Lung
with Hemoptysis Successfully Resected
After Bronchial Arterial Embolization**

Mantaro Kodate¹; Toshihiro Osaki¹; Hiroshi Tokubuchi¹;
Hidehiko Yamamoto²; Noriyuki Ebi²; Junji Murakami³

¹Department of Chest Surgery, ²Department of Respiratory Medicine, ³Department of Radiology, Iizuka Hospital, Japan.

ABSTRACT — **Background.** Mucoepidermoid carcinoma is a rare malignancy occasionally arising from segmental or subsegmental bronchi. We report a case of mucoepidermoid carcinoma with hemoptysis which was resected after bronchial arterial embolization. **Case.** A 57-year-old man presented with hemoptysis and was admitted to the Department of Respiratory Medicine. Chest X-ray showed ground glass opacity in the right upper lung field, and CT showed a solid tumor. Right bronchial arteriography demonstrated a hypervascular area in the right upper lobe and embolization was performed. Right upper lobectomy with hilar and mediastinal lymph nodes dissection was performed 11 days after embolization. Examination of the resected specimen revealed a tumor 21 mm in diameter and most of the tumor was necrotic due to embolization. Histologically, the tumor cells were composed of clear cells, intermediate cells and squamous epithelial cells, indicating mucoepidermoid carcinoma (pT1N0M0, stage IA). **Conclusion.** Bronchial arterial embolization should be considered because mucoepidermoid carcinoma can cause hemoptysis even if it originates in the periphery of the lung.

(JJLC. 2009;49:298-302)

KEY WORDS — Mucoepidermoid carcinoma, Hemoptysis, Bronchial arterial embolization

Reprints: Mantaro Kodate, Department of Chest Surgery, Iizuka Hospital, 3-83 Yoshiomachi, Iizuka-shi, Fukuoka 820-8505, Japan (e-mail: mkodateh1@aih-net.com).

Received August 27, 2008; accepted February 2, 2009.

要旨 — **背景.** 粘表皮癌は区域あるいは亜区域気管支から発生する比較的稀な疾患である。今回、咯血で発症し気管支動脈塞栓術後に肺切除を行った末梢発生の粘表皮癌の1例を経験した。**症例.** 57歳男性。血痰が持続するため精査加療目的にて当院呼吸器内科入院となった。胸写上、右上肺野にすりガラス状の透過性低下を認め、胸部CTでは内部均一な腫瘤病変を認めた。咯血を繰り返すため、気管支動脈塞栓術を先行させた後、11日目に右上葉切除およびリンパ節郭清 (ND2a) を行った。右肺

上葉S²に腫瘍径21mmの充実性結節がみられ、腫瘍の大半は動脈塞栓術による壊死に陥っていた。病理学的に腫瘍細胞の多くは淡明細胞で、中間細胞が混在し、扁平上皮細胞は少数みられ、低悪性度の粘表皮癌、pT1N0M0、p-stage IAと診断した。**結論.** 粘表皮癌は末梢肺病変であっても咯血を来すことがあり、気管支動脈塞栓術を積極的に考慮すべきである。

索引用語 — 粘表皮癌、咯血、気管支動脈塞栓

飯塚病院¹呼吸器外科、²呼吸器内科、³画像診療科。
別刷請求先：小館満太郎、飯塚病院呼吸器外科、〒820-8505 福

岡県飯塚市芳雄町3-83 (e-mail: mkodateh1@aih-net.com)。
受付日：2008年8月27日、採択日：2009年2月2日。

はじめに

粘表皮癌は区域あるいは亜区域気管支から発生する比較的稀な疾患である。今回、咯血で発症し気管支動脈塞栓術後に肺切除を行った、末梢発生の低悪性度粘表皮癌の1例を経験した。

症例

症例：57歳男性。

現病歴：数年前より健康診断で右肺の結節影を指摘されていた。2007年4月上旬夜、新鮮血の吐血を認め近医を受診した。上部消化管内視鏡を施行するも明らかな出血源はなく、咯血を疑われて2日後に当院呼吸器内科を紹介受診した。血痰、咯血は減少してきていたため、外来経過観察となった。翌日夜、手のひら半分程度の新鮮血咯血を認めたため入院となった。

既往歴：高血圧にて降圧薬内服中。

喫煙歴：40本×34年。飲酒歴なし。

入院時検査所見：WBC 8180/ μ l, RBC 463万/ μ l, Hb 13.4 g/dl, HCT 38.9%, PLT 25.4万/ μ l, 血液生化学：特記所見なし, PT% 116.0%, PT-INR 0.93, APTT 33.1 S, 腫瘍マーカー：CEA 2.4 ng/ml (0~5), SCC 1.2 ng/ml (0~15), CYFRA 1.1 ng/ml (<3.5)。

