

## 症例報告

## 自然気胸を契機に発見された19歳の肺癌の一例

良永 康雄<sup>1</sup> 吉田 純<sup>1</sup> 江島有美香<sup>2</sup> 三笠 圭太<sup>1</sup> 吉山 康一<sup>3</sup> 古賀 康秀<sup>2</sup> 福與健二郎<sup>1</sup><sup>1</sup>飯塚市立病院 外科 〒820-0088 福岡県飯塚市弁分633-1<sup>2</sup>飯塚市立病院 内科<sup>3</sup>久留米大学病院 呼吸器外科

## 要 約

症例は19歳、男性。再発性の自然気胸で手術目的に当科紹介となった。CT上はブラが明らかでなく、腫瘍を含め他病変も指摘できなかつた。胸腔ドレナージの後に胸腔鏡手術を行った。鏡視下にも明らかな責任病変を確認できなかつた。肺尖部に5mmの発赤を伴う小隆起を認め、これを含む4か所に病変を疑い切除した。術後5日目に再発なく退院となった。術後病理で肺尖部の組織片に腺癌が指摘された。原発性の上皮内癌で切除断端は陰性だった。他の部位には癌を認めなかつた。術後7カ月目の現在、再発なく経過観察を継続中である。気胸の術後に切除標本から肺癌の診断を得ることは稀であり、20歳未満の報告は検索する限り本邦に確認できない。若干の文献的考察を加えて報告する。

(キーワード：肺癌，微小肺腺癌，若年性肺癌，自然気胸，胸腔鏡下手術)

## 緒言

肺癌は稀に自然気胸を初発症状として発見される<sup>1)</sup>。気胸の治療目的に手術を行った後に切除標本から偶発的に肺癌が発見されることはさらに稀であり<sup>2)</sup>，20歳未満の報告は本邦で例を見ない。19歳で自然気胸の治療目的に胸腔鏡手術を受け、術後病理で肺腺癌の診断となった1例を経験したため、文献的考察を加えて報告する。

## 症例

患者：19歳，男性

主訴：呼吸困難

既往歴：左自然気胸

6か月前，当院内科を受診し，初発の左自然気胸の診断で胸腔ドレナージにより治癒した。

3週間前，左自然気胸の再発で再診した。肺の虚脱は軽度で経過観察のみで治癒した。

喫煙歴：なし

家族歴：特記事項なし

現病歴：呼吸困難感を主訴に当院内科を受診した。再発性の左自然気胸の診断で，手術目的に当科紹介となった。

現症：身長167.0cm，体重48kg，BMI17.21。

胸部X線，左肺に第4肋骨上縁までの虚脱を認めた(図1)。

胸部CT，左肺の虚脱を認めた。ブラは明らかでなく，腫

瘍を含む他の異常も指摘できなかつた。

## 手術所見

再発を繰り返すため手術適応と判断し，胸腔ドレナージの上で入院7日目に胸腔鏡手術を施行した。胸腔鏡下にも原因として明らかなブラを確認できなかつた。肺尖部，舌区，S6，S9に，それぞれ病変として疑われる部位を認めた。肺尖部は5mmで発赤を伴う小隆起(図2)，舌区はフィブリンの付着を伴う10mmの発赤，S6は3mmの未破裂ブラ，S9は10mmの胸壁との癒着であり，いずれも自動縫合機で切除した。エアリークのないことを確認して手術を終えた。

## 病理所見

肺尖部の組織片に悪性所見を指摘された。Adenocarcinoma in situ (AIS, 6×3mm, pTis, pI0, G1, Ly0, V0)で，免疫染色でNapsin-A (+)，TTF-1 (+)，Calretinin (-)，D2-40 (-)，原発性肺腺癌の診断であった(図3)。EGFR遺伝子に変異はなく，ALK融合遺伝子判定は陰性だった。同部位にブラは認めなかつた。

