

●症 例

嘔吐を契機に血胸で発症した縦隔型気管支動脈瘤破裂の1例

大町 直樹^{a,*} 濱野 紗朱^a 綿屋 洋^a 鶴田 伸子^a 樋口 和行^a

要旨：症例は59歳，女性．感染性胃腸炎による嘔吐後より右胸痛を認めた．胸部単純CTにて右胸腔内の液体貯留および食道奇静脈陥凹の血腫を認め，胸腔穿刺にて右血胸を確認した．胸部造影CTの画像再構成multiplanar reconstruction (MPR)で縦隔の気管支動脈瘤を認め，気管支動脈瘤破裂と診断した．血行動態は安定しており気管支動脈塞栓術を施行した．術後，血腫の縮小と血胸の改善を認めた．16ヶ月後の造影CTでも再発を認めておらず経過良好である．気管支動脈瘤破裂が血胸で発症することはまれであるが，念頭に置くべき病態と考えられた．

キーワード：血胸，気管支動脈瘤，気管支動脈塞栓術

Hemothorax, Bronchial arterial aneurysm, Bronchial arterial embolization

諸 言

気管支動脈瘤はまれな疾患であるが，画像診断の進歩により報告は増加傾向である．縦隔や胸腔への動脈瘤の破裂ではショック状態となり致死的な経過をたどることもある．今回，嘔吐を契機に血胸を発症した気管支動脈瘤破裂の1例を経験した．気管支動脈塞栓術後，良好な経過が得られており，治療適応を中心に文献的考察を加えて報告する．

症 例

患者：59歳，女性．

主訴：右側胸部痛．

既往歴：高血圧．

現病歴：2009年2月中旬に嘔吐，下痢が出現し近医受診し感染性胃腸炎と診断された．嘔吐は2回で治まったが，最初の嘔吐直後より強い右側胸部痛を自覚していた．下痢が軽快後も1週間右側胸部痛が持続するため，胸痛を自覚し始めてから1週間後に国家公務員共済組合連合会浜の町病院紹介となった．胸部X線写真にて右胸腔内液体貯留を認め (Fig. 1a) 精査加療目的にて同日

入院となった．

入院時現症：身長160cm，体重50kg，血圧123/80mmHg，脈拍90回/min・整，SpO₂97% (room air)，心雑音 (-)，呼吸音：右呼吸音軽度減弱を認めた．

入院時検査所見：WBC 7,700/μl，Hb 10.0 g/dl，CRP 2.0 mg/dl，LDH 256 IU/L，と軽度の貧血，炎症反応の上昇を認めた．そのほかの生化学検査，凝固検査には異常を認めなかった．動脈血液ガス分析ではpH 7.41，PaCO₂ 35 Torr，PaO₂ 105 Torrと異常所見を認めなかった．

臨床経過：入院時胸部単純CTで右胸腔内液体貯留あり，胸腔穿刺を行った．胸水の外観は血性，暗赤色で細胞数4,300/μl，(好中球5%，組織球75%，リンパ球3%，好塩基球1%，中皮細胞15%)，胸水総蛋白5.5 g/dl，LDH 1,381 IU/L，Hb 10 g/dl，Hct 29.6%，培養で起炎菌は同定されず，細胞診で悪性細胞を認めず血胸と診断した．外傷などの既往なく，出血源の検索のため胸部造影CT施行したところ，気管分岐部直下に瘤状に増強される腫瘍を認めた (Fig. 1b)．multiplanar reconstruction (MPR)にて下行大動脈より分岐する気管支動脈に瘤を認め，その周囲に血腫を認めた (Fig. 1c)．以上より，気管支動脈瘤破裂による血腫形成および血胸と診断した．

血行動態が安定しており，治療は気管支動脈塞栓術を選択した．気管支動脈造影により，下行大動脈より分岐する右気管支動脈に気管支動脈瘤を2ヶ所認めた (Fig. 1d)．2個の瘤の近位側と遠位側にコイルによる塞栓を試みたが，血管径が細くガイドワイヤーが瘤の遠位側に到達しなかったため，断念した．瘤近傍でキシロカイ

連絡先：大町 直樹

〒810-0073 福岡県福岡市中央区舞鶴3-5-27

^a国家公務員共済組合連合会浜の町病院呼吸器内科

*現 独立行政法人国立病院機構近畿中央胸部疾患センター内科

(E-mail: nomachi@kch.hosp.go.jp)

(Received 3 Apr 2012/Accepted 6 Jun 2012)

