

CASE REPORT

胸部 CT で肺癌を疑い切除した肺毛細血管腫 (capillary hemangioma of the lung) の 1 切除例

羽切周平¹・吾妻寛之¹・吉岡 洋¹

A Resected Case of Capillary Hemangioma of the Lung Suspected to Be Lung Cancer on Chest Computed Tomography

Shuhei Hakiri¹; Hiroyuki Agatsuma¹; Hiromu Yoshioka¹

¹Department of Thoracic Surgery, Nagoya Daini Red Cross Hospital, Japan.

ABSTRACT — **Background.** Capillary hemangioma is very rare, particularly in the lung. We report a case that was suspected to be lung cancer, based on chest CT findings, but was pathologically diagnosed as capillary hemangioma of the lung. **Case.** The patient was a 45-year-old man. A small nodular shadow was incidentally identified in the left lower lung on the left diaphragm on a chest radiograph during a comprehensive medical checkup. A small nodule, 1 cm in diameter was recognized in the left S⁹b on chest computed tomography (CT), and lung cancer was suspected. Positron-emission tomography CT was performed, but did not reveal any marked uptake in the tumor or in any lymph nodes. The preoperative diagnosis was benign tumor, but we were unable to definitively exclude early lung cancer, and partial resection was performed using video-assisted thoracoscopy. On pathological examination, the lesion was a blackish-brown, solid, borderless tumor, measuring 9 × 4 mm. Many dilated capillary vessels were growing densely in the tumor, and as no malignancy was apparent it was diagnosed as capillary hemangioma of the lung. The postoperative course was uneventful. **Conclusion.** Solitary capillary hemangioma of the lung is very rare, particularly in adults. We report a case with reference to the literature regarding discrimination of early lung cancer and pulmonary capillary hemangiomatosis, which has similar pathological findings.

(JLCC. 2010;50:841-845)

KEY WORDS — Lung cancer, Solitary capillary hemangioma of the lung, Pulmonary capillary hemangiomatosis

Reprints: Shuhei Hakiri, Department of Thoracic Surgery, Nagoya Daini Red Cross Hospital, 2-9 Myoukencho, Showa-ku, Nagoya-shi, Aichi 466-8650, Japan (e-mail: h_shuhei_1024@yahoo.co.jp).

Received March 23, 2010; accepted September 8, 2010.

要旨 — **背景.** 毛細血管腫 (capillary hemangioma) は、肺での発生は非常に稀である。今回我々は、胸部 CT で肺癌が疑われ、病理組織検査で肺毛細血管腫と診断された症例を経験したので報告する。**症例.** 症例は 45 歳男性。人間ドックの胸部単純 X 線検査にて左下肺野横隔膜上に小結節影を指摘された。胸部単純 CT 検査で左 S⁹b に直径 1 cm 大の結節影を認め、肺癌を疑って PET-CT を行ったが、腫瘍・リンパ節ともに有意な集積を認めなかった。第一に良性腫瘍が疑われたが、早期肺癌も否定できないため、診断・治療目的に胸腔鏡下肺部分切除術

を施行した。病理組織検査では、腫瘍は境界不明瞭な黒褐色の硬い 9 × 4 mm 大の腫瘍で、拡張した毛細血管が密に増生していた。悪性像はみられず、肺毛細血管腫と診断された。術後経過は良好であった。**結論.** 今回経験した肺の孤立性毛細血管腫は特に成人では非常に稀であり、また組織像が類似する肺毛細血管腫症 (pulmonary capillary hemangiomatosis; PCH) や、早期肺癌との鑑別について文献的考察を加えて報告する。

索引用語 — 肺癌, 肺孤立性毛細血管腫, 肺毛細血管腫症

¹名古屋第二赤十字病院呼吸器外科.

別刷請求先: 羽切周平, 名古屋第二赤十字病院呼吸器外科,
〒466-8650 愛知県名古屋市昭和区妙見町 2-9 (e-mail: h_shuhei_

1024@yahoo.co.jp).

受付日: 2010 年 3 月 23 日, 採択日: 2010 年 9 月 8 日.

