

●画像診断

左肺舌区の結節影にて発見された左鎖骨下動脈肺動脈, 肺静脈瘻の1例

龍田実代子^a 濱田 直樹^a 田村健太郎^a
 岡本 龍郎^b 高山 浩一^a 中西 洋一^a

要旨：症例は36歳，男性．気胸にて手術歴あり．健診の胸部X線写真にて左中肺野結節影を指摘され，近医受診．胸部単純CTにて左舌区に結節影を認め前医へ紹介となり，気管支鏡検査が施行されたが特異的所見を認めなかった．1年後，胸部造影CTにてフォローされ，左鎖骨下動脈からの分枝と肺動脈との交通を認め，鎖骨下動脈肺動脈瘻と考えられ当院紹介となった．血管造影検査にて鎖骨下動脈からの肺動脈，肺静脈へのシャント血管を認め，外科的切除が施行された．体動脈から肺動脈，肺静脈への瘻形成はまれであり報告する．

キーワード：体動脈肺動脈瘻，体動脈肺静脈瘻

Systemic arterio-pulmonary arterial fistula, Systemic arterio-pulmonary venous fistula

緒 言

胸部異常影を呈す疾患として肺内血管の奇形があり，肺動静脈瘻（肺動脈－肺静脈）などが知られている．肺動静脈瘻は肺結節影として認められることが多いが，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）も肺結節影として発見されることがあり，まれながら報告例がある．肺結節影を認めた場合，まず鑑別にあがるのは悪性腫瘍や抗酸菌症であり気管支鏡検査で診断をつけることが多いが，血管奇形へのアプローチはきわめて危険であり十分な検査前評価が必要とされる．今回，左肺舌区の結節影が左鎖骨下動脈からのシャント血管であると診断できた症例を経験したので報告する．

症 例

患者：36歳，男性．

主訴：健診異常．

現病歴：20XX年9月健診の胸部X線写真にて異常影を指摘され，近医受診．胸部単純CT検査で左肺舌区に複数の結節影を認め，前医紹介となった．感染症や悪性

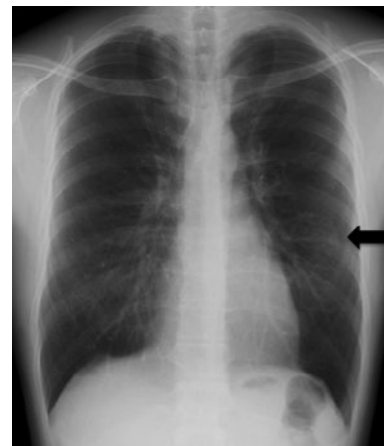


図1 入院時の胸部X線写真．左中肺野に結節影を認める．

疾患を疑って気管支鏡検査が施行されたが，特異的所見を認めなかった．翌年8月の胸部単純CTでも陰影の改善を認めず，同月に施行した造影CTで左鎖骨下動脈肺動脈瘻を疑わせる所見を認めたため，同年9月精査加療目的にて当科紹介入院となった．

既往歴：15歳時，異時性に発症した右，左気胸に対して手術施行．

家族歴：特記事項なし．

生活歴：喫煙歴なし．機会飲酒．

職業：介護士．

入院時現症：身長175cm，体重59kg，体温36.3℃，
 血圧104/60mmHg，脈拍64回/min，呼吸数12回/min，
 経皮的動脈血酸素飽和度（SpO₂）99%（室内気），眼瞼

連絡先：濱田 直樹

〒812-8582 福岡県福岡市東区馬出3-1-1

^a九州大学大学院医学研究院附属胸部疾患研究施設

^b同 消化器・総合外科

(E-mail: n-hamada@kokyu.med.kyushu-u.ac.jp)

(Received 25 Mar 2015/Accepted 12 May 2015)

