

CASE REPORT

肺炎像を伴った気管支原発顆粒細胞腫の1例

氷室直哉¹・鈴木 隆¹・南方孝夫¹・
大島 穰¹・田澤咲子²・門倉光隆¹

A Case of Endobronchial Granular Cell Tumor Accompanied by Pneumonia

Naoya Himuro¹; Takashi Suzuki¹; Takao Minakata¹;
Yutaka Oshima¹; Sakiko Tazawa²; Mitsutaka Kadokura¹

¹Division of Chest Surgery, Department of Surgery, ²Division of Diagnostic Pathology, Department of Pathology, Showa University School of Medicine, Japan.

ABSTRACT — **Background.** We herein report an extremely rare case of an endobronchial granular cell tumor accompanied by pneumonia. **Case.** A 40-year-old man showed an abnormal shadow on chest X-ray. Computed tomography (CT) of the chest revealed a tumor with a maximum diameter of 31 mm and an unclear border accompanied by consolidation in the S⁶ region of the right lung. The diagnosis could not be confirmed with a bronchoscopic examination. Right lower lobectomy was performed for the diagnosis and treatment. A histological examination revealed that the tumor cells were polygonal or ovoid in shape, with abundant eosinophilic and granular cytoplasm. The results of an immunohistochemical S-100 protein stain were positive, and we diagnosed the tumor as a granular cell tumor. **Conclusion.** Granular cell tumors are generally reported as benign, but there are some reports of malignant granular cell tumors, and in some cases, recurrence. Treatment, including surgical procedures, should be chosen carefully.

(JJLC. 2018;58:271-274)

KEY WORDS — Granular cell tumor, Benign tumor, Lobectomy, Pneumonia

Corresponding author: Takashi Suzuki.

Received March 20, 2018; accepted April 13, 2018.

要旨 — **背景.** 極めて稀である、肺炎像を伴う気管支原発の顆粒細胞腫を経験したので報告する。 **症例.** 40歳男性。健康診断で胸部異常陰影を指摘された。胸部CTでは右肺S⁶に境界不明瞭な最大径31mmの腫瘍を認め、その周囲にはconsolidationを伴っていた。気管支鏡検査を施行したが診断は得られず、診断・治療目的に胸腔鏡補助下右肺下葉切除術を施行した。病理組織検査では腫瘍

細胞は類円形・卵円形に増殖し、好酸性で顆粒状の豊富な細胞質を有していた。免疫染色ではS-100蛋白が陽性で、顆粒細胞腫と診断した。 **結論.** 顆粒細胞腫は一般的に良性腫瘍とされているが、一部には悪性のものや再発の報告もあり、術式も含めた治療方針の決定は慎重に行うべきである。

索引用語 — 顆粒細胞腫, 良性腫瘍, 肺葉切除, 肺炎

背景

顆粒細胞腫は全身の臓器に発生し得る稀な腫瘍であり、そのほとんどは良性腫瘍である。顆粒細胞腫の発生活動起源は正確には特定されていないが、シュワン細胞を由

来とする報告が有力である。頻度としては舌に最も多く、他に皮膚や乳腺が主たる発生臓器として挙げられている。気管・気管支・肺を原発とするものは、全顆粒細胞腫の6~8%に過ぎないと報告されている。¹

昭和大学¹外科学講座呼吸器外科学部門, ²臨床病理診断学講座.
論文責任者: 鈴木 隆.

受付日: 2018年3月20日, 採択日: 2018年4月13日.

