

症例報告

自然気胸を契機に発見された AYA 世代肺癌の一例

澤田 徹, 監崎 孝一郎, 藤本 啓介, 久保 尊子, 法村 尚子,
林 章人, 六車 博昭, 三浦 一真, 山本 晃義

高松赤十字病院呼吸器センター

(令和4年3月1日受付) (令和4年3月18日受理)

【はじめに】思春期・若年成人 (AYA: adolescent and young adult) 世代の肺癌は症例が少なく, 20歳未満で発症する肺癌は非常にまれである。また, 自然気胸を契機に発見される肺癌も比較的少ない。今回, われわれは自然気胸を契機に発見された AYA 世代肺癌症例を経験したのでここに報告する。【症例】18歳, 男性。既往歴・内服歴なし。胸痛を自覚し, 近医受診したところ左気胸を指摘され当院紹介となった。精査目的に胸部 CT 検査を施行したところ, 左 S⁸に0.8cm のすりガラス型陰影を認めた。また, 離れた位置にブラも認めた。胸腔ドレナージを施行し, 改善を認めたため退院するも, 2週間後に気胸再発し再入院となった。短期間による再発, 腫瘍も存在することから, 手術を選択し部分切除を行った。術中所見も腫瘍とブラは離れた位置に認めた。最終病理結果は adenocarcinoma in situ とブレブであった。術後再発は認めていない。【結論】若年者, 特に10歳代においても胸部異常陰影を認めた場合は肺癌の可能性を考慮する必要がある。また, 自然気胸に併発する肺癌もあり, 胸部 CT 検査を行う必要がある。

はじめに

思春期・若年成人 (AYA: adolescent and young adult) 世代の定義は, がん領域においては15歳から40歳未満と定義されることが多い。日本の AYA 世代の肺癌は非常に症例が少なく, 全体の0.4%にすぎない。その中でも20歳未満となると全体の0.01%であり, 非常にまれである¹⁾。また, 原発性肺癌における気胸の合併頻度は

0.25%~4.4%²⁻⁴⁾とされており, 自然気胸を契機に発見される肺癌も比較的少ない。今回, われわれは自然気胸を契機に発見された20歳未満の AYA 世代肺癌症例を経験したのでここに報告する。

症 例

患者: 18歳, 男性

主訴: 胸痛

既往歴: 特記事項なし

内服歴: 特記事項なし

生活歴: 喫煙歴なし

家族歴: 特記事項なし

現病歴: 朝から胸痛を自覚し症状が持続するため近医を受診した。胸部 X 線検査を施行したところ左気胸を指摘され, 当院に紹介となった。

胸部単純 X 線検査 (Fig. 1): 左肺に中等度の虚脱を認めた。

胸部 CT 検査 (Fig. 2): 左肺気胸あり。左 S⁸に0.8cm のすりガラス型結節 (pure ground-glass nodule, pGGN) あり。

治療経過: 中等度の気胸であり, 胸腔ドレナージを施行した。胸腔ドレナージを留置したところ, 肺の膨張を得られエアリークも消失した。気胸と pGGN の併発ではあるが, 若年者であり気胸は初回発症であること, pGGN は後日消失する可能性もあり, 保存的加療を行う方針とした。経過は良好で, ドレナージ挿入後2日目にドレナージ抜去, 3日目に退院となった。しかし, 退院から2週間

後に左気胸の再発を認め再度受診した。胸部単純X線検査では、中等度の左肺虚脱を認めたため、胸腔ドレナージを施行した。ドレイン挿入後、胸部CT検査を施行したところ、pGGNと全く関連のない左肺下葉(S⁶)にブラを認め、左S⁸のpGGNも消失せず存在していた。ブラが存在すること、短期間に再発したこと、pGGNも消失せず存在していることから手術の方針となった。手術所見：完全鏡視下3portで手術を行った。左肺下葉(S⁸)の臓側胸膜に毛細血管増生を伴う胸膜変化を認めた。病変を見失わないようにソフト凝固メスで腫瘍の頭尾側にマーキングをおき、胸腔鏡下手術用肺把持鉗子で腫瘍を把持し、腫瘍から十分マージンをとるように左肺下葉部分切除を施行した。摘出標本から、腫瘍が十分切除できていることを確認した。次に気胸の治療に移り、

