

Kartagener 症候群を考えさせた肺癌の 1 例

川崎医科大学 呼吸器内科

川西 正泰, 松島 敏春, 矢木 晋
二木 芳人, 副島 林造

(昭和55年 8 月28日受付)

A Case Report of Epidermoid Carcinoma of the Lung Considered Recurrent Pneumonia in Kartagener's Syndrome

Masayoshi Kawanishi, Toshiharu Matsushima
Susumu Yagi, Yoshito Niki
and Rinzo Soejima

Division of Respiratory Diseases, Department of Internal
Medicine, Kawasaki Medical School, Kurashiki

(Accepted on August 28, 1980)

57 歳男子の難治性閉塞性肺炎を伴った肺の扁平上皮癌の症例を報告した。

患者は **heavy smoker** であり、反復性肺炎のために入院してきた。右胸心、副鼻腔炎があったので、反復性肺炎は **Kartagener** 症候群の拡張気管支に発症しているものと思われた。各種抗菌剤を用いるも肺炎が治癒しなかったので基礎疾患を精査したところ、左中幹気管支の管腔内に腫瘤が発見された。腫瘤は所属リンパ節転移を伴うのみの扁平上皮癌であったので、左肺摘出術が施行された。

本症例における基礎疾患診断の困難さ、並びに、気道障害時の易感染性、難治性について考察した。

Epidermoid carcinoma of the lung with incurable obstructive pneumonia in 57-year-old man was reported.

He was heavy smoker and admitted to the hospital because of recurrent pneumonia. He had dextrocardia and sinusitis, and his recurrent pneumonia was considered to have occurred in the ectatic bronchi of Kartagener's syndrome. Pneumonia did not respond to many kinds of antimicrobial agents, so the examination of his underlying disease was conducted with the result of revelation of intraluminal tumor of left intermediate bronchus. The tumor proved to be epidermoid carcinoma with regional lymphnodes metastasis only, then the pneumonectomy of left lung was performed.

Difficulty of diagnosis of underlying disease in the case, proneness and incurability of infections in injured respiratory tract were discussed.

はじめに

気道に器質的障害がある場合、気道の反復感染をきたしやすいことは良く知られている。Kartagener 症候群は右胸心、副鼻腔炎、気管支拡張症を主徴とする先天性疾患であり、最近では男子の場合不妊を伴うので immortile cilia syndrome とも呼ばれている¹⁾。これは気管支上皮ならびに精子の線毛運動の障害があるため、前者の障害の場合に反復性気道感染、気管支拡張を、後者の障害の場合に男性不妊をきたすものと考えられる。

一方、肺癌の場合も呼吸器感染症をきたしやすく、最も多いのは閉塞性肺炎であり、これは気管支内腔に発育した腫瘤の末梢側に起こるものである²⁾。

ところで私共は、右胸心、副鼻腔炎、反復性肺炎をきたす症例に遭遇し、当初 Kartagener 症候群の拡張気管支に感染が反復しているものであろうと考え治療を行なった。十分な治療がなされたにも拘らず、肺炎像は治癒せず、発熱を繰返したので更に詳しく検査をしたところ、気管支内腔に腫瘤が存在し、難治性感染の原因が気管支閉塞をきたした肺癌であることがわかった。幸い本症例は外科的切除が行なわれ、約1年後の現在生存しているが、本症例は呼吸器疾患の診断と治療に関して示唆する点が多いので報告する。

症 例

症例は57歳男子で、岡山近郊に2商店を経営しており、1日40本、38年間の喫煙歴を有する heavy smoker である。父親が結腸癌にて死亡、姉が子宮癌、弟が肺結核という家族歴があり、本人の既往歴としては34年前に内臓逆位症を指摘されており、20年前には肺結核との診断で左胸部成形術を受けている。

現病歴としては、昭和52年12月に発熱、乾性咳嗽、息切れの出現を認め近医を受診、この時点では胸部X線写真に異常陰影はなかったといわれている。約1カ月間の入院治療により解

熱はしたが、咳嗽、息切れが改善せず、退院後他院を受診、気管支喘息と診断され、それ以後通院治療を受けていた。昭和53年11月にも発熱をきたし、2週間の入院治療を受け、54年1月頃より発熱と共に強い全身倦怠感もあり、それを繰返すために某国立大学をはじめ病院を転々とし、肺炎との診断の下に入院・治療を受けている。それでも高熱が反復し、胸部X線写真上の陰影改善もえられないとのことで、54年6月13日に呼吸器内科へ紹介され、入院してきた。

