

## 気胸で発見，診断されたサルコイドーシスの1例

木部敦子，永田忍彦，若松謙太郎，加治木 章

### 【要旨】

症例は45歳男性。2005年5月12日胸痛，労作時呼吸困難が出現し，前医を受診した際，右気胸を指摘された。安静のみでは改善せず，当院外科紹介となった。気胸は胸腔ドレナージにて再膨張を得たが，画像上両側びまん性に気管支血管束の肥厚，胸膜に接する粒状影と縦隔リンパ節腫大を認めるため，サルコイドーシスが疑われ，内科転科にて精査を行った。ACEは高値を示し，気管支肺胞洗浄液ではリンパ球増多，CD4/CD8の上昇を認めた。経気管支肺生検で類上皮細胞肉芽腫を検出し，抗酸菌や真菌は認めず，サルコイドーシスと診断した。約1ヶ月後，同側気胸を再発し，再度胸腔ドレナージ後，OK-432による胸膜癒着術を行った。気胸はサルコイドーシスのまれな合併症で，初発症状であることもあり，文献的考察を加え，報告する。

[日サ会誌 2006;26:29-33]

キーワード：胸膜癒着術，副腎皮質ステロイド

---

## A Case of Sarcoidosis Detected in Pneumothorax

Atsuko Kibe, Nobuhiko Nagata, Kentaro Wakamatsu, Akira Kajiki

### 【ABSTRACT】

A 45-year-old man was admitted to hospital because of chest pain and dyspnea. He was diagnosed to have right pneumothorax. The pneumothorax did not improve with bed rest alone, so he was referred to our hospital. The pneumothorax was resolved with chest tube drainage. But a chest x-ray and CT showed bilateral diffuse micronodules and mediastinal lymphadenopathy. Serum ACE was elevated slightly. Bronchoalveolar lavage revealed increased lymphocytes percent with elevated CD4/CD8 ratio. Transbronchial biopsies demonstrated non-caseating epithelioid cell granulomas without infectious organism. So he was diagnosed to have sarcoidosis. After one month, right pneumothorax recurred. At this time, tube drainage treatment was again successful and then he received pleurodesis by OK-432. Pneumothorax due to sarcoidosis is relatively rare, especially as an initial manifestation.

[JJSOG 2006;26:29-33]

keywords ; Pleurodesis, Corticosteroid

---

国立病院機構大牟田病院内科

著者連絡先：木部敦子

国立病院機構大牟田病院内科

〒837-0911 福岡県大牟田市大字橋1044-1

TEL : 0944-58-1122

FAX : 0944-58-6804

Department of Internal Medicine and Division of Clinical Research, NHO

National Omuta Hospital

## はじめに

気胸はサルコイドーシスの比較的まれな合併症である。線維化の進んだサルコイドーシスだけでなく、肺野病変の指摘できない初発症状であることもある。今回我々は、気胸で発見、診断されたサルコイドーシスで、比較的短期間に気胸を再発した症例を経験したので、ここに報告する。

## 症例提示

- 症 例**：45歳，男性
- 主 訴**：胸痛，労作時呼吸困難
- 既往歴**：23歳 肺炎，25歳 胃潰瘍，肝機能障害（詳細不明），28歳 胆石摘出術。
- 家族歴**：母に気管支喘息，妹にくも膜下出血
- 喫煙歴**：20本／日×29年 喫煙中
- 飲酒歴**：なし
- 職 歴**：大工
- 現病歴**：2005年5月12日胸痛，労作時呼吸困難を訴え，近医を受診した。右気胸を指摘され，安静のみでは改善しないため，当院外科へ紹介となった。気胸は胸腔ドレナージにて再膨張を得たが，画像上両側びまん性に気管支血管束の肥厚，胸膜に接する粒状影と縦隔リンパ節腫大を認めるため，内科転科の上，精査を行った。

