

●症 例

大量咯血にて発症し気管支動脈塞栓術を施行した 原発性気管支動脈蔓状血管腫の1例

橋戸 律子¹⁾ 榎本 達治¹⁾ 小野 啓資²⁾ 馬場久美子¹⁾
 駒崎 義利¹⁾ 上村 なつ¹⁾ 齊藤 均¹⁾ 渋谷 泰寛¹⁾
 横須賀哲哉³⁾ 小林 利子³⁾ 中村 清一¹⁾

要旨：大量咯血にて発症した原発性蔓状血管腫を経験した。症例は56歳女性。仕事中に咯血し当院に救急搬送された。気管支鏡施行中も右中間気管支幹を閉塞する正常粘膜におおわれたポリープ様突出病変周囲より大量出血を認めた。片肺分離肺換気下にて一時的に止血後、気管支動脈造影を施行した。右気管支動脈本幹の著明な拡張、下葉枝末梢の拡張・蛇行を認め、気管支動脈蔓状血管腫と診断した。同部位をゼラチンスポンジ、金属コイルで塞栓した。6カ月後CT-A（CT-アングリオ）でも再発は認めず、その後1年の経過で再咯血を認めていない。本症例のような大量咯血例では肺葉切除のような手術療法を行う報告が多いが、シャントを認めない原発性の場合には、気管支動脈塞栓術を考慮すべきである。

キーワード：大量咯血、気管支鏡、分離肺換気、気管支動脈蔓状血管腫、気管支動脈塞栓術

Massive hemoptysis, Bronchoscope, Differential lung ventilation,
 Racemose hemangioma, Bronchial artery embolization

緒 言

大量咯血の原因の一つに、気管支動脈蔓状血管腫がある¹⁾。治療法として肺葉切除術、胸腔鏡下気管支動脈結紮術、気管支動脈塞栓術があるが、大量咯血の報告例では肺葉切除術がなされることが多い^{2)~6)}。今回我々は咯血の精査の気管支鏡施行中に再咯血し、分離肺換気を施行し、その後複数の塞栓物で気管支動脈塞栓術を施行し救命しえた症例を経験した。若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

56歳、女性、保険会社勤務。

主訴：咯血。

家族歴：父；胃潰瘍。

既往歴：特記すべきことなし。

生活歴：喫煙15本（20歳～）飲酒なし。

現病歴：2004年7月下旬、咳嗽、咯痰を主訴に近医受診し、気管支炎の診断で処方を受けていた。8月5日

職場のトイレで突然咯血し当院へ救急搬送された。搬送までの咯血量は500mlと推定された。

入院時現症：身長160.0cm 体重44.8kg 意識清明 体温35.2℃ 脈拍111回/分・整、血圧93/66mmHg 肺ラ音なし、心音雑音なし、腹部平坦軟、肝・脾腫なし、神経学的に特記すべき所見なし。

検査所見：末梢血液検査ではWBC 6,700/ul, RBC 412万/ul, Ht 37.3%, Hb 12.5g/dl, Plt 25.1万/ul, PT-INR 0.97, APTT 21.0sec, Fib 270mg/dl, ESR 13mmであり、生化学検査では異常を認めなかった。血液ガス所見はO₂ 10L/分マスク投与下でpH 7.437 PCO₂ 35.0Torr PO₂ 61.8Torr HCO₃ 23.2mmol/L SAT 92.5%と低酸素血症を認めた。

画像所見：入院時胸部X線写真（Fig. 1）では、右下肺野に透過性の低下を認めた。胸部CT（Fig. 2）では右中下葉に出血によると思われる気管内散布様の粒状陰影のほか、中間気管支幹に矢印に示すようなポリープ様病変を認めた。

入院後経過：出血源の確認とCT上認められたポリープ様突出病変の確認のため、挿管下にて気管支鏡検査を施行した。右気管支粘膜は浮腫状で、右中間幹に周囲粘膜と差のない表面平滑なポリープ様突出病変を認めた（Fig. 3A）。拍動は認めず、視野確保の意味も含めて、生理食塩水で洗浄したところ直後に大出血をきたし、一

〒150-0013 東京都渋谷区恵比寿 2-34-10

¹⁾東京都立広尾病院呼吸器科

²⁾日本医科大学内科学第4講座

³⁾東京都立広尾病院外科

（受付日平成17年11月2日）



Fig. 1 Chest X-ray examination on admission showed a hypolucent shadow in the right lower lung.

