

●症 例

左上葉切除術が必要であったカテーテルアブレーション後肺静脈狭窄の1例

桂田 直子^{a,*} 大西 尚^a 吉村 将^a 木南 佐織^a 西馬 照明^{a,†}

要旨：症例は60歳，男性．血痰，左胸痛を主訴に受診した．胸部CTで斑状の浸潤影を認め，肺炎を疑い抗菌薬を投与するも症状は持続した．発作性心房細動に対するカテーテルアブレーションの既往があり，胸部CTで左上肺静脈の狭窄を認め，アブレーション後の肺静脈狭窄による肺出血が原因と考えられた．手術では左上肺静脈入口部は高度に狭窄し，上肺静脈に血流はあったが大量の血栓が存在し，肺は硬化していたため，左上葉切除術を施行した．呼吸器症状を呈し，カテーテルアブレーションの既往があれば，まれな合併症ではあるが肺静脈狭窄も鑑別にあげる必要がある．

キーワード：カテーテルアブレーション，肺静脈狭窄，血痰，心房細動

Catheter ablation, Pulmonary vein stenosis, Hemoptysis, Atrial fibrillation

緒 言

心房細動に対するカテーテルアブレーション（以下，アブレーション）は広く行われており，治療合併症の一つとして肺静脈狭窄があるが，呼吸器内科医の認識は高くないと考えられる．今回血痰，胸痛を主訴に受診し，左上葉切除術が必要であったアブレーション後肺静脈狭窄の1例を経験したので報告する．

症 例

患者：60歳，男性．

主訴：血痰，左胸痛．

既往歴：十二指腸潰瘍，大腸ポリープ．

家族歴：特記事項なし．

喫煙歴：40本/日×35年（6年前から禁煙）．

服薬歴：ワルファリン（warfarin）3mg/日，アトルバスタチン（atorvastatin）5mg/日，ラベプラゾール（rabeprazole）20mg/日．

現病歴：2009年2月明石医療センター循環器内科にて，心房粗動の治療として下大静脈～三尖弁輪間のアブレーションを行った．

同年3月に，発作性心房細動に対してアブレーションによる両側上下肺静脈隔離を行った．その後心房細動が再発し，同年10月に2回目のアブレーションを行った．その際左上肺静脈に電気的交通の再発を認め，左上下肺静脈分岐部の通電も行った．2010年1月末から血痰，左胸痛を自覚し，症状が続くため10日後に呼吸器内科を受診し，精査加療目的に同日入院した．

入院時現症：身長169cm，体重71kg，体温37.3℃，血圧112/60mmHg，脈拍92回/min・整．呼吸音にラ音は聴取せず，心音は整で心雑音聴取せず．四肢浮腫なし．そのほかに理学的異常所見は認めなかった．

入院時検査所見：血液検査所見では，白血球数11,140/μl，CRP 6.2mg/dlと炎症反応の上昇を認めた．また，PT-INR 1.42と軽度延長していた．動脈血液ガス（室内気）は，PaCO₂ 38.6 Torr，PaO₂ 69.0 Torrと軽度の低酸素血症を認めた．喀痰培養検査は一般細菌，抗酸菌とも陰性で，血液培養検査も陰性であった．心電図は異常所見なく，経胸壁心臓超音波検査では，左室壁運動に異常なく，右心負荷所見も認めなかった．

胸部画像所見：胸部X線写真（図1）では，左上肺野に斑状の浸潤影，右肺野に線状影を認めた．胸部CT（図2）では，左上葉に小葉間隔壁の肥厚を伴う散在性の斑状影を認め，右下葉に板状無気肺と考えられる線状影を認めた．

入院後経過：血痰，発熱，左上葉に局限した陰影から肺炎は否定できず，セフトリアキソン（ceftriaxone）2g/日を投与した．血痰があるため，ワルファリンは中止した．喀痰培養検査は，一般細菌，抗酸菌とも陰性であった．抗菌薬投与を行うも症状が続くため，入院8日

連絡先：大西 尚

〒674-0063 兵庫県明石市大久保町八木743-33

^a明石医療センター呼吸器内科

*現 亀田総合病院呼吸器内科

†現 加古川西市民病院呼吸器内科

(E-mail: ohnishi@amcl.jp)

(Received 6 Aug 2013/Accepted 2 Oct 2013)



図1 入院時の胸部X線写真. 左上肺野に斑状の浸潤影, 右肺野に線状影を認めた.



図2 入院時の胸部CT. 左上葉に小葉間隔壁の肥厚を伴う散在性の斑状影を認めた.

