

症 例

低酸素血症の著明な改善を得た 肺動静脈瘻の1手術例

伊藤 祥隆*¹, 中屋 順哉*², 小田 誠*³

要 旨

症例は66歳、女性。主訴はチアノーゼ。他疾患治療中にチアノーゼを指摘され当院紹介となった。胸部造影CT検査では右下肺静脈へ直接流入する右A⁸に加え右S⁶胸膜直下に拡張した動静脈を認めた。肺動脈造影検査では右A⁸から左房へのシャント血流を認めた。肺血流シンチでは肺外臓器への核種分布が確認され、右左シャントの存在は明らかでありシャント率は42%と計算された。以上より多発肺動静脈瘻と診断し右下葉切除術を行った。術前に45.0 mmHgであった動脈血酸素分圧が術後には90.6 mmHgと著明なる改善を認めるなど術後経過は良好であり、19病日に退院した。

索引用語：肺動静脈瘻，外科的切除，低酸素血症
pulmonary arterio-venous fistula, surgery, hypoxemia

はじめに

肺動静脈瘻は肺動静脈の異常短絡を特徴とする比較的まれな疾患である。今回我々は右下葉の動静脈瘻に対し肺葉切除を行い著明な低酸素血症の改善を得た症例を経験したので報告する。

症 例

症 例：66歳，女性。

主 訴：チアノーゼ。

既往歴：特記すべきことなし。

家族歴：特記すべきことなし。

喫煙歴：なし。

現病歴：2006年12月転倒し近医を受診し、腰椎圧迫骨折の診断にて入院となった。この際にチアノーゼを指摘され、精査加療目的に当院紹介となった。これまでに労作時の息切れや動悸などの自覚症状はなかった。

入院時現症：身長151 cm，体重49 kg。血圧145/84 mmHg，脈拍76/分，整。肺野に異常音は聴取せず。両手指にいずれも高度のばち状指とチアノーゼを認めた。

入院時検査所見：血液検査では赤血球数 $513 \times 10^4 / \mu\text{l}$ ($360 - 500 \times 10^4 / \mu\text{l}$) と軽度の多血所見を認めた。安静時動脈血ガス分析では著明な低酸素血症を認めた (Table 1)。

胸部単純X線写真：右下肺野で肺血管影の拡張像を認める (Fig. 1)。

胸部CT：右下葉S⁶胸膜直下に拡張した動静脈を認める (Fig. 2a)。また右下葉S⁸の中枢に高度な拡張変

Table 1 Comparison of Arterial Blood Gas Analysis

	Preoperatively (room air)	Postoperatively (room air)
pH	7.453	7.421
PaCO ₂ (mmHg)	35.5	41.5
PaO ₂ (mmHg)	45.0	90.6
HCO ₃ ⁻ (mEq/l)	24.5	26.4
BE (mEq/l)	1.4	2.2
SaO ₂ (%)	83.1	96.9

*¹福井県立病院 外科

*²福井県立病院 呼吸器内科

*³金沢大学 心肺・総合外科

原稿受付 2007年12月12日

原稿採択 2008年3月7日

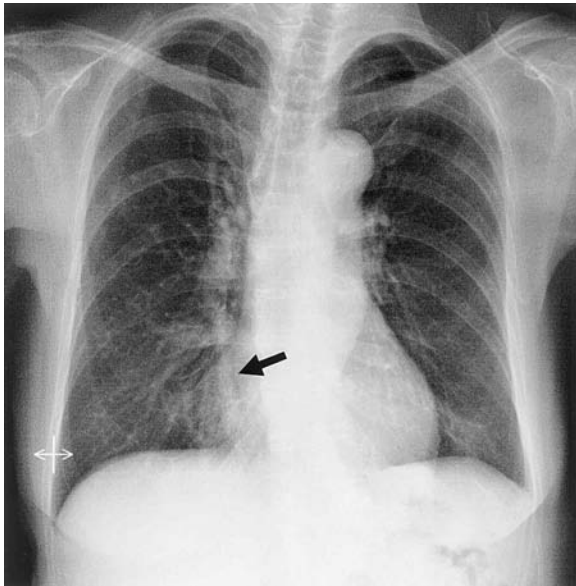


Fig. 1 Chest radiograph showing a shadow of dilated vessels in the right lower lung field.

