

## ●症 例

## X線およびCT上所見に乏しかったため診断に苦慮した 気管支動脈肺動脈瘻大量喀血の1例

吉田 喜子<sup>a</sup> 下村 巖<sup>a</sup> 飯岡 義教<sup>a</sup>  
藤本 肇<sup>b</sup> 橋本 一樹<sup>c</sup> 吉田 康秀<sup>a</sup>

**要旨：**症例は70歳，男性．喀血を主訴に沼津市立病院呼吸器内科を受診した．入院時の胸部X線，胸部造影CTでは特記すべき異常所見は認められなかった．気管支鏡では気管支腔内に血液の付着を認めたが，出血源は同定できなかった．経過中に大量喀血を複数回にわたり繰り返したため，気管支動脈造影を施行したところ気管支動脈末梢と肺動脈に交通を認め，気管支動脈肺動脈瘻の診断に至った．塞栓後は再喀血なく経過した．CTで異常所見のない喀血例においても気管支肺動脈瘻の可能性を考慮し，早期に気管支動脈造影を行うことが重要であると考えられた．

**キーワード：**喀血，シャント，気管支動脈肺動脈瘻，気管支動脈塞栓術，気管支動脈造影

Hemoptysis, Shunt, Bronchial artery-pulmonary artery fistula, Bronchial arterial embolization, Bronchial arteriography

### 緒 言

喀血とは喉頭，気管，気管支，肺から血液を喀出することを言い，呼吸器疾患で見られる頻度の高い症状の一つである．しかし，画像検査や気管支鏡検査を行っても9～13%が特発性喀血と診断され<sup>1)2)</sup>，喀血の原因が明らかにならない症例もまれではない．今回我々は，大量喀血にもかかわらず画像所見に乏しく出血源や原因検索に苦慮したが，気管支動脈造影を行うことで気管支動脈肺動脈瘻の診断に至った症例を経験したため報告する．

### 症 例

患者：70歳代，男性．

主訴：喀血．

既往歴：52歳時 心筋梗塞．

家族歴：特記事項なし．

嗜好歴：喫煙歴5本/日×50年(20歳から入院時まで)．  
飲酒歴なし．

職業歴：無職（退職前は事務職）．

アレルギー歴：なし．

現病歴：入院前日に500円玉大の血痰を約10回喀出したが，自己判断で経過観察していた．入院当日に咽頭違和感・咳嗽とともに約200mlの喀血があり，沼津市立病院に緊急搬送された．

内服薬：アスピリン (aspirin)，塩酸チクロピジン (ticlopidine hydrochloride)，アトルバスタチン (atorvastatin)，ジルチアゼム塩酸塩 (diltiazem hydrochloride)，テルミサルタン (telmisartan)，カルベジロール (carvedilol)，一硝酸イソソルビド (isosorbide mononitrate)．

入院時現症：意識清明，身長166cm，体重66kg，血圧158/90mmHg，脈拍68回/min・整，体温36.9℃，SpO<sub>2</sub>98%（自発呼吸，room air），呼吸回数12回/min．眼瞼結膜に貧血はなかった．口腔内には広範囲に鮮血の付着を認めた．咽頭に発赤はなかった．正常気管支音・正常肺胞呼吸音を聴取した．下腿浮腫は認めなかった．

入院時検査所見（表1）：貧血はなく，凝固異常も認めなかった．

入院時胸部X線（図1）：明らかな異常所見は認めなかった．

入院時胸部造影CT〔東芝メディカル社製の320列Aquilion ONE™で160列の設定で撮影，造影剤はイオヘキソール (iohexol) を4ml/sで100ml使用，撮影までの時間は20秒と35秒〕（図2）：右下葉を中心にすりガラス陰影と小葉間隔壁の肥厚を認めた．気管支動脈は

連絡先：吉田 喜子

〒410-0302 静岡県沼津市東椎路字春ノ木550

<sup>a</sup>沼津市立病院呼吸器内科

<sup>b</sup>同 放射線科

<sup>c</sup>聖マリアンナ医科大学横浜市西部病院放射線科  
(E-mail: yoshiyoshiko0813@yahoo.co.jp)