胸部単純X線 (Figure 1)：右上肺野にすりガラス状の透過性低下を認めた。右上肺野に淡い結節陰影もみられた。

胸部CT (Figure 2)：右上葉S²に境界明瞭で内部均一な約27×26 mmの腫瘍病変を認めた。末梢の肺野には気管支に沿ってすりガラス影、浸潤影が混在しており、肺区域(S²)に一致してみられることから、腫瘍からの出血

に伴う血液吸入肺と考えられた。他の肺に腫瘍性病変は認めず、肺門や縦隔リンパ節の腫大も認めなかった。咯血を繰り返すことから、まず気管支動脈塞栓術を先行させる方針とし、気管支動脈造影を行った。

気管支動脈造影：右気管支動脈は軽度拡張し、右第3肋間動脈と共通幹を形成してaortaより分岐していた。右気管支動脈造影で、右上葉S²の結節部および周辺に濃染が認められ、咯血の責任血管と考えられた (Figure 3a)。

気管支動脈塞栓術：右第3肋間動脈分岐を十分に越えたところから、1 mm角Sponge®細片を流した後、マイクロコイルにて右気管支動脈を塞栓した。塞栓後の右気管支動脈造影では右第3肋間動脈の温存、右気管支動脈の閉塞を確認した (Figure 3b)。

気管支鏡検査：右B²内部には凝結塊が存在し、血液の逆流も認めた。しかし、区域気管支までの中枢気道に腫瘍は認めなかった。

TBLBによる出血のリスクがあること、原発性肺癌(cT1N0M0, stage IA)の可能性が高いことより、TBLBは施行せず、気管支動脈塞栓術後11日目に手術(右上葉切除+ND2a)を行った。

手術所見：塞栓後ではあるものの偶発的な術中気道内出血発生時に気管支を迅速に処理することも考え、胸腔鏡下アプローチは危険と判断し左側臥位にて後側方切開を加え、右第4肋間にて開胸した。癒着なし、胸膜プラークなし、胸水なし (E0)。胸膜播種なし (D0)。右S²に20 mm大の弾性硬の腫瘍を触知し、軽度の胸膜嵌入を伴うが胸膜表面への露出なく (P0)。他の肺内腫瘍は触知しなかった (PM0)。病変は深部に存在するため部分切除や核出は困難であり、また術中針生検は出血や播種のリスクがあると判断して、確定診断は得られていなかったが、

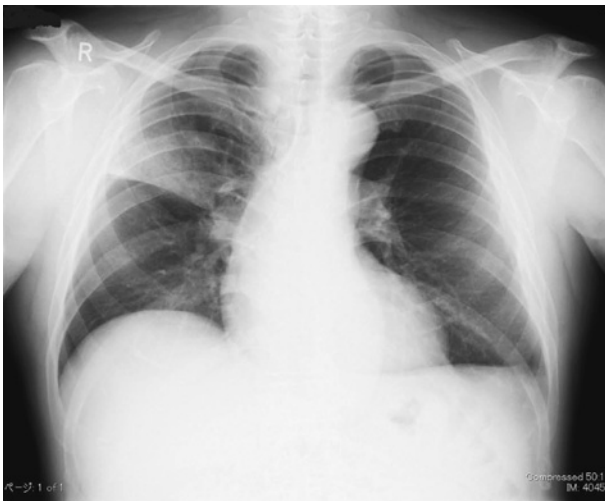


Figure 1. Chest X-ray on the first admission shows an abnormal shadow in the right lung field.

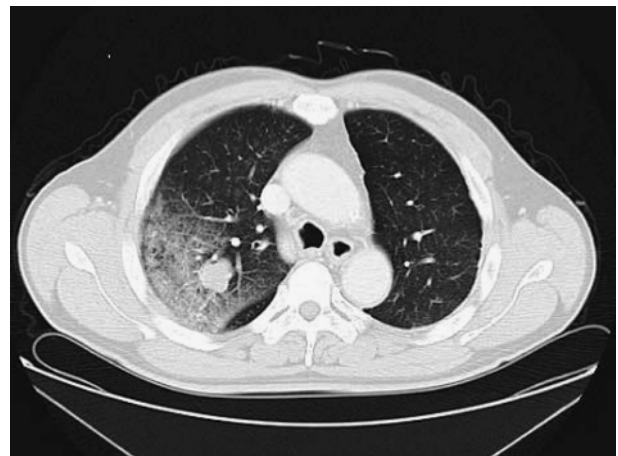


Figure 2. Chest CT scan shows a solid nodule and infiltrate in the right upper lobe (S²).

