

症 例

瘻壁が菲薄化していた末梢性肺動静脈瘻の1手術例

肺動静脈瘻の治療方針について

稲葉 浩久¹⁾ 太田伸一郎¹⁾ 西村 俊彦¹⁾
 高持 一矢¹⁾ 石田 格¹⁾ 江藤 尚²⁾
 本多 淳郎²⁾ 室 博之³⁾ 長島 康之⁴⁾

要旨：症例は19歳，女性．数年前より労作時の呼吸困難を自覚．今回，他病観察中に左胸部異常陰影を指摘され，当院受診．チアノーゼ，パチ指，赤血球増多症，低酸素血症を認めた．肺動脈造影検査を含む画像検査で，拡張し蛇行したA¹⁰，V¹⁰とそれに連続する末梢性の嚢状組織を認め，肺動静脈瘻と診断した．右左シャント率は17%．治療としては，右肺S¹⁰の部分切除を選択したが，瘻壁は非常に薄く，易破裂性と考えられた．術後，自覚症状とも軽快した．当患者の妹も繰り返す鼻出血及び肺動静脈瘻を認め，Rendu-Osler-Weber病と診断し，肺動静脈瘻の切除術を施行した．肺動静脈瘻の重篤な合併症の1つに，瘻破裂に伴う血胸や咯血がある．破裂を回避するためには，病巣の外科的切除が最も確実な治療法である．表在性の肺動静脈瘻は手術が第1選択であり，深在性の肺動静脈瘻も機能的に許す限り手術の適応とすることが望ましい．

キーワード：肺動静脈瘻，末梢性，肺切除術，オスラー病

pulmonary arteriovenous fistula , peripheral , pulmonary resection , Rendu-Osler-Weber disease

緒 言

肺動静脈瘻は報告が増え，稀な疾患ではなくなってきた．近年は経カテーテル塞栓術が注目され，その適応が増えているが，肺動静脈瘻の標準的治療方針は未だ確立されていない．われわれは，瘻壁が菲薄化し易破裂性と思われた末梢性肺動静脈瘻の手術例を経験したので，肺動静脈瘻の治療方針につき文献的考察を加えて報告する．

症 例

症例：19歳，女性．

主訴：労作時呼吸困難．

家族歴：妹が右肺S⁷末梢の肺動静脈瘻にて他院で経過観察されていた．この妹と父親に反復性鼻出血を認めた．

既往歴：幼少時より反復性鼻出血を認めた．19歳時に副鼻腔炎．

現病歴：他院にて副鼻腔炎の治療中に胸部X線写真で左胸部異常陰影を指摘され，当院に紹介となった．

入院時現症：身長164cm，体重46kg．血圧102/62mmHg，脈拍80/分・整．口唇・爪床のチアノーゼと軽度のパチ指を認めた．左下背部にて収縮期に強い血管性雑音を聴取した．

入院時検査所見：赤血球数504万，ヘモグロビン15.7g/dl，ヘマトクリット45.6%と赤血球増多症を認めた．動脈血ガス分析では，PO₂ 59.7 torr，PCO₂ 29.3 torrと低酸素血症を認めた．

画像検査所見：胸部X線写真では，心陰影及び横隔膜の陰影に重なり，拡張し蛇行した肺動静脈と，それに連続する辺縁明瞭な長径45mmの類円型の異常陰影を認めた(Fig. 1)．胸部CT写真では，造影される類円型の腫瘤を右肺S¹⁰胸膜直下に認めた(Fig. 2)．以上より，末梢性の肺動静脈瘻を疑い肺動脈造影を施行したところ，拡張したA¹⁰の末梢にウズラ卵大の嚢状組織が2個連続して描出され，次いでV¹⁰の早期描出を認めた(Fig. 3)．よって，肺動静脈瘻と確定診断した．肺動静脈瘻は孤立性で，他に肺野に異常を認めなかった．混合静脈及び動脈血の酸素飽和度(SO₂)は各々80.5%，95.1%で，

〒420 0881 静岡市北安東4 27 1

1) 静岡県立総合病院呼吸器外科

2) 同 呼吸器科

3) 同 病理検査科

〒420 0911 静岡市瀬名4629 1

4) 瀬名病院呼吸器外科

(受付日平成9年7月14日)



Fig. 1 Chest roentgenogram obtained on admission, showing a well-defined nodular lesion (arrow) in the left lower lung field.