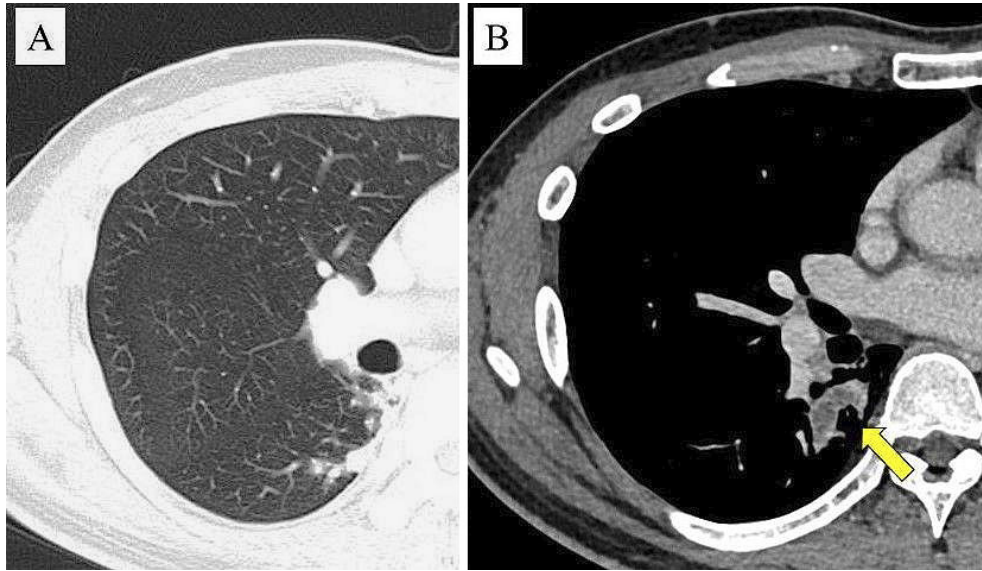


Figure 1. Chest computed tomography showed a tumor 31 mm in maximum diameter (arrow) accompanied by consolidation in the S⁶ region of the right lung (A, B).

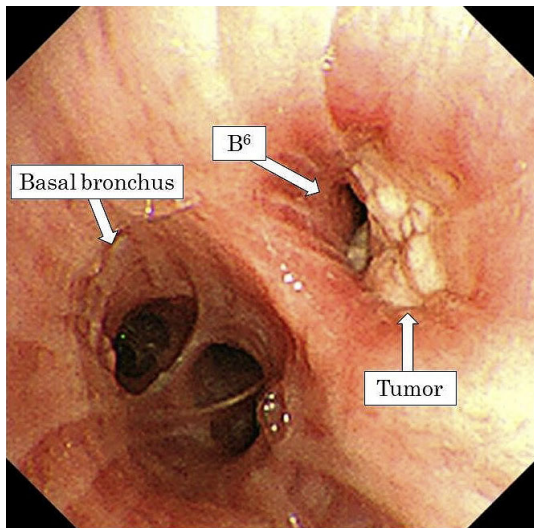


Figure 2. A bronchoscopic examination showed a segmental, white-to-yellowish tumor at the orifice of the right B⁶ region.

症 例

症例：40歳，男性。

主訴：特になし。

既往歴：特になし。

家族歴：特記すべきことはない。

喫煙歴：20本/日，18年間（22～39歳）。

現病歴：健康診断の胸部X線写真で胸部異常陰影を指摘され，胸部CTを施行して右肺S⁶を中心に consoli-

dationを伴う腫瘍性病変が認められた。当院呼吸器内科へ紹介となり，気管支鏡検査にて右B⁶入口部に分節状に発育する腫瘍が認められた。同部位から生検を行ったが確定診断は得られず，診断・治療目的に手術の方針となり，当科へ紹介受診となった。

血液検査所見：血算・生化学所見には異常はなく，その他に腫瘍マーカー（SCC，CEA，Pro-GRP），感染症検査（MAC抗体，T-SPOT[®]，β-Dグルカン）も異常は認めなかった。

画像検査所見：胸部造影CTでは右肺S⁶に最大径31mmの不整な腫瘍を認め，その周囲にはconsolidationを伴っていた（Figure 1A，1B）。また，18F-fluorodeoxyglucose positron emission tomography（FDG-PET）では同部位にmaximum standardized uptake value（SUVmax）2.4の集積を認めていた。