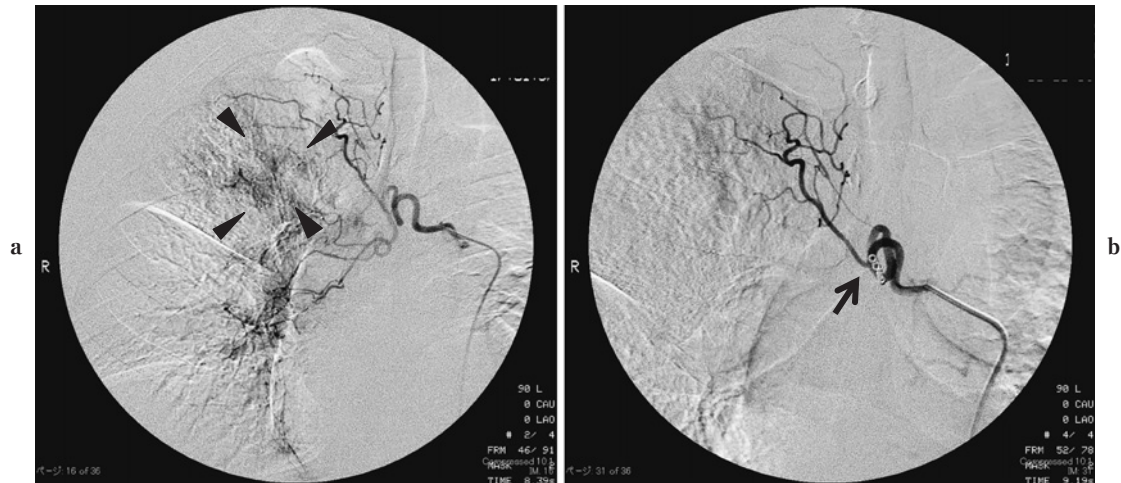


Figure 3. Bronchial arteriography shows hypervascular area in the right upper lobe (a, arrowheads). The right bronchial artery was occluded after bronchial arterial embolization (b, arrow).

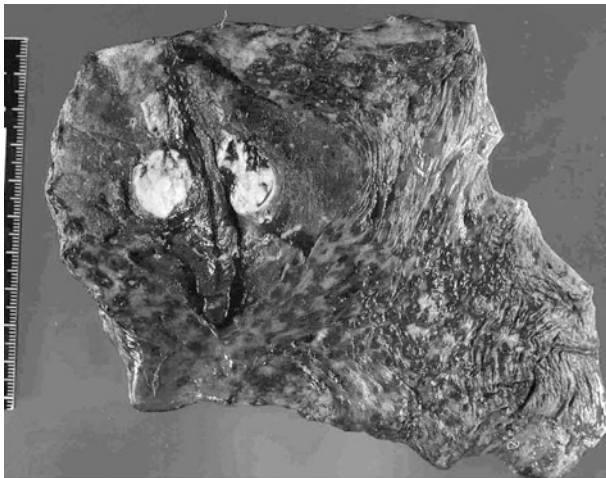


Figure 4. A solid nodule in the right upper lobe with necrosis.

標準的に右上葉切除を行った。術中迅速病理にて carcinoma の診断を得たため、縦隔肺門リンパ節郭清 (ND2a) を施行した。肉眼的に明らかなリンパ節転移を認めず (N0)。手術時間 4 時間 22 分、出血量 145 g であった。

切除標本 (Figure 4)：右肺上葉 S² に腫瘍径 21×18 mm の境界明瞭な充実性結節を認め腫瘍周囲に血液吸引像を認めた。腫瘍の大半は動脈塞栓術のためによる壊死に陥っていた。

病理所見：腫瘍の中心部は気管支動脈塞栓による壊死した細胞で充満している。壊死した細胞の周囲に腫瘍細胞が残存しており、気管支腺、気管支軟骨が近傍にみられる。腫瘍細胞の多くは淡明細胞 (扁平上皮に類する細胞) で (Figure 5a)、細胞質に乏しい中間細胞が混在している (Figure 5b)。扁平上皮細胞はごく少数みられる。