Fig. 2 Enhanced chest CT scan showing a well-defined nodular lesion beneath the surface of the left S¹⁰.

肺静脈血の SO₂ を 98% と考えると、右 左シャント率は 17% と計算された。脳動脈造影では異常を認めなかった。

手術所見：左第 5 肋間後側方切開にて開胸した。肺動静脈瘻は S¹⁰ に存在し、横隔膜面に球状に突出していた。瘻壁は非常に薄く、瘻壁越しに血流を見ることができた (Fig. 3)。破裂しないように注意し、自動縫合器にて S¹⁰ の部分切除術を行った。

病理組織学的所見：肺動静脈瘻壁は弾性線維の途絶を認め、菲薄化が著明であり、わずかな負荷で破裂をおこす状態であると思われた (Fig. 4)。肺動静脈瘻の固定後の長径は 2.5 cm だった。

術後経過：術後動脈血ガス分析は、PO₂ 99.0 torr、PCO₂

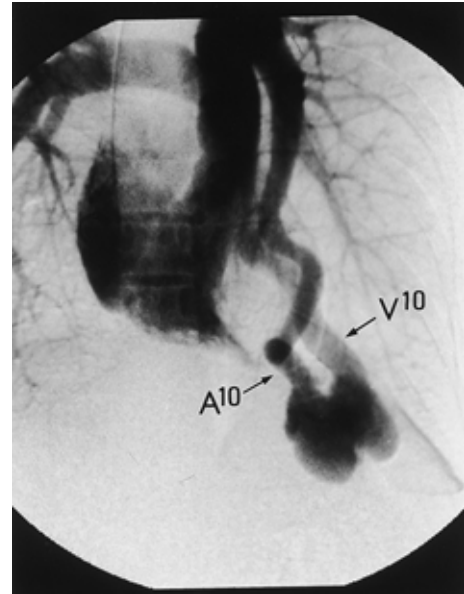


Fig. 3 Pulmonary angiogram showing a feeding artery (A¹⁰), a drainage vein (V¹⁰) and a saccular arteriovenous fistula.

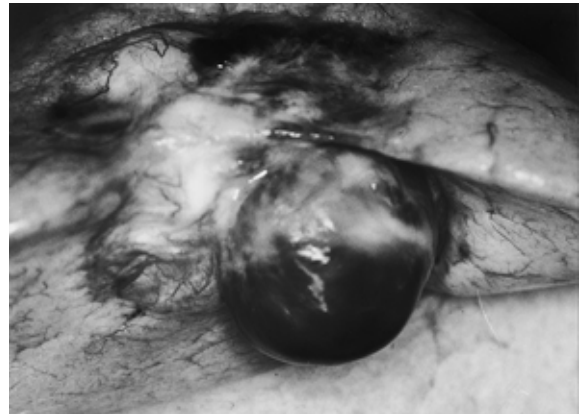


Fig. 4 Photograph obtained during the operation, showing a pulmonary arteriovenous fistula. It was located in the left S¹⁰ protruding from the surface of the lung.

39.9 torr, SO₂ 97.6% と著明に改善した。当患者及び妹とも、Rendu-Osler-Weber 病と診断され、妹も肺動静脈瘻の破裂が危惧されたため、瘻を含む右肺 S⁷ の部分切除術を施行した。妹も瘻壁は菲薄化していた。術後 5 年が経過したが、両者とも再発は認めず、自覚症状もない。

考 案

肺動静脈瘻の重篤な合併症として、瘻破裂のための咯血と血胸が挙げられ、深部の瘻が破裂すれば咯血をおこし、胸膜直下の瘻が破裂すれば血胸をおこすと考えられ

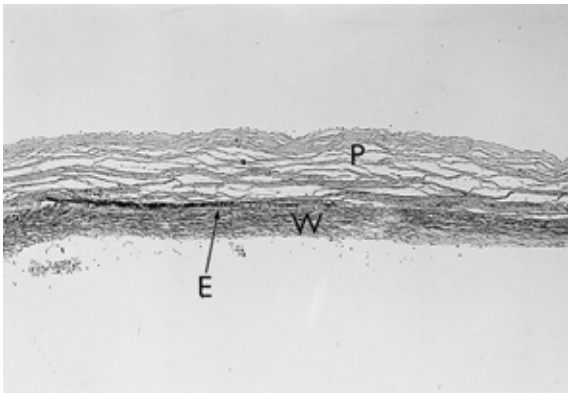


Fig. 5 Photomicrograph of the pulmonary arteriovenous fistula showing a flimsy wall (W) with tear of elastic fiber (E) adjacent to visceral pleura (P) (V.G. stain $\times 35$).