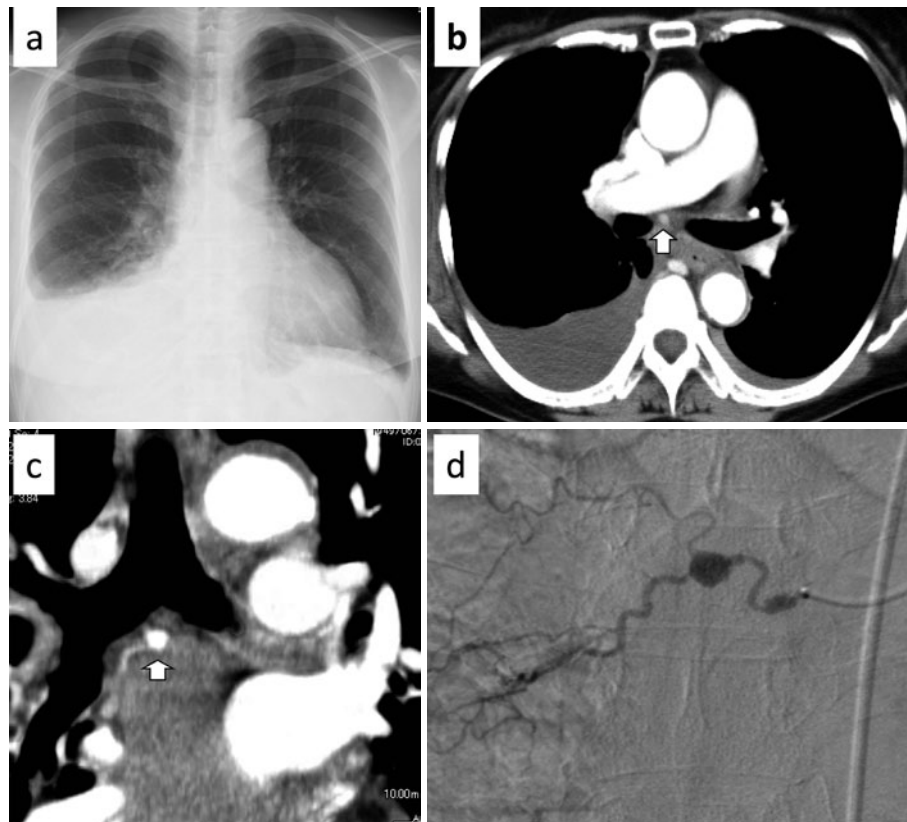


Fig. 1 (a) Chest radiograph on admission, showing right pleural effusion. (b) Enhanced chest CT at subcarinal level showing enhanced nodule (white arrow), hemothorax, and hematoma in azygoesophageal recess. (c) Coronal CT showing bronchial arterial aneurysm (white arrow). (d) Selective angiography of the right bronchial artery showing two aneurysms.

ン® (Xylocaine®) を投与し下肢感覚障害が生じないことを確認したうえで、瘤の近位側からゼラチンスポンジにて塞栓を行った。造影により動脈瘤が描出されないことを確認して治療を終了とした。

これ以降、症状は軽快し胸部 X 線写真で血胸も認めなくなり (Fig. 2a), 入院第 16 病日に軽快退院となった。1ヶ月後、4ヶ月後、10ヶ月後、16ヶ月後に造影 CT (Fig. 2b, c) による経過観察を行ったが、動脈瘤の再発は認めていない。

考 察

気管支動脈瘤は発生原因により先天性と後天性や特発性、二次性などに分類される。先天性の原因としては動脈形成異常や Rendu-Osler-Weber 病が知られており、二次性的原因としてはシリコーシス、気管支拡張症、肺癌、慢性感染、動脈硬化、サルコイドーシスなどがある^{1)~7)}。細菌感染、外傷により偽性動脈瘤が生じることもある⁴⁾。

気管支動脈瘤は選択的気管支動脈造影を行った中で、1%以下の頻度で発見されるまれな疾患である⁵⁾。気管支動脈瘤は発生部位より縦隔型と肺内型に分類される²⁾⁵⁾⁸⁾⁹⁾

が、縦隔型気管支動脈瘤の報告は 40 例以下である⁶⁾。肺内型が破裂した場合の症状は、主に血痰である²⁾³⁾⁵⁾¹⁰⁾¹¹⁾。縦隔型が破裂した場合は、縦隔血腫³⁾や血腫での上大静脈圧迫による上大静脈症候群²⁾、食道への破裂による吐血⁶⁾などの報告がある。非常にまれではあるが血胸⁶⁾⁹⁾¹⁰⁾、大動脈解離に類似した胸痛や出血性ショックを呈する²⁾³⁾⁵⁾⁶⁾⁹⁾。破裂していない場合には通常無症状であり⁵⁾、検診発見例もある⁷⁾¹⁰⁾。