はじめに

毛細血管腫 (capillary hemangioma) は毛細血管の単純な増殖を特徴とした血管腫の一つであり、皮膚、粘膜、肝臓などによくみられるが、肺での発生は非常に稀である。今回我々は、胸部 CT で肺癌が疑われた孤立性結節性病変に対して、診断・治療目的に胸腔鏡下手術を施行し、病理組織検査で肺毛細血管腫と診断された症例を経験したので報告する。

症 例

症例：45 歳，男性。

主訴：胸部異常影。

既往歴：15 歳虫垂炎にて手術。28 歳，39 歳鼠径ヘルニアにて手術。

現病歴：2008 年 8 月，人間ドックの胸部単純 X 線検査にて左下肺野横隔膜上に小結節影を指摘され近医受診した。胸部単純 CT 検査で左 S⁹ に小結節影を認め，2008 年 11 月，診断・治療目的に当科を紹介受診した。

家族歴：特記すべきことなし。

生活歴：喫煙歴なし。

初診時現症：身長 179.0 cm，体重 71.0 kg，その他，特記すべきことなし。

初診時検査所見：血液生化学所見に異常なし。CEA，SCC，CYFRA，ProGRP，SLX 正常範囲内。カンジダ抗原，アスペルギルス抗原ともに陰性。β-D グルカン正常範囲内。喀痰の抗酸菌塗抹検査陰性。

初診時胸部単純 X 線写真：左横隔膜直上に約 1 cm 大の淡い結節影を認める (Figure 1)。

初診時胸部単純 high-resolution CT (HRCT) 写真：胸部単純 HRCT 検査で左 S⁹b に直径 1 cm 大の小結節影を認め，腫瘍辺縁部はすりガラス状で微細な毛羽立ちがあり，内部に顆粒状低吸収域が散見される。また腫瘍は縦隔条件では完全に消失する。その他，肺野と縦隔に明らかな異常は認めない (Figure 2a, 2b)。

PET-CT 検査：腫瘍・リンパ節ともに有意な集積を認めない。

臨床経過：以上の検査結果から良性腫瘍が疑われたが，高分化腺癌も否定できず，また横隔膜直上，最大径約 1 cm の腫瘍のため，CT ガイド下生検は困難と判断し，診断・治療目的に胸腔鏡下肺部分切除の方針とした。もし高分化腺癌の場合でも，最大径 1 cm と小さく，画像上は非浸潤癌と予想されたため，部分切除で完全切除可能と判断した。

2008 年 12 月，CT ガイド下ポイントマーカー留置後，鏡視下にアプローチしたところ，S⁹ 表面にポイントマーカー糸を認めた。鏡視下には，胸膜面から判断されるよ



Figure 1. Chest radiograph shows a small nodule on the left diaphragm.

うな他の肺腫瘍病変は認めず，癒着や胸水，胸膜播種も認めなかった。ポイントマーカーを指標とし，十分なマージンを取って S⁹b の腫瘍を自動縫合器で部分切除，摘出した (Figure 3a)。

病理組織学検査：ホルマリン固定標本断面の肉眼所見では，胸膜直下に境界不明瞭な黒褐色の硬い 9×4 mm 大の腫瘍を認めた (Figure 3b)。組織学的に，腫瘍には拡張した毛細血管が密に増生しており，辺縁では肺胞隔壁内に沿って進展していた。腫瘍周囲には出血が目立ち，炎症細胞浸潤は乏しかった。免疫組織化学的には，病変内の血管腔は CD31，CD34 陽性，D2-40 陰性所見を示す内皮細胞 1 層に裏打ちされていて，病変内の中ほどには，cytokeratin 陽性上皮成分の消失を認め，同部には間質の浮腫状変化を認めた。線維化や壊死は認められなかった。内皮細胞にも周囲の細胞成分にも細胞異型は乏しかった。以上の所見より，capillary hemangioma と診断された。悪性像はない。腫瘍成分は断端には存在せず，病変は外科的に完全切除された (Figure 4)。