S6の組織片には線維化を伴うブラを指摘された。その他の組織片にブラや腫瘍性変化を指摘されなかつた。

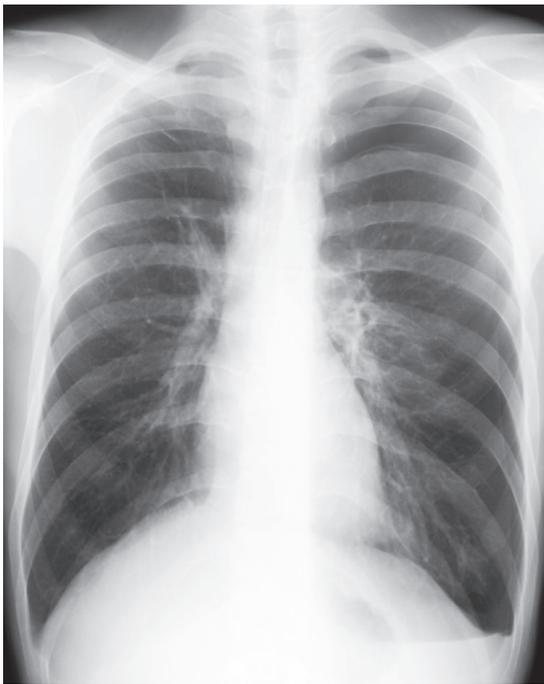


図1：入院時の胸部X線。左肺に第4肋骨上縁までの虚脱を認めた。

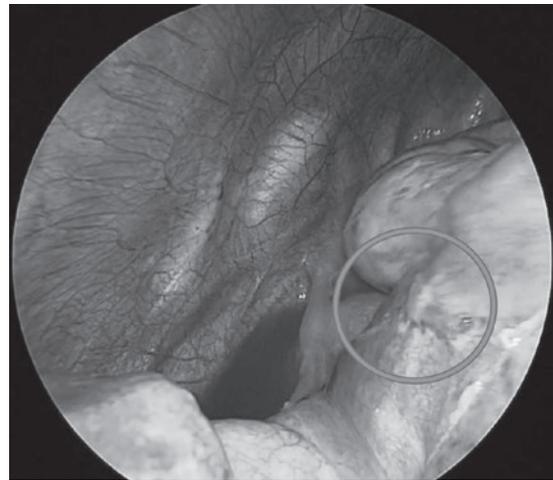


図2：肺尖部の術中画像。丸で囲んだ部位に5mmで発赤を伴う小隆起を認める。

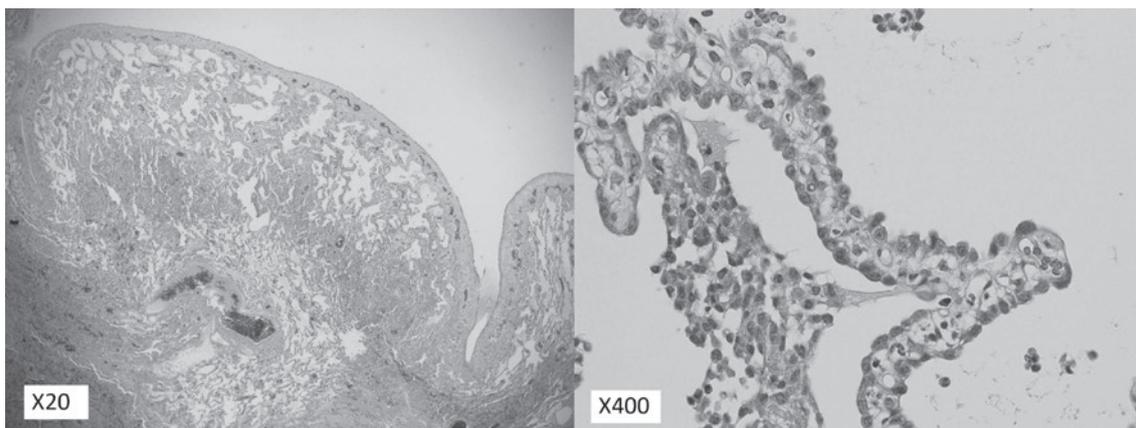


図3：大きさ6×3mmの胸膜下病変で充実成分はなく、内部は異形細胞が密在しN/C比が高く核小体が明瞭な不整形の核を持っている。

### 術後経過

術後経過は良好で5日目に退院した。術後7ヵ月目の現在、気胸及び肺癌の再発なく外来通院中である。

### 考察

若年性肺癌の定義に明確な基準は示されていないが、40歳未満に発症する肺癌とする報告が多い<sup>3)</sup>。中高齢者肺癌の増加に伴い、若年者肺癌の全体に占める割合は減少傾向で、1980年代以降は1～5%とされる<sup>3)</sup>。若年性肺癌の中でも20歳未満の症例は稀で、肺がん手術症例の0.03%と報告されている<sup>4)</sup>。若年性肺癌の組織型は50～80%が腺癌で、喫煙を主とした環境要因よりも遺伝子異常が発がんに影響している可能性が指摘されている。予後は病期別に見れば中高齢者肺癌とほぼ同等とされ、早期発見と早期治療

の重要性が指摘されている<sup>3)</sup>。

気胸を初発症状として発見される原発性肺癌は、肺癌全体の1%以下とされる<sup>5)</sup>。術前や術中に診断されず術後標本で発見される症例は、さらに稀である<sup>6)</sup>。気胸を初発症状として術後標本で肺癌を発見された本邦の報告例について、医学中央雑誌で「自然気胸」と「肺癌」をキーワードとし検索した。過去の文献の引用を含めて調べると、該当する症例は自験例を含め17例だった(表1)。過去の報告例と比較し、自験例の経過や病期に特異な点は認めないが、20歳未満という年齢は初の報告となった。自験例を含めて検討すると、症例は男性に多く、組織型は腺癌が最も多く、次いで扁平上皮癌であった。絨毛癌や大細胞神経内分泌癌という稀な報告もあった<sup>11,12)</sup>。深達度の多くはT1以下だったがT2の症例が3例あった<sup>5,6,17)</sup>。術式は、多くは最

