

●症 例

検診を契機に発見された体動脈肺静脈瘻の1例

小牧 千人

要旨：55歳男性。特記すべき既往無し。検診で胸部レントゲン写真異常陰影を指摘され来院。理学的身体所見，血液生化学一般検査には，異常をみとめなかった。胸部CTで，左舌区の胸膜直下に血管とほぼ同等に造影される腫瘤を認め，拡張した肺静脈との交通を認めた。肺動脈造影では，肺動脈相，肺静脈相には異常なく，大動脈相で，鎖骨下動脈から胸壁への分枝に著明な拡張と，肺静脈枝への瘻形成を認めた。引き続き施行した体動脈造影検査で，外側胸動脈肺静脈瘻であることを診断した。本症は非常にまれな病態で報告例も少ない。しかし，喀血例も報告されており，本例に対しては，手術ないしは塞栓術を考慮したがいずれも強く拒否され現在経過観察中である。本邦でのこれまでの報告例と合わせ検討を加え報告する。

キーワード：体動脈肺静脈瘻

Systemic arterio-pulmonary venous fistula

緒 言

肺内の血管奇形として肺動静脈瘻（肺動脈—肺静脈シャント），蔓状血管腫（体動脈—肺動脈シャント）といった疾患が知られ，比較的多くの知見も報告されている。それに対し，体動脈から直接肺静脈につながる体動脈肺静脈瘻（体動脈—肺静脈シャント）は，報告数も少なく，その病態，予後については十分な知見がない。今回，この体動脈肺静脈瘻の1例を経験したので報告する。

症 例

症例：55歳，男性，事務職。

主訴：胸部レントゲン異常陰影。

既往歴：特記すべきものなし。

喫煙歴：なし。

家族歴：特記すべきものなし。

現病歴：10年来毎年検診は受けていた。1年前に胸部レントゲン異常を指摘され，要精査とされたが放置。翌年再度要精査とされ当院受診。自覚症状無し。

現症：身長168cm，体重60.7kg，口腔粘膜異常なし，心音正常，呼吸音正常，胸壁に異常血管雑音は聴取せず，腹部異常なし，四肢および皮膚に異常なし，チアノーゼ

Table 1 Laboratory findings

Hematology		Biochemistry	
WBC	4,500/mm ³	TP	7.3 g/dl
Neut	63.1%	Alb	3.8 g/dl
Eos.	1.1%	T. Bil	0.4 mg/dl
Lym.	27.1%	ALP	207 U/l
RBC	431 × 10 ⁴ /mm ³	γ-GTP	11 U/l
Hb	14.2 g/dl	GOT	15 IU/l
Ht	42.3%	GPT	13 IU/l
PLT	30.3 × 10 ⁴ /mm ³	LDH	174 IU/l
Arterial blood gas analysis (Room Air)		BUN	21 mg/dl
pH	7.423	Cr	0.6 mg/dl
PaO ₂	85.8 torr	Na	139 mEq/l
PaCO ₂	37.3 torr	K	4.2 mEq/l
HCO ₃	23.8 mmol/l	Cl	102 mEq/l
		CRP	0.1 mg/dl



Fig. 1 Chest radiograph showing a nodule in the left middle lung field.

