

AMCoR

Asahikawa Medical University Repository <http://amcor.asahikawa-med.ac.jp/>

北海道外科雑誌 (2009.06) 54巻1号:33～36.

肺動静脈瘻の1例

鹿原真樹, 北田正博, 小沢恵介, 佐藤一博, 林諭史, 平田
哲, 笹嶋唯博

肺動静脈瘻の1例

鹿原 真樹¹⁾ 北田 正博¹⁾ 小沢 恵介¹⁾
佐藤 一博¹⁾ 林 諭史¹⁾ 平田 哲²⁾ 笹嶋 唯博¹⁾

要 旨

症例は66歳女性、血痰を主訴に近医を受診した。胸部CTで右S3に結節影を認め、精査の結果肺動静脈瘻と診断された。病変は単発で胸膜直下に存在し、単独の流入・流出動脈であった。以上より胸腔鏡下右上葉部分切除術を施行した。本症は瘤の破裂や脳合併症といった重篤な合併症を引き起こすことがあり、積極的な治療が望ましいと考えられる。胸腔鏡下部分切除は有用な治療法と考える。

Key Words：肺動静脈瘻，胸腔鏡下手術

はじめに

肺動静脈瘻 (PAVF) は肺動脈と肺静脈が毛細血管を介さずに異常吻合を来す疾患で、チアノーゼ・ばち指・赤血球増多症が3主徴であるが、無症状で発見される例も少なくない。また、本疾患は瘤の破裂による血胸や、脳梗塞・脳膿瘍などの重篤な合併症を引き起こす可能性があり、無症状でも治療が必要な疾患と考えられている。

今回我々は、血痰を主訴に発見したPAVFに対し胸腔鏡下肺部分切除術を施行した一例を経験したので報告する。

症 例

症例：66歳，女性

主訴：血痰

既往歴：特記事項なし

家族歴：特記事項なし

喫煙歴：なし

現病歴：2007年5月、血痰が出現し、近医を受診した。胸部CT上結節影を認め、精査の結果、右S3の

肺動静脈瘻の診断となり手術目的に当科入院となった。この間、少量の血痰が持続していた。

入院時現症：身長144.5cm，体重43.8kg，血圧128/75mmHg，脈拍63/分，整。チアノーゼは認めなかった。眼瞼結膜に貧血を認めなかった。SpO₂ 97%。胸部聴診では雑音を聴取しなかった。体表及び粘膜に血管の拡張を認めなかった。神経学的所見に異常を認めない。

入院時検査所見：血算，生化学，凝固系に異常なし。動脈血液ガス分析 (room air, supine) は pH 7.42, PaO₂ 88Torr, PaCO₂ 41Torr, HCO₃ 26.6mmol/l, A-aDO₂ 11.9, SaO₂ 97%と異常を認めなかった。

呼吸機能検査：VC 2990ml, %VC 126.7%, FEV₁ 0.2280l, FEV₁ 1.0% 81.4%。

胸部単純X線写真：正面像では明らかな異常を認めなかった。側面像では胸壁後方に境界明瞭な径12mmの結節影と、流入・流出血管と考えられる陰影を認めた (図1)。

胸腹部造影CT：右肺S3の縦隔側に14mm大のPAVFを認め、流入動脈はA3b，流出静脈はV3bで、流入・流出血管は共に1本であった。3D-CTでは肺動脈からの流入動脈，囊状の構造物，流出血管，そして肺静脈への連続した病変を認めた (図2)。