Alcian-blue 染色で、腫瘍胞巣内に少数の粘液産生細胞が存在する (Figure 5c)。34βE12 染色 (高分子サイトケラチンを認識) は陽性であり (Figure 5d)、粘液産生細胞・類表皮細胞・中間細胞が混在していた。リンパ節には転移を認めなかった。以上より、低悪性度の粘表皮癌 pT1N0M0、p-stage IA と診断された。

術後経過：術後経過良好で第 6 術日に退院した。病理病期 IA 期の低悪性度粘表皮癌であるため、術後補助化学療法は行わず。術後 12 ヶ月現在、再発は認めていない。

考 察

粘表皮癌は肺癌切除例の約 0.16% にみられ、¹ 性差は認めないが、² 平均年齢は 40.1 歳と一般の肺癌に比べて若い傾向にある。³ その発生部位は主気管支から区域気管支までの中枢気道の付属腺から多く発生するとされ、² 鈴木らの報告でも 81% が区域気管支までの中枢側発生であったとしている。³ 本腫瘍は中枢側気管支内にポリプ状に発育・浸潤しやすいことに加え、易出血性でもあるため、容易に気道の閉塞症状や血痰・咯血を来すと考えられている。^{2,3}

咯血は非癌性疾患に多いが、肺癌においてもみられるがん救急のひとつであり、短時間に多量の咯血がみられる場合には側臥位とし、気管支鏡による intervention や気管支動脈塞栓が必要となる。⁴ 鈴木らの粘表皮癌 104 例の検討では、血痰・咯血を呈した症例は 25 例 (24%) であるが、本症例のように気管支動脈塞栓術を要した症例の記載はない。板谷らは、気道内大量出血を来し、健側片肺挿管と気管支動脈塞栓術後に左下葉切除を施行した中枢発生の粘表皮癌例を報告している。⁵ 本症例は末梢発生の粘表皮癌であったが繰り返す咯血を認め、気管