目に気管支鏡検査を行ったところ、気管内に血痰があり、左上葉支粘膜は発赤を伴い浮腫状で、左上区支入口部に血液付着を認めた(図3)。舌区より気管支肺胞洗浄、左B1+2c、左B3bより経気管支肺生検を施行した。気管支肺胞洗浄液の好中球の増加はなく、培養検査は陰性であった。経気管支肺生検では、特異的な所見を認めなかった。同日より解熱、炎症反応も改善し2日後に抗菌薬を中止した。アブレーション後であることから肺静脈狭窄による肺出血の可能性を考え、入院18日目に胸部造影CTを施行したところ、左上肺静脈は高度に狭窄していた(図4)。アブレーション前には両側上下肺静脈ともに描出良好であり、左上肺静脈狭窄はアブレーションの合併症と考えられた。入院25日目に退院するも、2週間後に血痰、発熱が再燃し、胸部X線写真で左上肺野から中肺野に広がる浸潤影を認め(図5)、再入院した。肺炎の合併を考え、セフトリアキソン2g/日を投与すると症状はやや改善した。しかし短期間で症状が再燃し陰影も悪化したため、肺静脈形成術の適用と考え、再入院1週間後に手術を施行した。手術所見では左上肺静脈左房入口部は癒着化し高度に狭窄していた。左上肺静脈本幹部を切開すると、肺静脈には血流はあったが大量の血栓が存在し、うっ血などにより肺実質は実質臓器様に硬化していたため、血栓除去、肺静脈形成術のみでは改善しないと判断し、左上葉切除術を施行した。摘出肺の病理所見(図6)は、びまん性にうっ血、肺胞内出血を認め、部分的、地図状に壊死を伴っていたが、特異的な炎症所見や腫瘍性病変は認めなかった。手術後症状は改善し、手術1ヶ月後に退院した。その後、肺静脈狭窄の再発は全く経過している。

考 察

心房細動に対するアブレーションは、技術の進歩とともに適用が拡大している¹⁾が、心穿孔、血栓塞栓症、食道瘻、肺静脈狭窄などの合併症がある²⁾。肺静脈狭窄の頻度は技術の進歩に伴い減少しており、近年では治療を要した肺静脈狭窄が0.29%³⁾、画像上50%以上の狭窄が0.4%⁴⁾と報告されている。治療後から症状出現までの期間は平均約100日だが、1年後の発症もある⁵⁾。拡大肺静脈隔離法は片側上下肺静脈開口部を囲むように広範に焼灼する方法で、近年広く行われており、明石医療センターでもこの方法で行っている。個々の肺静脈開口部を標的とする方法より肺静脈狭窄の頻度が少ない¹⁾。本症例も1回目はこの方法で施行したが、心房細動再発時に左上肺静脈分岐部も通電しており、肺静脈狭窄の要因となった可能性も考えられる。

無症状から著しい症状を呈するものまであり、咳、血痰、胸痛、呼吸困難、微熱などが報告され、非特異的な呼吸器症状が主である⁵⁾。また、胸部画像所見の異常は70%以上の肺静脈狭窄例で50%にみられ、肺野のコンソリデーション、胸水貯留が多い⁶⁾。本症例は当初斑状の浸潤影がみられたが、このような画像所見を呈した症例も報告されており、側副血行路が形成され血液の流出が可能な領域が部分的に存在するため、斑状にうっ血像を呈した可能性が指摘されている⁷⁾。胸部CTで小葉間隔壁の肥厚を認めたが、本症例と同様に肺葉切除された症例の病理組織でも、小葉間隔壁は浮腫と線維化により肥厚していたことが報告されている⁸⁾。呼吸器症状が主であり、呼吸器内科を受診することもまれではないと考えられるが、非特異的な症状や画像所見のため肺炎や肺塞栓などと診断され、治療の遅れにつながる事が指摘されている⁶⁾。本症例は、血痰、胸痛、微熱を訴え、入院当初はアブレーションによる肺静脈狭窄を疑わず、肺

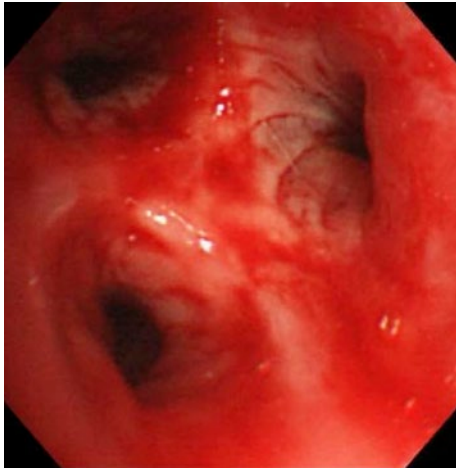


図3 気管支鏡検査の左上区支入口部所見. 粘膜は発赤を伴い浮腫状で、血液付着を認めた.