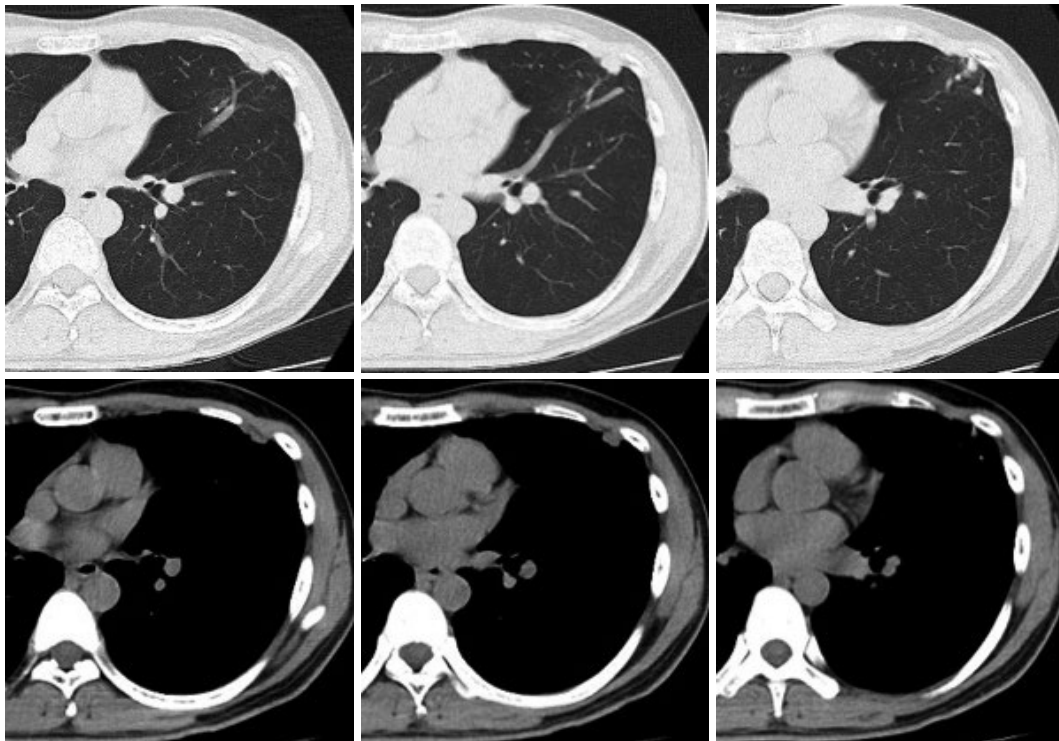


図2 前医胸部単純CT. 左舌区末梢に複数の結節影を認める.

結膜に貧血なし, 眼球黄疸なし, 頸部リンパ節腫脹なし, 心音・呼吸音異常なし, 左第4肋間で連続性雑音を聴取, 腹部異常所見なし, 下腿浮腫なし, ばち指なし.

入院時検査所見: 血液検査では, 血算, 生化学, 免疫学, 凝固系, 腫瘍マーカーや抗酸菌検査に異常を認めなかった. 動脈血液ガス分析や心電図, 心臓超音波検査も異常を認めなかった.

画像所見: 入院時の胸部単純X線写真(図1)では左中肺野に1cm大の結節影を認めた. 胸部単純CT(図2)では左舌区の胸膜直下に複数の結節影を認めた. 胸部造影CT(図3)では結節影は造影され, 左鎖骨下動脈からの枝が拡張し, 肺静脈とのシャントを形成していた. 大動脈造影検査(図4)では左鎖骨下動脈より2本のシャント血管が描出され, ともに前胸部でnidusを形成し, 同じタイミングで肺動脈, 肺静脈への流入を認めた. 肺動脈への血流は順行性の血流と衝突しており, 肺静脈への血流の方が肺動脈への血流に比べ優位であった. 遠位側のシャント血管の方が拡張しており, 造影CTで描出されている血管であると思われる. それぞれの圧所見は正常範囲内であり, 肺高血圧や心拍出量低下などは認めなかった. 肺体血流比は1.27でシャント血流は少量と思われた.

臨床経過: シャントの原因となりうる基礎疾患がないか, 頭部造影MRI, 上下部消化管内視鏡検査等を施行し

たが, 明らかな血管奇形や異常所見は認めなかった. 以上より, 鎖骨下動脈肺動脈, 肺静脈瘻と診断し, 原因としては左肺気胸手術歴との関連が考えられた. 自覚症状は左胸部違和感のみであったが, 過去の報告から出血症状での発見が約3割であること¹⁾, 体表面に近いため外傷などによる出血リスクが高いことを考慮し, 治療を行う方針とした. 治療法としては外科的治療や血管塞栓術を検討したが, より確実な方法で治療したいとの患者の意向に沿い, 再疎通の可能性がある塞栓術ではなくシャント血管結紮術を選択し, さらに側副血行路発達の可能性を低くするため, 舌区部分切除も追加して行う方針とした. 全身麻酔+硬膜外麻酔下, 右半側臥位にて手術が開始され, 左第7肋間前腋窩中線上にポートを挿入し, 胸腔内を観察したところ, 著明な癒着を認めた. 体表から胸腔内に流入する血管を同定し, これをクリップして切離した. シャント血管の流入部が遊離したところで左舌区の部分切除を行い, 胸腔ドレーンを留置して手術を終了した. 術後は改善を認め退院となった. 切除標本の病理組織では, さまざまなサイズの血管の増生所見を認め, 悪性細胞は認めず, 動静脈瘻に合致する所見であった.

