

CASE REPORT

肺癌との鑑別が困難であった孤立性肺毛細血管腫の1例

奥野翔子¹・若月悠祐¹・福井哲矢¹・松倉 規¹

A Case of Solitary Capillary Hemangioma of the Lung Diagnosed Preoperatively as Lung Cancer

Shoko Okuno¹; Yusuke Wakatsuki¹; Tetsuya Fukui¹; Tadashi Matsukura¹

¹Department of Chest Surgery, Fukui Red Cross Hospital, Japan.

ABSTRACT — **Background.** We herein report a case of resection that was suspected of being early lung cancer, but was later pathologically diagnosed as solitary capillary hemangioma of the lung (SCHL). **Case.** A 51-year-old woman admitted for deep vein thrombosis and pulmonary embolism incidentally showed ground-glass opacity (GGO) measuring 16×16 mm in segment 9 of the left lower lobe on chest computed tomography. Based on these radiographic findings, this case was clinically suspected of being early lung cancer. Basal segmentectomy of left lung was therefore performed for both the diagnosis and treatment. The final pathological diagnosis was SCHL. **Conclusion.** We therefore must include SCHL in the differential diagnosis of GGO.

(JJLC. 2018;58:356-359)

KEY WORDS — Solitary capillary hemangioma of the lung, Lung cancer, Ground-glass opacity

Corresponding author: Tadashi Matsukura.

Received March 10, 2018; accepted August 17, 2018.

要旨 — **背景.** CT検査の普及によりスリガラス陰影 (ground-glass opacity : GGO) を呈する原発性肺癌の手術症例は増加傾向にある。今回われわれはCTにてGGOを指摘され経過観察するも縮小せず、肺癌疑いとして胸腔鏡下肺切除術を施行したところ、孤立性肺毛細血管腫の病理診断を得た症例を経験したため報告する。**症例.** 51歳女性。散在性脳梗塞・深部静脈血栓症の精査で行った胸部CTで偶然、左S⁹に16×16 mm大の円形で内部濃度均一なGGOを指摘された。深部静脈血栓の治療後、肺癌疑いとして診断と治療を兼ねて手術の方針となった。腫瘍は視診では局在不明、触診にて1 cm程度の軟らかい結節を左肺下葉S⁹に触知した。20 mm以下のpure

GGOの肺癌疑いとしての積極的縮小手術の適応と考え、胸腔鏡下肺底区域切除を施行した。最終病理診断は、肺胞隔壁の拡大と拡張毛細血管の密在がみられ、孤立性肺毛細血管腫であった。術後経過は良好で現在まで再発はない。**結果.** 孤立性肺毛細血管腫は原因不明の稀な疾患で、予後良好であると考えられている。高分化型腺癌との鑑別が困難であり、肺癌との鑑別がつかず切除されている報告が多い。本症例を経験し、文献的考察を添えて報告する。

索引用語 — 孤立性肺毛細血管腫, 肺癌, スリガラス陰影

症 例

症例：51歳。女性。

主訴：胸部異常影。

現病歴：散在性脳梗塞・深部静脈血栓症の精査で行っ

た胸部CTで偶然、左S⁹に16×16 mm大の円形で内部濃度均一なスリガラス陰影 (ground-glass opacity : GGO)を指摘された。6ヶ月後のフォローアップCTで陰影に縮小なく、肺癌を疑われ当科紹介となった。

既往歴：51歳 左深部静脈血栓症・肺動脈塞栓症、無

¹福井赤十字病院呼吸器外科。
論文責任者：松倉 規。

受付日：2018年3月10日、採択日：2018年8月17日。

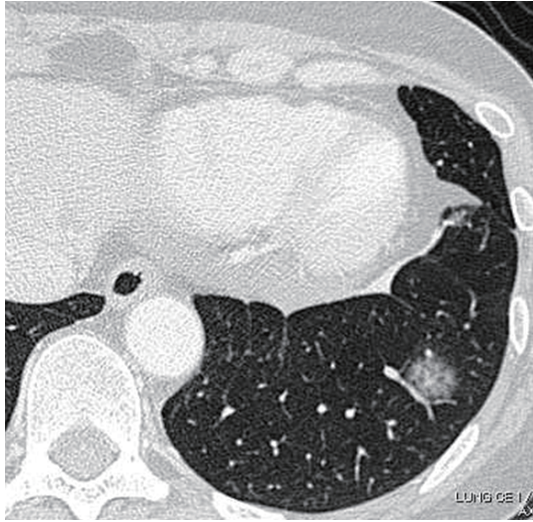


Figure 1. Chest CT demonstrates GGO (16×16 mm) in the left lower lobe.

