

令和 5 年度厚生労働科学研究費補助金 難治性疾患政策研究事業
分担研究報告書

胸部傍椎体病変に関する症例検討と考察

研究分担者 松井祥子 富山大学保健管理センター（教授）
研究分担者 半田知宏 京都大学大学院医学研究科呼吸不全先進医療講座（特定准教授）

研究要旨

IgG4 関連呼吸器疾患は、胸腔内においてリンパ路に沿った病変を発症することが、臨床・画像・病理の専門医らによる検討を経て明らかとなり、2015 年に公表した診断基準の基になっている。その後、ACR/EULAR 分類基準において傍椎体の帯状病変が、胸部においてスコアの高い所見に取り入れられた。厚労班呼吸器分科会による班内症例調査では、その病変は胸郭内病変の約 10%に認められたことを報告したが、詳細は明らかではなかった。今回、胸部外科医とともに経験した症例を通じて、その病態の概要を考察したので報告する。

班外研究協力者：
本間崇浩（聖マリアンナ医科大学胸部外科）
田邊慶太郎（富山大学附属病院呼吸器外科）

A. 研究目的

IgG4 関連呼吸器疾患は、胸腔内においてリンパ路に沿った病変を発症することを本分科会と東京びまん性肺疾患研究会の共同検討にて明らかとなり、論文及び呼吸器疾患診断基準(2015 年, 2023 年)にて報告した。一方米国/欧州リウマチ学会(ACR/EULAR)分類基準(2019 年)には、胸部傍椎体病変が特徴的な所見として記載された。しかしその所見の詳細は十分に明らかにされていない。我々は異時性発症の傍椎体病変を経験し、その経過と所見、及び国内外の類似例の検討を行うことにより、傍椎体病変の病態を探ることを目的とした。

B. 研究方法

一症例に異時性に発症した傍椎体胸膜病変の胸腔鏡による検査・手術症例を経験し、その組織所見や胸水の性状結果を基に、PubMed による検索を行い、検索結果を基に症例の病態に関する考察を行った。

（倫理面への配慮）
人を対象とする医学系研究に関する倫理指針にしたがい、富山大学附属病院の倫理審査委員会の承認を得ている（R2023169）。また症例報告に関しても同意書を取得している。

C. 研究結果

1. 症例の概略：右胸痛を主訴に受診した症例。胸壁に腫瘍病変を指摘され、悪性疾患除外目的で胸腔鏡下腫瘍摘除術を施行。病理所見にて IgG4 関連胸膜炎と診断された。無治療で経過観察中の 2 年後に、左側に小腫瘍病変が出現。同様に悪性疾患除外のため、再度胸腔鏡施行。摘出した腫瘍で同様の所見を

得たが、術後 3 週目に胸水が出現。リンパ管造影及び胸水検査等にて乳び胸と診断された。

2. PubMed 検索により、key words に該当した 28 件について論文レビューを行い、類似する胸水症例 8 例の報告を抽出し、それらと本症例について比較検討を行った。本例を除く 8 例の報告はすべて胸膜生検を行って診断されており、また胸水は同時に発症していた。胸膜肥厚の報告が多く、本症例のように、癒着の強い比較的広範囲に生じた胸膜腫瘍の切除症例の報告は無く、また異時性に生じた胸膜炎の症例報告も認められなかった。

	年	性	主病変	他病変	PET 集積	治療
1	46	M	胸水	—	無	GC
2	78	M	胸水	—	無	利尿薬
3	66	M	胸水	—	未	GC+RTX
4	81	M	胸水	—	未	GC
5	70	F	胸水	—	未	GC
6	74	F	胸水	—	未	GC
7	69	M	胸水	肺	未	GC
8	65	M	胸水	肺	肺	観察→GC
9	72	F	腫瘍	—	腫瘍	観察

GC：グルココルチコイド RTX：リツキシマブ

D. 考察

症例経過から、最初の手術は胸痛などの自覚症状もあり、また PET での集積も強かったため胸腔鏡下による腫瘍摘出となり、IgG4 関連胸膜炎と診断された。2 回目の手術は、経過観察中に対側の結節として指摘され、同様に悪性疾患除外目的で摘出後、IgG4 関連疾患と診断された。しかしその後生じた乳び胸水の出現から、胸部外科の研究協力者らと検討を行い、胸管を含む腫瘍摘出後のリンパ流路の変化により生じた現象と考察した。傍椎体病変の形成過程、及び外科的処置に付随した二次的な変化から、

本所見の病態はリンパ流を介した IgG4 陽性細胞浸潤であると考えられ、リンパ管造影のある他報告とも整合性があると考えられた。

E. 結論

異時性に生じた胸膜腫瘤の症例を経験した。その経過から、IgG4 胸膜炎の病態形成の輪郭が明らかになったと考えられた。

F. 健康危険情報

なし

G. 研究発表

1. 論文発表

1. Tanabe K, Homma T, Matsui S, Tsuchiya T, Saji H. Metachronous bilateral immunoglobulin G4-related pleuritis: A case report and literature review. Respir Case Rep. 2023;11:e01204.
2. Handa T, Matsui S, Yamamoto H, Waseda Y, Iwasawa T, Johkoh T, Notohara K, Hebisawa A. The 2022 revised diagnostic criteria for IgG4-related respiratory diseases. Resp Investig. 2023;61:755-759.

2. 学会発表

1. 松井祥子、半田知宏、山本洋、源誠二郎、早稲田優子、小松雅宙、岡澤成祐、蛇澤晶、岩澤多恵、上甲剛. 特別報告 IgG4 関連呼吸器疾患診断基準 2022. 第 63 回日本呼吸器学会学術講演会; 2023 Apr 28-30; 東京.
2. Matsui S. Involvement of circulatory and respiratory organs in IgG4-RD. The 4th International Symposium on IgG4-related Disease. The 13th Annual meeting of Japanese association of IgG4-related Disease. 2021 Dec2-4; Kitakyushu.

H. 知的財産権の出願・登録状況

なし

1. 特許取得

なし

2. 実用新案登録

なし

3. その他

なし