

## 症 例

## 気管支動脈起始異常を認め、喀血で発見された

## 成人の右気管気管支の1例

姜 臣鎬\* 前田 均\* 八幡 知之\* 河島 哲也\*\*  
高田 輝雄\*\* 大西 一男\*\* 足立 和彦\*\*

**要旨:** 症例は63歳女性。1998年6月12日に喀血を生じ、精査目的のため6月18日当院入院。右上肺にすりガラス状陰影を認め、気管支ファイバースコープを施行したところ、気管分岐部の頭側約1cmの気管に気管気管支入口部を認め、同部に血線を認めた。気管支動脈造影では、右気管支動脈は通常的位置になく、右腕頭動脈の分枝である Thyrocervic artery から分岐した血管により気管気管支の領域は支配されていた。また、この気管支動脈の末梢では肺動脈とシャントを形成し、さらに非定型抗酸菌感染も加わっており、気管気管支の感染防御能の低下による炎症性変化が喀血の原因と考えられた。また本例では気管気管支の存在とそこへの気管支動脈の血行支配も同時に観察することができた。ヒツジなどで正常に認められる気管気管支の血行支配と非常によく似ており、ヒトの気管気管支は先祖返りによって生じる可能性を考察できた興味深い症例と考えた。

**キーワード:** 喀血, 気管支動脈起始異常, 先祖返り, 非定型抗酸菌症, 右気管気管支

Hemoptysi, Anomalous origin of bronchial artery, Atavism, Atypical mycobacterium infection, Tracheal bronchus

## はじめに

気管気管支は気管分岐部より中枢側で気管より直接分岐する気管支であり、小児では約2%に認められる<sup>1)</sup>が、成人では無症状のことも多く発見は少ない。我々は喀血にて入院し、気管支ファイバースコープにより右気管気管支より血線が確認され、また気管支動脈造影では、右気管支動脈が右鎖骨下動脈の分枝である Thyrocervic artery を介して右気管気管支の領域を支配し、その末梢で気管支動脈肺動脈シャントを併存していた症例を経験した。本例の血行支配から右気管気管支の成因についても考察を加え報告する。

症例: S.S. 63歳, 女性。

主訴: 喀血。

既往歴: 糖尿病, 肝硬変, B型肝炎, 下肢静脈瘤。

生活歴: 主婦で、粉塵吸入歴, 喫煙歴, ペット飼育歴はなかった。

家族歴: 肺結核なし。

現病歴: 従来特に呼吸器症状を呈することはなかった。

が、平成10年6月12日に急に咳嗽とともにコップ3杯位の喀血を生じた。以後も喀血が続くため治療および精査目的にて本院入院。

入院時現症: 身長153cm, 体重62kg, 血圧126/66, 脈拍66/min, 整。体温36.3度。皮膚は黄染, 皮下出血斑認めず。前胸部にはクモ状血管腫を認めた。

心肺に異常認めず。腹水貯留や下肢の浮腫は認めなかった。

入院時検査所見 (Table 1): WBC 2,800/ $\mu$ l, RBC 353万/ $\mu$ l, 血小板 10.5万/ $\mu$ l と汎血球減少を認めた。生化学的検査では、総蛋白およびアルブミン, コリンエステラーゼが低下しており、肝合成能の低下を認めた。また糖尿病を認めた。凝固系については特に異常を認めなかった。血液ガス分析では軽度の低酸素血症を認めた。

喀痰検査では一般菌, 結核菌および非定型抗酸菌は認めなかったが、気管支ファイバースコープ観察時に行った気管気管支部分の気管支洗浄液にて非定型抗酸菌を認めた。PCRで mycobacterium intracellulare であった。悪性細胞は認めなかった。

胸部XP (Fig. 1): 入院時胸部XPでは、右上肺野にすりガラス陰影を認めた。

胸部CT所見 (Fig. 2): 通常気管分岐部約1cm頭側のスライスで、異所性の右気管気管支が認められ、その末梢の腹側に不均一の高吸収領域を認めた。またS1

〒651 0053 神戸市中央区籠池通4丁目1 23

神戸労災病院

\*同 呼吸器内科

\*\*同 内科

(受付日平成11年5月12日)