| Biochemistry  |                | Hematology                    |                              |
|---------------|----------------|-------------------------------|------------------------------|
| TP            | 7.6 g/dL       | WBC                           | 5500 / $\mu$ L               |
| Alb           | 56.7 %         | Neu                           | 64.5 %                       |
| $\alpha_1$ -G | 2.9 %          | Ly                            | 24.6 %                       |
| $\alpha_2$ -G | 8.3 %          | Mo                            | 6.4 %                        |
| $\beta$ -G    | 9.6 %          | Eo                            | 4.0 %                        |
| $\gamma$ -G   | 22.5 %         | Baso                          | 0.5 %                        |
| T-bil         | 0.8 mg/dL      | RBC                           | $495 \times 10^4$ / L        |
| GOT           | 23 IU/L        | Hb                            | 15.0 g/dL                    |
| GPT           | 38 IU/L        | Ht                            | 43.3 %                       |
| ALP           | 672 U/L        | Plt                           | $20.4 \times 10^4$ / $\mu$ L |
| LDH           | 174 IU/L       |                               |                              |
| BUN           | 13 mg/dL       | Serology                      |                              |
| Creat         | 0.63 mg/dL     | CRP                           | 0.17 mg/dL                   |
| GLU           | 102 mg/dL      | ACE                           | 22.8 IU/L(8.3~21.4)          |
| Na            | 138 mEq/L      | リゾチーム                         | 20.8 $\mu$ g/mL(5.0~10.2)    |
| K             | 4.1 mEq/L      |                               | 0x0                          |
| Cl            | 105 mEq/L      | ツ反                            | 0x0                          |
| Ca            | 8.7 mg/dL      |                               |                              |
| KL-6          | 882 U/mL(<500) | 血液ガス分析 (RA)                   |                              |
|               |                | pH                            | 7.404                        |
|               |                | PaO <sub>2</sub>              | 61.6 torr                    |
|               |                | PaCO <sub>2</sub>             | 34.3 torr                    |
|               |                | HCO <sub>3</sub> <sup>-</sup> | 21.4 mmol/L                  |
|               |                | SaO <sub>2</sub>              | 91.9 %                       |

●**入院時現症**：体温 36.6℃，脈拍88/分，血圧146/82 mmHg，身長 167.4cm，57kg，皮疹なし。表在リンパ節腫大なし。呼吸音右減弱。心音正常。心雑音聴取されず。四肢浮腫なし。

●**入院時検査所見 (Table 1)**：

血清  $\gamma$ グロブリンの増加，ALPの上昇，KL-6の上昇，ACE，リゾチームの上昇を認めた。ツ反は陰性で，血液ガス分析では低炭酸ガス血症を伴う低酸素血症を認めた。

●**画像所見**：入院時の胸部X線所見 (Figure 1) ではII度の右気胸を認めた。肺野には両側びまん性やや中肺野に優位な粒状影を認めた。

胸腔ドレナージ後の胸部CT (Figure 2) では両側肺門，縦隔リンパ節の腫大を認め，肺野では粒状影をびまん性に認めた。粒状影は主として胸膜，気管支血管束に沿った分布を示していた。また，胸膜直下にはブラを認めた。

●**臨床経過**：

画像所見よりサルコイドーシスが強く疑われ精査を行った。

Gaシンチグラム (Figure 3) では両側肺門，縦隔と両肺にびまん性に集積を認めた。

気管支肺胞洗浄液検査では細胞数の増加とリンパ球分画の増加を認め，CD4/CD8は2.94と上昇していた (Table 2)。rtB<sup>3</sup>a,B<sup>4</sup>a,B<sup>8</sup>aより行ったTBLBでは壊死を伴わない類上皮細胞肉芽腫を認め，周囲にリンパ球が集簇していた (Figure 4)。真菌や結核菌等は検出されなかった。以上の所見よりサルコイドーシスと診断した。