ている¹⁾。Brummelkamp²⁾によれば、合併症としての頻度は咯血が25%、血胸が2.3%であった。Muri³⁾の報告でも経過観察した50例中7例に瘻の破裂を認めた。血胸を初発症状として発見された肺動静脈瘻も本邦にて10例が報告されている⁴⁾⁻⁶⁾。本症例でも肺動静脈瘻壁は胸膜と同程度に菲薄化し、いつ破裂してもおかしくない状態であった。本症例と同様に菲薄化した瘻壁のため、術中操作で瘻が破裂した報告⁷⁾もみられた。また、瘻が小さくても破裂はおこりうると考えられている⁴⁾。以上より、肺動静脈瘻は破裂し致死的となる危険性を持った疾患であることを前提に治療方針を決めるべきであると考えられる。

最近、カテーテルを利用した Balloon または金属コイルによる塞栓術が広く行われるようになっており、塞栓術を肺動静脈瘻治療の第1選択⁸⁾⁹⁾とする意見も多い。しかし、塞栓物質の他の肺動脈⁹⁾、瘻内¹⁰⁾、肺静脈¹¹⁾、大循環系¹²⁾への流出などが報告されており、塞栓症の合併等が危惧され、安全に治療を行うためには症例の選択や熟練が必要だといわざるをえない。また、塞栓術後の再開通例も比較的多くみられており⁹⁾¹²⁾、血流を止め破裂を回避する目的のためには高い再発率は問題だと思われる。加えて、肺動静脈瘻と体循環系とが交通を持つこともあり¹³⁾⁴⁾、この場合は肺動脈を完全に閉塞しても、破裂はおこりうる。また輸入動脈の塞栓成功後も輸出静脈から逆流がみられ、瘻が縮小しなかったとの報告¹⁰⁾もみられた。

従来、肺機能上の理由から、多発性肺動静脈瘻は手術の適応外と考えられていたが、現在、外科術式は可及的に正常肺組織を温存する縮小手術が主流¹⁷⁾¹⁰⁾¹⁵⁾となっており、多発性の肺動静脈瘻に対しても良好な成績を残している。左右計23個の瘻を切除した¹⁶⁾との報告もみ

れ、当院にても開胸下に左右計12個の瘻切除を施行した症例¹⁶⁾や胸腔鏡にて左右計7個の瘻を切除した症例の経験がある。いずれも術後経過は順調であった。外科的な瘻の切除は安全で確実な治療法⁵⁾であると考えられる。

本症例の経験もふまえ、末梢性の肺動静脈瘻は手術が第1選択¹⁷⁾と考える。また、咯血の合併率が高い²⁾ことより、深在性の肺動静脈瘻も機能的に許す限り手術の適応とすることが望ましい。しかし、治療後に微小な肺動静脈瘻が顕在化してくる¹⁸⁾との報告もあるため、切除範囲を広くとらなければならない症例では手術適応は慎重に検討しなければならない。外科療法を選択する際は、縮小手術が推奨される。手術不能例では、経過観察は好ましいとはいえず、熟練した医師によりカテーテルを利用した塞栓術を積極的に行うべきである。

