

●症 例

左胃動脈からの流入を認めた体動脈肺静脈瘻の1例

佐藤 賢弥^a 後町 杏子^a 松下 真也^a
高橋 実希^a 井上 芳正^b 濱中 伸介^a

要旨：症例は52歳女性。前医で左肺結節影を指摘されたため、当院を受診した。造影CTで左舌区に15mm大の結節と、それに流入する左胃動脈分枝、流出する肺静脈を認め、体動脈肺静脈瘻が疑われた。血管造影検査では、左胃動脈造影時に異常血管を認めたため、同血管による流入が考えられた。根治術として左舌区部分切除術を施行した。左胸腔内横隔膜側の脂肪組織内に流入血管と思われる索状物を認めた。左胃動脈を流入血管とする体動脈肺静脈瘻は稀であり、十分な知見がない。左胃動脈による体動脈肺静脈瘻の1例を経験したので報告する。

キーワード：体動脈肺静脈瘻, 肺動静脈奇形, 左胃動脈, 結核性胸膜炎

Systemic arterio-pulmonary venous fistula (SAPVF),

Pulmonary arteriovenous malformation (PAVM), Left gastric artery, Tuberculous pleurisy

緒 言

肺野に結節影を呈する疾患の一つとして、肺動静脈奇形 (pulmonary arteriovenous malformation: PAVM) や蔓状血管腫などの血管奇形が知られている。体動脈から肺静脈へのシャントである体動脈肺静脈瘻 (systemic arterio-pulmonary venous fistula: SAPVF) も血管奇形の一つであるが、報告数が少なく、比較的稀である。SAPVFは先天性と後天性に分類されるが、十分な知見がない。左胃動脈を流入血管とするSAPVFは稀であり、後天性と思われる左胃動脈によるSAPVFの1例を経験したので報告する。

症 例

患者：52歳，女性。

主訴：胸部異常陰影。

現病歴：前医にて胸部CTで左肺に結節影を指摘されたため、精査加療目的に当院を受診した。

既往歴：30歳頃に左結核性胸膜炎、鼻出血の反復、血痰、咯血、吐血・下血はない。

家族歴：特記事項なし。

喫煙歴：16～30歳まで、1日60本。

アレルギー歴：ネックレスで皮疹、搔痒出現（金属アレルギー）。

来院時現症：身長157cm、体重59.3kg、血圧104/68mmHg、脈拍68回/分、体温36.3℃、SpO₂ 100%（室内気）。眼瞼結膜に貧血なし、頸部リンパ節腫脹なし、心音は純、呼吸音は清である。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、凝固系に異常を認めなかった。腫瘍マーカー、インターフェロン γ 遊離試験は陰性であった。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：胸部単純X線写真では病変を指摘できず、左横隔膜の挙上を認めた。造影CT (Fig. 1) では左舌区S⁵に15mm大の結節影を認め、結節影は動脈相で造影効果を伴っていた。3D-CT (Fig. 2) では、結節 (Fig. 2矢印) の流入血管として左胃動脈 (Fig. 2a)、左肺動脈 (Fig. 2b)、右冠動脈、流出血管として左肺静脈 (Fig. 2c) による体動脈肺静脈瘻が疑われた。精査のために肺動脈造影検査 (Fig. 3)、冠動脈造影検査 (Fig. 4)、左胃動脈造影検査 (Fig. 5) を施行した。血管造影検査では、肺動脈造影時、冠動脈造影時に結節が描出されないことから、同血管の分枝はないと判断した。左胃動脈 (Fig. 5a) 造影時に、nidusを形成する異常血管 (Fig. 5矢印) を左舌区に認め、さらに左上肺静脈 (Fig. 5b) への造影剤の流入を認めたため、左胃動脈から左上肺静脈へのシャント

連絡先：佐藤 賢弥

〒230-8765 神奈川県横浜市鶴見区下末吉3-6-1

^a 済生会横浜市東部病院呼吸器内科

^b 同 呼吸器外科

(E-mail: kenya1990125@yahoo.co.jp)

(Received 21 Jul 2021/Accepted 7 Dec 2021)