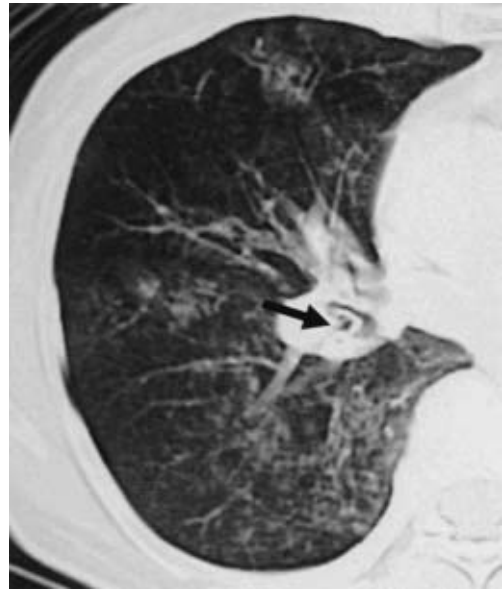


Fig. 2 Chest CT scan examination on admission showed a granular shadow suggestive of bleeding in the right middle and lower lung and a polyp-like protrusion in the truncus intermedicus.

時ショック状態となった。トロンピン 3,000 単位塗布にて止血し、視野が確保されたため、出血の逆流防止と健側肺の気道を確保するためブロンコキヤス®を挿入し分離換気を行った。直後のヘモグロビン値は来院時の 12.5 g/dl から 6.8g/dl に低下していた。以上の所見から、出血は気管支動脈の血管性疾患の可能性が否定できないため、8月6日(第2病日)気管支動脈造影を行ったところ、右気管支動脈本幹の著明な拡張、下葉枝の末梢の拡張・蛇行がみとめられ、一部に pooling をともなっていた(Fig. 4)。また、下葉実質の一部の濃染も認められた。肺動脈、肺静脈ともシャントは認めなかった。以上の所見に加え気管支拡張症や炎症所見の存在は認められなかったため、原発性気管支動脈蔓状血管腫と診断し、マイクロカテーテルを用いてゼルフォーム®細片約 1/2 枚および Cook 社製トルネード™コイル(4mm-2mm × 2, 6mm-2mm × 2) 4 本で気管支動脈塞栓術を施行した。その後連日、気管支内に残存した喀血による凝血塊を気管支鏡にて吸引後、8月11日(第7病日)抜管した。8月24日(第20病日)に塞栓術後の確認のため、CT-A を施行。右気管支動脈の塞栓術後の血流の途絶を認め(Fig. 5)、その後経過良好で、9月10日(第36病日)退院となった。塞栓後の評価のため、2005年1月17日(第166病日)CT-A を施行。右気管支動脈コイル後の血流の途絶を認めた。初診から9カ月後の胸部レントゲンとCTでは、初診時に認められた肺野の陰影と、右中間気管支幹に見られたポリープ様突出病変は消失していた。また経過観察目的の10カ月後の気管支鏡所見でも右中

間幹に認められたポリープ様突出病変は消失していた(Fig. 3B)。術後1年を経過した現在まで再喀血を認めていない。

考 察

気管支動脈蔓状血管腫は気管支動脈が著しく屈曲・拡張・蛇行し、しばしば肺動脈、肺静脈とのシャントをきたす疾患である。本症は気管支動脈の先天的な形成異常による原発性と、気管支や肺の炎症後の血管異常の二次性に分けられる⁷⁾⁸⁾。欧米では pulmonary arteriovenous malformation の亜型として取り扱われている⁹⁾。本邦では1977年に木村らが二次性の症例で最初に報告しており¹⁰⁾、原発性は1981年に谷川らが最初に報告している¹¹⁾。これまで本邦で報告された原発性34例を以下に検討した(Table 1)。男女比は16:18で性差はなく、年齢は18歳から80歳まで幅広く、平均年齢は49歳であった。主訴は喀血が27例(79%)と最多であった。無症状で、サルコイドーシス、肝嚢胞精査の際偶然発見されたものもあった。発症部位は、右が25例(73%)と多く、中でも下葉が12例(35%)と多かった。気管支鏡所見は、ポリープ様病変と隆起性病変の報告が多く、その特徴は正常粘膜に覆われ表面平滑、緊張性、半球状である。病変自身の拍動を認めることは少なく、拍動を認めたのは5例のみであった。本症例は結果的に凝血塊であつが、鑑別は困難であった。

