症 例

肺内肺動脈の破裂を契機とした大量血胸の一例

大亀 剛^{*1}, 重松 義紀^{*1}, 中島 潔^{*2}
八木 健郎^{*2}, 山本 傑^{*2}, 波戸岡俊三^{*1}

要 旨

肺内で肺動脈が突然破綻し、さらに肺内の出血が胸膜を穿破して血胸を来すことは極めて稀である。今回我々は、肺内肺動脈の破裂により咯血を発症し、その後大量血胸をきたしたため緊急開胸手術を行い、救命した症例を経験したので報告する。患者は60歳代男性。自宅で誘因なく突然咯血し当院に救急搬送された。胸部CTでは左血気胸を認めたが、検査時点では原因は不明であった。バイタルサインが安定せず、緊急開胸手術を行った。開胸時、左肺S1+2外側に広範な裂傷と同部からの出血を認めた。裂傷部を仮閉鎖した後、左上葉切除術を施行した。術後10日目に軽快退院し、現在経過観察中である。切除標本を検討したところ、左肺上葉内の肺動脈分枝の破裂が出血源と考えられた。肺循環系の血行動態の異常が示唆されたが、肺動静脈瘻や肺高血圧症などの明らかな背景疾患は特定されなかった。

索引用語：肺動脈破裂，血胸，緊急手術

pulmonary artery rupture, hemothorax, urgent surgery

はじめに

肺内の肺動脈分枝が外傷や医療行為に伴わず突然破綻し、さらに肺内の出血が胸膜を穿破して血胸を来すことは極めて稀である。今回我々は、咯血で発症した肺動脈破裂を契機として、その後血胸をきたし緊急開胸手術で救命した症例を経験したので報告する。

症 例

症 例：60歳代，男性。

主 訴：咯血，呼吸困難。

既往歴：心房細動，高血圧。

内服薬：アピキサバン。

家族歴：特記事項なし。

喫煙歴：1日20本，数年前より禁煙。

現病歴：自宅で特に誘因なく突然多量の咯血をきたし呼吸困難となったため，当院に救急搬送された。

初診時現症：身長167 cm，体重80 kg。意識レベル：JCS III-100。血圧：136/78 mmHg。脈拍：152回/分。呼吸数：22回/分。SpO₂ 89% (バグバルブマスク換気下，酸素流量：15 L/分)。ばち指は認めなかった。

来院時検査所見：赤血球数400万/μL，ヘモグロビン11.8 g/dL，血小板27.9万/μL，APTT 27.1秒，PT (%) 39.3%。動脈血ガス分析では，pH 6.914，PO₂ 53.4 mmHg，PCO₂ 113.5 mmHgと低酸素血症および呼吸性アシドーシスを認めた。

来院後経過：呼吸不全のためプロポフォールとロクロニウムによる鎮静・筋弛緩下に気管挿管を行い人工呼吸器による換気を開始したところ，血圧が60/42 mmHgに低下した。急速輸液・輸血・ノルアドレナリン投与を行ったところバイタルサインが安定したため，胸部CT検査 (Fig. 1) を施行した。左血気胸を認めたが，この時点では縦隔偏位は認めなかった。CT検査後，20分程度の間は収縮期血圧が100～120 mmHgを保っていたが，その後15分程度の経過で70 mmHgに低下したため，RBC 6単位を輸血し，ICUに搬入となった。輸血中の収縮期血圧はノルアドレナリン0.3 mg/h投与下で60～100 mmHgと安定せず，ICU搬入時も収縮期血圧が80

^{*1}社会医療法人杏嶺会一宮西病院呼吸器外科

^{*2}同 呼吸器科

原稿受付 2018年8月28日

原稿採択 2018年10月6日

Fig. 1 Chest CT revealed hematoma in and around the left upper lobe. Broad ground-glass opacity caused by inhalation of blood was also found mainly in the left lung. There had been no mediastinal shift at that time.