眼病変はなく，心機能は正常で不整脈は認めなかった。約1ヶ月後，右気胸を再発したため，再度胸腔ドレナージの後，OK-432による胸膜癒着術を行った。低酸素血症が持続したため，8月3日よりPrednisolone 30mg/日連日内服による治療を開始した。2週間後には

| BALF (RtB <sup>4</sup> b) |                        | Pulmonary function test |        |
|---------------------------|------------------------|-------------------------|--------|
| Recovery rate             | 40 %                   | VC                      | 3.24 L |
| Total cell count          | $4.7 \times 10^5$ / mL | %VC                     | 85.7 % |
| Macrophage                | 9.2 %                  | FEV <sub>1.0</sub>      | 2.44 L |
| Lymphocyte                | 90.2 %                 | FEV <sub>1.0</sub> %    | 75.3 % |
| Neutrophil                | 0.1 %                  | %DLco                   | 48.5 % |
| Eosinophil                | 0.5 %                  |                         |        |
| CD4/CD8                   | 2.94                   | ECG                     |        |
|                           |                        | Normal sinus rhythm     |        |
| Culture                   | negative               |                         |        |
| TBc-PCR                   | negative               |                         |        |
| MAC-PCR                   | negative               |                         |        |

pH 7.408, PaO<sub>2</sub> 81.0torr, PaCO<sub>2</sub> 41.3torr, SaO<sub>2</sub> 96%と低酸素血症は改善，9月にはKL-6 528U/mL, ACE 8.8IU/Lと正常化した。その後，現在まで気胸の再発は認めていない。



Figure 1. Chest radiograph on admission showing right pneumothorax and diffuse micronodules in lung fields.

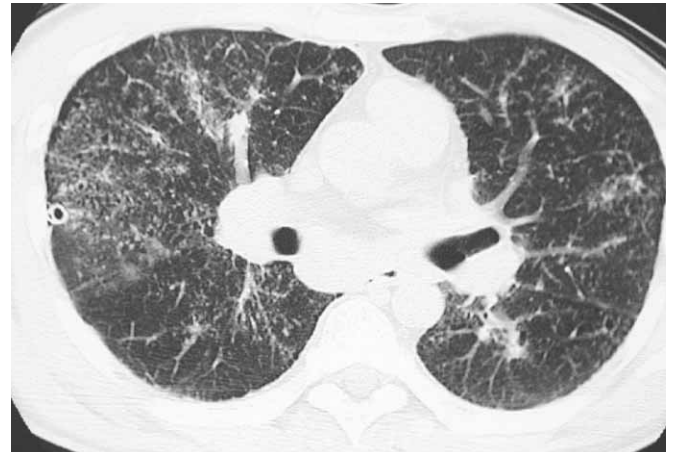


Figure 2. Chest CT after chest tube drainage showing marked swelling of mediastinal lymph nodes, subpleural bullae and diffuse micronodules in both lungs. The nodules are seen along pleura

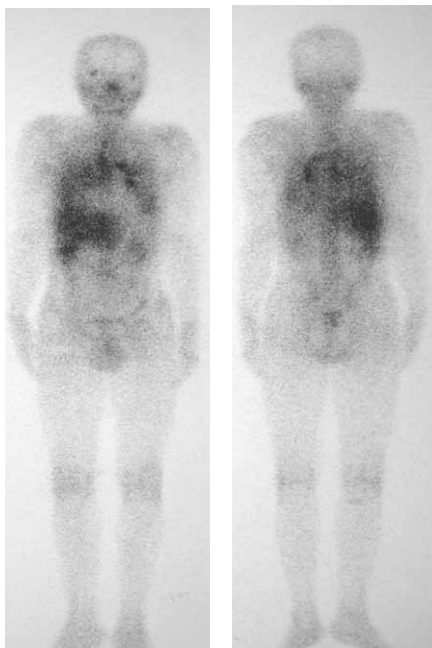


Figure 3. Gallium scintigraphy showing diffuse abnormal uptake in both lung fields.