本症例は、発症年齢、病変部位からは典型例と考えら

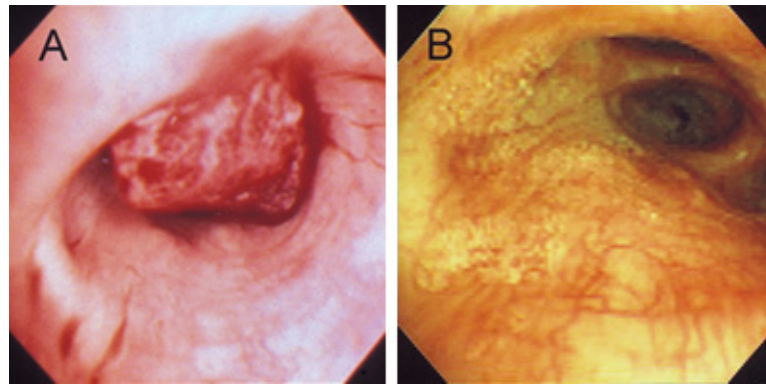


Fig. 3 Fiberoptic bronchoscopic examination of the truncus intermedicus shows : (A) a non-pulsatile polyp covered by normal mucosa. (B) disappearance of the protrusion.

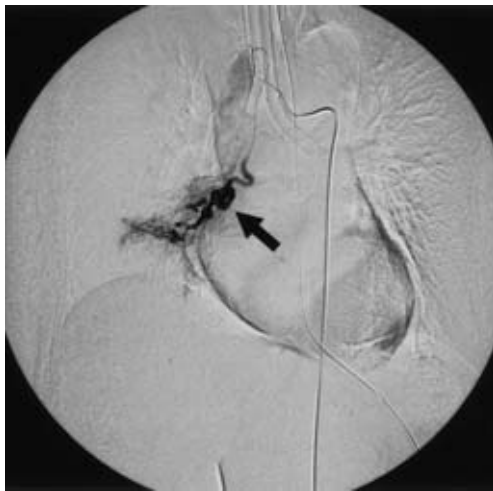


Fig. 4 Right bronchial arteriography shows the enlarged main right bronchial artery and enlarged and convoluted right peripheral bronchial vessels.

れる。また本症例は、気管支鏡下に洗浄を行ったのみで大量出血をきたし、一時ショック状態に陥った。ポリープ様病変を認めた場合、拍動がなくても本症を念頭に入れ、慎重に取り扱う必要があると考えられる。

治療に関しては、肺葉切除術が13例（38%）と最多であり、気管支動脈塞栓術（BAE）が10例（29%）とそれに続く。近年の報告ではBAEが行われていることが多いが、本症例のような大量咯血でのBAEの報告例はない。BAE後再咯血し肺葉切除術を施行されているものが2例あり、いずれも気管支動脈と肺動脈のシャントが認められた症例であった。光嶋らは、シャントがある場合には塞栓術を施行しても血流量が増加し側副血行路が発達しやすく咯血を繰り返す場合があると報告している¹²⁾。また石川らは慢性炎症を伴った二次性の症例で、塞栓後2日後に再咯血を認め、葉切除を施行した1例を報告し、二次性の場合には、塞栓術後も炎症をコントロー

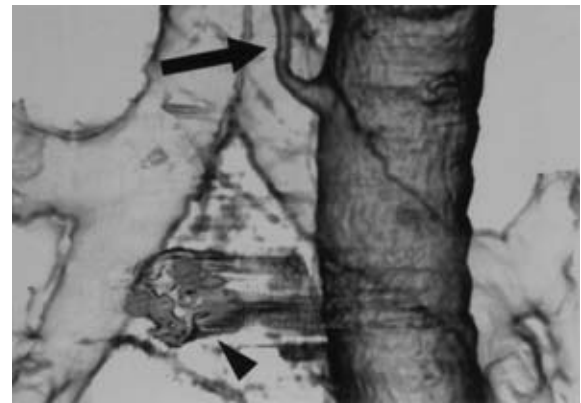


Fig. 5 Angiography CT shows that arterial perfusion halted after bronchial artery embolization. → right bronchial artery ▴ coil