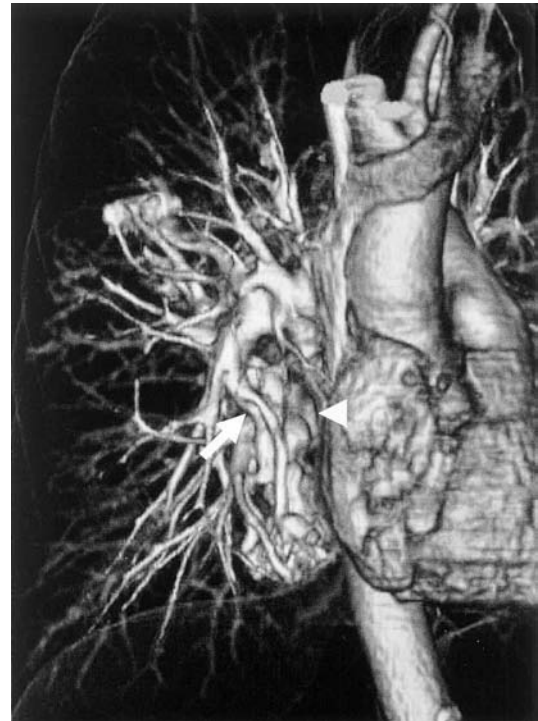


Fig. 3 3D-CT image indicating the direct connection between the right A⁸ (arrow) and inferior pulmonary vein (arrowhead).

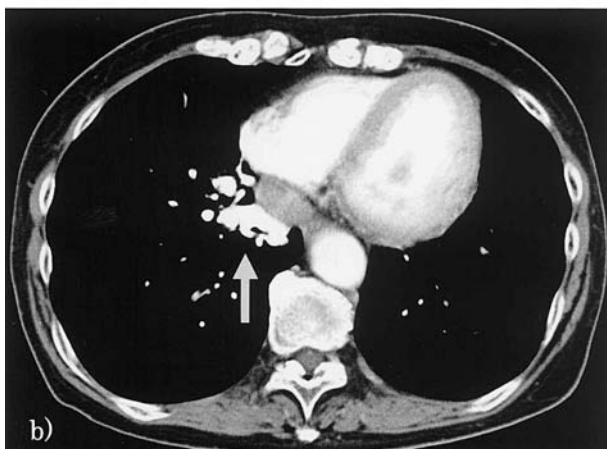


Fig. 2a Chest CT scan revealing abnormal vessels in the right S⁶ sub-pleura.

b Chest CT scan showing dilated vessels in the right S⁸.

化を伴い蛇行した血管構造を認め (Fig. 2b), 三次元再構築画像では右下肺静脈へ直接流入する A⁸ が確認された (Fig. 3).

肺動脈造影: 肺動脈相にて左房に流入するシャント血流が確認された (Fig. 4a).

^{99m}Tc-MAA 肺血流シンチグラフィ: 脳, 甲状腺, 肝, 腎などへの肺外核種分布が認められシャントの存在が考えられた (Fig. 4b). シャント率は42.5%と高度であった.

以上より著明な低酸素血症を伴う多発肺動静脈瘻と診断し外科的切除の適応と判断した.

手術所見: 右後側方に10 cm の皮膚切開をおき第 V 肋間より開胸し型どおり右下葉切除を行った. S⁶ 胸膜直下には腫瘤様に突出した異常血管を確認したが, S⁸ の下葉縦隔面には軽度の血管怒張を認めるのみであった. なお術中には肺実質の血管拡張変化によって A⁸ 下肺静脈間の瘻孔の同定は不能であった.

病理組織学的所見: 肺実質内には動静脈の吻合や拡張しうっ血した大小の動静脈が認められた.