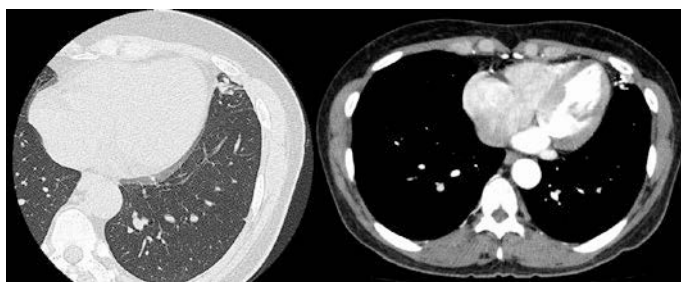


Fig. 1 A contrast-enhanced chest computed tomography (CT) scan showing an enhancing nodule in the subpleural region of the left lingular segment in the arterial phase.

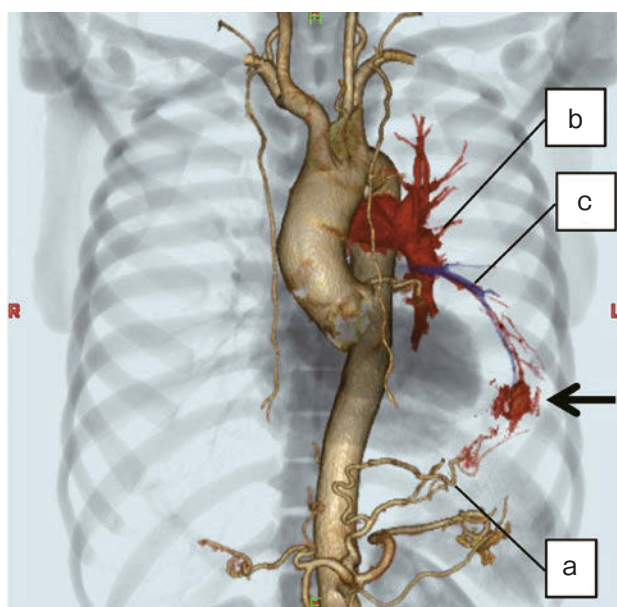


Fig. 2 Reconstructed contrast-enhanced CT image. The left gastric artery (a), right coronary artery, and left pulmonary artery (b) were considered possible inflow vessels (arrow). The left pulmonary vein (c) was considered the likely outflow vessel.

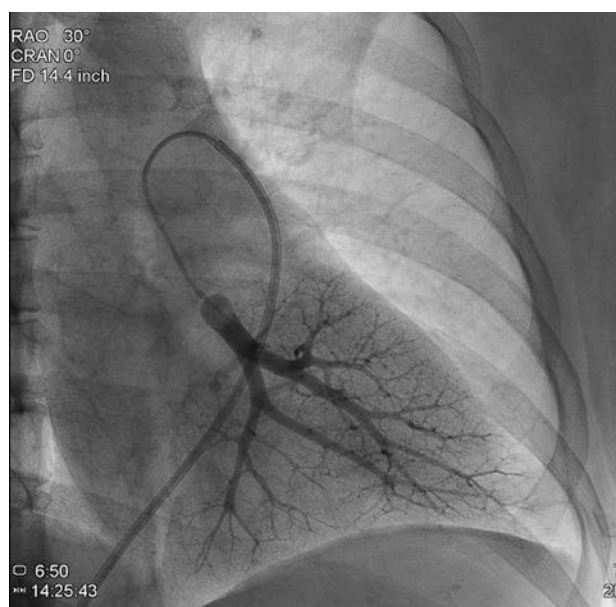


Fig. 3 A left pulmonary artery angiogram not showing abnormal blood vessels.