症候性脳梗塞. 51歳 特発性血小板減少性紫斑病にて脾臓摘出術, プレドニゾロン7.5 mg/day 内服中. 子宮筋腫, ホルモン療法中.

家族歴: 特記事項なし.

生活歴: 喫煙 30本×25~50歳. 飲酒歴: 2合/日.

初診時現症: 身長 165 cm, 体重 60.0 kg. その他特記事項なし.

血液生化学検査: 腫瘍マーカー (CEA, シフラ, PRO-GRP) を含め異常所見なし.

初診時単純 X 線写真: 異常所見なし.

初診時胸部単純 high-resolution CT (HRCT): 左肺下葉 S⁹ に, 16×16 mm 大の内部濃度均一な GGO を認めた. 腫瘍は縦隔条件では完全に消失した (Figure 1).

6ヶ月後の胸部単純 HRCT: 初回の CT からサイズ・性状に変化なし.

11ヶ月後の胸部単純 HRCT: 初回の CT からサイズ・性状に変化なし.

PET-CT 検査: GGO に有意な集積なし.

臨床経過: 以上の検査結果より, 早期の高分化型腺癌を疑った. 深部静脈血栓症の治療として抗凝固薬を内服中であり, 下肢静脈エコーにて血栓消失を確認した後, 診断と治療目的に胸腔鏡下左肺底区区域切除術の方針とした.

手術所見: 視診では胸膜変化はなく, 腫瘍の局在部位は不明であった. 触診で弾性軟の腫瘍を触知した. 術中穿刺細胞診では悪性所見を認めなかったが高分化腺癌を疑い, 左肺底区区域切除+ND0 リンパ節郭清術を施行した. 手術時間は 141 分, 出血量は少量であった.

摘出標本所見: 褐色の境界明瞭な弾性軟の病変を認め

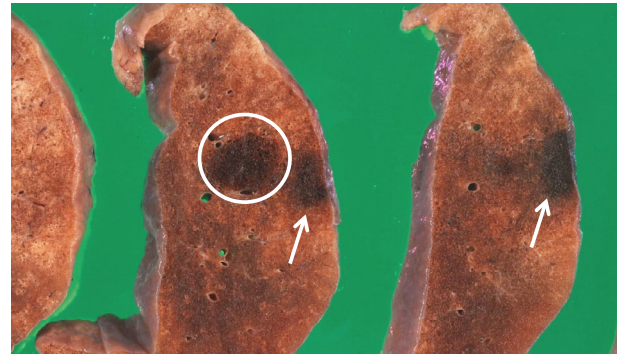


Figure 2. The macroscopic findings of the resected tumor show a dark-brown nodule enclosed in a circle. The white arrows indicate hematoma after an aspiration biopsy.

た. 周囲に穿刺細胞診による血腫を伴っていた (Figure 2).

病理組織学的検査: 組織標本上の約 1×1 cm の範囲に, 肺胞隔壁の拡大と拡張毛細血管の密在がみられた. 肺胞上皮に明らかな異型はなかった. 以上の所見より孤立性肺毛細血管腫 (solitary capillary hemangioma of the lung: SCHL) と診断した (Figure 3). 郭清リンパ節に特異所見を認めなかった.

術後経過: 術後経過は良好で, 合併症なく第 7 病日に退院. 術後 6 年 10 ヶ月の経過で再発を認めていない.

考 察

肺に発生する単発の毛細血管腫は SCHL と定義される. Wagenvoort ら¹により最初に報告されこれまで数十例の報告があり, 予後良好の疾患である. 一方で肺毛細血管腫症 (pulmonary capillary hemangiomatosis) は, 毛細血管腫が肺に多発し, 肺高血圧を発症し数ヶ月から数年で死に至る予後不良の疾患であり, SCHL とは別の病態として区別されている.²

SCHL は検索した限りでは本邦で 16 例の報告²⁻¹⁴があるのみで, 非常に稀な疾患である (Table 1). いずれも無症状で, 健診や他疾患のフォロー中に偶然発見されている. 術前に診断のついた報告はなく, 部分切除, 区域切除, 肺葉切除が行われている. 全例で術後再発はなく予後良好の疾患と考えられる.