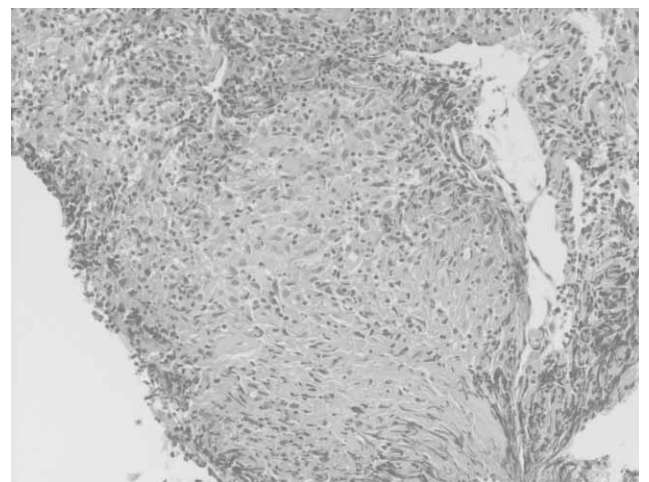


Figure 4. Transbronchial biopsy showing several epithelioid cell granulomas without necrosis, surrounded with lymphocytic infiltration.

## 考察

気胸はサルコイドーシスの比較的まれな合併症で、1948年Freimanは詳細なサルコイドーシスの総説の中で1940年代の2例の気胸報告例に言及した<sup>1)</sup>。Sharmaらによると、頻度は多数の外国文献集計でサルコイドーシス1548例中自験5例を含み気胸30例、2%であり<sup>2)</sup>、さらに気胸症例が追加集計されている<sup>3)</sup>。気胸はサルコイドーシスで、線維化の進んだ外国症例<sup>2,4)</sup>や、多発性気腫性嚢胞を伴う高度の肺線維症に進展した日本症例<sup>5,6)</sup>の経過中にみられるだけでなく、外国症例<sup>4,7,8)</sup>、日本症例<sup>9,10)</sup>でサルコイドーシスの初発症状であることもある。サルコイドーシスによる気胸の原因は、1940年代Rileyが文献例からの引用<sup>11)</sup>、最近のSharmaの記載<sup>2,3)</sup>を含み、すべての文献で、線維化によって形成された気腫性嚢胞の破裂あるいは、胸膜直下の肉芽腫の壊死によると考察されている。本症例でもCT上、胸膜の粒状影と上中肺野優位に胸膜直下のブラを認めており、気腫性嚢胞の破裂あるいは、胸膜直下の肉芽腫の壊死が気胸の原因となった可能性が考えられるが、病変部胸膜生検が実施されていないので明確ではない。また、サルコイドーシスと気胸が偶発的なものである可能性も完全には否定できない。Sharmaらは自験例180例のサルコイドーシスのうち、5例に気胸を認め、うち2例で開胸生検を施行し、胸膜に広範におよぶ非乾酪性肉芽腫を証明している<sup>2)</sup>。Froudarakisらも気胸が初発症状となった5例中3例で開胸生検により同様の結果を報告している<sup>8)</sup>。Sharmaら報告の2例はそれぞれ5回の両側性の反復性気胸をきたしたが、ステロイド投与後再発を認めなかったことから、胸膜直下の肉芽腫の壊死が機序の場合は早期のステロイドが再発予防に重要と述べている<sup>2)</sup>。一方、Froudarakisらは自験例5症例では、ステロイド治療を行わなくても、経過観察で再発を認めなかったため、ステロイドは進行例で有用であろうと推論している<sup>8)</sup>。これまでの報告では、気胸自体にドレナージを要さず経過観察のみのものから<sup>8,12)</sup>、外科的な処置を要すもの<sup>3,5,6,7,10)</sup>まで程度もさまざま、再発性のももあり<sup>2,6,11,13)</sup>、またステロイドによる治療は行わず自然軽快し、再発を認めない症例もある<sup>8,12)</sup>。ステロイドの適応については今後症例の集積と検討が必要であると思われるが、ステロイド漸減中、Prednisolone7.5mg/日連日内服時に再発した症例<sup>13)</sup>を除けば、ステロイド投与により気胸の再発はなくなる傾向が示唆されているため、再発を繰り返す症例、胸膜直下に肉芽腫形成を確認された症例では適応と考えられる。本症例は同側に気胸を再発し、胸膜癒着術を施行したが、低酸素血症が持続したため、結果的にステ