術後経過：術後経過は良好で，合併症もなく手術翌日に退院となった。2010 年 8 月現在，再発を認めていない。

考 察

肺の孤立性毛細血管腫 (solitary capillary hemangioma) の報告は非常に稀であり，文献的に検索できたのは，成

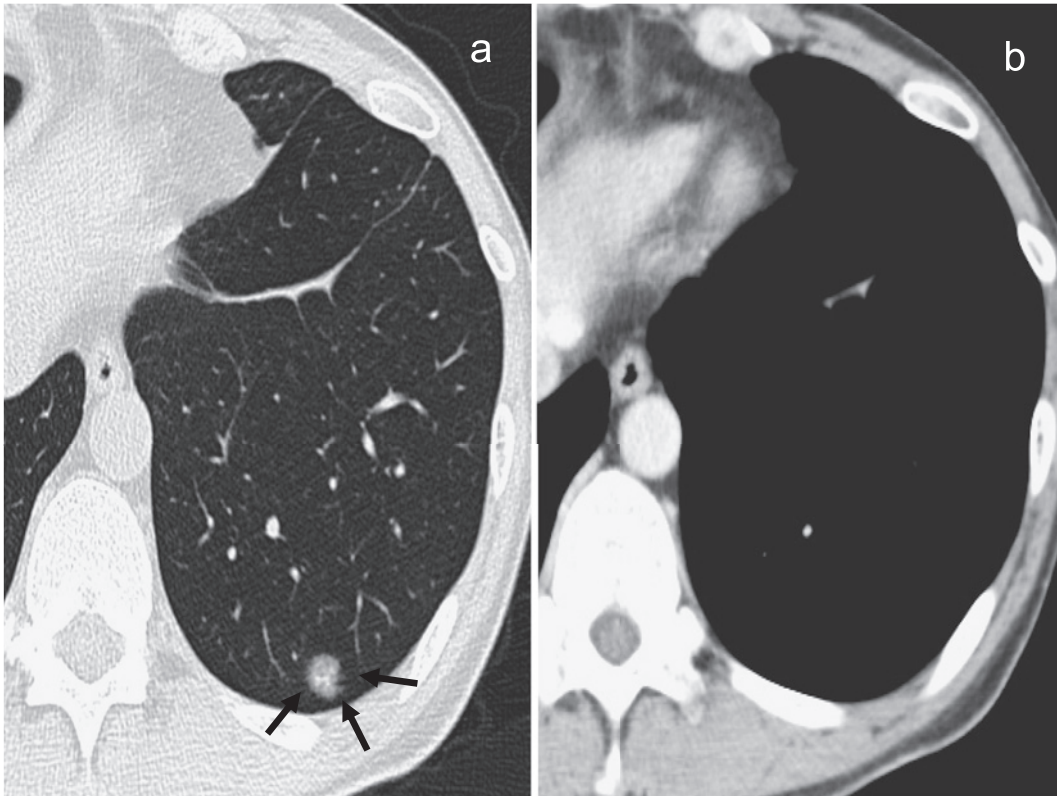


Figure 2. **a:** Chest high-resolution computed tomography (HR-CT) shows a small nodule measuring 12×11 mm, on the S⁹b. **b:** Chest HR-CT does not show a nodule in the mediastinal view.

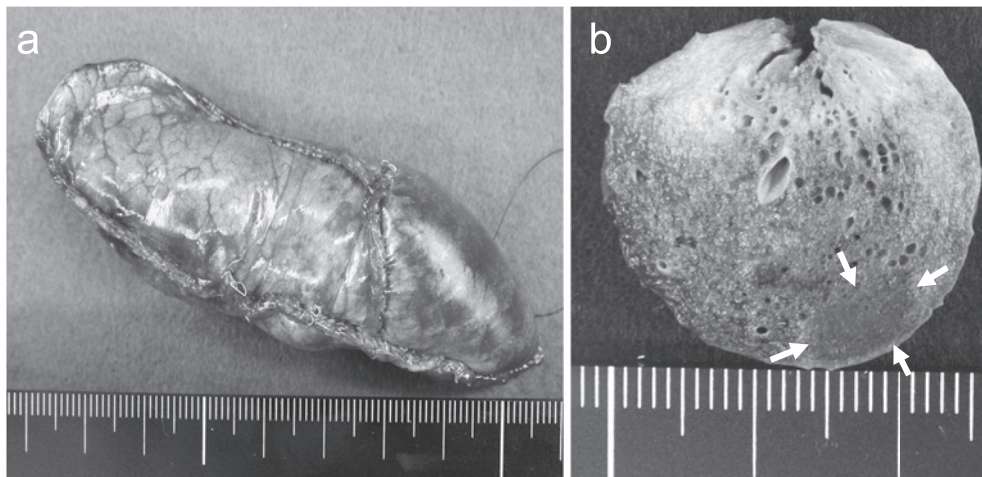


Figure 3. **a:** Macroscopic appearance of the resected lung. **b:** The nodule can be seen under the pleura, and was irregular in shape with a dark brown cut surface.