Table 1 Laboratory data on admission

Urinalysis			Biochemistry	
Protein	( - )		TP	6.6 g/dl
Glucose	( - )		Alb	3.6 g/dl
CBC			BUN	16.9 mg/dl
WBC	2,800 / $\mu$ l		Creat	0.6 mg/dl
Band.	1 %		GOT	42 IU/l
Seg.	27 %		GPT	29 IU/l
Ly.	62 %		LDH	273 IU/l
Mo.	8 %		-GTP	36 IU/l
Eos.	1 %		ALP	245 IU/l
Baso.	1 %		CPK	354 IU/l
RBC	338 $\times$ 10 <sup>4</sup> / $\mu$ l		Na	144 mEq/l
Hb.	10.4 g/dl		K	3.9 mEq/l
Ht.	31.1 %		Cl	108 mEq/l
Pit.	9.7 $\times$ 10 <sup>4</sup> / $\mu$ l		Blood-gas analysis ( Room air )	
Blood coagulation			pH	7.432
PT	11.7 sec		PaCO <sub>2</sub>	35.7 mmHg
PT-INR	1.10		PaO <sub>2</sub>	75.5 mmHg
PT( % )	84 %		HCO <sub>3</sub> <sup>-</sup>	23.4 mEq/l
APTT	33 sec		BE	- 1.2 mEq/l
Fib .	309 mg/dl		AaDO <sub>2</sub>	28.9 mmHg
Serology			SaO <sub>2</sub>	95.4 %
ESR	21 /hr		Sputum examination	
CRP	0.1 mg/dl		Cytology ; Group 1	
HBs-Ag	( - )		Bacteria ; normal usual flora	
HBs-Ab	( + )		Mycobacterium tuberculosis	( - )
HBe-Ab	( + )		Atypical mycobacterium	( - )
HCV	( - )			( - )
Wa-R	( - )		Bronchial lavage of tracheal	
Glucose tolerance test			bronchus	
	Glu.	IRI	Cytology ; Group 1	
	( mg/dl )	( IU/l )	Bacteria ( - )	
Fasting	160	10	PCR	
60 min	290	79.9	Mycobacterium tuberculosis	( - )
120 min	363	53.7	Mycobacterium intracellulare	( + )



Fig. 1 Chest X-ray film on admission, showing ground-glass opacity in the upper field of the right lung.



Fig. 2 Chest CT film on admission, showing a right tracheal bronchus and diffuse reticulonodular and linear shadows in segment 1 of the right lung.

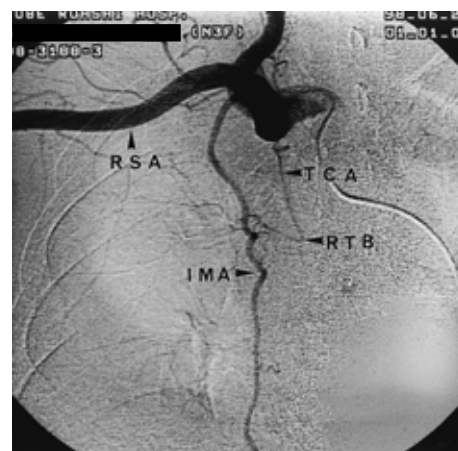


Fig. 3 Right bronchial arteriogram, disclosing anomalous origin of the artery through the thyrocervical artery arising from the brachiocephalic artery. BCA : brachiocephalic artery, RSA : right subclavian artery, RTB : ramification to the tracheal bronchus, TCA : thyrocervical artery.

領域には索状陰影の集簇所見を認めたが、既存の血管陰影の異常は認められなかった。

気管支ファイバースコープ所見：気管分岐部直上の気管右側に異所性気管支入口部が存在した。入口部はやや楕円形を呈していたが、末梢側は2分岐を呈し、通常のB1aとB1bに相当していた。右上葉支は右主気管支より分岐し、末梢では2分岐を呈し、B2とB3に相当していた。血線が異所性気管支に認められ、処置中に軽度の出血を見た。

血管造影所見( Fig. 3 )：咯血に対する止血目的のため、気管支動脈塞栓術を試みるべく気管支動脈造影を行った。本症例においては、右気管支動脈は腕頭動脈が総頸動脈と右鎖骨下動脈に分岐した直後の右腕頭動脈より分岐する Thyrocervic artery を介していることが判明し

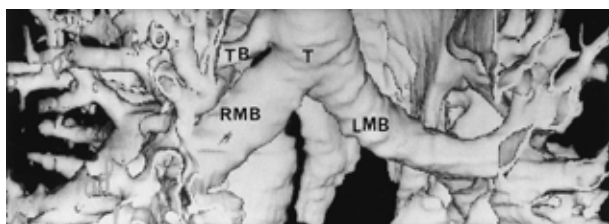


Fig. 4 Chest spiral CT film, showing an anomalous ectopic bronchus arising from the right lateral wall of the trachea above the carina. LMB: left main bronchus, RMB: right main bronchus, T: trachea, TB: tracheal bronchus.