図5 再入院時の胸部X線写真. 左上肺野から中肺野に広がる浸潤影を認めた.

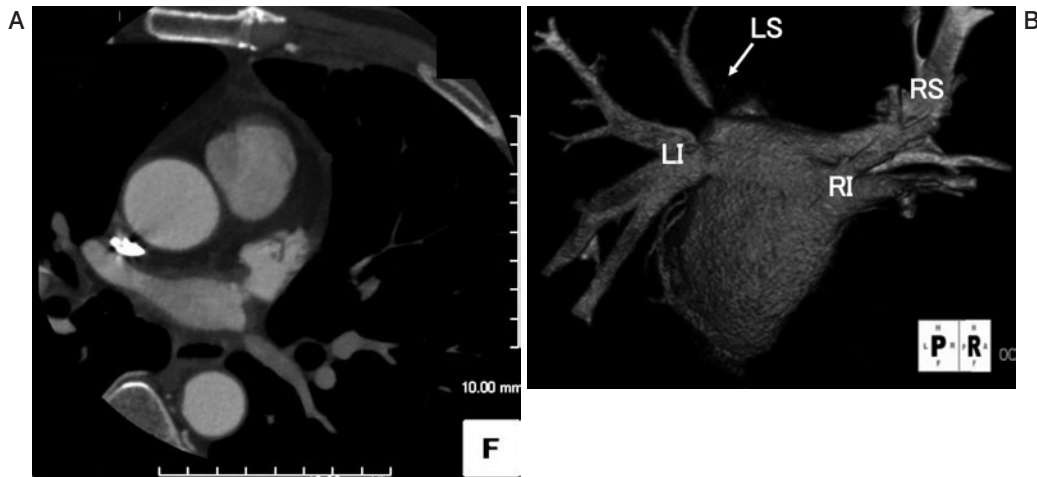


図4 胸部造影CT. (A) 横断像, (B) 胸部造影CTの3D構成画像. 左上肺静脈は高度に狭窄していた. LS: 左上肺静脈, LI: 左下肺静脈, RS: 右上肺静脈, RI: 右下肺静脈.

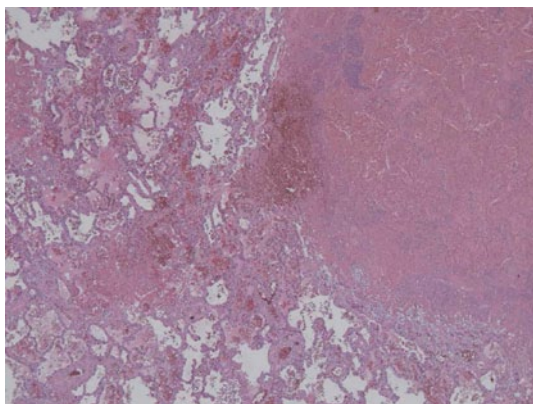


図6 摘出肺の病理所見. びまん性にうっ血, 肺胞内出血を認め、部分的、地図状に壊死を伴っていた.

炎・胸膜炎として抗菌薬を投与するも、症状が続くため精査を行い診断に至った。反応は鈍いものの抗菌薬により発熱や炎症反応が改善しており、喀痰培養検査では有意な菌は認めなかったが、感染も併発していたと考える。肺静脈狭窄の症状として感染も報告されている²⁾。気管支の内腔所見は、左肺静脈狭窄で左気管支に粘膜下の血管増生・怒張、粘膜の著明な発赤・腫脹を認めたと報告されている⁹⁾が、本症例でも粘膜の発赤・腫脹を認めた。

肺静脈狭窄に対する内科的治療は、バルーン拡張術やステント留置術が行われるが、再狭窄率は33~61%と高く、繰り返し治療が必要である²⁾。完全閉塞の場合、内科的治療は困難であり、外科的治療となる⁶⁾。症状があれば治療適用であり、症状がない場合の治療については一定の見解が得られていないが、無症状でも肺血流の改善のため治療を行う方がよいともいわれる¹⁰⁾。本症例