表 1：気胸で発見された肺癌の本邦報告例

報告者	報告年	年齢	性別	治療法	組織型	病期	予後(月)
塚本ら <sup>5)</sup>	1995	65	M	部分切除	扁平上皮癌	T2N0M0	死亡(15)
Saitohら <sup>7)</sup>	1996	66	M	部分切除+肺葉切除	腺癌	不明	不明
小林ら <sup>8)</sup>	1997	44	F	部分切除+肺葉切除	扁平上皮癌	TisN0M0	生存(15)
畠山ら <sup>9)</sup>	2001	51	M	部分切除	腺癌	T1N0M0	不明
Okadaら <sup>10)</sup>	2002	53	M	部分切除	腺癌	T1N0M0	再発(11)
		40	M	部分切除	腺癌	T1N0M0	生存(20)
平岡ら <sup>2)</sup>	2005	55	M	部分切除	腺癌	T1N0M0	生存(21)
横須賀ら <sup>11)</sup>	2006	42	M	部分切除+肺葉切除	絨毛癌	T1N0M0	再発(6)
海藤ら <sup>12)</sup>	2008	54	M	部分切除+肺葉切除	大細胞神経内分泌癌	T1N0M0	生存(11)
津和野ら <sup>13)</sup>	2000	56	M	部分切除	腺癌	TisN0M0	生存(10)
大宮ら <sup>14)</sup>	2012	79	M	部分切除	腺癌	T1N0M0	生存(55)
伊藤ら <sup>6)</sup>	2013	62	M	部分切除+肺葉切除	腺癌	T2N0M0	死亡(27)
岡本ら <sup>15)</sup>	2015	63	M	部分切除	腺癌	TisN0M0	生存(30)
		45	M	部分切除	扁平上皮癌	TisN0M0	生存(18)
浅井ら <sup>16)</sup>	2016	97	F	部分切除	扁平上皮癌	T1N0M0	生存(11)
松尾ら <sup>17)</sup>	2016	44	M	部分切除+肺葉切除	扁平上皮癌	T2aN0M0	不明
自験例	2017	19	M	部分切除	腺癌	TisN0M0	生存(7)