(Received 15 Oct 2013/Accepted 12 Mar 2014)

表 1 入院時血液検査

Hematology		Biochemistry		Serology	
WBC	8,800/ $\mu$ l	TP	6.6 g/dl	CRP	0.1 mg/dl
Neu	73.5%	T-Bil	0.7 mg/dl	CEA	3.3 ng/ml
Lymph	18.6%	AST	25 IU/L	CYFRA	1.02 ng/ml
Mono	5.2%	ALT	21 IU/L	ProGRP	39 pg/ml
Eos	2.3%	LDH	195 IU/L	$\beta$ -D glucan	3.4 IU/L
Baso	0.3%	BUN	21 mg/dl	<i>Aspergillus</i> antigen	(-)
RBC	$5 \times 10^4$ / $\mu$ l	Cr	1.06 mg/dl	IgG	1,138 mg/dl
Hb	15.6 g/dl	Na	142 mEq/L	IgA	137 mg/dl
Plt	$23.5 \times 10^4$ / $\mu$ l	K	4 mEq/L	IgM	61 mg/dl
PT%	105.5%	Cl	104 mEq/L	RF	1 IU/ml
APTT	31.6 s	Ca	9.2 mg/dl	ANA	<40倍
D-dimer	0.15 $\mu$ g/ml	CK	129 IU/L	CH50	48.4 IU/ml
		FBS	119 mg/dl	Anti ds-DNA	3.1 IU/ml
				Anti ss-DNA	25.9 IU/ml
				PR3-ANCA	<10 EU
				MPO-ANCA	<10 EU



図 1 入院時胸部 X 線。異常所見は認めない。

下降大動脈から Th5 レベルで分岐しており、起始部での血管径は 1.9 mm であった。右下葉を含め、肺野では拡張した気管支動脈は認められなかった。

入院時気管支鏡検査 (図 3)：気管支内腔に広く血液の付着を認めたが、明らかな出血源は同定できなかった。

気管支洗浄液培養：normal flora. 抗酸菌塗抹：陰性。気管支洗浄液細胞診：異型細胞なし。

臨床経過：気管支肺以外からの出血であることを除外するために、喉頭鏡や上部消化管内視鏡検査も施行したが明らかな出血源は認めなかった。気管支鏡検査で気管支内腔に血液の付着を多量に認めたことから気管支や肺からの咯血であることは同定できたが、胸部造影 CT では咯血の原因が特定できなかった。咯血量が減少傾向にあったため、アスピリンとチクロピジンの中止、止血剤

[カルバゾクロムスルホン酸ナトリウム水和物 (carbazochrome sodium sulfonate hydrate), トラネキサム酸 (tranexamic acid)] の投与と安静で経過観察とした。その後は再咯血なく経過したが、第 10 病日に約 300 ml の咯血を認めた。同日施行した胸部造影 CT では入院時に認められた右下葉のすりガラス影は消失しており、異常所見は認められなかった。さらに第 21・22・24 病日に 500 円玉大の咯血をそれぞれ約 10 回、第 28 病日に約 300 ml の咯血を認めた。第 28 病日に施行した胸部 CT でも明らかな異常所見は認めず、血液吸い込み像の確認すらできなかった。画像所見は正常であったが頻回に大量咯血をきたしたため、第 29 病日に気管支動脈造影を施行した (図 4)。その結果、気管支動脈の中葉・下葉に向かう枝の末梢は蛇行・拡張・血管造生が目立ち、肺動脈との異常吻合を形成していたため、気管支動脈肺動脈瘻と診断した。下葉に向かう枝の肺動脈瘻を形成している部分は NBCA-lipiodol で、中葉に向かう枝はコイルを用いて塞栓した。その後約半年経過した現在も再咯血は認めていない。