入院時、体格中等度、栄養良好。チアノーゼ、パチ状指なく、黄疸、貧血、浮腫も認めなかった。表在リンパ節も触知せず。

胸部では左に手術痕があり、左の胸部の変形萎縮が著明であった。左胸部は打診上短で、聴診ではラ音を認めた。心濁音界ならびに心尖拍動は右胸部にあったが、雑音はなかった。腹部に異常なく、神経学的にも異常がなかった。

入院時の検査成績では RBC 451×10^4 , Hb 14.1 g/dl, WBC 5,600, ESR 18/1 h, CRP (-), ツ反 12×8 , 喀痰検査で抗酸性菌は陰性であったが、E. coli (+), Proteus mirabilis (+),

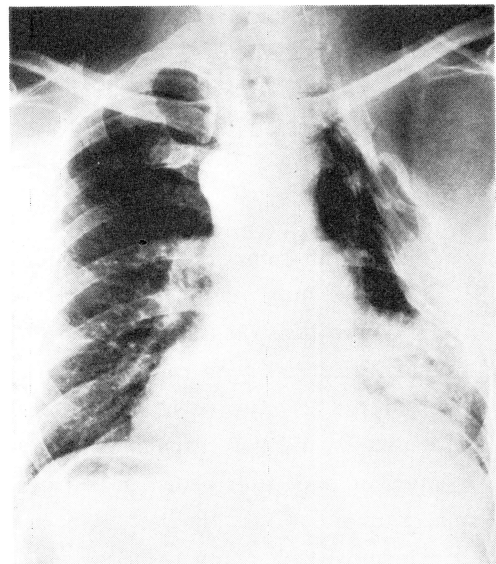


Fig. 1. Chest radiograph of the case shows dextrocardia, thorachoplasty, and inhomogeneous shadow in the left lower lung field.

肺機能検査では肺活量は55%, 1秒率は72%, Pao₂ 62.5 mmHg, Paco₂ 40.5 mmHgであった。

入院時の胸部X線像 (Fig. 1) では, 右胸心, 胸部成形術後であるほか, 左中・下肺野に不均等性の陰影があり, 肺炎の存在が明らかであった。耳鼻科的にも副鼻腔炎の存在ありと診断された。

以上の症状, 胸部X線像, 喀痰培養成績より, 左肺の細菌性肺炎と考え, その基礎疾患として Kartagener 症候群による気管支拡張病変があるものと考えた。直ちに Fig. 2 に示した経過表の如く, 抗細菌性抗生物質 cefoperazone (CPZ), carbenicillin (CB-PC), gentamicin (GM), cefmetoxime (SCE-1365) を相次いで, 単独または併用により投与したが, 発熱や自覚症状の改善は1時的に認められるものの, 喀痰中大腸菌の消失をきたさず, 胸部X線写真での肺炎像は殆ど不変であった。

十分な抗生物質を投与するにも拘らず, 難治

性の肺炎であることから, その基礎疾患に疑いを持ち再検討を始めた。胸部X線 正面断層像 (Fig. 3) にて左中幹気管支の閉塞のあることがわかり, 気管支鏡検査を行なうと, 左中幹気管支入口部に易出血性で表面に凹凸のある黄白色 cauliflower 状の隆起物があり, 気管支内腔を殆ど閉塞していた (Fig. 4)。この所見は気管支の扁平上皮癌を考えさせ, 事実, 同部の擦過細胞診にて分化度の高い扁平上皮癌細胞の集落が認められた。

その他の検査では, 肺の ⁶⁷Ga シンチグラムでは左肺門部に集積像はあるものの, 肺門, 縦隔リンパ節のとりこみは明らかでなく, 骨, 肝シンチグラムでも明らかな転移病巣はなく, LDH, CEA などの血液生化学検査も正常範囲内であった。

以上の如く, 本症例は左中幹原発の扁平上皮癌であり, TNM 分類では T₂ N₀ M₀ で臨床病期 Ia 期にあるものと考えられた。従って外科的切除の適応であり, 更に本症例は過去の胸部