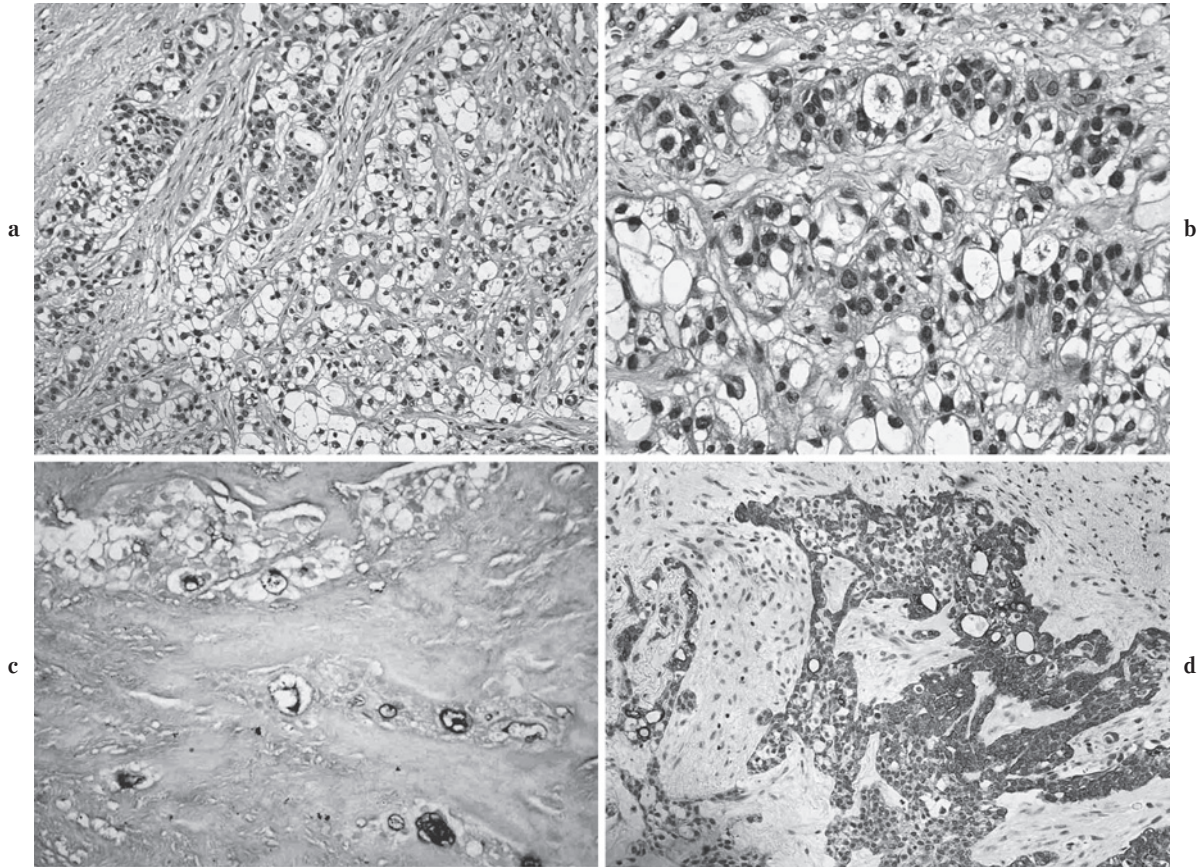


Figure 5. Microscopic appearance of tumor (a, $\times 40$). Tumor is characterized by the presence of squamoid cells and intermediate type cells (b, $\times 80$). They are positive for mucin (Alcian-blue) (c, $\times 40$) and cytokeratin (34 β E12) (d, $\times 40$).

支動脈塞栓術にて出血をコントロールした後に待機的手術を行った。本症例のように中枢気道に明らかな病変がない場合でも、粘表皮癌は咯血する可能性があることを認識すべきである。

粘表皮癌の組織所見は、扁平上皮様細胞、粘液産生細胞、中間細胞の特徴を持つ悪性上皮性細胞である。² 組織学的悪性度は、異型度・核分裂数・壊死の有無などにより低悪性度～高悪性度に分類される。⁶ 鈴木らの報告では、低悪性度が71%、高悪性度が29%であり、低悪性度のものは完全切除されれば再発転移は少なく、他の肺癌より予後良好とされる。^{2,3,7} しかしながら、低悪性度でもリンパ節転移、遠隔転移を来した報告もあり、⁸ 術後の厳重な経過観察を要すると考えられる。高悪性度のものはリンパ節転移のみならず遠隔転移もおこすことがある。本症例も低悪性度例であるが術後の厳重な経過観察が必要と思われる。

結語

咯血で発症し気管支動脈塞栓術後に肺切除を行った低

悪性度粘表皮癌の1例を経験した。本腫瘍では末梢肺病変であっても咯血を来すことがあり、咯血が持続する場合は、気管支動脈塞栓術を積極的に考慮すべきである。

謝辞：本症例の病理診断に関して指導して頂いた飯塚病院病理大屋正文先生、平橋美奈子先生、東京医科大学病理診断学講座長尾俊孝先生に深謝致します。

本論文の要旨は第48回日本肺癌学会総会（2007年11月、名古屋市）において発表した。

REFERENCES

1. Kazui T, Osada H, Fujita H, Japanese Association for Thoracic Surgery Committee for Scientific Affairs. Thoracic and cardiovascular surgery in Japan during 2004. *Jpn J Thorac Cardiovasc Surg.* 2006;54:363-385.
2. Yousem SA, Nicholson AG. Mucoepidermoid carcinoma. In: Travis WD, Brambilla E, Muller-Hermelink HK, et al, eds. *World Health Organization Classification of Tumors, Pathology and Genetics. Tumors of the Lung, Pleura, Thymus and*

Heart. Lyon: IARC Press; 2004:63-64.

3. 鈴木一彦, 森 裕二, 中田尚志, 大西哲郎, 阿部庄作. 気管支管状切除・端々吻合術を施行した中間気管支幹原発粘表皮癌の1例—本邦報告104例の臨床像に関する文献的考察—. 肺癌. 2000;40:121-127.
4. がん救急 がん治療認定医教育セミナーテキスト. 日本がん治療認定医機構教育委員会, 編集. 第1版. 東京: 日本がん治療認定医機構教育委員会; 2007:56.
5. 板谷 徹, 関谷 洋, 朝井克之, 高橋 毅. 術前に気道内大量出血をきたした粘表皮癌の1例. 日呼外会誌. 2006; 20:777-780.
6. Shields TW. Mucoepidermoid carcinoma. In: *General Thoracic Surgery*. 5th ed. Philadelphia: Lippincott W&W; 2000: 1510-1514.
7. 杉本幸司, 足立秀治, 楠本昌彦, 糸氏英一郎, 河野通雄, 大林千穂. 臨床的悪性経過を示した肺粘表皮癌の1例—その臨床経過と本邦13例の臨床的悪性例に関する文献的考察—. 肺癌. 1993;33:247-253.
8. Barsky SH, Martin SE, Matthews M, Gazdar A, Costa JC. “Low grade” mucoepidermoid carcinoma of the bronchus with “high grade” biological behavior. *Cancer*. 1983; 51:1505-1509.