気管支鏡検査所見：右B⁶入口部には白色・分節状の腫瘍性病変を認めた。同部位から生検を行ったが，扁平上皮化生と炎症細胞浸潤のみで確定診断は得られなかった（Figure 2）。

入院後経過：今回の経過中に明らかな発熱や咳嗽などの自覚症状は認めず，肺癌が否定できなかったために診断・治療目的に手術を施行した。

手術所見：術前の胸部造影CTでは腫瘍とconsolidationの境界が不明瞭であり，consolidationは右S⁶以外の下葉にも及んでいたために胸腔鏡補助右下葉切除術を施行した。右下葉の術中迅速組織診断では悪性細胞は認めなかったために，縦隔リンパ節郭清は行わなかった。

病理所見：肉眼的には最大径31mmの腫瘍が右肺S⁶

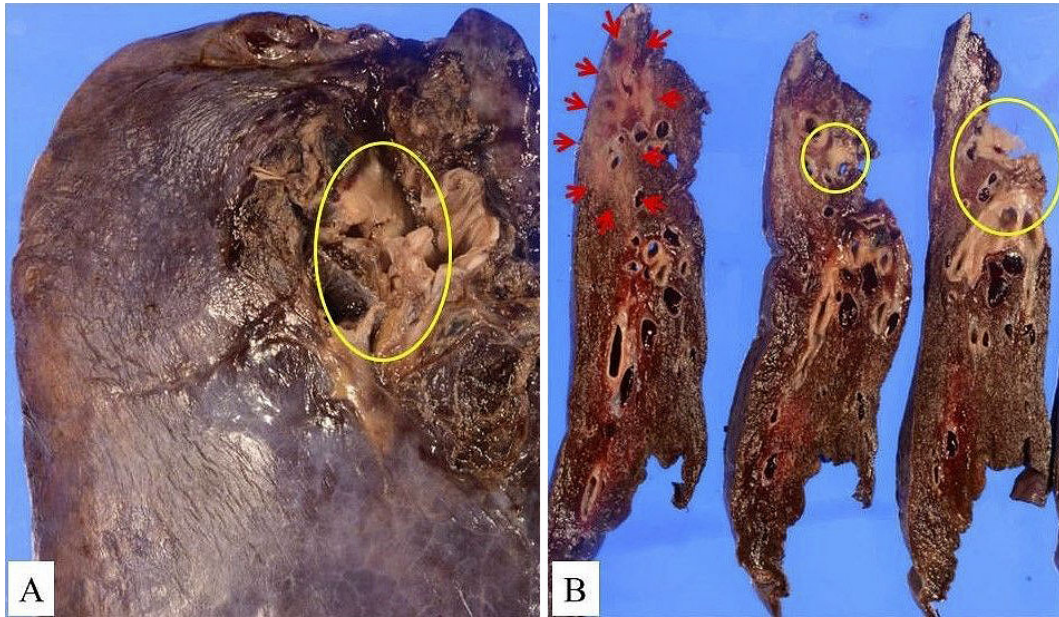


Figure 3. The fixed resected specimen showed pneumonia in the periphery of the S⁶ tumor (arrows). The tumor extended to the right basal bronchus (circles) (A, B).