右心カテーテル検査：肺高血圧や心拍出量の異常は認めなかった。100%酸素吸入法によるシャント率は5.75%と軽度高値であった (図3)。

2009年2月27日受付 2009年4月3日採用
旭川医科大学 外科学講座 循環・呼吸・腫瘍病態外科学分野¹⁾
同 手術部²⁾

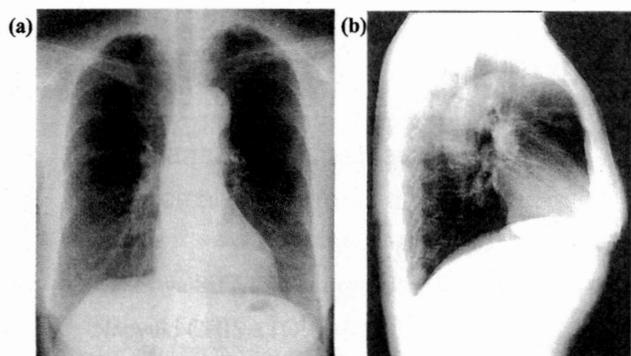


図1 入院時胸部単純写真
 (a) 正面像では病変を同定できなかった。
 (b) 側面像では胸骨後面に円形の腫瘤影を認めた。

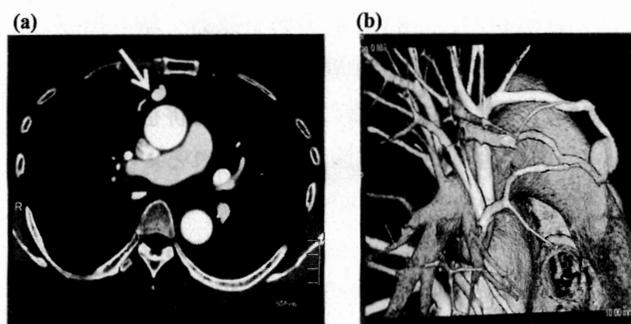


図2 胸部造影CT
 (a) S3縦隔側に流入・流出血管を伴う結節影(→)を認めた。
 (b) 3D-CT像 流入動脈はA3b, 流出静脈はV3bであった。

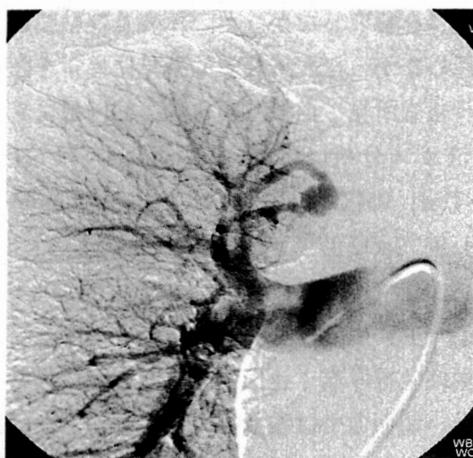


図3 肺動脈造影
 肺動脈から瘤, 肺静脈へと続く連続した病変を認めた。

気管支鏡検査：観察可能範囲では明らかな出血源を認めなかった。

以上より、循環動態や酸素化に与える影響は小さいものの、血痰が持続していることから治療が必要と判断した。病変は単発であり、流入・流出血管が単一で、胸膜直下に発生していることから胸腔鏡下肺部分切除

術を施行した。

手術所見：第8肋間前腋窩線と第5肋間前腋窩線・後腋窩線に各々10mm程の切開を加え、3ポートで胸腔鏡下手術を行った。病変は黒色・拍動性で肺表面から容易に同定可能であった。自動吻合器を用いてS3の部分切除を施行した。

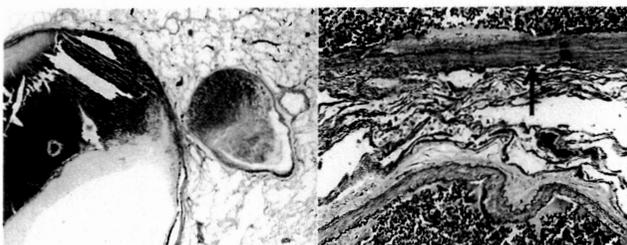
切除標本：摘出したS3の胸膜直下に径15mmの囊胞状病変と、それに近接し向かっていく2本の拡張した腔を認めた(図4)。

病理組織学的所見：Elastica-Masson染色において拡張した血管壁の内弾性板・外弾性板の途絶を認めた。囊胞状病変は動静脈の中間的な形態を示す拡張した血管の集簇から形成されており、PAVFに矛盾しない所見であった。また、病変部以外には特に異常は認められなかった(図5)。

術後経過：第6病日にドレーンを抜去した。その後の経過は良好で、第16病日に退院した。経過観察を行っているが、再発を認めていない。



図4 切除標本
 胸膜直下に黒紫色の瘤とそれに向かう2本の拡張した腔を認めた。



Elastica-Masson×10 Elastica-Masson×100
 図5 病理組織学的所見
 高倍率では血管の一部(↑)に、内弾性板, 外弾性板が欠如している所見を認めた。

考 察

肺動静脈瘻(PAVF)は肺内血管系の異常短絡を特徴とする疾患である。肺毛細血管が欠如した部分に生後肺動脈の圧負荷が加わり、拡張した通路が形成さ

れる。原因として遺伝性出血性毛細血管拡張症 (HHT) や、外傷・肝疾患・住血吸虫症などが挙げられる。本邦における正確な頻度は不明であるが、CT撮影が一般化し、今後増加することが予想される¹⁾。症状には慢性の低酸素状態によるチアノーゼやばち指、赤血球増多症といった三主徴があるが、無症状の場合も少なくない。また、慢性に経過することが多いため、治療後に始めて息切れがあったことを自覚することも多い。

本症例は血痰を主訴として発見された。血痰の排出時に病変血管の一部が破綻し、一時的に気管支内への血液流出があったと考えられる。組織像でも一部に内外弾性板の欠如している所見を認め、容易に出血しやすい状態であったと予想された。

治療の適応は、①有症状例、無症状でも②瘻の直径が2 cmを超える場合、または③流入血管径が3 mm以上では脳合併症の発生率も上昇することや、瘻の直径が大きいほど破裂するリスクは高いために、必ず治療すべきとされている²⁾。しかしPAVFでは瘻の壁は弾性線維の欠損のために脆弱であり、菲薄化が強ければ径が小さくても破裂が起こりうることや³⁾、脳梗塞・脳膿瘍といった重篤な合併症を引き起こすため、発見され次第治療すべきであるとの主張もある⁴⁾。また、脳合併症は30%に起こり、中枢神経症状を契機にPAVFが診断されることもある²⁾。奇異性塞栓や赤血球増多による脳梗塞(18%)、TIA(37%)といった虚血症状や、脳膿瘍(9%)が起こる²⁾。特に、脳膿瘍は死亡例も報告されており⁵⁾、注意すべき合併症である。脳膿瘍自体が比較的稀な疾患であるが、耳性脳膿瘍が否定的な場合には本症の存在も考慮すべきである。

