

●症 例

肺動脈分岐変異が関与したと考えられた肺癌術後肺梗塞の1例

小澤 達志 八巻 春那 東 盛志
高山 幸二 花田 仁子 瀧 玲子

要旨：45歳女性。2年前に肺腺癌に対して右下葉切除術を施行（pT1bN0M0）。発熱が出現し、CTで右上葉すりガラス影と右中葉浸潤影を認め肺炎を疑った。その後、右中葉浸潤影は消退したが、右上葉すりガラス影は拡大。気管支鏡下生検では診断に至らず、CTガイド下生検を実施。凝固壊死と出血を認め、肺梗塞と診断。術前CTを振り返ると右A²がA⁶から分岐し、手術時に切離されていた。肺梗塞も右S²に一致し、右A²切離が関与したと考えた。肺葉切除後に生じる陰影では肺梗塞も鑑別に挙げる必要がある。

キーワード：肺梗塞，肺動脈分岐変異，肺葉切除術

Pulmonary infarction, Variant ramification of pulmonary artery, Lobectomy

緒 言

肺葉切除後の肺梗塞の合併は稀である。今回我々は、肺動脈分岐変異が発生に関与したと考える肺梗塞の症例を経験したので報告する。

症 例

患者：45歳，女性。

主訴：なし。

既往歴：なし。

喫煙歴：なし。

現病歴：20XX-2年11月肺腺癌（pT1bN0M0 pStage I A2）に対して右下葉切除術を施行した。20XX年5月発熱が出現し、胸部CTで右上葉すりガラス影と右中葉浸潤影を認めたため、右上中葉肺炎と判断した。症状改善後の20XX年6月CTで右中葉浸潤影は消退して肺炎の経過に矛盾しなかったが、右上葉では一部浸潤影を伴いすりガラス影の拡大を認めた。感染持続を疑い抗菌薬を処方したが、20XX年7月すりガラス影はさらに広がり、診断目的に気管支鏡検査を実施する方針とした。

現症：身長161.5cm，体重52.6kg，体温35.9℃，血圧113/83mmHg，脈拍60回/分・整，SpO₂ 98%（室内気）。表在リンパ節触知せず。頸静脈怒張なし。呼吸音清。心

音異常なし。下腿浮腫なし。

血液検査（Table 1）：特記すべき所見なし。

心電図：洞調律，右心負荷所見なし。

胸部単純X線：右中肺野にすりガラス影を認め、2ヶ月間で拡大傾向であった。

胸部CT（Fig. 1A, B）：右上葉S²に周囲すりガラス影を伴う浸潤影を認め、2ヶ月間で拡大傾向であった。

右B^{2a}で気管支洗浄，経気管支生検を実施した。洗浄培養は特記すべき所見なく，洗浄細胞診はclass III，経気管支生検では軽度核腫大を伴った異型細胞とともに時間の経過した出血所見を認めた。洗浄細胞診ならびに経気管支生検で悪性所見を否定できなかったものの，出血に伴う反応性の異型細胞の可能性も示唆された。

臨床経過：その後も右S²で周囲すりガラス影を伴う浸潤影が拡大し（Fig. 1C），¹⁸F-fluorodeoxyglucose positron emission tomography（FDG-PET）ではstandardized uptake value（SUV）最大値2.0の集積を伴った。肺腺癌術後であり，気管支鏡結果とFDG-PET結果から悪性所見を否定できなかったため，20XX年8月にCTガイド下生検を実施した。生検結果では中央部に凝固壊死を伴う出血像を認め，その周囲に気腔内の器質化，ヘモジデリン含有マクロファージ，2型肺胞上皮細胞の腫大がみられた（Fig. 2）。以上より虚血性変化に伴った壊死が示唆され，肺梗塞と診断した。また経気管支生検にて確認された異型細胞は，肺梗塞に伴った反応性変化と考えられ，肺腺癌再発は否定した。肺血流シンチグラフィを追加したところ右S²病変に一致して血流欠損像がみられ，肺梗塞に合致する所見であった。

肺梗塞の原因として，造影CTで肺動脈内に血栓はな

連絡先：小澤 達志

〒180-8610 東京都武蔵野市境南町1-26-1

武蔵野赤十字病院呼吸器科

(E-mail: zawakozawa@gmail.com)