## 考 察

今回、胸部 CT 上所見に乏しかった大量頻回咯血例に対して診断的気管支動脈造影を行うことにより、気管支動脈肺動脈瘻の診断に至った症例を経験した。

気管支動脈肺動脈瘻は気管支動脈と肺動脈の異常吻合と定義され、多くは気管支拡張症、非結核性抗酸菌症、肺結核、真菌症、肺癌、肺膿瘍、塵肺などの慢性肺疾患あるいは細菌性肺炎などの急性肺疾患を背景とした二次性の気管支動脈肺動脈瘻である。正常肺においても気管支動脈と肺動脈は毛細血管レベルで吻合し、気道の血流

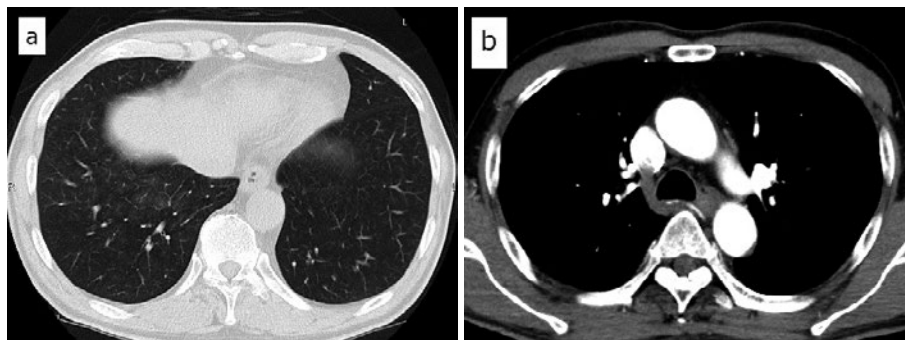


図2 (a) 入院時胸部CT. 右下葉に極軽度のすりガラス陰影を認める. (b) 胸部造影CT. 気管支動脈起始部が描出されたが、拡張は認めない. 明らかな血管奇形も認めなかった.

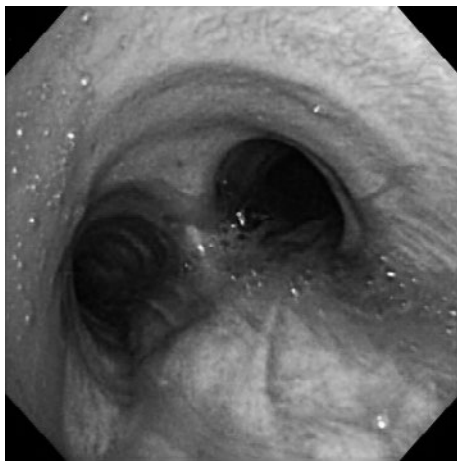


図3 入院時気管支鏡検査 (気管分岐部). 気管支内に血餅を認める. 出血源は明らかではない.



図4 気管支動脈造影. 気管支動脈の下葉・中葉に向かう枝の末梢は蛇行・拡張・血管造生が目立ち、肺動脈との異常吻合を形成している (矢印)

は気管支動脈と肺動脈で1:1の割合で供給されている。しかし前述のような肺疾患が存在すると、低酸素による局所的な肺動脈攣縮や血栓形成、血管炎による肺細動脈レベルでの血流減少・動脈閉塞によって、気管支動脈が増殖・拡張・破綻し高圧系の気管支動脈から低圧系の肺動脈に異常吻合を形成する<sup>1)</sup>。高圧系からの出血は大出血の原因となるため、临床上重要な病態である。

本症例のように、画像検索や気管支鏡検査を行っても咯血原因が特定できない症例もまれではなく、受診時には9~13%が特発性咯血と診断されている<sup>1)2)</sup>。肺の基礎疾患の有無に関係なく咯血に対して気管支動脈造影を施行した検討では、28%<sup>3)</sup>~47%<sup>4)</sup>に気管支動脈肺動脈瘻を認めたと報告されている。本症例のような喫煙患者に限定したMenchiniらの報告でも、318例のうち35例(11%)が画像検索と気管支鏡検査を組み合わせても原因が不明であったとしている<sup>5)</sup>。さらにMenchiniらは原因不明例に対して気管支動脈造影を施行した結果も併せて報告しており、気管支動脈拡張を29例(83%)、気管支動脈