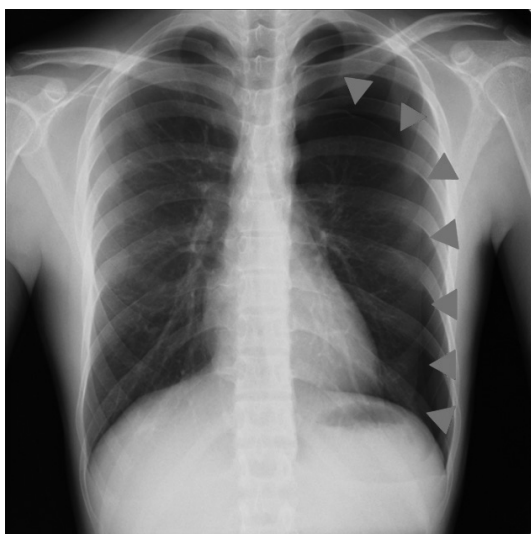


Fig. 1. Chest radiography showing a left moderate pneumothorax.

腫瘍と離れたS⁶に大畑分類IV型のブラを認め、小孔テストを施行したところエアリークを確認した。ここを今回の気胸の原因と判断し、部分切除術施行し、切除部分にカバーリングを行い手術終了した。

病理所見(Fig. 3)：左肺腫瘍は約8×3mmの範囲でII型肺胞上皮細胞やクララ細胞に類似した腫瘍細胞の肺胞上皮置換性増殖がみられ、異型腺腫様過形成が鑑別に挙がるが、細胞密度が高い領域がみられる点や腫瘍径が5mmを超える点から上皮内癌と診断された。切除断端は陰性であった。

また、S⁶のブラは臓側胸膜内に気腫性嚢胞がみられ、線維化や単核球浸潤を伴っておりプレブの像であった。プレブ周囲に腫瘍性病変は認めなかった。以上から、左下葉肺癌 pTiscN0cM0, Stage 0 と診断した。

術後経過：術後問題なく第4病日に退院した。現在1年経過しているが気胸、肺癌共に再発せず経過観察中である。

考 察

今回、われわれは18歳の自然気胸を併発した肺腺癌の1例を経験した。20歳未満の肺癌切除症例は非常にまれであり、肺癌と関連のない気胸を合併した症例もまれである。

国立研究開発法人国立がん研究センターがん対策情報センターでの2014年の全国がん登録によると、40歳未満では0.4%、20歳未満では0.01%であった¹⁾。当院においても、2011年1月から2021年8月まで肺癌手術症例705例のうち、40歳未満症例は10例(1.4%)、20歳未満とな

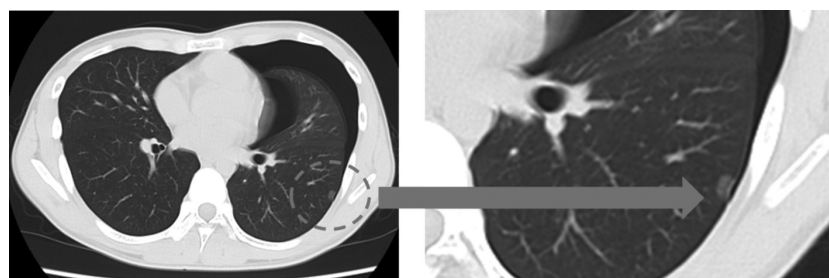


Fig. 2. Chest computed tomography showing a ground-glass nodule in segment 8 of the left lung.

ると本症例 (0.14%) しか認めなかった (Table. 1)。40 歳未満の 10 例中、男性 2 例、女性 8 例で全例腺癌だった。右側 8 例、左側 2 例であり腫瘍占拠部位は右上葉 2 例、右中葉 2 例、右下葉 4 例、左上葉 1 例、左下葉 1 例であった。進行度は stage 0 が 3 例、stage I A1 が 6 例、stage I B が 1 例だった (Table. 1)。男女別では女性に多いと言われており、組織型は腺癌が 50-80% との報告があり^{5,6)}、当院の症例においても女性が多く、組織型は全例腺癌であった。

AYA 世代肺癌において、以前では若年者は PS が良好であるがために発見が遅れ、進行した状態で肺癌が発見されるため予後不良との報告が多かったが、近年の報告では病期別の予後は非 AYA 世代肺癌とほぼ同等とされ、早期発見・早期治療の重要性が指摘されている^{7,8)}。

本症例も偶発的に発見されたが stage 0 の症例であった。治療についても、非 AYA 世代肺癌と大差なく、本症例も末梢に発生した pGGN 症例であり、部分切除で問題ないと思われる。AYA 世代肺癌は喫煙や環境因子に左右されにくく、発癌に寄与するとされる遺伝子の不安定性や DNA の増幅・欠失などの異常が有意に高率であるとの報告があり、AYA 世代肺癌の発生には環境因子に左右されない遺伝子異常がより強く影響している可能性が示唆される⁵⁻⁷⁾。