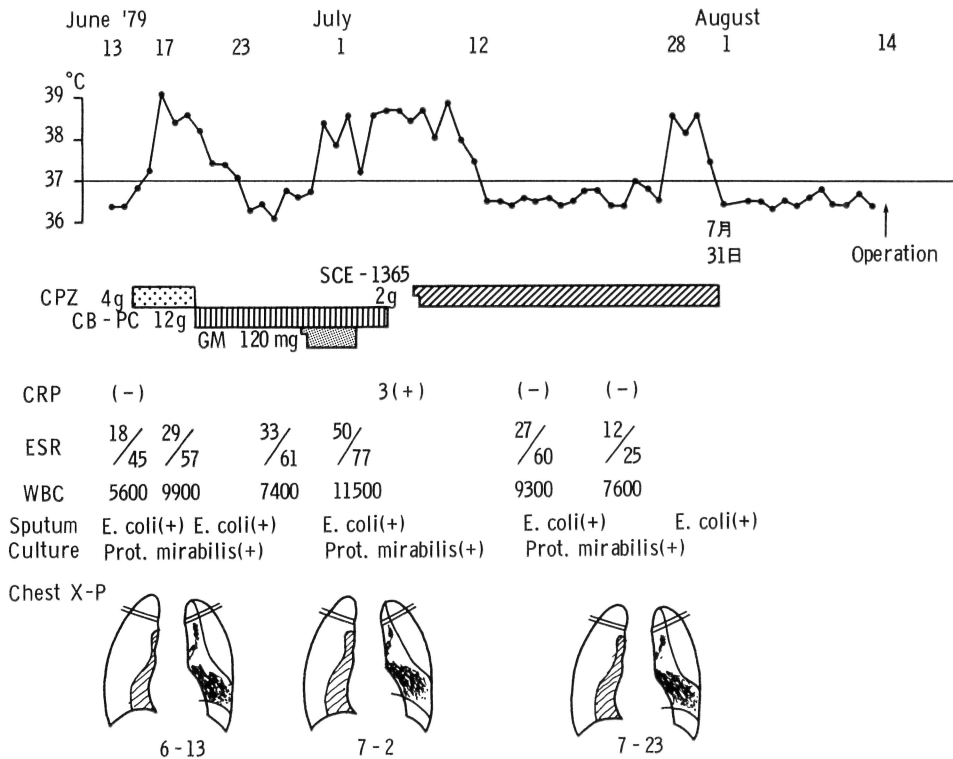


Fig. 2. T. T. 57 year-old, male

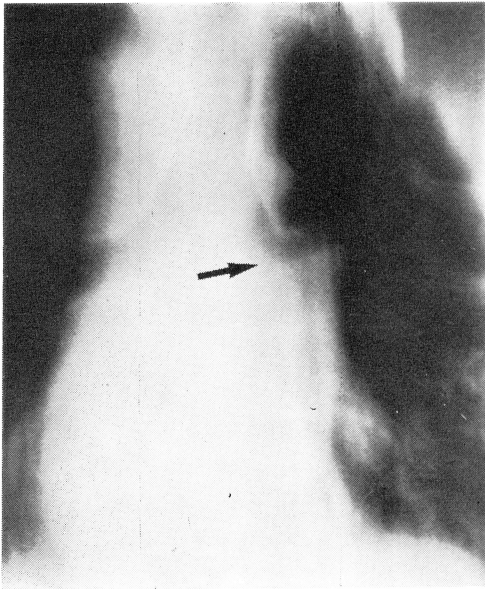


Fig. 3. Tomograph of the case reveals obstruction of the left intermediate bronchus.



Fig. 4. Bronchofiberoptic finding of the case shows a large irregular tumor in the left intermediate bronchus

成形術により左上葉は萎縮しており、左中・下葉も閉塞性肺炎をきたし殆ど機能していないので、切除(左肺全摘出術)によっても肺機能面での変化は殆どないものと考えられた。従って、



Fig. 5. Photomicrograph of the excised tumor shows squamous cell carcinoma with cancer pearls

本院胸部外科にて8月14日に左肺全摘出術を施行していただいた。手術時の所見は胸部X線像、内視鏡所見と殆ど同じであり、リンパ節転移も所属リンパ節に認められるのみであった。

摘出肺の組織像は **Fig. 5** にみられる如く、癌真珠を中心に有する扁平癌細胞の癌巢の集簇する、所謂、高分化型扁平上皮癌であった。

なお、本症例は術後約1年経過した現在も元気であり、明らかな再発は認めていない。

考 察

前述してきた如く本症例は、当初Kartagener症候群に合併した難治性肺炎を考えていたものが、肺癌に伴った閉塞性肺炎と判明し、切除した例である。本症例について2つの点を考察したい。1つは診断の重要性、困難性についてであり、1つは気道障害時の易感染性と難治性についてである。