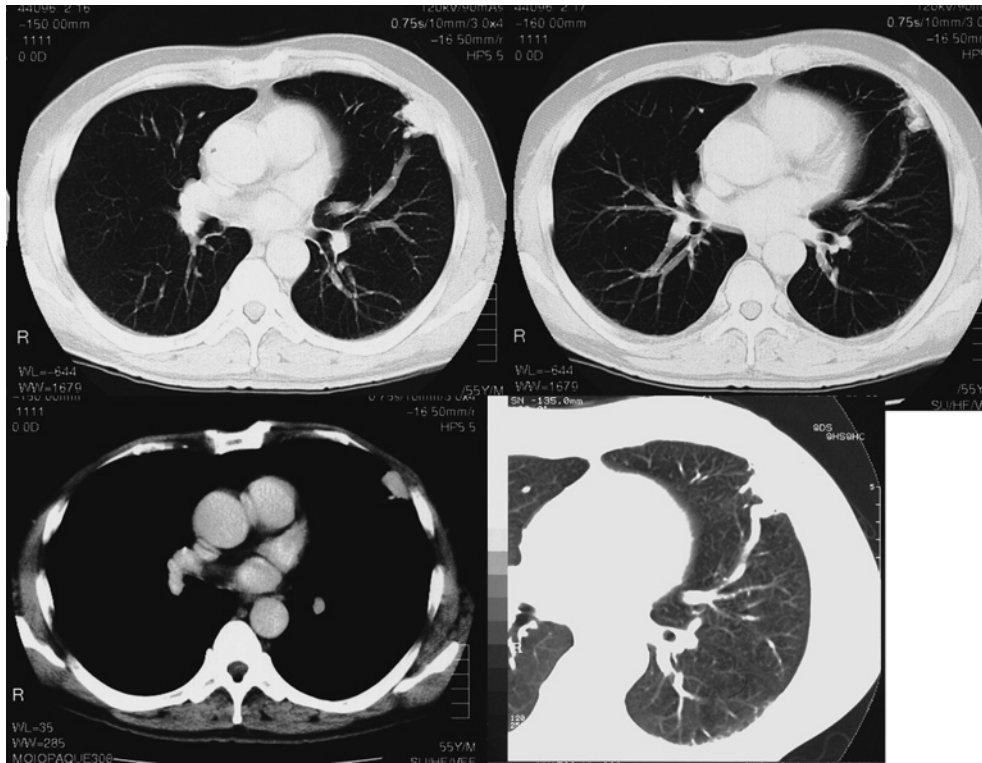


Fig. 2 Chest CT showing a nodule in the left lingular division with a dilated pulmonary vein.

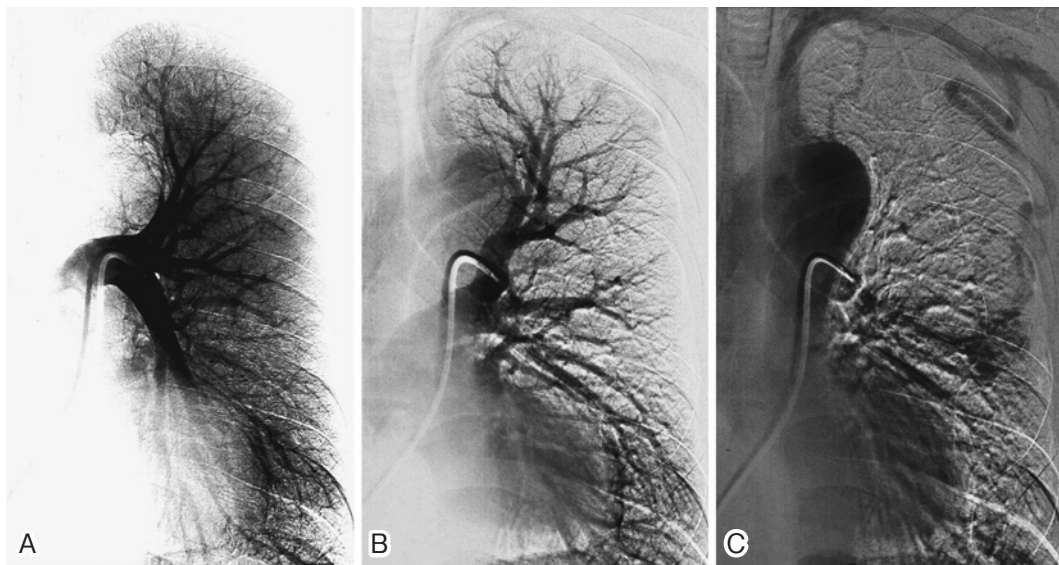


Fig. 3 Pulmonary arteriograph showing no abnormal pulmonary artery in the pulmonary arterial phase (A), no abnormal pulmonary vein in the pulmonary venous phase (B), and an abnormal artery from the left subclavian artery with a fistula to the pulmonary vein in the systemic arterial phase (C).