初に行われた部分切除のみだったが、絨毛癌と大細胞神経内分泌癌の症例、Tis症例の1例とT2症例の2例には後日にリンパ節郭清を伴う肺葉切除が追加されていた<sup>6,8,11,12,17)</sup>。自験例はTisであったため肺葉切除は追加せず部分切除のままとした。予後については、多くは部分切除のみで良好な経過が報告されているが、T2の2例は再発し死亡<sup>5,6)</sup>、腺癌の1例と絨毛癌の1例が1年以内に再発し、前者は放射線療法を、後者は化学療法(TIP療法)を追加された<sup>10,11)</sup>。EGFR遺伝子変異やALK融合遺伝子についての報告は自験例を除き確認できなかった。

肺嚢胞内に肺癌が発生する成因について、八田ら<sup>18)</sup>は①嚢胞内に吸入された癌原因物質が長くとどまること、②嚢胞壁の扁平上皮化生からの発癌、③嚢胞壁の瘢痕からの発癌を挙げている。しかし、自験例では病変部に肺嚢胞を認めず、気胸と肺癌の因果関係は明らかでなく偶発的であった可能性がある。気胸の原因として稀ではあるが肺癌の可能性を念頭におき、術前画像の丁寧な読影や術中の注意深い観察、切除標本の詳細な病理学的評価が重要である。

## 結語

20歳未満で、自然気胸の術後標本に肺癌を発見された、極めて稀な症例を経験したので報告した。若年者の気胸の発症原因として極めて稀ではあるが肺癌の可能性もあるため、術前CTの注意深い観察や切除標本における詳細な病理学的検討が重要である。

本論文の要旨は第57回日本肺癌学会九州支部学術集会／第40回日本呼吸器内視鏡学会九州支部総会(2017年2月25日)で発表した。

## 利益相反の開示

著者全員は本論文の研究内容について、報告すべき利益相反を有さない。

## 謝辞

本報告を行うにあたり、病理診断をいただいた産業医科大学医学部第一病理学の内橋和芳先生に深く感謝申し上げます。

## 文献

- 1) Dines DE, Cortese DA, Brennan MD et al: Malignant pulmonary neoplasms predisposing to spontaneous pneumothorax. *Mayo Clin Proc* 1973; **48** (8): 541-544.
- 2) 平岡史郎, 大崎敏弘, 福田篤他: 自然気胸手術時の切除標本内に発見された微小肺腺癌の1例. *日本臨床外科学会雑誌*2005, **66** (10): 2407-2410.
- 3) 細野達也, 大野彰二, 中澤晶子他: 20歳代の若年者肺癌の2例. *日呼吸会誌*2004; **42** (9): 859-864.
- 4) 三好新一郎, 門倉光隆, 近藤晴彦他: 2008年度呼吸器外科手術統計-日本胸部外科学会・日本呼吸器外科学会合同登録症例の調査報告-. *日呼外会誌*2011; **25**: 124-132.
- 5) 塚本東明, 佐藤 徹, 山田敬子他: 自然気胸を初発症状とした原発性肺癌症例の検討. *日胸疾患会誌*1995; **33**: 936-939.
- 6) 伊藤哲思, 川崎徳仁, 木下雅雄他: 自然気胸手術の切除標本で発見された肺癌の1例. *臨床外科*2013; **68** (1): 114-118.
- 7) Yukihito Saitoh, Chiharu Enoki, Ken-ichiroh Minami et al: Primary Lung Cancer Associated with Spontaneous Pneumothorax -Unsuspected Lung Cancer Found during Operations-. *Ann Thorac Cardiovasc Surg* 1996; **2** (6): 417-420.
- 8) 小林孝一朗, 永井 晃, 松永康弘他: 自然気胸で発見された非喫煙女性の末梢型微小扁平上皮癌の1例. *胸部外科*1997; **50**: 499-502.
- 9) 畠山 忍, 立花昭生, 鈴木和恵他: 気腫性肺嚢胞に合併した肺癌の5例. *日呼吸会誌*2001; **39**: 415-418.