また、原発性肺癌における気胸の合併頻度は 0.25% ~ 4.4% との報告がある²⁻⁴⁾。今回は癌の占拠部位とブラの発生部位が離れており、偶発的に癌が発見できた症例であった。気胸合併肺癌の多くはブラ内に癌の浸潤を認めた報告が多いが、今回のように癌占拠部位と気胸発症部

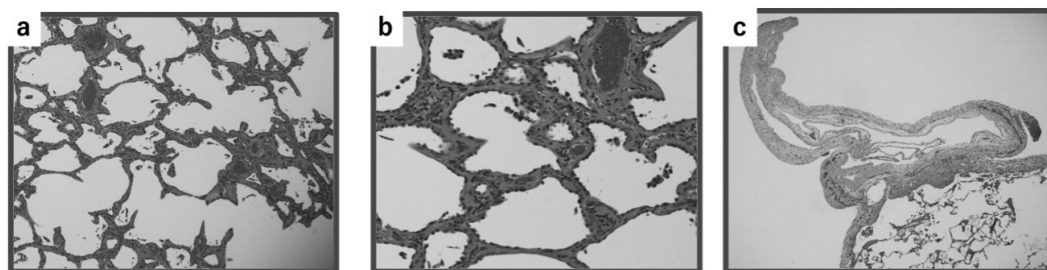


Fig. 3. Microscopy showing an adenocarcinoma in situ with a lepidic pattern. a : Hematoxylin and eosin staining (H. E.) low-power field, b : H. E. high-power field. Microscopic findings consistent with those of a bleb. c : H. E. low-power field

Table 1. Cases of lung cancer in AYA patients.

	Sex	Age	Pathology	Part	Segment	Stage	Ope. Method
1	M	18	ad	lt	S8	0	partial
2	F	24	ad	rt	S5	IIB	lobectomy
3	F	26	ad	rt	S2	I A1	segmentectomy
4	M	32	ad	rt	S8	0	partial
5	F	33	ad	rt	S1	I A1	partial
6	F	35	ad	rt	S6	0	lobectomy
7	F	35	ad	rt	S9	I A1	lobectomy
8	F	36	ad	rt	S6	I A1	lobectomy
9	F	36	ad	rt	S5	I A1	lobectomy
10	F	36	ad	lt	S1+2	I A1	partial

ad : adenocarcinoma

位が異所性同時発症はまれである。

自然気胸と肺癌が関連する可能性を示唆する因子に、40歳以上の重喫煙者、慢性気管支炎、気腫性肺嚢胞、ドレナージ後再膨張不良例、40歳以下でも気胸再発を繰り返す症例などが挙げられるが⁹⁾、本症例においては気胸の再発以外は当てはまらなかった。

気胸合併肺癌症例における気胸の発生機序については、これまでも文献的にさまざまな考察がなされているが、主に次のように分けられる。1) 腫瘍自体の浸潤・壊死、もしくは腫瘍近傍の肺炎・肺膿瘍の胸腔内穿破による気管支胸膜瘻。2) 腫瘍によるチェックバルブ機構による末梢肺の過膨張や、無気肺に伴う他肺葉の過膨張など腫瘍による気管支狭窄・閉塞に関連した変化。3) 既存のブラ・ブレブの破裂による自然気胸と肺癌が偶然併存するものである^{10,11)}。本症例では、病理学的に腫瘍の胸膜への浸潤、腫瘍周囲の炎症、および腫瘍による気管支の狭窄・閉塞を認めず、気胸の原因として前二者によるものは否定的で、既存のブラ・ブレブの破裂と考えるのが妥当と思われた。

本症例は自然気胸を契機に偶発的に行ったCT検査からpGGNを発見した。本症例は肺が虚脱した状態でもGGNを認めたが、GGNの占拠部位によっては虚脱肺のみのCTでは異常陰影を見逃す可能性もあり、肺が十分膨張した状態で再度CT検査を行う必要がある。また、15mm未満の肺小結節影を認めた場合、部分充実型結節(part-solid nodule)であれば3ヵ月後のCT再検にて縮小や消失の有無の確認が必要であり、pGGNでは3ヵ月後のCT再検が推奨されている¹²⁾。本症例は気胸が再発したこともあり、発見から2週間後に手術を行った。手術を選択したことは問題ないと考え、今回のようなadenocarcinoma in situ (AIS) の場合GGNが多発する報告もみられるため¹³⁾、術後経過観察はAIS症例でも通常より長期間フォローを行う必要があると考える。