なし、ばち指なし。

検査所見 (Table 1) : 一般血液生化学に異常なく、動脈血液ガス分析にも異常を認めなかった。なお、心電図には異常なく、心臓超音波検査は施行しなかった。

胸部 X 線単純写真および胸部 CT 所見 : 胸部 X 線単

純写真では (Fig. 1) 左の中肺野に、縦隔側に辺縁を持つ約 2cm の結節を認め、さらにその結節に重なるように数 mm 大の小結節を認める。また、胸部 CT (Fig. 2) では、単純写真で認めた結節は、左舌区の最外層に胸壁に接して存在し、その結節から拡張した左下肺静脈の分

枝が連続する所見を認め、単純写真で認めた主病変に重なる数 mm 大の小結節はこの拡張肺静脈と考えられた。さらに造影 CT では、結節は肺動静脈と同程度に造影され血管そのものであることが示唆された。しかし、流入動脈は肺内には同定し得なかった。

経過：以上より、流入動脈が同定されない点が合致しないが、形態的、疾患頻度的に肺動静脈瘻を疑い、右大腿静脈穿刺による肺動脈造影を施行した (Fig. 3)。肺動脈造影の肺動脈相では、異常血管、血管瘤は認めなかった。肺静脈相でも、胸部 CT で認めた拡張した左下肺静脈の分枝は存在しなかった。この時点で、この結節へ流入する血流は肺動脈系ではなく体動脈系からの流入と考えられた。よってそのまま連続血管造影を続け、体動脈相まで観察したところ左鎖骨下動脈の分枝 (左外側胸動脈) が拡張し左肺内の結節に流入し拡張した肺静脈と吻



Fig. 4 Left lateral thoracic arteriograph clearly showing an abnormal dilatation forming a fistula with the pulmonary vein.

合する像を認めた。この所見を確認するため、さらに右大腿動脈穿刺を施行。左外側胸動脈の直接造影を施行 (Fig. 4) し、同血管と肺静脈のシャントを鮮明に描出した。以上により体動脈肺静脈瘻と診断した。瘤の破裂が懸念されるため、治療として外科的に流入動脈を結紮するか、または経カテーテル的に塞栓術を提案したが、経過観察を強く希望されたため、入手できた一番古い 6 年前の胸部 X 線単純写真と比較して結節の明らかな増大のないことを確認して、経過観察とした。

考 察

肺内の血管奇形として知られているものに、肺動静脈瘻 (肺動脈—肺静脈シャント)、蔓状血管腫 (体動脈—肺動脈シャント) といった疾患があり、比較的多くの知見も報告されている。それに対し、体動脈肺静脈瘻 (体動脈—肺静脈シャント) は報告数も少なく、その病態、予後については十分な知見がない。これまでの報告例では 1947 年の Watson らによる最初の報告¹⁾があり、本邦では正岡らによる 1977 年の報告²⁾が最初である。本邦から報告された症例は検索しえた範囲では、会議録を除き、本例を含め 7 例のみだった (Table 2)。この 7 例の中で本例のように偶然発見されたものもあるが⁶⁾、注目すべきは 2 例⁵⁾⁷⁾が出血 (破裂) 症状で発見されており、出血は最も懸念すべき合併症であることが伺われる。その点においては、例えば、肺動静脈瘻の合併症 (破裂、脳膿瘍など) 発症頻度と流入肺動脈径との間に指摘されている相関のように、本症における破裂 (気道出血) と流入動脈径、瘤の径の関係を考察できれば興味深い。これら計測値の記載²⁾³⁾はきわめて少なく、困難であった。その他、シャント量が多い例では左心不全を呈する例²⁾³⁾もある。