考 察

胸部異常影を呈す疾患として肺内血管の奇形があり, 肺動静脈瘻(肺動脈-肺静脈), 蔓状血管腫(体動脈-肺

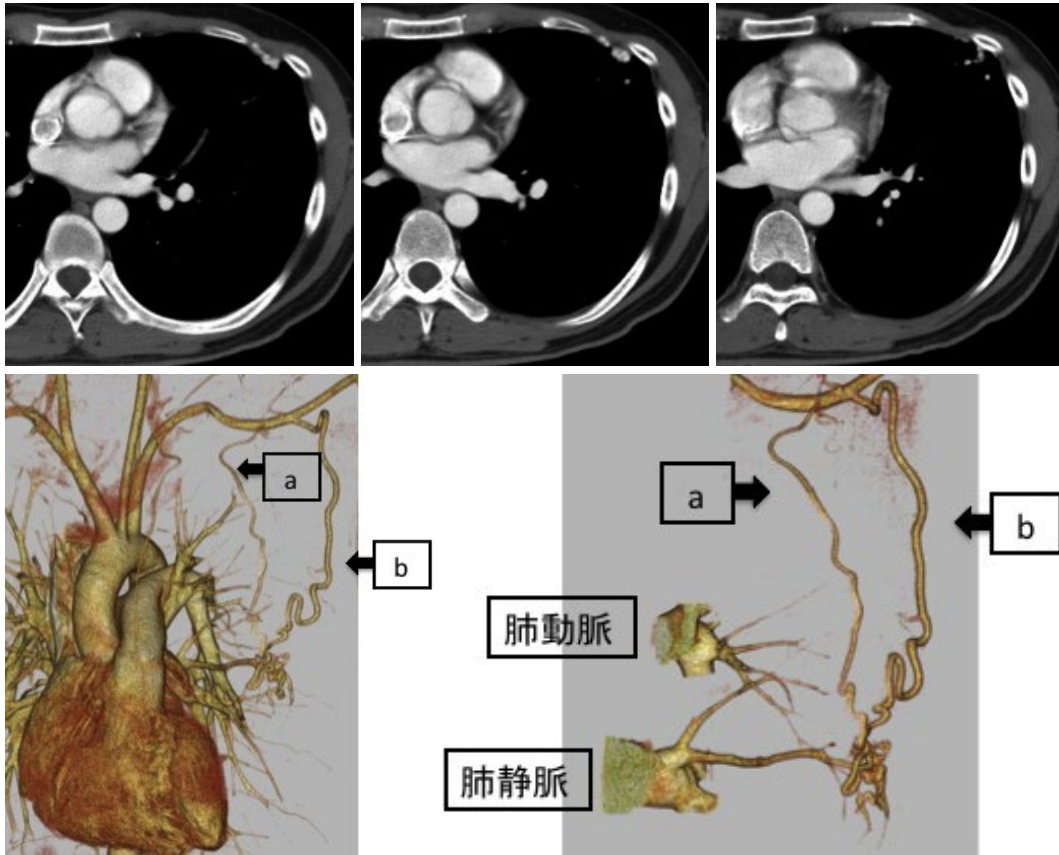


図3 入院時胸部造影CT. 左舌区末梢の結節影に造影効果を認める. a: 近位側のシャント血管, b: 遠位側のシャント血管. Nidusを形成後, 肺動脈, 肺静脈へ流入している.

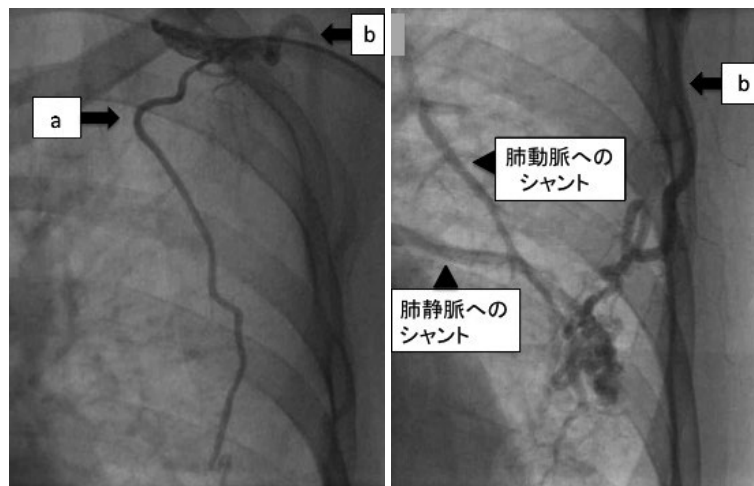


図4 鎖骨下動脈造影. a: 近位側のシャント血管が描出されている. b: 遠位側のシャント血管. Nidus形成後に肺動脈, 肺静脈への流入を認める.