た。また DSA で観察すると、この右気管支動脈の末梢は気管支動脈肺動脈シャントを形成していた。

胸部らせん型 CT 検査所見 (Fig. 4): 気管分岐部の中枢側で右側に分岐する気管気管支が形態的に確認された。しかし、気管支動脈肺動脈シャント部分は描出できなかった。

入院後経過: 血痰は入院後も二週間続いたものの、徐々に色調および量も減少したため、止血剤のみで経過観察し、以後止血されたままであった。非定型抗酸菌治療については、リファンピシン、エサンブトール、isoniazid、clarithromycin による治療を開始したが、3 カ月後に肝機能障害が出現したこと、治療薬開始以後も胸部レントゲン写真および胸部 CT 所見の索状陰影の変化が認められなかったこと、さらにその後排菌がないこと、また患者の方よりも中止の申し出があり、定期検診に切り替えた。約 1 年間の経過観察においても症状および胸部 X 線所見あるいは胸部 CT 所見に増悪は認めず、引き続き経過観察中である。

## 考 察

異常気管支には過剰気管支 (Supernumerary bronchus) と転位気管支 (displaced bronchus) の場合があり、D1: 転位区域気管支型、D2: 転位葉気管支型、D3: 迷走葉気管支型、S1: 過剰区域気管支型、S2: 過剰葉気管支型の 5 型に分類されている<sup>2)</sup>。本例では、気管支ファイバースコープ、胸部 CT 検査、3D-CT などから見て、D1 型であった。異常気管支の発生機序に関しては、胎生期の異常によって生じるとも考えられている<sup>3)</sup>が、比較動物学的にはヒツジ、キリン、ヤギ、ラクダなどの哺乳動物では正常に気管気管支が存在することより、人での気管気管支の発生は系統発生的な退行現象に基づくものとも考えられている<sup>4)</sup>。

本例では、右腕頭動脈が右総頸動脈と右鎖骨下動脈分岐直後の右鎖骨下動脈より分岐している Thyrocervical Artery を介した右の気管支動脈が同定された。気管支

動脈は通常下行大動脈近位部やその分枝から生じるが、20% 以上の気管支動脈が大動脈の異常な位置から派生していたり、さらに 10% 以上の気管支動脈が大動脈弓部より派生していると報告されている<sup>5,6)</sup>。本例の様に Thyrocervical artery による変異はまれである。気管気管支の動脈支配に対するヒツジの研究<sup>7)</sup>から、本症例の気管気管支は偶然の合併というよりは前述したように系統発生的な退行現象に基づくものと考えられた。すなわち、ヒツジ肺においては気管気管支が正常で存在するが、胸郭外頸部気管は総頸動脈より栄養されており、胸郭内気管で気管気管支までは腕頭動脈の分枝に、また気管気管支から気管分岐部までは気管支食道動脈あるいは胸部大動脈の分枝に支配されている。本症例では、右腕頭動脈が総頸動脈と右鎖骨下動脈に分岐した直後の右腕頭動脈の分枝に支配されており、いわゆる“先祖返り”によって生じている可能性が考えられた。気管気管支の気管支動脈の支配に対する研究は人においては認められず、本例の様に Thyrocervical artery が気管気管支と発生学的な因果関係を持つものなのか、偶然の合併なのかは一例のみでは結論が出ないが、少なくとも先祖返りによって生じ得ると考えても良いのではないと思われる。

本例では気管気管支を持つものの、今回の入院まで無症状に経過してきている。本症の合併症として、異常気管支の感染防御機能低下に伴う肺炎や結核、あるいは肺癆を発症した例<sup>8)-10)</sup>、さらに麻酔の挿管時に右上葉の無気肺を来した例などが報告されている<sup>11)</sup>。本例の問診では、乳児期および小児期に呼吸器疾患に罹患したことはないとのことであった。ツベルクリン反応の中等度陽性所見と胸部 CT 写真の索状陰影の集簇は、結核あるいは非定型抗酸菌感染の既往を否定できない。近年、非定型抗酸菌が中年以後の女性の中葉舌区症候群に關与していることが報告されてきている<sup>12)</sup>。気管気管支に認められた例はいまだ報告はないが、人での中葉や舌区の細くて長い気管支構造と同様に、本例では過剰気管支の構造上の問題により感染防御機能が低下している可能性がある。さらに本例は糖尿病、B 型肝炎後の前肝硬変状態の共存が有り、今後十分な経過観察を加えてゆかねばならない。