SCHL は肺胞隔壁構造を保ちながら肥厚し, CT 画像で pure GGO や GGO 内部に濃度上昇を伴うものが多い. しかし結節影を呈する症例もあり, 腫瘍内の毛細血管の増生密度が高かったためだと考察されている.^{2,11} Matsushita らは患者の体位によって重力効果で GGO 内の濃度が変わると報告しており,⁹ SCHL と早期小型肺癌との鑑別に有効である可能性が示唆される. また嶋

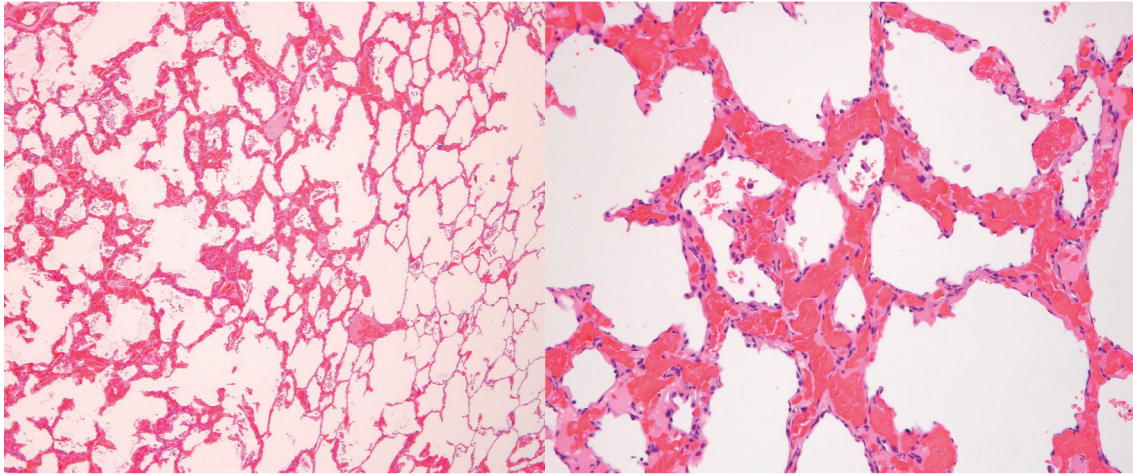


Figure 3. The microscopic findings of the specimen show thickening of the alveolar septa and the accumulation of capillary vessels without atypia.

Table 1. Reports of Solitary Pulmonary Capillary Hemangioma in Japan

Author	Sex/Age	CT findings	Location	Surgery
2006/Fugo	male/56	mixed GGO 13×12 mm	left lower lobe (S ⁹)	partial resection
2006/Fugo	female/48	pure GGO 13×10×8 mm	right middle lobe (S ⁴)	partial resection
2008/Uekami	female/54	solid nodule 12×11×8 mm	right middle lobe (S ⁴)	partial resection
2007/Yanagawa	male/58	thick GGO 8 mm	right lower lobe	partial resection
2009/Kato	male/55	mixed GGO 11 mm	right lower lobe (S ⁸)	segmentectomy
2010/Hakiri	male/45	mixed GGO 12×11 mm	left lower lobe (S ⁹)	partial resection
2010/Taniguchi	female/59	thick GGO 11×5 mm	right lower lobe	partial resection
2012/Takeuchi	male/34	mixed GGO 15 mm	right upper lobe (S ³)	partial resection
2012/Matsushita	female/58	mixed GGO 7×6 mm	left lower lobe	left lower segmentectomy
2012/Shimada	male/61	mixed GGO 11 mm	left lower lobe (S ⁶)	partial resection
2012/Shimada	male/42	mixed GGO 11 mm	right lower lobe (S ¹⁰)	partial resection
2013/Isaka	female/55	mixed GGO 7 mm	left lower lobe (S ¹⁰)	partial resection
2014/Sakaguchi	female/53	thick GGO 20×20×8 mm	left upper lobe	left upper lobectomy
2017/Iwata	female/51	mixed GGO 7×6 mm	right lower lobe (S ¹⁰)	partial resection
2017/Taniguchi	female/42	thick GGO 13×13×12 mm	right lower lobe (S ⁹)	basal segmentectomy of right lower lobe
Our case	female/51	pure GGO 16 mm	left lower lobe (S ⁹)	basal segmentectomy of left lower lobe