人では Fugo ら¹ など 20 数例のみであった (Table 1).¹⁻⁵ 一方、類似した組織像を示す肺毛細血管腫症 (pulmonary capillary hemangiomatosis, 以降 PCH) については、50 例以上の報告例が散見された。PCH は 1978 年に Wagen-

voort ら⁶ に最初に報告された疾患で、30~40 歳代に好発し、肺高血圧症状を高頻度に発症して、急速または緩徐に肺高血圧症状が進行した結果、数ヶ月~数年単位で死に至る予後不良の疾患であり、遺伝的素因も報告されて

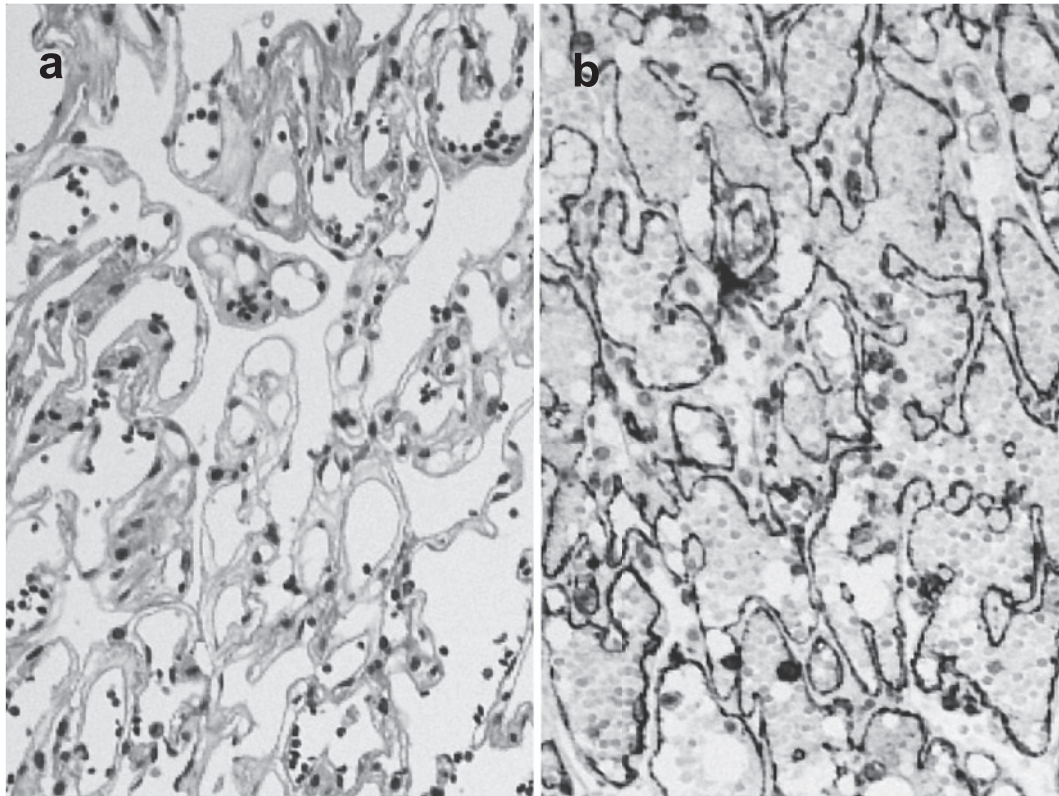


Figure 4. Microscopic appearance of the specimen. **a:** The lesion shows proliferation of the capillary vessels, and red blood cells and platelets can be seen in and around these vessels (Hematoxylin-eosin staining, $\times 400$). **b:** The capillary endothelial cells were positive for CD31 (CD31 immunostaining, $\times 400$).