結 語

自然気胸を契機に発見されたAYA世代肺癌の1例を経験した。若年者、特に10歳代においても胸部異常陰影を認めた場合は肺癌の可能性を考慮する必要がある。自

然気胸に併発する肺癌も認めることから、胸部CT検査を行い精査する必要がある。

文 献

- 1) 国立研究開発法人国立がん研究センターがん対策情報センター. がん登録・統計. 2015
- 2) Hyde, L., Hyde, C. I.: Rare occurrence of simultaneous pneumothorax and lung cancer. *JAMA.*, **239**: 1421, 1978
- 3) 塚本東明, 佐藤徹, 山田敬子, 長沢正樹: 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*, **33**: 936-9, 1995
- 4) 藤沢武彦, 山川久美, 斉藤博明, 小川利隆 他: 肺癌に合併した自然気胸症例に関する検討. *肺癌*, **27**: 645-52, 1987
- 5) Sekine, I., Yokose, T., Ogura, T., Suzuki, K., *et al.*: Microsatellite instability in lung cancer patients 40 years of age or younger. *Jpn J Cancer Res.*, **88**: 559-63, 1997
- 6) Lindstrom, I., Nording, S., Nissen, A. M., Tammilehto, L., *et al.*: DNA copy number changes in lung adenocarcinoma in younger patients. *Mod Pathol.*, **15**: 372-8, 2002
- 7) 細野達也, 大野彰二, 中澤晶子, 押川克久 他: 20歳代の若年者肺癌の2例. *日呼吸会誌*, **42**: 859-64, 2004
- 8) 渡辺洋宇, 小田誠, 林義信: 若年者肺癌. *臨床外科*, **46**: 1317-25, 1991
- 9) Steinhäuslin, C. A., Cuttat, J. F.: Spontaneous pneumothorax. A complication of lung cancer? *Chest.*, **88**: 709-13, 1985
- 10) Yeung, K. Y., Bonnet, J. D.: Bronchogenic carcinoma presenting as spontaneous pneumothorax: case reports with review of literature. *Cancer.*, **39**: 2286-89, 1977
- 11) 渡辺健寛, 濱田利徳, 岡田英, 広野達彦: 自然気胸を契機に発見された22歳女性肺癌の1例. *肺癌*, **44**: 705-8, 2004

- 12) 肺癌診断基準部会. 低線量 CT による肺癌検診の肺結節の判定基準と経過観察の考え方 第5版. 日本 CT 検診学会. 2017
- 13) Nakahara, R., Yokose, T., Nagai, K., Nishiwaki, Y., *et*

al. : Atypical adenomatous hyperplasia of the lung : a clinicopathological study of 118 cases including cases with multiple atypical adenomatous hyperplasia. *Thorax.*, **56** : 302-305, 2001

*AYA-generation lung cancer in a patient presenting with spontaneous pneumothorax :
A case report*

*Toru Sawada, Koichiro Kenzaki, Keisuke Fujimoto, Takako Kubo, Shoko Norimura, Akihito Hayashi,
Hiroaki Muguruma, Kazumasa Miura, and Akiyoshi Yamamoto*

Chest Medical Center, TAKAMATSU Red Cross Hospital, Kagawa, Japan

SUMMARY

Background : Surgery for young patients (i.e., <20 years of age) with early-stage lung cancer is extremely rare. To the best of our knowledge, only a few cases of lung cancer initially presented with spontaneous pneumothorax. Here, we report a case of AYA (adolescent and young adult)-generation lung cancer in a patient who presented with spontaneous pneumothorax.

Case : An 18-year-old male was admitted to our hospital for new-onset left pneumothorax. Chest computed tomography incidentally revealed a pure ground-glass nodule (pGGN) in the left lower lobe (S⁸) with a bulla near the nodule. While chest tube drainage improved his condition, pneumothorax recurred two weeks later, prompting surgical for video-assisted partial resection of the left lung. Intraoperative findings showed that the bulla and nodule were distant. Histopathologic analysis was consistent with a diagnosis of adenocarcinoma in situ with a bleb.

Conclusion : This study highlights the importance of considering the possibility of lung cancer in patients with irregular chest shadows, even those less than 20 years of age. Computed tomography plays an important role in the diagnosis of lung cancer in patients with spontaneous pneumothorax.

Key words : adolescent and young adult, lung cancer, spontaneous pneumothorax