Fig. 2 Chest radiograph showed a decrease in permeability of the left lung. Mediastinal shift indicates the existence of tension hemothorax.

mmHg 程度と低いため、さらに RBC 4 単位を輸血した。胸部 X 線写真 (Fig. 2) で縦隔偏位を認め、緊張性血胸が疑われたため当科紹介となった。バイタルサインが不安定で継続的に輸血を必要とするため、緊急手術を行う方針とした。手術室入室までの間、FFP 6 単位を輸注しながら血圧を 60~70 mmHg 台に保った。この時点で人工呼吸器設定は VC-SIMV, PEEP 10 cmH₂O, PS 10 cmH₂O, FiO₂ 1.0 で、1 回換気量 320 ml、動脈血ガス分析

で pH 7.187, PO₂ 214.7 mmHg, PCO₂ 59.4 mmHg, Hb 10.8 g/dL であった。手術室入室直前の血圧は 82/50 mmHg, 心拍数 98 回/分, VC-SIMV, PEEP 10 cmH₂O, PS 30 cmH₂O (吸気ピーク圧 41 cmH₂O), FiO₂ 90% 下で 1 回換気量 540 ml であった。

手術所見：右側臥位とし、20 cm の前方腋窩切開を置いた。右片肺換気で吸気圧を 40 cmH₂O 程度とすると 1 回換気量が 100~150 ml 程度しか得られず、pH 6.99, PO₂ 125.7 mmHg, PCO₂ 110.2 mmHg (FiO₂ 1.0) と CO₂ 貯留傾向となるため、両肺換気に切り替えて開胸を行った。開胸時、胸腔内には血性胸水と血腫、計 1600 g が貯留しており、左肺上葉 S1+2 外側面に約 8 cm 長の裂隙と、同部からの出血および気漏を認めた。裂隙内へのガーゼパッキングと仮縫合による止血を行うと血圧は 100 mmHg 程度で安定し、ノルアドレナリンを終了できた。開胸で緊張性血胸が解除されたことにより、依然吸気圧は 50 cmH₂O 程度必要としたが片肺換気でも換気量が確保され、麻酔維持が可能となった (閉胸前片肺換気中の動脈血ガス分析: pH 7.203, PCO₂ 73.5 mmHg, PO₂ 179.8 mmHg であった)。左上葉は血腫で緊満しており、出血の原因も不明であったため左上葉の温存は困難と考え、左上葉切除術を行った。手術終了時、最大吸気圧 30 cmH₂O, FiO₂ 0.6 下で 1 回換気量 300~400 ml, pH 7.233, PCO₂ 59.1 mmHg, PO₂ 110 mmHg, Hb 10.0 g/dL であった。手術時間 2 時間 40 分、出血量 2600 g (胸腔内血腫含む) であった。手術中の輸血量は RBC 8 単位, FFP 10 単位, PC 10 単位であった。

術後経過：術翌日に抜管し、3 POD で ICU を退室し

Fig. 3 Excised specimen. (A) The left upper lobe was tense because of the hematoma. Peeling of the pleura and rupture of the lung parenchyma were observed on the lateral surface of the left upper lobe. (B) (C) A tear in the pulmonary artery near the hilum and atherosclerosis around the tear were noted. (D: EVG x40) (E: EVG x200) Microscopically, elastic fiber proliferation was observed in the ruptured artery, and abnormal hemodynamics of pulmonary circulation were suggested. Arrowhead: site of vascular failure.

た。気漏持続のため胸膜癒着術を施行し、8 POD に胸腔ドレーンを抜去。10 POD で軽快退院となった。

病理学的所見 (Fig. 3)：肺内血腫により左上葉は緊満。左上葉外側面に裂隙と胸膜の剥離を認めた。断面では、肺門に比較的近い部分の肺動脈分枝に粥状硬化様の変化と、同部の亀裂を認めた。顕微鏡的には、EVG 染色標本上で破裂した血管の中膜に弾性線維の増生を認めており、肺循環系の血行動態異常が示唆された。

考 察

外傷や医療行為に伴わない内因性の血胸には、気胸、新生物、凝固異常、血管系の異常によるものなどが知られている¹⁾。肺循環系の異常による血胸としては、肺動脈脈瘤の破裂によるものの報告が散見される²⁵⁾が、それら

はいずれも胸膜直下の病変が破裂して血胸を来したというものであり、本症例のように肺門に近い肺内の血管を原因として血胸を来したものは、調べ得た範囲では自験例のみであった。