肺動脈瘻を28例(80%)、血管増生を28例(80%)に認めたとしている。

上記ではCTの性能については言及されていないが、multi-detector raw CT (MDCT)での気管支動脈評価法についても各種報告がなされている。Bruzziらは、16列のMDCTを用いて350 ml/dlの濃度の造影剤を4 ml/sの速さで注入し、1 mmスライスで再構成することにより、大部分の患者で気管支動脈起始部が描出でき、症例によっては病変部の責任血管が描出可能であるとしている<sup>6)</sup>。沼津市立病院で使用したCTは前述のとおり160列と高性能であったため気管支動脈起始部は描出できたが、retrospectiveにみても病変部の気管支動脈肺動脈瘻を描出することはできなかった。

異常な気管支動脈の定義については Gupta らが検討しており、咯血症例では①気管支動脈径が2 mm 以上、②肺門部まで気管支動脈が描出される、のどちらかを満たす症例が70.3%と多かったとしている<sup>7)</sup>。今回の症例はこれも満たさなかったが、気管支動脈肺動脈瘻は腫瘤を形成しない血管異常であるため、造影CTでは描出されないことも少なくない。よって、確定診断には気管支動脈造影が必要となる。

また、気管支動脈肺動脈瘻は気管支動脈蔓状血管腫に合併することが多いことが知られている。気管支動脈蔓状血管腫は1976年にv Baboらが報告したのが最初であり、血管の形成異常と考えられている疾患である<sup>8)</sup>。v Babo らをはじめとしてドイツでは「Angioma racemosum arterio-venosum」と表記しており、日本の「蔓状血管腫」と同義の名称を用いている。しかし、この呼び名での報告はドイツや日本からに限定され、他の英語圏などでは類似の画像所見を示す症例を「bronchial arteriovenous malformation」<sup>9)10)</sup>や「systemic to pulmonary shunt」<sup>11)</sup>という疾患として報告しており、文献検索の際には注意が必要である。

日本やドイツで使用されている「血管腫」という表現は、一般的には腫瘍性病変を示唆する用語であることから、血管奇形の本症例に対する病名としては必ずしも適当とはいえない。国際的に統一された診断名の確立が待たれる。

また、今回の症例を気管支動脈蔓状血管腫と診断できるかについては議論の余地がある。倉石らがまとめたように気管支動脈蔓状血管腫には、①気管支動脈造影か胸部造影CTにより気管支動脈の屈曲・蛇行・拡張を認める、②咯血や血痰などの気道出血を示唆する所見がある、③肺動脈または肺静脈への異常吻合を認める、④気管支動脈瘤の存在、⑤気管支鏡で気管支動脈によると思われる隆起性病変を認める、などの診断的特徴がある<sup>12)</sup>。これは気管支動脈蔓状血管腫を単なる形態学的分類の一つの表現であるにとらえた診断方法であり、これに従って原発性のものと気管支拡張や炎症に伴う二次性のものがあるとする文献が多い<sup>13)</sup>。しかし、Cain らのように気管支動脈蔓状血管腫を先天的な血管奇形のみを定義した疾患と考え、炎症などに伴う場合は「二次性の血管腫様変化 (secondary angiomatoid vascular convolutions)」と表現すべきであると主張している文献もある<sup>14)</sup>。実際、慢性閉塞性肺疾患などの慢性気道炎症患者においても気管支壁周囲の血管増生が起こることが広く知られており<sup>15)</sup>、気管支動脈造影の所見だけでこれらの病態もすべて気管支動脈蔓状血管腫と診断してもよいのかは疑問であり、疾患概念の整理が待たれる。

今回の症例も肺炎の既往はなかったものの長期間の喫

煙歴を有しており慢性気道炎症が存在していた可能性も否定できなかったこと、病理学的検討を行わなかったことから、蔓状血管腫と明言することは避けたが、二次性の気管支動脈蔓状血管腫と表現してもよいかもしれない。