(Received 26 Mar 2023/Accepted 27 Jul 2023)

Table 1 Laboratory findings

Data at the time of the bronchoscopy			Additional data after diagnosis		
Hematology		Biochemistry		Serology	
WBC	4,400 / μ L	TP	6.8 g/dL	ANA	<40
Neut	55.0%	Alb	4.1 g/dL	Lupus AC	(-)
Lymph	32.7%	T-bil	0.5 mg/dL	aCL antibody	(-)
Mono	9.3%	AST	24 U/L	aCL β_2 GP I antibody	(-)
Eosino	2.3%	ALT	20 U/L		
Baso	0.7%	LDH	180 U/L	Coagulation	
RBC	442×10^4 / μ L	BUN	21.5 mg/dL	AT-III	99%
Hb	13.9 g/dL	Cre	0.76 mg/dL	TAT	1.3 ng/mL
Ht	40.9%	Na	138 mmol/L	PIC	1.4 μ g/mL
Plt	25.0×10^4 / μ L	K	5.2 mmol/L	Protein C Ag	90%
		Cl	106 mmol/L	Protein C Ac	97%
Serology		BNP	9.8 pg/mL	Protein S Ag	77%
CRP	0.11 mg/dL			Protein S Ac	62%
Tumor markers		Coagulation			
CEA	0.8 ng/mL	PT-INR	0.88		
SLX	28.9 U/mL	APTT	29.6 sec		
		Fib	344 mg/dL		
		D-dimer	0.7 μ g/mL		

TAT: thrombin antithrombin III complex. PIC: alpha 2-plasmin inhibitor-plasmin complex.

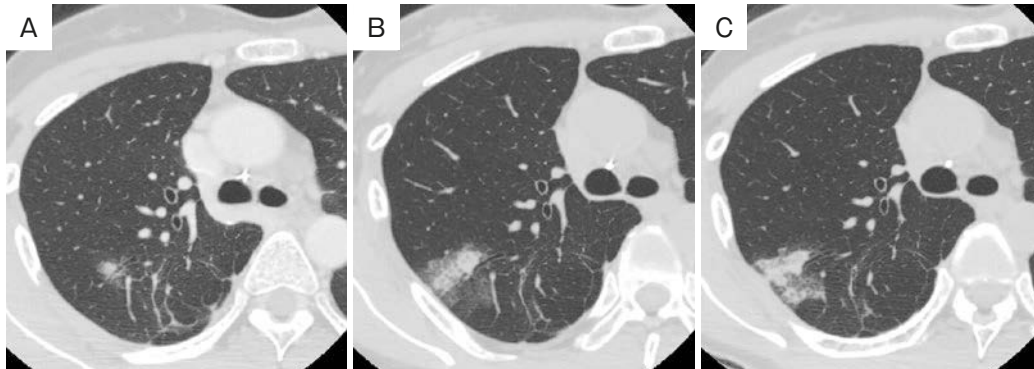


Fig. 1 Computed tomography (CT) scans showed that the ground glass opacification with the infiltrative shadow in the right upper lobe increased in size gradually: from May (A), to July (B), to August (C).