ルできず支配動脈を塞栓させても、すぐに側副血行路が発達し再咯血する可能性が高いと考察している¹³⁾。治療について確立されたものはないが、原発性でありシャントがない場合は、大量咯血でもBAEが有効であると考えられる。BAEの重篤な合併症は脊髄の虚血であり、この点については岡崎らが、塞栓術を行う前に全症例にCT-Aを行い脊髄動脈、食道粘膜下に造影剤が流入していないことを確認してから施行し合併症の発生リスクを軽減している¹⁴⁾。また塞栓物質にはゼラチンスポンジなどの吸収性の一時的塞栓物質と、金属コイルやポリビニルアルコールなどの非融解性永久塞栓物質がある。ゼラチンスポンジは再開通の可能性が高い、シャントがある場合塞栓物質が流れ込むという短所があり、金属コイルは再BAEを行う場合に前回より中枢側での塞栓術が必要となり合併症を起こす可能性が高いという短所がある。BAEにて咯血がコントロールされた報告例10例のうち、コイルを用いたのは4例、コイルとゼラチンスポンジが1例、ゼラチンスポンジ3例、ゼラチンスポンジ

Table 1 Summary of 34 cases with primary racemose hemangioma of the bronchial artery in Japan

Case	Chief complaint	Age	Sex	Location of bleeding point	Chest X ray	Shunt	Treatment	Endoscopic findings	Pulsatility	Authors	Year
1	hemoptum	40	M	r. B9	shadow	-	Lobectomy	bulge	?	Tanigawa ⁽¹¹⁾	1981
2	hemoptum	52	F	r. basal bronchus	shadow	+	Lobectomy	polypoid	+	Yagi ⁽²⁾	1983
3	cough	68	M	l. upper lobe bronchus	W.N.L.*	-	BAE	polypoid	?	Takeuchi	1985
4	hemoptysis	61	M	r. middle lobe bronchus	W.N.L.	?	Ligation of BA	polypoid	-	Tamura	1986
5	hemoptysis	35	M	r. B9 B10	W.N.L.	+	Lobectomy	bulge	-	Nagai	1987
6	hemoptysis	35	M	r. B9 B10	W.N.L.	+	Lobectomy	bulge	-	Kuroshima	1987
7	hemoptysis	18	F	r. B8	W.N.L.	+	Lobectomy	bulge	?	Kuwabara	1988
8	hemoptysis	35	M	r. B9 B10	W.N.L.	+	Lobectomy	bulge	-	Saito ⁽³⁾	1987
9	hemoptysis	29	F	l. lingular	shadow	+	-	blood clots	-	Saito	1989
10	hemoptysis	72	F	l. B4	shadow	?	Lobectomy	polypoid	?	Nakagawa ⁽⁴⁾	1989
11	hemoptysis	45	M	l. B3	shadow	-	Segmentectomy	polypoid	-	Nakagawa	1989
12	hemoptysis	18	M	r. lower lobe	W.N.L.	+	Lobectomy	bulge	-	Suda ⁽⁵⁾	1990
13	-	52	F	r. upper lobe	B.H.L.**	?	-	bulge	-	Morishita	1990
14	hemoptysis	74	M	r. B5	shadow	+	BAE	polypoid	?	Ooshika	1993
15	hemoptysis	80	F	r. middle lobe bronchus & l. lingular	shadow	-	BAE	coaglation	?	Ooshima	1996
16	hemoptum	67	F	r. B7	shadow	+	BAE	bulge	-	Tanaka	1998
17	-	74	F	-	W.N.L.	+	-	not done	-	Kubota	1998
18	hemoptysis	59	M	r. lower lobe	shadow	-	Ligation of BA	bulge	-	Dobashi ⁽⁶⁾	1999
19	hemoptysis	52	F	r. B1	shadow	-	Lobectomy	bulge	-	Dobashi	1999
20	hemoptysis	38	F	r. middle lobe bronchus	shadow	-	Lobectomy	bulge	+	Sukoh	1999
21	hemoptysis	57	F	r. B4 B5	?	-	Lobectomy	bulge	-	Harada	1999
22	hemoptysis	59	M	r. B2	tumor in r. lower lobe	not done	Pneumonectomy	polypoid	?	Kase	2000
23	hemoptysis	41	N	r. upper lobe	shadow	-	Lobectomy	blood clots	?	Kase	2000
24	hemoptysis	61	F	r. lower lobe	shadow	+	Ligation of BA	bulge	-	Kanamori	2000
25	hemoptysis	42	M	l. lower lobe	W.N.L.	+	BAE & lobectomy	bleeding	+	Mitsushima ⁽¹²⁾	2001
26	hemoptysis	19	F	r. middle lobe bronchus	shadow	+	Ligation of BA & BAE	bulge	+	Nakagawa	2001
27	hemoptysis	44	F	r. lower lobe	shadow	+	BAE & lobectomy	blood clots	?	Iwasaki	2001
28	hemoptysis	23	M	l. B8	shadow	+	BAE	blood clots	?	Yamai	2002
29	dyspnea	42	F	not done	GGO in r. upper lobe	-	Ligation of BA	W.N.L.	-	Akaishi	2002
30	hemoptysis	77	M	r. B2	W.N.L.	-	Lobectomy	bulge	-	Suzuki	2002
31	hemoptysis	59	M	l. lingular	W.N.L.	-	BAE	polypoid	+	Ishimoto	2003
32	hemoptysis	24	F	r. B9	W.N.L.	+	BAE	polypoid	-	Ishimoto	2003
33	hemoptysis	58	F	r. B2a	W.N.L.	+	BAE	bulge	-	Yamauchi ⁽⁹⁾	2004
34	hemoptysis	56	F	r. middle lobe bronchus	W.N.L.	-	BAE	polypoid	-	This report	