原因として、明らかにシャントを形成させうる炎症性疾患、外傷が先行する例³⁾⁷⁾もあるが、本例のように先行する疾患が同定できないものも少なくない。

治療としては、以前は切除術がほとんどであったが、最近では塞栓術もなされるようになってきている³⁾⁷⁾。また、本例のように経過観察で終わっている報告も見られる。

Table 2 Reported cases with systemic arterio-pulmonary venous fistula in Japan

First author	Age/Sex	Symptoms and Signs	Preceding diseases	Therapy
Masaoka (1977) ²⁾	16/M	Cardiac murmur	—	Resection
Tachibana (1984) ³⁾	6m/F	Heart failure	—	Resection
Nakase (1992) ⁴⁾	74/M	Heart failure	Pleuritis	Embolization
Miyazato (1993) ⁵⁾	50/M	Hemoptysis	—	Resection
Furukawa (1999) ⁶⁾	55/F	—	—	Follow up
Ito (2005) ⁷⁾	67/M	Hemoptysis	Thoracic injury	Embolization
This case (2008)	55/M	—	—	Follow up

結 語

今回非常にまれな体動脈肺静脈瘻（体動脈—肺静脈シャント）の1例を経験した。報告数が少なく、その病態、予後については十分な知見はないが出血（破裂）には注意する必要があると思われた。

引用文献

- 1) Watson WL. Pulmonary arteriovenous aneurysm; A new surgical disease. *Surgery* 1947; 22: 919.
- 2) 正岡 昭, 小野田一男, 坪井圭之助, 他. 体動脈肺静脈瘻. *日胸* 1977; 36: 855—861.
- 3) 橋 秀夫, 山口眞弘, 細川裕平, 他. 高度な肺高血圧症を呈した分画肺を伴わない異常体動脈肺静脈瘻の1乳児治験例. *日小児外科会誌* 1984; 20: 1005—1012.
- 4) 中瀬恵美子, 松村憲太郎, 久保田忍, 他. 二次性の体動脈肺静脈瘻を認め塞栓療法を試みた1例. *内科* 1992; 70: 731—733.
- 5) 宮里明子, 我謝道弘, 大城 元, 他. 部分肺静脈還流異常を合併し大量咯血を呈した肺静脈瘻の1例. *沖縄医学会雑誌* 1993; 31: 146—148.
- 6) Furukawa K, Yokoyama A, Sato K, et al. Aberrant systemic arterial supply to the non-sequestered lung: a case report. *Acta Medica et Biologica* 1999; 47: 121—124.
- 7) Ito T, Sakamoto T, Norio H, et al. An arteriovenous fistula between the internal mammary artery and the pulmonary vein following blunt chest trauma. *Cardiovasc Intervent Radiol* 2005; 28: 120—123.

Abstract

A case of systemic arterio-pulmonary venous fistula detected during a routine group medical checkup

Chihito Komaki

Department of Respiratory Disease, Inuyama Central Hospital

A 55-year-old man was admitted following the discovery of a radiographic abnormality. A chest radiograph and computed tomography showed a subpleural nodule in the lingular division of the left lung with a dilated pulmonary vein. A pulmonary arteriograph showed no abnormal pulmonary artery in the pulmonary arterial phase, no abnormal pulmonary vein in the pulmonary venous phase, but an abnormal artery (left lateral thoracic artery) from the left subclavian artery with a fistula to the pulmonary vein. A left lateral thoracic arteriograph clearly showed that this artery was dilated and formed a fistula with the pulmonary vein. The patient was given a diagnosis of systemic arterio-pulmonary venous fistula. Such cases are very rare, but some cases with hemoptysis have been reported. The patient was given the option of treatment by operation or embolization, but he refused any therapy.