本症例は水平断の造影 CT では気管分岐下に造影効果のある結節影を認めたが動脈瘤と断定しえず、MPR による冠状断により気管支動脈に瘤を認め診断に至った。気管支動脈造影では複数の気管支動脈瘤を検出しており、本疾患が否定できない場合や気管支動脈からの出血が疑われる場合には気管支動脈造影を検討すべきと考えられる⁵⁾⁶⁾。

破裂に至る過程は明らかではないが、大きさは関与しないとする報告が多い^{4)~6)10)}。本症例での動脈瘤の発生原因としては、二次性に気管支動脈瘤の原因となりうる基礎疾患を有しておらず、また縦隔に 2 個動脈瘤が発生していることより、動脈瘤は先天的に生じていた可能性

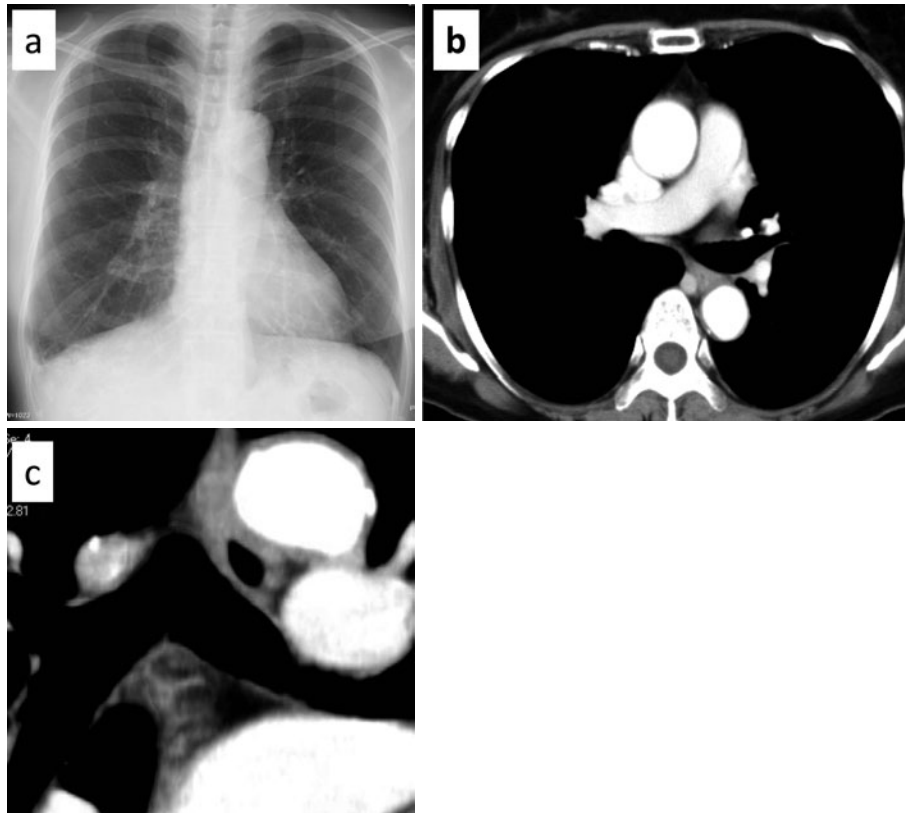


Fig. 2 (a) Chest radiograph showing improvement of right pleural effusion. (b) Chest CT after embolization showing no aneurysm. (c) Coronal CT after embolization showing no aneurysm.

Table 1 Reported cases of mediastinal bronchial artery aneurysms that presented with hemothorax