動脈のシャント) が知られている. 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)も肺結節影として発見されることがあり, まれながら報

告例がある¹⁾. 我が国での報告は, 検索できた範囲では1977年の正岡らの報告²⁾が最初であり, 近年では2008年に小牧の報告¹⁾があり, 本例を入れても8例のみである.

発見動機は本例のように偶然発見されたものが3例あるが、破裂などによる出血で発見された症例も2例報告されており、出血が注意すべき症状であると考えられる。

血管奇形の原因としては、後天性の場合、外傷や手術、また膿胸などの慢性炎症を契機に血管が新生され、肺が胸壁や横隔膜と癒着すると気管支動脈以外の体循環系の動脈が侵入し、肺血管と吻合すると考えられている³⁾⁴⁾。本症例では体循環系であるにもかかわらず肺動脈圧が正常であること、術中にシャント血管周囲に強い胸膜癒着所見を認めたこと、左気胸の手術歴があることなどから、後天性であると考えられた。

治療法としては、カテーテルによる塞栓術⁵⁾、手術による摘出術⁶⁾、流入血管の結紮術⁷⁾、もしくは経過観察¹⁾という方針があげられる。以前は外科的治療が主流であったが、近年では塞栓術も広まってきている¹⁾。しかし、肺動脈とのシャントを有する場合は塞栓術を施行しても側副血行路が発達しやすいとの報告もあり⁸⁾、本症例では外科的切除を選択した。治療法を決定する際は、個々の症例に応じて判断する必要があると思われる。

また本症例は、肺結節影の精査時における造影CTの重要性を再認識させる、教育的事例であると考えられた。CTにて結節影を認めた場合、その大部分が感染症や腫瘍性疾患であるとされている⁹⁾。異常血管はCT画像体軸断面では結節影として描出され、血管の走行に注意して読影しても単純CTだけでは感染症や肺癌との鑑別は難しい。診断のために気管支鏡検査を施行することが多いが、血管奇形の場合は安易なアプローチにより大出血などの重篤な合併症を引き起こす危険性がある。気管支鏡などの侵襲的検査を行う場合、特に胸部手術歴や外傷、

膿胸などの既往がある場合は今回のような事例を念頭に置き、事前に造影CTなどで十分に出血性リスクを評価することが重要と考えられた。

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) 小牧千人. 検診を契機に発見された体動脈肺静脈瘻の1例. 日呼吸会誌 2008; 46: 764-7.
- 2) 正岡 昭, 他. 体動脈肺静脈瘻. 日胸臨 1977; 36: 855-61.
- 3) 中島智博, 他. 左下葉切除にて救命された体動脈左下葉静脈瘻による重症咯血症例. 日呼外会誌 2011; 25: 497-501.
- 4) 片岡和彦, 他. 下横隔動脈-肺動脈シャントを有した気管支拡張症に術前動脈塞栓術を施行した1切除例. 気管支学 1996; 18: 678-82.
- 5) Jeanfaivre T, et al. Chronic pain of vascular origin caused by a parietopulmonary fistula of the thoracic wall. Ann Thorac Surg 1997; 63: 839-41.
- 6) Pagès ON, et al. Giant pulmonary arteriovenous fistula. Ann Thorac Surg 2010; 89: 2042.
- 7) Hirsch M, et al. Systemic pulmonary arteriovenous fistula of traumatic origin: a case report. Cardiovasc Intervent Radiol 1983; 6: 160-3.
- 8) 光嶋博昭, 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: 135-9.
- 9) 中村博幸, 他. 孤立性陰影-結節影, 空洞影, 石灰化陰影- 診断と治療 2006; 94: 600-4.

Abstract

A case of left subclavian artery-to-pulmonary artery and vein fistulae shown as multiple nodules in the left lung

Miyoko Tatsuta^a, Naoki Hamada^a, Kentaro Tamura^a, Tatsuro Okamoto^b,
Koichi Takayama^a and Yoichi Nakanishi^a

^aResearch Institute for Diseases of the Chest, Graduate School of Medical Sciences, Kyushu University

^bDepartment of Surgery and Science, Graduate School of Medical Sciences, Kyushu University

A 36-year-old man was admitted for further examination of abnormal chest X-ray. A plain computed tomography (CT) showed multiple nodules in the lingular division of the left lung. After a year, contrast-enhanced CT was performed for the persisting pulmonary nodules, and it revealed abnormal arteries branching from the left subclavian artery. An aortic arteriography confirmed that two anomalous vessels branching from the subclavian artery formed shunts with the pulmonary artery and vein. The nodules were diagnosed as subclavian artery-to-pulmonary artery and vein fistulae and were resected surgically.