文 献

- 1) 安孫子正美, 大泉弘幸, 青山克彦, 他: 血胸にて発症した肺動静脈瘻の1例. 胸部外科 1993; 46: 721-723.
- 2) Brummelkamp WH: Unusual complication of pulmonary arteriovenous aneurysm intrapleural rupture. Dis Chest 1961; 38: 218-221.
- 3) Muri JW: Arteriovenous aneurysm of the lung. Am J Surg 1955; 89: 265.
- 4) 片山良彦, 山川洋右, 丹羽 宏, 他: 胸腔内破裂の既往を有する肺動静脈瘻の1例. 日胸 1992; 51: 606-611.
- 5) Iwabuchi S, Horikoshi A, Okada S, et al: Intrapleural rupture of a pulmonary arteriovenous fistula occurring just beneath the pleura. Report of a case. Jpn J Surg 1993; 23: 468-470.
- 6) 竹中一正, 美崎幸平, 住友伸一, 他: 胸腔内破裂をきたした肺動静脈瘻の1例. 日呼外会誌 1996; 10: 499-503.
- 7) 金田好和, 西健太郎, 杉 和郎, 他: 肺動静脈瘻の1例. 日呼外会誌 1995; 9: 101-107.
- 8) 塩谷隆信, 伊多波未来, 佐野正明, 他: オスラー病に合併した肺動静脈瘻に金属コイルによる塞栓術が奏功した1例. 日胸 1995; 54: 514-519.
- 9) 廣田省三, 佐古正雄, 藤田善弘, 他: 肺動静脈瘻に対するコイル塞栓術の検討 金属スパイダーの応用を含めて. 臨放 1992; 37: 809-815.
- 10) 正岡俊明, 由岐義広, 大泉弘幸, 他: 経カテーテル塞栓療法後緊急手術を施行した肺動静脈瘻の1例. 胸部外科 1995; 48: 941-944.
- 11) 西田光宏, 伊熊正光, 奥田裕朗, 他: Detachable balloon による塞栓術を行った肺動静脈瘻の1例. 心臓 1990; 22: 164-168.
- 12) 金柿光憲, 永田 靖, 柴田徹, 他: 金属コイル塞栓

- 術を繰り返し施行した多発性肺動静脈奇形の1例 .
臨放 1996; 41: 459-462.
- 13) 磯田 晋, 鈴木 章, 梶原博一, 他: 気管支動脈血
行を伴った肺動静脈奇形の1例 .日胸外会誌 1992;
40: 1304-1308.
- 14) Ikebuchi M, Nakamura H, Ohgi S, et al: Pulmonary
arteriovenous malformation with systemic supply.
A case report. Ann Thorac Cardiovasc Surg 1995;
1: 119-123.
- 15) 鈴木 聡, 豊田 太, 太田伸一郎, 他: Rendu-Osler-
Weber 病に伴う両側多発性肺動静脈瘻に対する瘻
切除術の経験 . 日呼外会誌 1991; 5: 659-664.
- 16) Brown SE, Wright PW, Renner JW, et al: Staged bi-
lateral thoracotomies for multiple pulmonary arte-
riovenous malformations complicating hereditary
hemorrhagic telangiectasia. J Thorac Cardiovasc
Surg 1982; 83: 285-289.
- 17) 佐々木隆志, 原 信之, 一瀬幸人, 他: 肺動静脈瘻
8症例の検討 . 日胸 1989; 48: 580-585.
- 18) 川村光夫, 高橋保博, 坂田勇司, 他: オスラー病を
合併した肺動静脈瘻とHLA抗原 . 日胸外会誌
1994; 42: 492-498.

Abstract

A Case of Pulmonary Arteriovenous Fistula Beneath the Surface of the Lung

Hirohisa Inaba¹⁾, Shinichirou Ohta¹⁾, Toshihiko Nishimura¹⁾, Kazuya Takamochi¹⁾,
Itaru Ishida¹⁾, Takashi Etoh²⁾, Atsuroh Honda²⁾,
Hiroyuki Muro³⁾ and Yasuyuki Nagashima⁴⁾

¹⁾Department of Respiratory Surgery, ²⁾Department of Respiratory Disease and ³⁾Department of Pathology,
Shizuoka General Hospital, 4-27-1 Kitaandou, Shizuoka, 420-0881, Japan

⁴⁾Sena Hospital, 4629-1 Sena, Shizuoka, 420-0911, Japan

A 19-year-old woman complaining of exertional dyspnea was admitted to our hospital with an abnormal shadow on the left side of the chest. Laboratory examination revealed polycythemia and hypoxemia. Pulmonary angiogram demonstrated a pulmonary arteriovenous fistula beneath the surface of the left S¹⁰. Partial resection of the left S¹⁰ was performed. The wall of the arteriovenous fistula was flimsy and seemed to rupture easily. The sister of this patient also had a peripheral pulmonary arteriovenous fistula and suffered from repeating epistaxis. Rendu-Osler-Weber disease was diagnosed in both, and the sister underwent partial resection of the right S⁷, which contained the fistula. Their postoperative courses were uneventful. Hemothorax and hemoptysis are lethal complications of arteriovenous fistulae. In order to avoid the rupture of fistulae, surgical resection is the most reliable treatment. Pulmonary arteriovenous fistulae beneath the surface of the lung should be resected.