術後経過: 術後経過は良好であり, 第19病日に退院

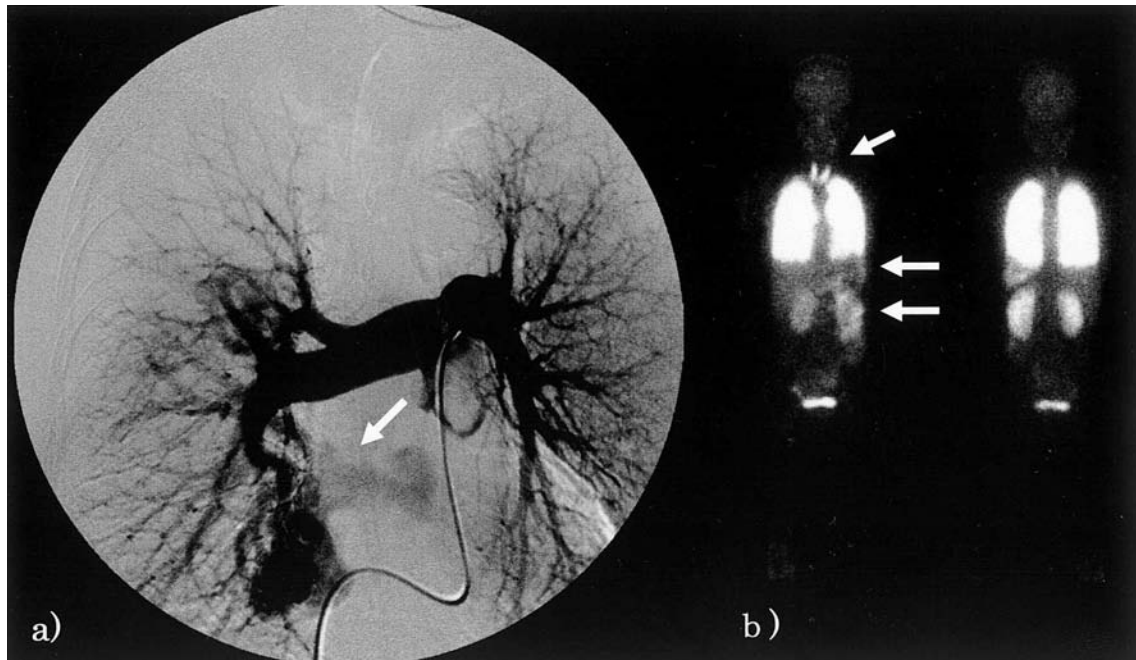


Fig. 4a Pulmonary angiography showing shunt flow into the left atrium in the pulmonary arteriophase.
b A whole-body image of perfusion scintigraphy showing extrapulmonary activity in the brain, thyroid gland, liver and kidneys.

した。術直後からチアノーゼは急速に改善し、術17病日に測定した動脈血ガス分析でも動脈血酸素飽和度は著明な改善を認めた (Table 1)。

考 察

肺動静脈瘻は1897年に Churton¹⁾ により初めて報告された肺動静脈間の異常短絡を特徴とする疾患である。疾患の主体となる病態は肺内の右→左シャントであり軽微な場合には無症状であるが、シャント量が増大するに従い低酸素血症が顕著となり、チアノーゼ、ばち指、多血症、労作時呼吸困難などが認められる。

右→左シャント率は^{99m}Tc-MAA 肺血流シンチグラフィから (total body counts—total lung counts) /total body counts×100の計算式にて算出した²⁾。他の計測方法としては100%酸素吸入法があるが、その誤差に関し Genovesi らは遺伝性出血性末梢血管拡張症においてシャント率を100%酸素吸入法と RI シンチ法により測定し、後者がより正確であると結論している³⁾。また100%酸素吸入法では完全な右→左シャントであることが前提であるが、動静脈瘻の部分でわずかながらも周囲肺胞とガス交換が行われる本疾患では、原理的にシャント率が実際より低く算出されることと

なる⁴⁾。従って今回我々が RI 法で算出したシャント率は42.5%と非常に高値ではあるが、術前の著明な低酸素血症からも信頼し得る値と考えた。

本疾患は良性ではあるが進行性であることや脳膿瘍や破裂の危険性があることから、無症状であっても治療の適応とされている⁵⁾。治療としては従来から行われていた外科的切除に加え、近年では低侵襲で肺機能が温存されるという利点から経カテーテル塞栓術での報告も多く見られる。腫瘍径が6 cm 未満、流入動脈の径が10 mm 未満の場合により適応とされる⁶⁾。しかしながら経カテーテル塞栓術は低侵襲である一方で長期成績では57%と高率な再開通の報告⁷⁾ や塞栓物質の逸脱⁸⁾ も報告されており、その適応には注意が必要である。本症例では流入動脈の径が10 mm 以上であることに加え、シャント率が42.5%と非常に流量が多いことから外科的切除の適応と考えた。