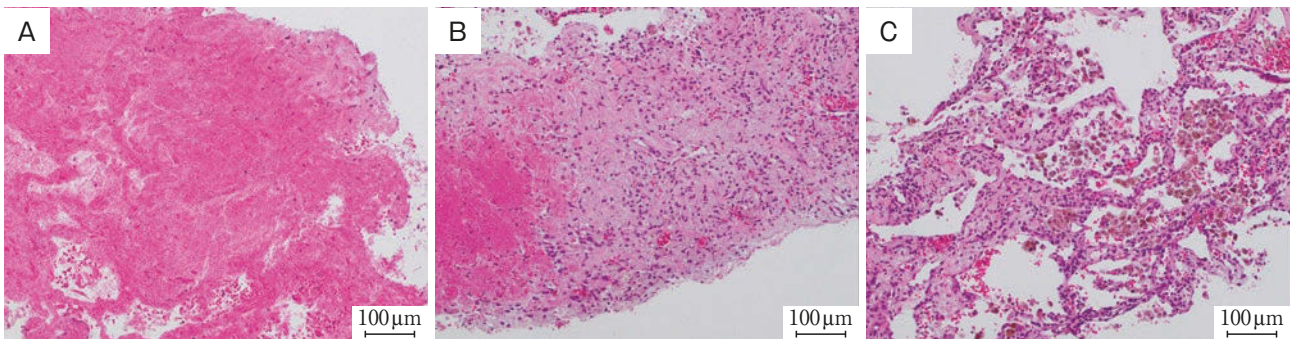


Fig. 2 Pathological findings of CT-guided percutaneous needle biopsy specimens showed coagulative necrosis and hemorrhage in the central part (A), surrounded by organization (B) and hemosiderin-laden macrophages (C).

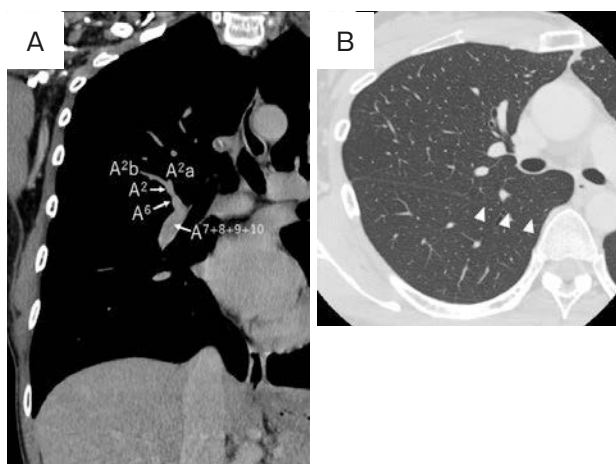


Fig. 3 Preoperative CT scans showed that A² branched from A⁶ (A) with incomplete lobulation (arrowheads) between the right upper and lower lobes (B).

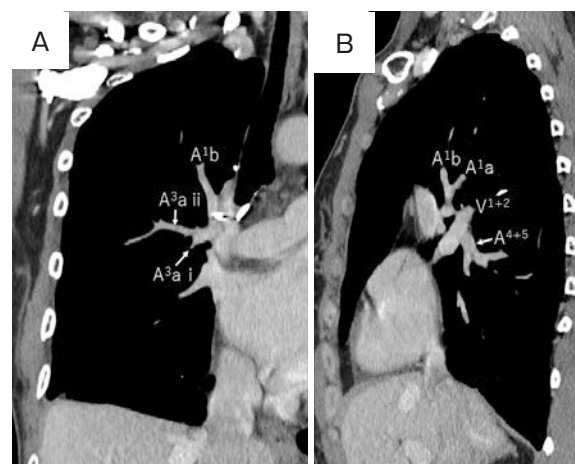


Fig. 4 Postoperative CT scans showed that A² was no longer discernible after the right lower lobectomy. (A: Coronal section, B: Sagittal section).

かった。心エコーで右房・右室の拡大はなく三尖弁逆流の最大速度は0.87m/secと肺高血圧症は示唆されなかった。血栓性素因についても特異的な血液検査所見はなく (Table 1), 血栓症をきたす基礎疾患は認められなかった。一方で肺梗塞を生じた右S²領域に本来走行するはずの肺動脈A²をCTで指摘できなかった。2年前の術前CTを振り返ると、右上下葉間の分葉不全を認め、右A²がA⁶から分岐していた (Fig. 3)。術後CTでこの右A²に相当する肺動脈は認められず (Fig. 4), 右下葉切除術の際に右A⁶とともに切離されたと考えられた。その他に肺梗塞を起こす要因が乏しいため、今回の肺梗塞は右A²の切離が関与したと判断した。

診断後よりすりガラス影は自然縮小し始め、肺梗塞は無治療のまま癒痕化した。

考 察

肺梗塞は、末梢肺動脈の閉塞に起因して、虚血、出血から最終的に肺実質の壊死をきたす状態である。肺では、低圧系で低酸素濃度の肺動脈と、高圧系で酸素化された気管支動脈の両方から血流を受けている。肺動脈系は主にガス交換に関わり、気管支動脈系では気管支壁、臓側胸膜、肺実質への酸素化された血液の供給を行う。この肺血流の二重支配により肺は虚血による障害を受けにくいと考えられ、動物モデルでは肺動脈を結紮しても気管支動脈系にて灌流が維持されるため肺組織は生存し続けることが示唆されている¹⁾²⁾。