が考えられた。

臨床経過：造影CTおよび血管造影所見より、左胃動脈の流入によるSAPVFと診断した。原因として血管奇形をきたすような家族歴はなく、左結核性胸膜炎の既往から結核性胸膜炎の炎症による後天性のSAPVFが考えられた。自覚症状は呈していなかったが、心不全や咯血のリスクとなることが懸念されたため、治療が必要であると判断をした。問診で金属アレルギーの申告があったため、治療はカテーテルによる異常血管の塞栓術ではなく外科的切除術を施行した。左胸腔内の下部胸壁は臓側胸膜と全面癒着していた。左胸腔内横隔膜側の脂肪組織内に左舌区に流入する索状物を認め、流入血管と判断した。それを結紮切離し、流出血管の処置および根治性を

考慮して左舌区肺部分切除も行った。

切除標本の肉眼所見では、臓側胸膜に付着する索状物を認めた。組織所見 (Fig. 6) では胸膜 (Fig. 6a) は血管の増生を伴って線維性に肥厚していた。さらに、増生血管 (Fig. 6b) の一部が胸膜から肺実質 (Fig. 6c) へ侵入する異常血管構造を認め、動静脈瘻に矛盾しない所見であった。

考 察

胸部異常影を呈す疾患として、PAVMなどの肺血管奇形が鑑別に挙がるが、SAPVFはそのなかでも稀である¹⁾²⁾。わが国での報告は、1977年の正岡ら³⁾の報告以降、本例を含めて7例と稀である (Table 1) が、海外の報告を含めると、150例ほど報告されている。内胸動脈や肋間動脈、鎖骨下動脈を流入血管とする報告が多く、本例

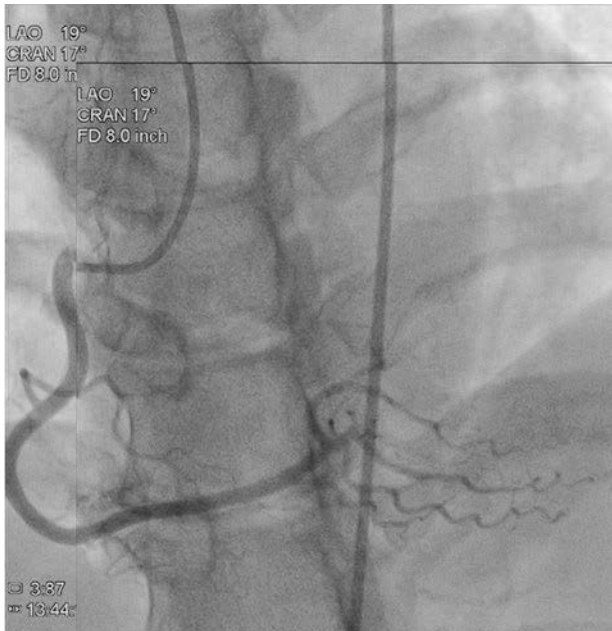


Fig. 4 A right coronary artery angiogram not showing abnormal blood vessels.

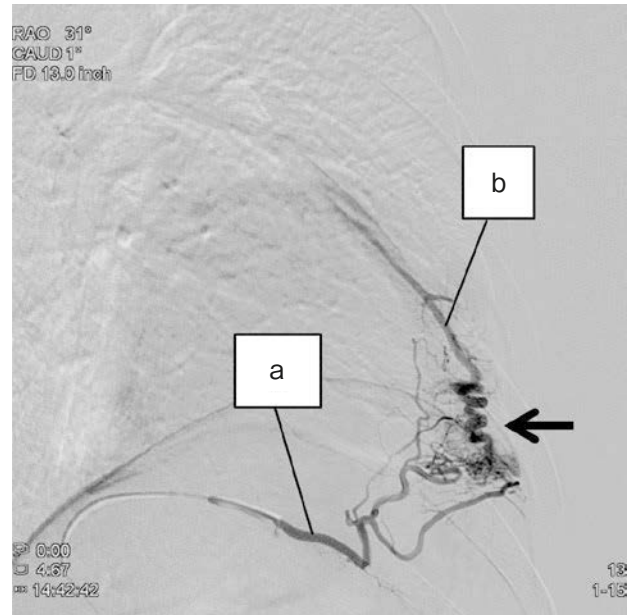


Fig. 5 A left gastric artery (a) angiogram showing abnormal blood vessels forming a nidus (arrow) with flow into the left superior pulmonary vein (b).