治療法は外科的切除とカテーテル塞栓術がある。塞栓術は局所麻酔で施行可能であり簡便であるため最近では治療法の第1選択となることも多いが、再疎通やコイルの静脈内への逸脱(migration)といった問題がある。再疎通の原因としては不完全塞栓や周囲動脈からの新たな関与、気管支動脈からの血流などが考えられる⁶⁾。また流入血管が太い場合や短く蛇行している場合には流入動脈ではなく瘻内にコイルを留置する方法もあるが、破裂する危険性がある⁷⁾。

外科治療の利点は根治性の高さにあり、①胸膜直下②単発③流入血管が単一の症例に対し積極的に行われている²⁾。他にも腫瘤径が6 cm以上、あるいは流入動

脈径が10mm以上の際には手術が選択される⁸⁾。

外科治療に関しては、核出術・瘻孔閉鎖術では正常肺を可能な限り温存できるが、血流の遮断が不完全な場合には再発のリスクが増加する⁹⁾。一方肺部分切除は根治性の高い治療である。特に胸腔鏡手術の普及に伴い、肺部分切除は比較的low侵襲かつ安全に行えるようになった。PAVFの重篤な合併症を考慮すると、症状の有無や瘻の大きさに拘らない積極的な加療が必要と考えられる。

結 語

肺野末梢に発生したPAVFに対し、胸腔鏡下肺部分切除術を施行した。重篤な合併症を防ぐためにもPAVFには積極的な加療が望ましいと考える。

参 考 文 献

- 1) 角岡信男, 加洲保明, 宮内勝敏, 他. 術前流入血管の評価が難しかった肺動静脈瘻の1例. 日本臨床外科学会雑誌 2007; 68: 313-317.
- 2) Gossage JR, Kanj G. Pulmonary arteriovenous malformations. A state of the art review. Am J Respir Crit Care Med 1998; 158: 643-661.
- 3) 片山良彦, 小川洋右, 丹羽 宏, 他. 胸腔内破裂の既往を有する肺動静脈瘻の1例. 日本胸部臨床 1992; 51: 606-611.
- 4) 中村清考, 内藤達二, 池田聡司, 他. 造影CTが診断に有用であった肺動静脈瘻の3例. 日本胸部臨床 1994; 53: 486-492.
- 5) Yoshida Y, Harada S, Arai N, et al. A case of pulmonary arteriovenous fistula presenting as multiple brain abscesses after a sustained period without treatment. Nihon Kyoubu Shikkan Gakkai Zasshi 1997; 35: 1104-1107.
- 6) Sagara K, Miyazono N, Inoue H, et al. Recanalization after coil embolotherapy of pulmonary arteriovenous malformations: study of long-term outcome and mechanism for recanalization. Am J Roentgenol. 1998; 170: 727-730.
- 7) Takahashi K, Tanimura K, Honda M, et al. Venous sac embolization of pulmonary arteriovenous malformation: preliminary experience using interlocking detachable coils. Cardiovasc Intervent Radiol. 1999; 22: 210-213.
- 8) 小田和文, 明石章則, 竹内幸康, 他. 胸腔鏡下に瘻部核出のみを施行しえた肺動静脈瘻の1手術例. 日呼外会誌 2005; 19: 128-131.
- 9) 金内直樹, 佐藤 徹, 安孫子正美, 他. 肺動静脈瘻の3手術例. 胸部外科 2001; 54: 517-520.

Summary

A case of pulmonary arteriovenous fistula

Maki KABARA, Masahiro KITADA,
Keisuke OZAWA, Kazuhiro SATO,
Satoshi HAYASHI, Satoru HIRATA,
and Tadahiro SASAJIMA

Division of General Thoracic Surgery, Department of
Surgery, Asahikawa Medical University

Pulmonary fistula (PAVF) can result in major complications such as rupture, cerebral infarction, and brain abscess. Because of these severe complications, PAVF needs to be

aggressively-treated. We report a case of PAVF in which we performed video-assisted thoracoscopic surgery. A 66-year-old woman presented at our facility with the chief complaint of bloody phlegm. Chest computed tomography (CT) revealed a well-defined nodular shadow in the right S3. Enhanced CT and pulmonary angiography suggested a diagnosis of PAVF with the feeding artery and drainage vein. We performed partial pulmonary resection by video-assisted thoracoscopic surgery. The histological diagnosis confirmed PAVF. The patient showed a good postoperative course. Video-assisted thoracoscopic surgery is a less invasive procedure. Furthermore, in treatment of PAVF, with this surgical method there is rarely postoperative recurrence. It is considered that partial resection by video-assisted thoracoscopic surgery is useful for PAVF.