では抗菌薬治療により症状が改善したが、その後症状および画像所見が悪化し、左上肺静脈は高度に狭窄しており、手術を施行した。血流はあったものの肺静脈内には大量の血栓が存在し、肺実質は硬化していたため、肺静脈形成術での改善は困難と判断し左上葉切除術を施行した。前述の病理組織が報告された症例は、肺静脈狭窄に対する3回の内科的治療後も血痰が持続するため、肺葉切除された症例であるが⁵、大小の肺動静脈の内膜過形成と中膜肥厚、毛細血管のうっ血、肺胞内マクロファージのヘモジデリン貪食像を認め、血管の不可逆的な構造変化をきたしていた⁸⁾。血管の不可逆的な構造変化をきたすと内科的治療では対応困難と考えられる。

技術の進歩とともにアブレーション後の肺静脈狭窄の頻度は減少しているが、近年でも報告されている。循環器領域では報告数が多いが、呼吸器領域では少ない。本症例でも診断までに若干の時間を要した。血痰や胸痛など非特異的な呼吸器症状を主訴とするため、呼吸器内科医が診療する機会もあると考えられ、認識すべき病態であり報告した。

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) 高橋 淳. 心房細動の非薬物療法：拡大肺静脈隔離を基礎としたカテーテルアブレーション. 日薬理誌 2010; 135: 66-9.
- 2) Takahashi A, et al. Complications in the catheter

ablation of atrial fibrillation: incidence and management. *Circ J* 2009; 73: 221-6.

- 3) Cappato R, et al. Updated worldwide survey on the methods, efficacy, and safety of catheter ablation for human atrial fibrillation. *Circ Arrhythm Electrophysiol* 2010; 3: 32-8.
- 4) Bertaglia E, et al. Early complications of pulmonary vein catheter ablation for atrial fibrillation: a multi-center prospective registry on procedural safety. *Heart Rhythm* 2007; 4: 1265-71.
- 5) Packer DL, et al. Clinical presentation, investigation, and management of pulmonary vein stenosis complicating ablation for atrial fibrillation. *Circulation* 2005; 111: 546-54.
- 6) Saad EB, et al. Pulmonary vein stenosis after catheter ablation of atrial fibrillation: emergence of a new clinical syndrome. *Ann Intern Med* 2003; 138: 634-8.
- 7) Steliga MA, et al. Lobectomy for pulmonary vein occlusion secondary to radiofrequency ablation. *J Cardiovasc Electrophysiol* 2010; 21: 1055-8.
- 8) Yang HM, et al. Irreversible intrapulmonary vascular changes after pulmonary vein stenosis complicating catheter ablation for atrial fibrillation. *Cardiovasc Pathol* 2007; 16: 51-5.
- 9) 渡辺尚宏, 他. 心房細動に対するカテーテルアブレーション後に生じた肺静脈狭窄症の1例. 気管支学 2012; 34: 468-72.
- 10) Barrett CD, et al. How to identify and treat patient with pulmonary vein stenosis post atrial fibrillation ablation. *Curr Opin Cardiol* 2008; 24: 42-9.

Abstract**A case of pulmonary vein stenosis requiring lobectomy after catheter ablation for atrial fibrillation**

Naoko Katsurada^{a,*}, Hisashi Ohnishi^a, Sho Yoshimura^a, Saori Kinami^a and Teruaki Nishiuma^{a,†}

^aDepartment of Respiratory Medicine, Akashi Medical Center

* Present address: Department of Pulmonary Medicine, Kameda Medical Center

† Present address: Department of Respiratory Medicine, Kakogawa West City Hospital

A 60-year-old man, who had undergone pulmonary vein ablation for atrial fibrillation 10 months before, presented with bloody sputum and left-chest pain. He received an administration of antimicrobial agent for pneumonia, but his symptoms persisted. The CT scan revealed severe stenosis of the ostium of the left-upper superior pulmonary vein, with patchy ground-glass opacities and interlobular septal thickening in the left-superior pulmonary lobe. We diagnosed pulmonary-vein stenosis and pulmonary hemorrhage complicating ablation for atrial fibrillation. Because of worsening of bloody sputum and pulmonary consolidations, we tried to perform the plasty of the left-upper pulmonary vein. A left-upper lobectomy was ultimately performed because the left-upper pulmonary vein was occluded by massive thrombosis and the left-upper lobe became hard, like a solid organ. His symptoms were completely improved. We should suspect pulmonary vein stenosis when a patient presents with respiratory symptoms after catheter ablation for atrial fibrillation.