しかしながら実際は、肺血栓塞栓症の約10~50%で肺梗塞が起きるとされる¹⁾。この原因として、肺動脈の閉塞によって高圧系である気管支動脈の血液が流入して末梢血管床の容量を超越する結果、赤血球の血管外漏出から

出血性梗塞を呈するとされている³⁾。また肺静脈圧の上昇でも肺梗塞は起こるとされ、左心不全や悪性腫瘍による肺静脈の圧排等が原因となりうる⁴⁾。

本症例では、造影CTで肺動脈内血栓や肺静脈圧排を認めず、心エコーで肺高血圧症や心不全は示唆されず、いずれも肺梗塞の原因として否定的であった。2年前の右下葉切除術の際に右A²がA⁶とともに切離されていて、今回肺梗塞を生じた右S²領域とも一致しているため、右A²の切離が関与した肺梗塞と判断した。

肺切除術における肺梗塞の合併症は稀であり、術後肺捻転による血流障害が0.1~0.3%の頻度と報告されている⁵⁾。また肺捻転を伴わない場合でも肺梗塞が起こることはある。Parissisらは、右上葉切除翌日に分葉不全のために中葉側に残存した上葉の一部が肺梗塞になった症例を報告している⁶⁾。またBrownらは、右上葉切除術の際に右上葉背側から右下葉尖部に分岐していた肺動脈を切離して、術後3週間後右下葉尖部に肺梗塞をきたした症例を報告している⁷⁾。しかしながら、本症例のように術後年単位が経過してから肺動脈の切離に伴って肺梗塞をきたした症例は報告されていない。

右A²切離後も2年間肺梗塞が起きなかった要因としては、気管支動脈からの灌流を受けていたためと推測する。今回肺梗塞を起こすにあたり、20XX年5月に発熱と一時的な右中葉浸潤影がみられ肺炎が示唆された。Parambilらは、肺梗塞の原因として血栓塞栓症に次いで感染が多かったと報告している⁸⁾。またYamasakiらは、手術で肺梗塞と診断した4例のうち1例で過去に2回の肺炎の既往があり、肺梗塞の原因になったかもしれないと報告している⁹⁾。本症例でも20XX年5月の肺炎が右上葉S²の肺梗塞発症に影響を及ぼした可能性が考えられる。局所の肺

炎でも低酸素性肺血管攣縮は生じ、その結果酸素分圧の高い肺に血流が増えるとされる¹⁰⁾。今回右中葉肺炎で起きた低酸素性肺血管攣縮に伴って、右上葉S²の循環動態も変化し肺梗塞につながったことが一つの要因と推察される。

肺梗塞の陰影は、必ずしも特徴的な所見 (Hampton's hump, 胸膜に広く接する楔形の陰影など) を呈するわけではなく、肺炎との鑑別が困難なことが多い¹¹⁾。また結節影や腫瘤影となり肺癌が示唆されることもあり、細胞診では低酸素による細胞傷害への修復過形成を反映して異型細胞を呈することがある¹²⁾。

本症例のCTでは周囲すりガラス影を伴う浸潤影で肺炎様の所見であった。また肺腺癌術後であり、気管支鏡で異型細胞を認め、FDG-PETで集積を伴った点から再発との鑑別も要した。病理組織では凝固壊死を伴う出血像と周囲の気腔内器質化を認め、CTのすりガラス影は出血を、浸潤影は凝固壊死や気腔内器質化を主に反映していたと考えられる。また異型細胞やFDG-PETの集積は出血や凝固壊死による反応性と判断した。肺梗塞において壊死に陥った場合、出血のみの場合と比べて陰影の消失に時間がかかり、3週間から1ヶ月で癒痕化すると言われている。また病変の消退の速さは、病変の大きさだけでなく閉塞した血管の再開通や局所の循環状態など複数の要因が関与していると考えられている¹¹⁾。本症例では癒痕化までに数ヶ月を要したが、病理組織で凝固壊死を伴っていたことが一因と考えられ、また右S²が肺動脈の切離によって気管支動脈のみの灌流となっていたことによる局所の循環状態も影響を及ぼしたのではないかと推察する。