のような左胃動脈を流入血管とする症例報告は、わが国では中瀬らの1例のみであった⁴⁾。診断契機は、胸部異常影の指摘、異常血管の破裂による咯血や左左シャントによる心不全症状、心雑音の聴診等が報告されている^{5)~8)}。

SAPVFの鑑別疾患としてPAVMが挙げられるが、両疾患の相違として、PAVMは、臨床症状として低酸素、塞栓症状を呈し、30~50%が多発であり、65%で下葉にみられる。基礎疾患としてわが国においては15.4%で遺伝性出血性末梢血管拡張症 (hereditary hemorrhagic telangiectasia: HHT) の合併が認められる⁹⁾¹⁰⁾。一方、本例のようなSAPVFは、臨床症状として心不全症状や咯血、冠動脈バイパス術後の場合には狭心症状を呈し、片側発生で、左の舌区もしくは下葉に発生することが多い^{3)4)6)~8)11)12)}。原因としては先天性、もしくは胸部手術後、膿胸などの炎症後に発生する後天性がある¹¹⁾。現時点で、SAPVFとHHT等の遺伝性疾患の関与を示唆する報告はない。先天性と後天性SAPVFの臨床的な違いとしては、内胸動脈を流入血管とする80例をまとめた報告¹¹⁾によると、先天性は全体の15%で、性差はなく、診断契機は心雑音の聴取が多い。後天性は85%で、男性が多く、原因としては、冠動脈バイパス術などの胸部手術、高安動脈炎、結核、リンパ腫が報告されており、診断契機は無症状が多いが、冠動脈バイパス術後では狭心症状が最多である。

本例では、左結核性胸膜炎の既往があり、また術中の胸膜癒着所見および病理組織での胸膜の線維性肥厚所見

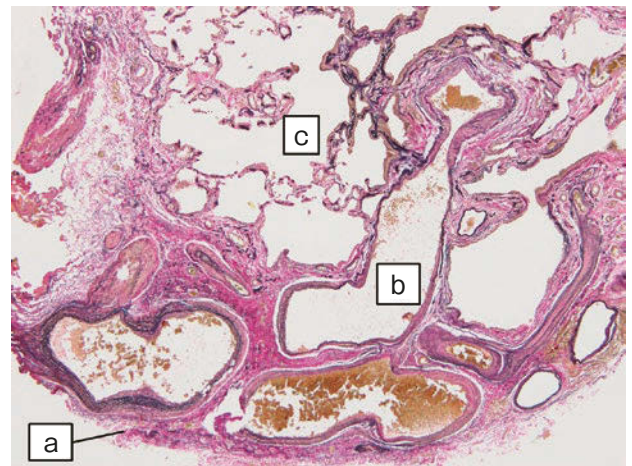


Fig. 6 A pathological specimen of the resected left lingular segment (Elastica van Gieson staining, $\times 4$) showing fibrous thickening of the pleura (a), and an abnormal vessel (b) invading the lung parenchyma (c) from the pleura.

と、その近傍の胸膜および肺胞内の異常血管の増生を認めたため、左結核性胸膜炎による炎症が、左胃動脈から肺内へ流入する異常血管を増生したと考えた。他報告¹¹⁾においても結核後に出現したSAPVFは報告されており、結核はSAPVFの原因の一つと考えられる。

診断には、PAVMの除外が必要であるため、右心系と左心系の両方の造影検査が必要である。今回は肺動脈および冠動脈、左胃動脈の造影検査を行ったため、診断手

Table 1 List of systemic arterio-pulmonary venous fistulas reported in Japan

Author (year) *	Age/sex	Symptoms and signs	Primary disease	Inflow blood vessels	Outflow blood vessels	Management
Masaoka (1977) ³⁾	16/M	heart murmur	congenital	descending aorta	left inferior pulmonary vein	resection
Tachibana (1984) ⁸⁾	6 months/F	heart failure	congenital	abdominal aorta	right pulmonary vein	resection
Nakase (1992) ⁴⁾	74/M	heart failure	pleurisy	left gastric artery	left pulmonary vein	embolization follow up
Komaki (2008) ¹²⁾	55/M	radiographic abnormality	congenital	left subclavian artery	left pulmonary vein	follow up
Nakajima (2011) ⁶⁾	59/F	hemoptysis	aortic aneurysm empyema	left subclavian artery left inferior phrenic artery	left inferior pulmonary vein	resection
Tatsuta (2015) ⁷⁾	36/M	radiographic abnormality	pneumothorax	left subclavian artery	left pulmonary vein > left pulmonary artery	resection
Our case (2022)	52/F	radiographic abnormality	pleurisy	left gastric artery	left pulmonary vein	resection

*: References. M: male, F: female.