疾病の治療にあたり、診断が重要であることは言うまでもない。本症例の肺炎をきたした基礎疾患の診断を私共は誤った訳であるが、その理由の1つは、本症例が右胸心、副鼻腔炎を有していたので、Kartagener症候群のTriasの1つである気管支拡張症を予想した、思考過程の短絡である。拡張気管支があれば感染を繰返し易く、治療も困難だという先入感があり、これが落とし穴となった。更にもう1つ診断を困難にしていたものは、本症例が過去に胸部成形

術をうけており、胸部の変形、肺の変形萎縮が著るしかつたこと、広汎な閉塞性肺炎が存在したことである。胸部X線写真においても、症候の上からも、過去の肺疾患に肺癌が合併してくる時は、その発生の区別が難かしく、診断が遅れがちである。例えば、広汎な肺結核病変に肺癌が合併してきた場合の診断は困難で、剖検により診断される場合も多い³⁾。

次に気道障害時の易感染性についても、古くより認められている。例えばウイルス感染させた後では細菌性肺炎の合併が容易であることは動物実験でも認められており⁴⁾、また私共は、ホルマリン⁵⁾やNO₂ガス⁶⁾で気道を傷害した場合に、細菌感染をきたし易く、肺炎を作りやすく、また、その肺炎が難治性である⁷⁾ことを動物実験により証明している。拡張気管支に感染症を合併し易いことも事実で、それは気道の器質的傷害によるものであるとする報告がある⁸⁾。同じく肺癌の場合も感染をきたしやすく、肺癌患者の剖検時肺炎合併率は57%であ

るのに対し、肺癌を除いた固型癌患者の剖検時肺炎合併率は31%と差があり⁹⁾、殊に気管支内腔に発育した腫瘤の末梢部に肺炎をきたし易く、閉塞性肺炎として有名である。いずれにしろ気道に障害がある場合は下気道・肺の感染症をきたし易く、また、難治性であるが、その詳細な機序については不明な点も多く、従って私共は動物実験によりその解析に努力をしており、合せて適切な治療法の確立に努力¹⁰⁾をしている。

ま と め

右胸心、副鼻腔炎をもった57歳、heavy smokerの男子に発症した反復性肺炎について報告した。当初、Kartagener症候群に合併した難治性感染症と考え治療していたが、肺癌に合併した閉塞性肺炎であることがわかり、外科的に治療した。本症例での基礎疾患診断の困難性、ならびに、気道障害時の易感染性、難治性について考察した。

文 献

- 1) Eliasson, R., Mossberg, B., Camner, P. and Afzelius, B. A.: The immotile-cilia syndrome. *New Engl. J. Med.* 297: 1—6, 1977
- 2) Sherman, R. S. and Phillips, S. J.: Radiologic diagnosis of pulmonary neoplasms. *Lung cancer*, ed. by Watson, W. L. Saint Louis, Mosby, 1968, p. 158
- 3) 松島敏春: 中国・四国地方における肺結核と肺癌との合併症例に関する統計的観察. *結核* 53: 377—383, 1977
- 4) Harford, G. G. and Hamlin, M.: Effect of the lesion due to influenza virus on the resistance of mice to inhaled pneumococci. *J. exp. Med.* 91: 245, 1940
- 5) Matsushima, T., Mizoguchi, D. and Soejima, R.: Experimental mouse pneumonia following lung injury with one percent formaldehyde. *Kawasaki med. J.* 4: 35—46, 1978
- 6) 加藤 取: NO₂暴露マウスにおける肺の超微形態変化ならびに肺炎桿菌噴霧感染後の早期変化に関する研究. *日胸疾会誌* 18: 435—446, 1980
- 7) 二木芳人, 川西正泰, 加藤 取, 松島敏春, 副島林造: NO₂ガス暴露マウスにおける感染実験 —その易感染性についての検討—. 第15回日本胸部疾患学会中国四国地方会において発表. 昭和55年7月4日, 於岡山
- 7') 二木芳人, 川西正泰, 田野吉彦, 松島敏春, 副島林造: 実験的気道感染に対する予防的化学療法. 第28回日本化学療法学会総会において発表. 昭和55年6月19日, 於東京
- 8) Kogan, E., Soscolne, C. L., Zwi, S., Hurwitz, S., Marier, G. M. G., Ipp, T. and Rabson, A. R.: Immunologic studies in patients with recurrent bronchopulmonary infections. *Am. Rev. respir. Dis.* 111: 441—451, 1975
- 9) 松島敏春: 院内感染. *Medicament News*. 昭和55年8月15日特集号 p. 3—6
- 10) 田野吉彦, 二木芳人, 松島敏春, 副島林造: 肺炎桿菌肺炎マウスの治療実験. 第27回日本化学療法学会総会において発表. 昭和54年6月8日 於福岡