肺動脈分岐には複数のバリエーションがあり、本症例のように右下葉尖部から右上葉背側領域に対して肺動脈が分岐するものは約1.5%である¹³⁾。術前には肺動脈分岐を全例で確認することで本症例のような肺梗塞を予防できると考える。また術後に生じる陰影では、術前の肺動脈分岐変異にも注意して肺梗塞も鑑別に挙げる必要があり、必ずしも術直後に起こるわけではなく、特徴的な陰影とならないことも念頭に置かなければいけない。

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) Kaptein FHJ, et al. Pulmonary infarction in acute pulmonary embolism. *Thromb Res* 2021; 202: 162-9.
- 2) Bloomer WE, et al. Respiratory function and blood flow in the bronchial artery after ligation of the pulmonary artery. *Am J Physiol* 1949; 157: 317-28.
- 3) Dalen JE, et al. Pulmonary embolism, pulmonary hemorrhage and pulmonary infarction. *N Engl J Med* 1977; 296: 1431-5.
- 4) Kadokura M, et al. Pulmonary adenocarcinoma complicated with pulmonary infarction presented as intrapulmonary metastases: a report of a case. *Ann Thorac Cardiovasc Surg* 2006; 12: 189-93.
- 5) Cable DG, et al. Lobar torsion after pulmonary resection: presentation and outcome. *J Thorac Cardiovasc Surg* 2001; 122: 1091-3.
- 6) Parissis H, et al. A case of focal lung infarction following right upper lobectomy in case of undeveloped lung fissure. *Gen Thorac Cardiovasc Surg* 2015; 63: 522-5.
- 7) Brown WJH, et al. Postoperative cavitating infarction following lobectomy: the importance of variant pulmonary anatomy. *BMJ Case Rep* 2020; 13: e238138.
- 8) Parambil JG, et al. Causes and presenting features of pulmonary infarctions in 43 cases identified by surgical lung biopsy. *Chest* 2005; 127: 1178-83.
- 9) Yamasaki H, et al. Prediction of pulmonary embolism following resection of pulmonary infarction: a case series. *Ann Thorac Cardiovasc Surg* 2021; 27: 371-9.
- 10) Dunham-Snary KJ, et al. Hypoxic pulmonary vasoconstriction: from molecular mechanisms to medicine. *Chest* 2017; 151: 181-92.
- 11) 大坪まゆみ, 他. 肺梗塞のCT. *臨放* 1995; 40: 101-8.
- 12) George CJ, et al. Clinicoradiological features of pulmonary infarctions mimicking lung cancer. *Mayo Clin Proc* 2004; 79: 895-8.
- 13) Cory RA, et al. Varying patterns of the lobar branches of the pulmonary artery: a study of 524 lungs and lobes seen at operation of 426 patients. *Thorax* 1959; 14: 267-80.

Abstract**Pulmonary infarction following a right lower lobectomy for lung adenocarcinoma in a patient with a variant ramification of the pulmonary artery**

Tatsushi Kozawa, Haruna Yamaki, Seishi Higashi,
Koji Takayama, Satoko Hanada and Reiko Taki
Division of Respiratory Medicine, Musashino Red Cross Hospital

The patient was a 45-year-old woman with a history of a right lower lobectomy for lung adenocarcinoma two years earlier. She complained of fever, and the computed tomography (CT) scans showed ground glass opacification in the right upper lobe and an infiltrative shadow in the right middle lobe; we therefore suspected pneumonia. Although her symptom improved within several days and the infiltrative shadow in the right middle lobe diminished, the ground glass opacification in the right upper lobe increased. Since bronchoscopy did not lead to a diagnosis, we performed a CT-guided percutaneous needle biopsy. Pathological findings showed coagulative necrosis and hemorrhage, thus we diagnosed pulmonary infarction. Retrospective review of preoperative CT scans showed that the A^2 pulmonary artery branched from the A^6 pulmonary artery, and the postoperative CT scans revealed that A^2 was no longer discernible. This indicated that A^2 had been resected during the right lower lobectomy. Since the pulmonary infarction occurred in the S^2 segment of the right upper lobe, the resection of A^2 was presumably related to the pulmonary infarction. We suggest that pulmonary infarction should be considered as a differential diagnosis when shadows appear after pulmonary surgery.