* WNL: Within Normal Limits ** BHL: Bilateral Hilar Lymphadenopathy

とポリビニルアルコールが1例、不明1例であった。当症例では気管支動脈の血流が遅く再開通の可能性が低く、またシャントが認められず塞栓物質が流れ込む可能性も少なかったためゼラチンスポンジを使用し、永久塞栓を目的に金属コイルも使用した。報告例ではコイルとゼラチンスポンジ両者を使用した症例は当症例のみであったが、屈曲・拡張・蛇行した気管支動脈の血流が遅く、シャントを認めない原発性蔓状血管腫の場合にはい

くつかの塞栓物を用いた効果的な塞栓が期待される。

当症例では出血の逆流予防と健側肺の気道の確保のため、ダブルルーメンチューブを用いた分離肺換気を施行した。報告例ではダブルルーメンチューブを用いたのは、高久らによる二次性の気管支動脈蔓状血管腫1例のみであったが¹⁵⁾、出血が片側であれば、蔓状血管腫の場合ダブルルーメンチューブは有効であると考えられる。

また、当症例のBAE後のフォローについて触れた文

献はなかったが、咯血の原因となりうる血管性病変は2カ月から13カ月に再発することが多いとされているため¹⁶⁾、塞栓術後の血流の途絶の確認目的に外来で経過観察が必要と思われる。本症例では塞栓術後の途絶の確認と側副血行路の形成の有無を見るため半年に一度のCT-Aを施行している。

今回大量咯血にて発症し気管支動脈塞栓術が有効であった原発性気管支動脈蔓状血管腫を経験した。原発性でシャントを認めない症例であれば、咯血が大量であってもBAEは有効であり、今後第一選択の治療となりえると考えられた。