良性疾患であることから外科的切除といえども核出術や区域切除などによる可及的な肺機能の温存が考慮されるべきであり⁹⁾、近年では末梢病変に対する胸腔鏡下手術での良好な成績が数多く報告されている^{10, 11)}。一方で異常血管の残存による再発の可能性が示唆される¹²⁾ ことから、中枢病変への適応には慎重な検討が必

要である。今回我々の症例でも当初は区域切除を検討したが、同一葉内の離れた2区域に病変があることに加え、術前の3D再構築CT画像や動脈造影にて静脈中枢での瘻孔形成が確認されたことから、異常血管の完全切除を優先し肺葉切除を行った。上記の如く肺機能温存は十分に考慮されるべきではあるが、再発防止の観点からも中枢病変の場合には瘻孔を完全に切除しうる確実な術式を選択することが重要であると考えた。

結 語

動脈血酸素分圧の著明な改善を得た多発肺動静脈瘻の1手術例を経験した。中枢での瘻孔形成が確認される場合には肺葉切除を含む確実な切除が重要であると考えた。

文献

1. Churton T. Multiple aneurysm of pulmonary artery. Br med J 1897; **1**: 1223.
2. Sugiyama M, Sakahara H, Igarashi T, Takahashi M. Scintigraphic evaluation of small pulmonary right-to-left shunt and therapeutic effect in pulmonary arteriovenous malformation. Clin Nucl Med 2001; **26**: 757-60.
3. Genovesi MG, Tierney DF, Taplin GV, Eisenberg H. An intravenous radionuclide method to evaluate hypoxemia caused by abnormal alveolar vessels. Am Rev Respir Dis

- 1976; **114**: 59-65.
4. 森本耕三, 齊藤武文, 高久多希朗, 他. 肺動静脈瘻の1例. 日呼吸会誌 2007; **45**: 202-5.
5. John HM, George G, Albert NB. Pulmonary arteriovenous fistulas. Am J med 1962; **32**: 417-35.
6. 高橋 賢, 福岡和也, 古西 満, 他. コイル塞栓術を行った多発性肺動静脈瘻の1例. 日呼吸会誌 2002; **40**: 900-2.
7. Sagara K, Miyazino N, Inoue H, Ueno K, Nishida H, Nakajo M. Recanalization after coil embolotherapy of pulmonary arteriovenous malformations: Study of long-term outcome and mechanism for recanalization. AJR 1998; **170**: 727-30.
8. 正岡俊明, 由岐義広, 大泉弘幸, 他. 経カテーテル塞栓療法後緊急手術を施行した肺動静脈瘻の1例. 胸部外科 1995; **48**: 941-4.
9. 吉田正行, 渡辺洋宇, 清水淳三, 村上真也, 山村浩然, 岩 喬. 肺動静脈瘻の外科的治療の経験—とくに肺縮小切除例を中心に—. 日臨外会誌 1989; **50**: 2177-82.
10. 狭間研至, 明石章則. 胸腔鏡下切除後に動脈血酸素分圧の改善を認めた肺動静脈瘻の一例. 日呼吸会誌 2001; **39**: 587-9.
11. 小田知史, 明石章則, 竹内幸康, 大熊和英. 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**: 128-31.
12. 角岡信男, 加洲保明, 宮内勝敏, 杉下博基, 谷川和史, 河内寛治. 術前流入血管の評価が難しかった肺動静脈瘻の1例. 日臨外会誌 2007; **68**: 313-7.

A surgically treated case of marked hypoxemia caused by pulmonary arterio-venous fistula

Yoshitaka Ito*¹, Jyunya Nakaya*², Makoto Oda*³

*¹Department of Surgery, Fukui Prefectural Hospital

*²Department of Respiratory Medicine, Fukui Prefectural Hospital

*³Department of General and Cardiothoracic Surgery, Kanazawa University

The patient was a 66-year-old female. In the course of therapy for compression fracture, cyanosis was pointed out. Chest CT scan revealed abnormal vessels in the right S⁶ sub-pleura and the direct connection between the right A⁸ and right inferior pulmonary vein. Pulmonary angiography showed shunt flow into the atrium. Perfusion scintigraphy revealed extrapulmonary activity due to the right-to-left shunt and a high-level shunt ratio. The diagnosis of pulmonary arterio-venous fistula was made on the basis of these findings. A right lower lobectomy was performed via video-assisted thoracic surgery. Severe hypoxemia was improved after surgery. The postoperative course was uneventful, and the patient was discharged on the 19th POD.