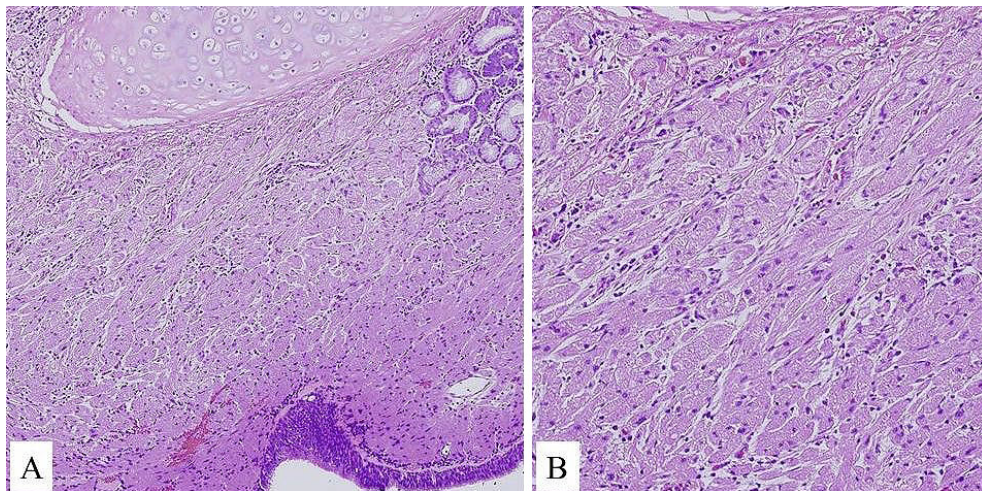


Figure 4. A histological examination of the tumor revealed that it extended beyond the bronchial lumen (A; hematoxylin-eosin stain, magnification $\times 200$). The tumor cells were polygonal or ovoid in shape with abundant eosinophilic and granular cytoplasm (B; hematoxylin-eosin stain, magnification $\times 400$).

を中心に認められ、気管支に沿って発育していた。腫瘍の一部は右底幹周囲にも及んでおり、切除標本の末梢側には気管支肺炎像が認められた (Figure 3A, 3B)。組織学的には腫瘍細胞は全体に好酸性を呈し胞巣状、あるいはシート状に配列して気管支周囲に増殖し、肺実質内への明らかな増殖は認められなかった。腫瘍細胞は卵円形や類円形の核を有し、細胞質は好酸性の顆粒状を呈しており、形態学的には顆粒細胞腫と考えられた。また免疫

染色では S-100 蛋白が陽性で、顆粒細胞腫に合致する所見であった (Figure 4A, 4B, 5)。

術後経過：術後の全身状態は良好であり、術後 7 日目に退院した。術後 3 週間で創部感染を認めたが、創部の洗浄・ドレナージと抗菌薬投与にて創部感染は治癒し、術後 8 か月経過したが、再発は認めていない。

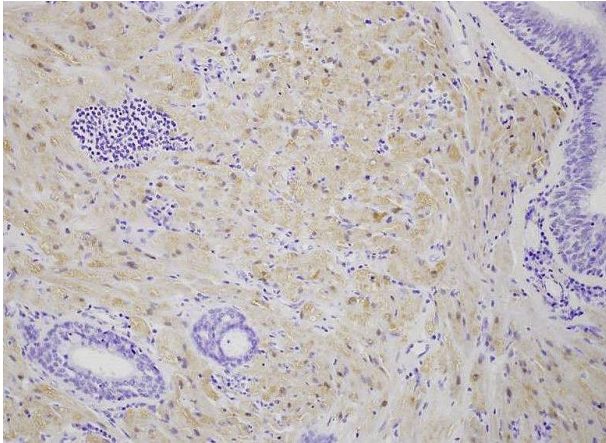


Figure 5. Immunohistological staining revealed that the tumor cells expressed S-100 protein (S-100 protein stain, magnification $\times 400$).