謝辞：BAEを施行していただいた東京都立広尾病院放射線科の竹田利明先生に深謝申し上げます。

引用文献

- 1) 加藤達雄, 河村英博, 小牧千人, 他. 咯血に対する超選択的気管支動脈塞栓術の短期的長期的有効性についての検討. 気管支学 1999;21:453—456.
- 2) 矢木 晋, 松島敏春, 沖本二郎, 他. 一次性気管支動脈蔓状血管腫の1例. 気管支学 1983;5:169—174.
- 3) 齋藤博哉, 溝江純悦, 森田 穰, 他. 原発性気管支動脈蔓状血管腫の1例. 臨床放射線 1987;32:131—134.
- 4) 中川義久, 日野二郎, 中島正光, 他. いわゆる原発性気管支動脈蔓状血管腫と考えられた2例. 日胸疾会誌 1989;27:1515—1520.
- 5) 須田博喜, 松本常男, 三浦剛史, 他. 原発性気管支動脈蔓状血管腫の1例. 気管支学 1990;12:428—433.
- 6) 土橋ゆかり, 片桐真人, 高田信和, 他. 気管支動脈蔓状血管腫の2例. 気管支学 1999;21:16—21.
- 7) Babo H, Huzly A, Deininger HK, et al. Angiomas and angioma-like changes of the bronchial arteries. ROFO Fortschr Geb Rontgenstr Nuklearmed 1976;124:103—110.
- 8) Cain H, Spanel K. Etiology and morphogenesis of the so-called bronchial arterioma. Klin Wochenschr 1980;58:347—357.
- 9) 山内勢津子, 畠中章五, 阪倉あかね, 他. 気管支動脈塞栓術が有効であった原発性気管支動脈蔓状血管腫の1例. 気管支学 2004;26:433—437.
- 10) 木村壮一, 新田澄郎, 佐藤博俊, 他. 特発性肺出血を思わせた気管支動脈の蔓状血管腫様発達を示した1例. 胸外 1977;30:159—163.
- 11) 谷川 恵, 茂木正行, 平岡仁志, 他. 2400mlの大量咯血をきたした気管支動脈蔓状血管腫の1例. 気管支学 1981;3:321—325.
- 12) 光嶋博昭, 真崎宏則, 大石和徳, 他. 咯血を繰り返した原発性気管支動脈蔓状血管腫の1例. 日呼吸会誌 2001;39:135—139.
- 13) 石川暢久, 横田幸弘, 池上靖彦, 他. 咯血をきたした気管支動脈蔓状血管腫の1例. 気管支学 2001;23:69—73.
- 14) 岡崎 強, 桑原正喜. 気管支動脈塞栓術 (BAE) の適応と成績. 気管支学 2004;26:609—613.
- 15) 高久智生, 池田寿昭, 池田一美, 他. ユニベントチューブにより救命し得た気管支動脈蔓状血管腫の1例. 日本救急医学会誌 2001;22:180—181.
- 16) 大久保憲一, 桑原正喜, 糸井和美, 他. 咯血に対する気管支動脈塞栓術—再咯血例の検討を中心に—. 気管支学 1992;14:537—543.

Abstract**A Case of successful bronchial artery embolization for primary racemose hemangioma with massive hemoptysis**

Ritsuko Narato¹⁾, Tatsuji Enomoto¹⁾, Hiroshi Ono²⁾, Kumiko Baba¹⁾, Yoshitoshi Komazaki¹⁾,
Natsu Uemura¹⁾, Hitoshi Saito¹⁾, Yasuhiro Shibuya¹⁾, Tetsuya Yokosuka³⁾,
Toshiko Kobayashi³⁾ and Seiichi Nakamura¹⁾

¹⁾Department of Respiratory Medicine, Tokyo Metropolitan Hiroo General Hospital

²⁾Fourth Department of Internal Medicine, Nippon Medical School

³⁾Department of Surgery, Tokyo Metropolitan Hiroo General Hospital

We encountered a case of primary racemose hemangioma treatment with successful bronchial artery embolism for massive hemoptysis. A 56-year-old woman with massive hemoptysis was transported to our hospital. The source of the massive hemoptysis was observed to be from around a non-pulsatile polyp covered by normal mucosa occluding the truncus intermedius by fiberoptic bronchoscopy. We stopped the bleeding temporarily using differential lung ventilation, and then bronchial artery angiography was performed. The main right bronchial artery was enlarged, and enlarged and convoluted right peripheral bronchial vessels were also observed. We diagnosed the massive bleeding to be due to racemose hemangioma. A successful bronchial artery embolization (BAE) was performed with gelforms and metallic coils for the treatment of racemose hemangioma. There has been no recurrence of hemoptysis for one year after BAE. There have been many reports on massive hemoptysis as in this patient who were treated by lobectomy, nevertheless we would like to state BAE should be considered as a suitable treatments for primary racemose hemangioma with hemoptysis if there is no recognizable shunt artery.