Table 1. Reports of Solitary Capillary Hemangioma of the Lung

Author	Journals	Number of patients	Age and sex
Thorton	Surg Gynecol Obstet, 1944	1	unknown
Hood	J Am Med Assoc, 1953	1	65 F
Goorwitch	Dis Chest, 1955	1	59 F
Magri	Dis Chest, 1957	1	30 F
Brill	Radiology, 1977	7	All F, age is unknown
Fugo	Am J Surg Pathol, 2006	2	56 M, 48 F
Yanagawa	Jpn J Diag Pathol, 2007	1	55 M
Uekami	JJACS, 2008	1	54 F

いる.⁷⁻⁹ solitary capillary hemangioma は、まだ報告も少なく不明な点が多いが、再発や PCH への移行は報告されておらず、基本的に予後良好な疾患と思われる。Fugo らによると、両疾患の病理組織像は類似しているが、臨床症状と多発性・孤立性の違いなどから、solitary capillary hemangioma と PCH は全く異なった病態ではないかと述べている。しかし実際 PCH と報告された症例の中にも肺高血圧症状を示さない予後良好な報告例¹⁰ もあ

り、臨床症状と検査所見などから総合的な診断が必要だと思われる。自験例は孤立性で、進行性の肺高血圧症や肺静脈閉塞症が合併しておらず、PCH とは別の疾患と判断したが、今後も CT による定期フォローを行い、再発や PCH への移行がみられないことを確認していく必要はある。

また本例は CT 上高濃度で、spicula 形成や胸膜陥入も認めなかったが、縦隔条件で腫瘍は完全に消失するため、

現時点では高分化肺腺癌を完全に否定するのは困難であった。また solitary capillary hemangioma は、ground glass opacity (GGO) を伴う場合と、本例のように GGO 病変を伴わない結節影を示す場合が報告されており、上神ら⁵は腫瘍内の毛細血管の増生密度が高いと GGO 病変を伴わないのではと述べているが、現在のところ solitary capillary hemangioma の画像上の特徴についてコンセンサスは得られていない。また GGO を伴う場合は特に小型早期肺腺癌との鑑別が難しいようで、肺癌が疑われて切除された報告も複数みられた。^{4,5} 今後の症例集積や、診断技術の進歩が待たれるところである。

REFERENCES

1. Fugo K, Matsuno Y, Okamoto M, Kusumoto M, Maeshima A, Kaji M, et al. Solitary capillary hemangioma of the lung: report of 2 resected cases detected by high-resolution CT. *Am J Surg Pathol*. 2006;30:750-753.
2. Hood RT Jr, Good CA, Clagett OT, McDonald JR. Solitary circumscribed lesions of the lung: study of 156 cases in which resection was performed. *J Am Med Assoc*. 1953;152:1185-1191.
3. Goorwitch J, Madoff I. Capillary hemangioma of the lung. *Dis Chest*. 1955;28:98-103.
4. 柳川直樹, 加藤博久, 金内直樹, 大泉弘幸, 貞弘光章, 本山梯一. 小型肺腺癌との鑑別を要した孤発性末梢小型肺腫瘍の2例. *診断病理*. 2007;24:426-429.
5. 上神慎之介, 平井伸司, 三井法真, 松浦陽介, 濱中喜晴. 肺癌が疑われ手術を施行した孤立性の毛細血管腫の1例. *日本呼吸器外科学会雑誌*. 2008;22:641-644.
6. Wagenvoort CA, Beetstra A, Spijker J. Capillary haemangiomatosis of the lungs. *Histopathology*. 1978;2:401-406.
7. 西井伸洋, 松原広己, 小川愛子, 大田恵子, 藤尾栄起, 宮地克雄, 他. Pulmonary Capillary Hemangiomatosis の2症例. *Therapeutic Research*. 2003;24:1825-1826.
8. 小幡裕明, 大倉裕二, 小玉 誠, 末武修二, 渡部 裕, 阿部 暁, 他. 急速に進行し死の転帰をとった肺毛細血管腫症の1例. *心臓*. 2006;38:1192-1198.
9. 浅井芳人, 宮尾直樹, 中川将広, 阿部純久, 稲垣恭孝, 鈴木 修, 他. 肺毛細血管腫症の1剖検例. *日本内科学会雑誌*. 2008;97:2788-2790.
10. Takiguchi Y, Uruma T, Hiroshima K, Motoori K, Watanabe R, Hamaoka T, et al. Stable pulmonary capillary haemangiomatosis without symptomatic pulmonary hypertension. *Thorax*. 2001;56:815-817.