いずれにせよ咯血量と気管支動脈造影所見や疾患の重症度は関連のないことも報告されており<sup>5)</sup>、今回の症例のようにたとえ胸部造影CTでわずかな浸潤影すらも認めない状況であっても、原因不明の咯血症例に対しては本症例のような腫瘤を形成しない血管異常の存在を念頭に置き、可及的速やかな気管支動脈造影を検討すべきであると考えた。

本症例の要旨は、第103回日本呼吸器学会東海地方学会(2013年6月)で報告した。

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) 石川秀雄, 他. 咯血を伴う疾患の発生メカニズムとその対処. THE LUNG perspectives 2011; 19: 466-72.
- 2) Savale L, et al. Cryptogenic hemoptysis: from a benign to a life-threatening pathologic vascular condition. Am J Respir Crit Care Med 2007; 175: 1181-5.
- 3) Swanson KL, et al. Bronchial artery embolization: experience with 54 patients. Chest 2002; 121: 789-95.
- 4) 阿久澤浩司, 他. 咯血症例に対する気管支動脈造影 (BAG) の有用性について. 気管支学 2002; 24: 75-9.
- 5) Menchini L, et al. Cryptogenic haemoptysis in smokers: angiography and results of embolisation in 35 patients. Eur Respir J 2009; 34: 1031-9.
- 6) Bruzzi JF, et al. Multi-detector row CT of hemoptysis. Radiographics 2006; 26: 3-22.
- 7) Gupta M, et al. Clinical impact of multidetector row computed tomography before bronchial artery embolization in patients with hemoptysis: a prospective study. Can Assoc Radiol J 2013; 64: 61-73.
- 8) v Babo H, et al. Angiomas and angioma-like changes of the bronchial arteries. Rofo 1976; 124: 103-10.
- 9) Miyoshi K, et al. Bronchial arteriovenous malformation with large aneurysm, resected by video-assisted thoracic surgery. Gen Thorac Cardiovasc Surg 2009; 57: 162-5.
- 10) Sharif M, et al. Bronchial arteriovenous malformation in a child with hemoptysis. A case report. Angiology 1996; 47: 203-9.

- 11) Pouwels HM, et al. Systemic to pulmonary vascular malformation. *Eur Respir J* 1992; 5: 1288-91.
- 12) 倉石 博, 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.
- 13) 清水秀文, 他. 気管支動脈蔓状血管腫. *日本臨牀* 2009; 67: 1038-41.
- 14) Cain H, et al. Etiology and morphogenesis of the so called bronchial arterioma. *Klin Wochenschr* 1980; 58: 347-57.
- 15) McDonald DM. Angiogenesis and remodeling of airway vasculature in chronic inflammation. *Am J Respir Crit Care Med* 2001; 164: S39-45.

### Abstract

#### Bronchial artery-pulmonary artery fistula without significant CT findings: A case report

Yoshiko Yoshida<sup>a</sup>, Iwao Shimomura<sup>a</sup>, Yoshinori Iioka<sup>a</sup>,  
Hajime Fujimoto<sup>b</sup>, Kazuki Hashimoto<sup>c</sup> and Yasuhide Yoshida<sup>a</sup>

<sup>a</sup>Department of Respiratory Medicine, Numazu City Hospital

<sup>b</sup>Department of Radiology, Numazu City Hospital

<sup>c</sup>St. Marianna University School of Medicine, Yokohama City Seibu Hospital

A 70-year-old man visited our hospital with a massive hemoptysis. Chest radiograph showed normal findings, and enhanced chest CT showed only slight ground-glass opacity in the right lower lobe. Although bloody sputum was observed in the right and left bronchi on a bronchoscopy, a definitive diagnosis was not obtained. After that, the patient repeated massive hemoptysis. On bronchial arteriography, the right bronchial artery had a direct anastomosis to the pulmonary artery. The patient was diagnosed as bronchial artery-pulmonary artery fistula. Bronchial arteriography should be considered even without CT findings of hemoptysis.