ロイドを投与し、現在まで気胸の再発は認めていない。このAaDO<sub>2</sub>の拡大を伴う低酸素血症は、肺泡レベルでの炎症細胞浸潤を主体とした胞隔炎によると考えられる。本症例の気管支肺泡洗浄液におけるリンパ球増加は喫煙者であることを考慮すると著しい増加である。同様なリンパ球比率の増加をきたす疾患として、過敏性肺臓炎については、画像上粒状影が小葉中心にとどまらず、胸膜にもみられることから否定的で、組織所見においても境界明瞭な肉芽腫はサルコイドーシスに合致するものであった。粟粒結核についても粒状影が本症例では気管支血管束に沿う分布であること、発熱、咳嗽等の臨床症状に乏しいことから考えにくく、いずれの疾患においても本症例にみられるような両側肺門、縦隔リンパ節腫大はまれである。本症例のような両側肺門リンパ節腫大を伴う喫煙者における気管支肺泡洗浄液検査のリンパ球増加は、両側肺門リンパ節腫大の消失とともに減少し、サルコイドーシスの活動度を示している<sup>14)</sup>との報告もあり、本症例でも活動性との関連が推測される。

また、胸膜癒着術については、線維化が進行し、ブラを多数認める症例で行われているが、早期サルコイドーシスでの気胸再発症例における有用性については検討が必要である。

## 結論

気胸により発見、診断されたサルコイドーシスの1例を経験した。サルコイドーシスによる気胸に対するステロイドの適応や、胸膜癒着術の有用性については今後さらに検討が必要と考えられた。

## 引用文献

- 1) Freiman DG. Sarcoid. *N Engl J Med* 1948; 239: 664-671, 709-916, 743-749.
- 2) Sharma Om P. Sarcoidosis: Unusual pulmonary manifestations. *Postgrad Med* 1977; 61: 67-73.
- 3) Soskel NT, Sharma Om P: Pleural involvement in sarcoidosis. *Curr Opin Pulm Med* 2000; 6: 455-468.
- 4) Rockoff SD, Rohatgi PK: Unusual manifestations of thoracic sarcoidosis. *AJR Am J Roentgenol* 1985; 144: 513-528.
- 5) 松島敏春, 吉田直之, 原 宏紀, 他: 多発性気腫性嚢胞, 自然気胸を呈した肺サルコイドーシスの1例. *日胸疾会誌* 1983; 21: 1111-1115.
- 6) 西野 聡, 林 隆夫, 松下捷彦, 他: 多発性気腫性嚢胞を形成し, 自然気胸を繰り返したサルコイドーシスの1例. *日胸* 1991; 50: 591-595.
- 7) Fein A, Gupta R, Goodman P: Spontaneous pneumothorax as a presenting pulmonary manifestation of early sarcoidosis. *Chest* 1980; 77: 455-456.
- 8) Froudarakis ME, Bouros D, Voloudaki A, et al: Pneumothorax as a first manifestation of sarcoidosis. *Chest* 1997; 112: 278-280.
- 9) 小宮武文, 松島敏春, 木村 丹, 他: 自然気胸を契機として発見された結節型肺サルコイドーシスの1例. *日胸疾会誌* 1995; 33: 423-437.
- 10) Omori H, Asahi H, Irinoda T, et al: Pneumothorax as a presenting manifestation of early sarcoidosis. *Jpn J Thorac Cardiovasc Surg* 2004; 52: 33-35.
- 11) Riley EA: Boeck's sarcoid: A review based upon a clinical study of 52 cases. *Am Rev Tuberc* 1950; 62: 231-85.
- 12) 飯田桂子, 良永倫子, 河本定洋, 他: 空洞病変と経過中に気胸を伴い自然軽快しているサルコイドーシスの1例. *日呼吸会誌* 1998; 36: 197-201.
- 13) Ross RJM, Empey DW: Bilateral spontaneous pneumothorax in sarcoidosis. *Postgraduate Med J* 1983; 59: 106-107.
- 14) 長井苑子: 肺サルコイドーシスの診断・活動度. *日胸疾会誌* 1990; 28: 86-91.