- 10) Daisuke Okada, Kiyoshi Koizumi, Shuji Haraguchi et al : Pneumothorax manifesting Primary Lung Cancer. Jpn J Thrac Cardiovasc Surg 2002 : **50** : 133-136.
- 11) 横須賀哲哉, 小林利子, 中野絵里子他 : 気胸で発症し, 切除標本内に偶然発見された肺原発絨毛癌の1例. 肺癌2006 : **46** (3) : 211-214.
- 12) 海藤章郎, 豊田 太, 中村 徹他 : 自然気胸手術が発見契機となった肺大細胞神経内分泌癌の1例. 日臨外会誌2008 : **69** (8) : 1902-1905.
- 13) 津和野伸一, 尾関雄一, 佐藤光春他 : 肺嚢胞壁発生の早期肺腺癌の1切除例. 埼玉医学会雑誌2000 : **35** (6) : 591-594.
- 14) 大宮英泰, 高見康二, 栗山啓子他 : 自然気胸手術標本で偶然発見された肺癌の1例. 日呼外会誌2012 : **26** (5) : 559-562.
- 15) 岡本淳一, 北山康彦, 竹内千枝他 : 自然気胸術後病理組織検査で偶然発見されたpTis肺癌の2症例. 日本医科大学医学会雑誌2015 : **11** (3) : 161-166.
- 16) 浅井芳人, 竹林駿太, 佐々木文 : 自然気胸を初発症状とした肺がんの1例. 内科2016 : **117** (3) : 518-520.
- 17) 松尾はるか, 石橋洋則, 馬場峻一他 : 血気胸を契機に発見された肺扁平上皮癌の1例. 肺癌2016 : **56** (1) : 33-37.
- 18) 八田 健, 松原正秀, 坪田紀明他 : 肺嚢胞内に発育した肺癌の1切除例. 肺癌1987 : **27** : 189-193.

# Lung cancer incidentally detected in resected specimen of spontaneous pneumothorax in a young male

Yasuo Yoshinaga<sup>1</sup>, Atushi Yoshida<sup>1</sup>, Yumika Eshima<sup>2</sup>, Keita Mikasa<sup>1</sup>, Kouichi Yoshiyama<sup>3</sup>, Yasuhide Koga<sup>2</sup>, Kenjiro Fukuyo<sup>1</sup>

<sup>1</sup> Department of Surgery, Iizuka City Hospital 633-1 Benbun Iizuka-shi, Hukuoka-ken, 820-0088, Japan

<sup>2</sup> Department of Medicine, Iizuka City Hospital

<sup>3</sup> Department of Respiratory Surgery, Kurume University School of Medicine

## Abstract

A 19-year-old man was referred to our department with dyspnea. Neither bullae nor other abnormalities were shown on computed tomography. Thoracoscopic surgery after thoracic drainage did not uncover any obvious causes of the pneumothorax. We resected four sections of the lung that appeared abnormal, including a 5-mm red, slightly elevated area of the apical portion. The spontaneous pneumothorax did not recur after surgery, and the patient was discharged on postoperative day 5. Pathological examination revealed adenocarcinoma in situ in the resected specimen of the apical portion of the lung. Cancer cells were not found in the excision stump or the resected margin. Primary lung adenocarcinoma was diagnosed. The patient remained recurrence-free during seven months of follow-up.

(Key words : thoracoscopy, microadenocarcinoma, youth)