## まとめ

咯血を契機に発見された気管気管支の症例を経験し、同時に行われた気管支動脈造影から気管気管支の成因を考察した。気管気管支を有していても症状は乏しいが、本例のように咯血や感染の原因となったり、全身麻酔時の挿管による合併症を起こしたりすることがあるので注意が必要である。

文 献

- 1) O'Sullivan BP, Frassica JJ, Rayder SM: Tracheal bronchus; a cause of prolonged atelectasis in intubated children. *Chest* 1998; 113: 537-540.
- 2) McLaughlin FJ, Strieder DJ, Harris GB, et al: Tracheal bronchus: Association with respiratory morbidity in childhood. *J Pediatr* 1985; 106: 751-755.
- 3) Harris JH: The clinical significance of the tracheal bronchus. *Am J Roentogenol* 1958; 79: 228-234.
- 4) 臼井規朗, 鎌田振吉: Ectopic Bronchus. 領域別症候群. 呼吸器症候群. 別冊日本臨床 1994; No. 3: 859-861.
- 5) Botenga ASJ: Selective bronchial and intercostal arteriography. *Baltimore & Wilkins*, 1970; 9: 159.
- 6) Caldwell EW, Siekert RG, Linger RE, et al: The bronchial arteries; an anatomic study of 150 human cadavers. *Surg Gynecol Obstet* 1948; 86: 395-412.
- 7) Charan NB, Turk GM, Czartolomny J, et al: Systemic arterial blood supply to the trachea and lung in sheep. *J Appl Physiol* 1987; 62: 2283-2287.
- 8) Middleston RM, Littleton JT, Brickey DA, et al: Obstructed tracheal bronchus as a cause of post-obstructive pneumonia. *J Thorac Imag* 1995; 10: 223-224.
- 9) Gie RP, Beyers N, Schaaf HS, et al: TB or not TB? An evaluation of children with an incorrect initial diagnosis of pulmonary tuberculosis. *South Africa Med J* 1995; 85: 657-662.
- 10) Calvet P, Demenech B, Giron J, et al: Bronche tracheale droite. *J de Radiologie* 1997; 78: 135-139.
- 11) Ikeno S, Mitsuhashi H, Saito K, et al: Airway management for patients with a tracheal bronchus. *Brit J Anaesthesia* 1996; 76: 573-575.
- 12) 岩田政敏, 井田雅章, 竹内悦子, 他: 中葉症候群 その頻度と成因から見た非定型抗酸菌症. *日本胸部疾患学会雑誌* 1996; 34: 57-61.

Abstract

Right Tracheal Bronchus with Anomalous Ramification of the Bronchial Artery Disclosed During an Episode of Hemoptysis

Shinkoh Kyo\*, Hitoshi Maeda\*, Tomoyuki Yahata\*, Tetsuya Kawashima\*\*, Teruo Takada\*\*, Kazuo Ohnishi\*\* and Kazuhiko Adachi\*\*

Department of Respiratory\* and Department of Internal\*\* Medicine, Kobe Rosai Hospital, 4-1-23, Kagoike-Dohri, Chuo-ku, Kobe 651-0053, Japan

A 63-year-old woman was referred to our hospital on June 18th, 1998 during an episode of hemoptysis that had lasted for 6 days. She had no hemorrhagic diathesis and no history of pulmonary disease. Chest X-ray films disclosed a ground-glass opacity in the right upper lung field. Bronchoscopic examination revealed bleeding from an anomalous ectopic orifice on the right lateral trachea, about 1 cm above the carina. Chest computed tomographic examinations by conventional and spiral methods readily disclosed an ectopic bronchus. Bronchial arteriography showed that the tracheal bronchus was fed by a branched vessel of the thyrocervical artery arising from the brachiocephalic artery. Atypical mycobacterium was detected in bronchoalveolar lavage fluid from the ectopic bronchus. A shunt had formed with the pulmonary artery and peripheral parts of the bronchial artery that fed the tracheal bronchus. It was speculated that the hemoptysis in this case might be due to the combined phenomena of infection and abnormal vessel formation in the tracheal bronchus. In our patient, the system of blood supply to the tracheal bronchus may have been a manifestation of atavism because it closely resembled the circulatory structure of the tracheal bronchi normally observed in sheep and giraffes. The tracheal bronchus should be taken into consideration as a potential cause of hemoptysis, inflammatory changes, and atelectasis during intubation.