Author	Age	Sex	Onset	Trigger	Symptom	Diagnostic tool	Treatment	Outcome
Ishizaki (1995)	25	F	acute	spontaneous	back pain	BAG	BAE	uneventful
Hofmann (1996) ²⁾	70	M	subacute	spontaneous	chest pain, back pain	BAG	BAE	uneventful
Kalangos (1997) ⁵⁾	50	M	sudden	spontaneous	back pain	Op	Op	uneventful
Fukuoka (1998)	74	M	subacute	spontaneous	abdominal pain	Op	Op	uneventful
Yamamoto (2000)	74	M	sudden	spontaneous	chest pain	BAG	BAE	uneventful
Tsuji (2003)	63	F	sudden	spontaneous	chest pain	BAG	BAE	uneventful
Takahashi (2003)	74	M	sudden	spontaneous	chest pain	Op	Op	uneventful
Yonezawa (2005)	74	M	sudden	spontaneous	chest pain	3D-CT	BAE	uneventful
Karmy-Jones (2005) ¹⁰⁾	78	F	subacute	spontaneous	myalgia, weakness	BAG	BAE	uneventful
Mizuguchi (2009) ⁶⁾	77	F	sudden	spontaneous	chest pain, dyspnea	3D-CT	BAE	uneventful
Sou (2009)	57	M	sudden	spontaneous	chest pain	3D-CT	BAE	uneventful
Katsuda (2009) ⁹⁾	65	M	sudden	spontaneous	chest pain	BAG	Op	uneventful
Hu CX (2011)	67	M	sudden	spontaneous	chest pain	3D-CT	Stent graft	uneventful
Quenro (2011)	82	M	sudden	spontaneous	chest pain, nausea	BAG	BAE	uneventful
Seo (2011)	41	M	sudden	spontaneous	chest pain	BAG	BAE	uneventful
Misawa (2012)	74	M	sudden	spontaneous	chest pain, dyspnea	3D-CT	BAE	uneventful
Our case	59	F	sudden	vomiting	chest pain	BAG	BAE	uneventful

BAG, bronchial arteriography; Op, operation; BAE, bronchial artery embolization.

も否定できないと思われる。破裂に至った機序としては、嘔吐直後に突然に強い胸痛が生じ、その症状が持続したことから、嘔吐により胸腔内圧の上昇、血流増加が生じ、

気管支動脈瘤が破裂したと考えられる。本症例は胸腔穿刺で血胸を認めたことから原因検索を行い、気管支動脈瘤破裂の診断に至った。血胸で発症した気管支動脈瘤破

裂の症例報告例は少なく、検索した結果 16 例が報告されている (Table 1). 全症例で破裂を起こす引き金がなく自然発症しているが、本症例は嘔吐による胸腔内圧の上昇を契機に気管支動脈瘤破裂、血胸・縦隔血腫を生じており、非常にまれな症例と考えられる。

気管支動脈瘤は破裂すると致死性の出血をきたしうするため²⁾¹²⁾¹³⁾、無症状例や未破裂例に対してもできるだけ早期の治療が必要と考えられている^{4)~6)10)}。治療は、①気管支動脈塞栓術 (bronchial artery embolization: BAE)⁵⁾、②外科的治療 (気管支動脈結紮術、肺葉切除、区域切除、全摘術)⁵⁾で行われることが多い。瘤が大動脈から分岐直後の気管支動脈に発生した場合には大動脈ステントでの治療例¹¹⁾もあり、今後、治療の選択肢になる可能性もある。

BAE の適応は、未破裂例や血行動態が安定している症例と考えられる³⁾。侵襲性が低く、外科的治療困難な症例に対しても施術可能なこともあり、第一選択としている報告も多い¹⁰⁾。問題点としては、①塞栓物質の大循環への流出による臓器障害¹⁴⁾¹⁵⁾、②塞栓後の再開通、側副血行路の発達による再出血¹²⁾¹⁴⁾¹⁵⁾、③気管支壊死¹⁴⁾、④前脊椎動脈塞栓による脊髄障害¹⁴⁾¹⁵⁾がある。出血源となる責任動脈より脊髄を栄養する動脈が分岐する場合や造影剤アレルギーがある場合は禁忌である¹⁵⁾。塞栓物質はゼラチンスポンジ、ポリビニルアルコール、N-butyl-2-cyanoacrylate (NBCA)、金属コイルがある¹⁵⁾¹⁶⁾。

本症例では、血行動態が安定しており、より低侵襲な BAE による治療を選択した。動脈瘤の遠位側と近位側へのコイル塞栓を試みたがガイドワイヤーが通過せず、コイル塞栓を断念しゼラチンスポンジによる塞栓を選択した。近年、NBCA による BAE 治療報告が散見される¹⁵⁾¹⁶⁾。NBCA は水溶性塞栓物質で、末梢までの広範な血管の塞栓が可能とされるが¹⁵⁾、組織障害性が高いとされ肺静脈シャントがある場合には禁忌とされる。しかしゼラチンスポンジ難治症例に対する、NBCA による気管支動脈塞栓の有効性を示す報告もあり¹⁵⁾¹⁶⁾、今後の症例蓄積による治療適応の確立が望まれる。本症例はゼラチンスポンジによる塞栓を施行したため、再開通、再出血を懸念し、厳重な経過観察を行い、16ヶ月の経過観察で気管支動脈瘤の再発、再出血を認めておらず良好な経過を得られている。本疾患は血胸の原因としてはまれであるが、外傷の既往や大動脈破裂を認めず縦隔に血腫が疑われる症例に対しては、本疾患も念頭に置くべき疾患と考えられる。本症例は気管支動脈塞栓術により良好な経過を得られており、文献的考察とともに報告した。