田らは、術中に触診を繰り返すことによって触診ができなくなることも SCHL の特徴の 1 つとして挙げている。特異的な画像所見はなく、小さく淡い結節や GGO 像を示すことが多いため術前の気管支鏡検査での確定診断も期待できず、SCHL と早期肺癌との鑑別は難しい。現状では早期肺癌を疑って診断と治療目的の手術が行われている。確定診断には CD31 や CD34 の免疫組織化学染色が有用であるが、迅速病理検査での診断は難しい。¹⁰ しかし迅速病理検査にて血管腫の診断が得られたとの報告^{3,11} もあり、検査を提出する意味はあるかもしれない。

結語

CT 検査の普及により GGO や結節を呈する小型の早期肺癌症例が増加傾向にある。¹⁵ 肺癌を疑う孤立性腫瘍を認めた場合は SCHL も鑑別の 1 つとして挙げる必要がある。

本論文内容に関連する著者の利益相反：なし

REFERENCES

1. Wagenvoort CA, Beetstra A, Spijker J. Capillary haemangiomatosis of the lungs. *Histopathology*. 1978;2:401-

- 406.
2. Fugo K, Matsuno Y, Okamoto K, 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.
 3. 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. *日呼外会誌*. 2008;22:641-644.
 4. 柳川直樹, 加藤博久, 金内直樹, 大泉弘幸, 貞弘光章, 本山第一. 小型肺腺癌との鑑別を要した孤立性末梢小型肺腫瘍の2例. *診断病理*. 2007;24:426-429.
 5. 加藤博久, 大泉弘幸, 金内直樹, 貞弘光章. 小型肺癌の疑いで診断的胸腔鏡下肺区域切除術を行った pulmonary capillary hemangioma の1例. *日呼外会誌*. 2009;23:932-935.
 6. 羽切周平, 吾妻寛之, 吉岡 洋. 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. *肺癌*. 2010;50:841-845.
 7. 谷口大輔, 谷口英樹, 佐野 功, 田村和貴, 進藤久和, 清水香里, 他. 胸腔鏡下手術を行った肺孤立性毛細血管腫の1例. *胸部外科*. 2010;63:423-425.
 8. 竹内 健, 青木耕平, 福田祐樹, 儀賀理暁, 江口圭介, 中山光男. Pulmonary Solitary Capillary Hemangioma の一切除例. *日呼外会誌*. 2012;26:719-723.
 9. Matsushita M, Kawakami S, Matsushita T, Sugiyama Y, Endo M, Shimojo H, et al. Changes in CT density of solitary capillary hemangioma of the lung upon varying patient position. *Jpn J Radiol*. 2012;30:772-776.
 10. 嶋田喜文, 村川知弘, 佐野 厚, 深見武史, 吉田幸弘, 井上雄太, 他. CT 上スリガラス状陰影を呈した肺毛細血管腫. *胸部外科*. 2012;65:1038-1043.
 11. Isaka T, Yokose T, Ito H, Washimi K, Imamura N, Watanabe M, et al. Case of solitary pulmonary capillary hemangioma: pathological features based on frozen section analysis. *Pathol Int*. 2013;63:615-618.
 12. Sakaguchi Y, Isowa N, Tokuyasu H, Miura H. A resected case of solitary pulmonary capillary hemangioma showing pure ground glass opacity. *Ann Thorac Cardiovasc Surg*. 2014;20(Suppl):578-581.
 13. 岩田輝男, 門司祥子, 田中文啓. 肺癌が疑われた孤立性肺毛細血管腫の1切除例. *日呼外会誌*. 2017;31:32-35.
 14. 谷口聖治, 大瀬尚子, 須崎剛行, 小堀優子, 竹内幸康. 画像上高分化型肺腺癌と鑑別困難であった孤立性肺毛細血管腫の1切除例. *日呼外会誌*. 2017;31:593-597.
 15. Committee for Scientific Affairs, The Japanese Association for Thoracic Surgery, Masuda M, Okumura M, Doki Y, Endo S, Hirata Y, et al. Thoracic and cardiovascular surgery in Japan during 2014: Annual report by The Japanese Association for Thoracic Surgery. *Gen Thorac Cardiovasc Surg*. 2016;64:665-697.