技はPAVMよりも煩雑であった。

治療には肺切除術，流入血管の結紮術，カテーテルによる塞栓術がある。わが国で報告された7例の治療法としては，肺切除や血管の結紮などの外科的介入が5例，塞栓術が1例，経過観察が1例であった (Table 1)。近年においては塞栓術による治療の報告¹⁾が徐々に増えているが，本例においては金属アレルギーの申告からコイルの留置を必要とする塞栓術ではなく，結紮および肺部分切除を選択した。本疾患に対する確立された治療はまだなく，塞栓術後に再発した例⁴⁾もあり，治療後の長期予後，未治療の場合の長期自然経過については報告がない。治療法を決定する際は，治療適応，アレルギー歴など個々の症例に応じて判断する必要があると思われる。同疾患は報告数が少ないため，今後の知見の集積が求められる。

謝辞：病理組織診断につきご協力をいただいた，当院病理科 石井壽晴先生，木村徳宏先生に深謝します。

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

引用文献

- 1) Jariwala P, et al. Congenital anomalous/aberrant systemic artery to pulmonary venous fistula: closure with vascular plugs & coil embolization. *Indian Heart J* 2014; 66: 95-103.
- 2) Simmyo T, et al. Secondary systemic artery to pulmonary artery and pulmonary vein fistulas following the video-assisted thoracic surgery for pneumo-

thorax: a case report. *Surg Case Rep* 2018; 4: 1.

- 3) 正岡 昭, 他. 体動脈肺静脈瘻. *日胸臨* 1977; 36: 855-61.
- 4) 中瀬恵美子, 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: 731-3.
- 5) Kosutic J, et al. Upper lung lobe systemic artery-pulmonary vein fistula with signs and symptoms of congestive heart failure: successful treatment with coil embolization. *J Vasc Interv Radiol* 2007; 18: 299-302.
- 6) 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—大動脈瘤手術後膿胸合併の既往との関連について. *日呼外会誌* 2011; 25: 497-501.
- 7) 龍田実代子, 他. 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. *日呼吸会誌* 2015; 4: 417-21.
- 8) 橘 秀夫, 他. 高度の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乳児治療例. *日小外会誌* 1984; 20: 1005-12.
- 9) 塩谷隆信, 他. オスラー病と肺動静脈瘻. *呼吸と循環* 2015; 63: 81-7.
- 10) Hsu CC, et al. Embolisation for pulmonary arterio-venous malformation. *Cochrane Database Syst Rev* 2018; 1: CD008017.
- 11) Abdul Jabbar A, et al. Internal mammary artery-to-pulmonary vasculature fistula: systematic review of case reports. *Vasc Med* 2017; 22: 426-31.
- 12) 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.

Abstract**A systemic arterio-pulmonary venous fistula with inflow from the left gastric artery: a case report**

Kenya Sato^a, Kyoko Gocho^a, Shinya Matsushita^a, Miki Takahashi^a,
Yoshimasa Inoue^b and Nobuyuki Hamanaka^a

^aDepartment of Thoracic Medicine, Saiseikai Yokohamashi tobu Hospital

^bDepartment of Thoracic Surgery, Saiseikai Yokohamashi tobu Hospital

We report the case of a 52-year-old woman who was referred to our department due to the detection of a nodule in the lingular division of the left lung on chest computed tomography (CT). A systemic arterio-pulmonary venous fistula with the branch of the left gastric artery as an inflow vessel and pulmonary venous outflow was suspected on contrast-enhanced CT. Angiography was performed, which indicated inflow from the left gastric artery. Partial resection of the lingular division of the left lung was performed. Perioperative findings included cord-like structures that appeared to be inflowing blood vessels in the adipose tissue on the diaphragm side of the left thoracic cavity. Herein, we report a case of systemic arterio-pulmonary venous fistula arising from the left gastric artery, which is a rare condition with unclear pathophysiology and prognosis.