著者の COI (conflicts of interest) 開示: 本論文発表内容に関して特に申告なし。

引用文献

- 1) 下川路伊亮, 小林英男, 河野修一, 他. 肺動脈と直接連結した特発性気管支動脈瘤. 日呼吸会誌 2008; 46: 202-5.
- 2) Hoffmann V, Ysebaert D, De Schepper A, et al. Acute superior vena cava obstruction after rupture of a bronchial artery aneurysm. Chest 1996; 110: 1356-8.
- 3) Lioulis A, Misthos P, Kokotsakis J, et al. Recurrent massive hemoptysis due to postbronchotomy bronchial artery aneurysm: A case report. Can Respir J 2008; 15: 127-8.
- 4) Suen HC, Dumontier CC, Boeren J, et al. Ruptured bronchial artery aneurysm associated with sarcoidosis. J Thorac Cardiovasc Surg 2003; 125: 1153-4.
- 5) Kalangos A, Khatchatourian G, Panos A, et al. Ruptured mediastinal bronchial artery aneurysm: a dilemma of diagnosis and therapeutic approach. J Thorac Cardiovasc Surg 1997; 114: 853-6.
- 6) Mizuguchi S, Inoue K, Kida A, et al. Ruptured bronchial artery aneurysm associated with bronchiectasis: A case report. Ann Thorac Cardiovasc Surg 2009; 15: 115-8.
- 7) 高橋典明, 須金紀雄, 上原暢子, 他. 検診で発見された気管支動脈瘤の 1 例. 気管支学 2001; 23: 616-9.
- 8) 正津昌子, 坂本和裕, 中山裕子, 他. 気管支動脈起始部に発生した縦隔型気管支動脈瘤の 1 例. 気管支学 2006; 28: 526-31.
- 9) 勝田倫子, 望月吉郎, 中原保治, 他. 血胸で発見された気管支動脈瘤の一例. 日呼吸会誌. 2009; 47: 895-9.
- 10) Karmy-Jones R, Hastreiter D, Burdick T. Hemothorax complicating bronchial artery aneurysm. Can Respir J 2005; 12: 279-81.
- 11) Sanchez E, Alados P, Zurera L, et al. Bronchial artery aneurysm treated with aortic stent graft and fibrin sealant. Ann Thorac Surg 2007; 83: 693-5.
- 12) Saito Y, Ueda Y, Imamura H, et al. Operative aneurysmectomy and middle lobectomy for asymptomatic bronchial artery aneurysm in young patient. Eur J Cardiothorac Surg 2000; 18: 366-9.
- 13) Miyoshi K, Moriyama S, Nawa S. Bronchial arteriovenous malformation with large aneurysm, resected by video-assisted thoracic surgery. Gen Thorac Cardiovasc Surg 2009; 57: 162-5.
- 14) 倉石 博, 矢野量三, 蓮本 誠, 他. 外科的結紮切離術を行った気管支動脈蔓状血管腫の 2 例. 日呼吸会誌. 2006; 44: 415-9.
- 15) 田宮浩之, 平野 聡, 森井 栄, 他. 繰り返す咯血

に対して N-butyl cyanoacrylate による気管支動脈塞栓術が有効であった一例. 日呼吸会誌 2009; 47: 427-31.

16) Aburano H, Kawamori Y, Horiti Y, et al. Bronchial artery aneurysm embolization with NBCA. Cardio-vasc Intervent Radiol 2006; 29: 1141-3.

Abstract

A case of ruptured mediastinal bronchial artery aneurysm with hemothorax

Naoki Omachi^{a,*}, Saaka Hamano^a, Hiroshi Wataya^a, Nobuko Tsuruta^a and Kazuyuki Higuchi^a

^aDepartment of Respiratory Medicine, Hamanomachi Hospital

*Present address: Department of Internal Medicine, National Hospital Organization Kinki-Chuo Chest Medical Center

The patient was a 59-year-old woman. She was admitted because of a sudden onset of right chest pain after vomiting. Chest contrast CT revealed right hemothorax and hematoma in retroesophageal recess, and multiplanar reconstruction clearly revealed a bronchial artery aneurysm. The diagnosis was a ruptured bronchial artery aneurysm. We performed selective angiography of the bronchial artery, revealing two aneurysms of the right bronchial artery, and we performed bronchial arterial embolization. After successful embolization, hemothorax and hematoma improved, and it has not been seen for 16 months. A ruptured bronchial arterial aneurysm should be considered as one of the differential diagnoses of hemothorax.