考 察

顆粒細胞腫は1926年にAbrikosoffによって初めて報告された、全身臓器に発生し得る比較的稀な腫瘍である。² 顆粒細胞腫の多くは良性腫瘍であるが、約2%に悪性顆粒細胞腫がみられるとの報告もある。³ 腫瘍細胞の病理組織学的特徴としては、卵円形、または類円形の核を有する細胞がシート状配列を有し細胞質は広く、好酸性の顆粒で満たされている。また免疫組織化学的にはS-100蛋白はほぼ全例で、NSEは約89%で陽性であり、このことから神経原性腫瘍であると推察されている。^{1,4}

顆粒細胞腫の気道・肺の発生部位は、中根らの報告によれば52腫瘍のうち51腫瘍(98%)が亜区域気管支までの中枢気道に発生しており、⁵ 本例でもB⁶入口部に病変が認められ、過去の報告と相違はなかった。

また櫻井らによる本邦57例の集計では、年齢・性別に一定の傾向はなく、症状を認めない症例が約40%、症状として多いものは閉塞性肺炎が18%、咳嗽・血痰が8%と報告されている。¹ また中枢気道に発生しやすいことから、合併症として約10%に喘息が認められたが、その中には腫瘍による狭窄症状が含まれている可能性を示唆する報告もある。⁶ 内視鏡所見では顆粒細胞腫は、表面顆粒状の白色～黄白色の分節状結節・腫瘤として認められる。過去の報告では、確定診断は87%が気管支内視鏡による生検であるが、気管支内視鏡での診断が得られない場合には外科的切除による診断が必要であると述べられ

ている。^{1,7} 本例は生検での検体量が不十分であったか、炎症部位のみの生検になった可能性が考えられる。本疾患に対する明確な治療方針は確立されていないが、Danielらによると気管支鏡による切除では54%に再発が認められた。また腫瘍径が1 cm以上の症例ではほぼ全例に再発を認めたことから、これらのものは外科的切除が推奨されている。さらには末梢肺まで病変が及ぶ場合も外科的切除が推奨されており、本例も肺炎所見を含めると右下葉に広範囲に及ぶことから、本例の術式選択は妥当であると考えられる。^{8,9}

結 語

気管支原発顆粒細胞腫は非常に稀であるが、肺癌の鑑別診断として本腫瘍も疑う必要がある。また一部には悪性顆粒細胞腫も報告があることから、本腫瘍の診断が得られたとしても外科的切除の際の術式決定は慎重に行うべきである。

本論文内容に関連する著者の利益相反：なし

REFERENCES

1. 櫻井隆之, 中村祐之. 気管支・肺顆粒細胞腫. 呼吸. 2009; 28:1210-1214.
2. Abrikosoff AA. Über Myome ausgehend von der quergestreiften willkürlichen Muskulatur. *Virchows Arch.* 1926;260:215-233.
3. Singh VA, Gunasagaran J, Pailoor J. Granular cell tumour: malignant or benign? *Singapore Med J.* 2015;56:513-517.
4. 城 幸督, 北里裕彦, 徳永 一, 澤田芳雄, 工藤国広, 岩間映二, 他. 無気肺と閉塞性肺炎を合併した肺顆粒細胞腫の1例. 臨床と研究. 2012;89:1091-1093.
5. 中根 茂, 明石章則, 福原謙二郎, 富田栄美子. 気管から左主気管支にかけて発生した顆粒細胞腫の一切除例. 日呼外会誌. 2008;22:1088-1093.
6. 加藤聡之, 鳴内明美, 進藤 丈, 堀場通明, 原 通広, 林博文. 気管支喘息に合併した気管支原発 Granular Cell Tumor の1例. 肺癌. 1993;33:121-128.
7. Jiang M, Anderson T, Nwogu C, Tan D. Pulmonary malignant granular cell tumor. *World J Surg Oncol.* 2003;1:22.
8. Daniel TM, Smith RH, Faunce HF, Sylvest VM. Transbronchoscopic versus surgical resection of tracheobronchial granular cell myoblastomas. Suggested approach based on follow-up of all treated cases. *J Thorac Cardiovasc Surg.* 1980;80:898-903.
9. 櫻井隆之, 中村祐之, 木下孔明, 野本靖史. 気管支顆粒細胞腫の1例と本邦報告例57例の臨床的検討. 気管支学. 2007;29:186-189.