臨床経過を考慮すると、切除標本中に認めた肺動脈分枝の破綻により肺実質内に出血が拡がり、咯血をきたしたと考えられる。咯血により呼吸困難となり、鎮静下に気管挿管を行ったが、この直後にショック状態となった。当初は鎮静による血圧低下もあった可能性が考えられるが、発症以後どこかの時点で肺実質内の出血が何らかの要因で肺実質末梢方向に進展していき、最終的に胸膜を穿破して緊張性血胸となったのではないかと考えられた。胸膜穿破にまで至る機序としては、自然穿破した可能性や、挿管後に高い気道内圧が加わったことで穿破が

生じた可能性が考えられた。術前の胸部 CT 検査で認めていたわずかな左気胸は経過中に悪化することはなかったが、左肺内の出血および緊張性血胸と診断した時点で右片肺換気に変更していれば、左胸腔内圧の無用な上昇や右気管支への血液流れ込みといったリスクを減らすことができた可能性があると思われた。

肺高血圧症においては、肺動脈に粥状硬化などの動脈硬化性変化が起こるとされている⁶⁾が、本症例でも肺動脈に動脈硬化が見られたことから、出血に至るまでの血管の器質的な変化を起こした要因として肺高血圧症の存在を考えた。しかしながら、開胸所見では胸膜面に拡張した側副血行路も存在せず、肺動脈の外観にも特に異常は認めなかった。術後に心臓超音波検査も施行したが、明らかな肺高血圧を示唆する所見も認めなかったため、肺高血圧症の併存は否定的であった。

また、肺動静脈瘻においては、病変部位に弾性線維が豊富な血管壁から弾性線維が少ない血管壁に移行する部分があるとされている⁷⁾。今回の摘出標本の検討ではそういった移行部の同定はできなかったが、病変部が肺動静脈瘻であった可能性も考えられた。しかしながら、発症前には他院も含めて胸部 CT は撮影されておらず、出血前の画像を精査することはできなかった。切除標本に割を入れた段階で偶然血管の破綻部位を確認するに至ったため、血管の走行を標本上で検討することとなったが、血管の位置関係は詳しくは分からず、肺静脈との連続性も認めなかった。肺動静脈瘻の家族歴はなく、発症前に偶然撮影されていた頭部 MRI でも動静脈瘻は確認されなかったため、直ちに肺動静脈瘻と結論づけることも困難であった。

他に破裂を来す可能性が考えられる病態として肺動脈瘤がある⁷⁾。Nguyen ら⁸⁾によると、肺動脈幹で最大径 29 mm、肺内肺動脈で 17 mm をそれぞれ超える限局性の肺動脈拡張と定義され、先天性心疾患に伴うものが半数以上を占めるとされるが、後天的にも梅毒や結核などの感染症、血管炎や肺高血圧症などが原因で起こる二次性の肺動脈瘤と、特発性の肺動脈瘤がある⁷⁾。本患者に関しては、切除標本で検討できた範囲では限局性の血管拡張はなく、また血管径自体も定義を満たすほどではなかったため、肺動脈瘤とも診断できなかった。

結 語

動脈硬化性の変化を起こした肺内肺動脈の破裂を契機

に、その後大量血胸を来した患者を緊急手術で救命した希有な一例を経験した。切除標本で出血源を同定することができ、病理所見から血行動態の異常が示唆されたが、肺動静脈瘻や肺高血圧症などの明らかな背景疾患は特定されなかった。

謝 辞

切除標本の病理学的な検討に関して岐阜大学医学部附属病院病理診断科 久松憲治先生に多大なご協力を頂きました。この場をお借りして御礼申し上げます。

利 益 相 反

本論文について申告する利益相反はない。

文 献

1. Azfar Ali H, Lippmann M, Mundathaje U, Khaleeq G. Spontaneous hemothorax: A comprehensive review. *Chest* 2008; **134**: 1056-65.
2. Berg AM, Amirbekian S, Mojibian H, Trow TK, Smith SJ, White RI Jr. Hemothorax due to rupture of pulmonary arteriovenous malformation: An interventional emergency. *Chest* 2010; **137**: 705-7.
3. Lin F, Mei J, Liu C, Liu L. A ruptured pulmonary arteriovenous fistula. *J Thorac Cardiovasc Surg* 2015; **150**: 716-7.
4. 竹中一正, 美崎幸平, 住友伸一, 加藤幹夫. 胸腔内破裂をきたした肺動静脈瘻の 1 例. *日呼外会誌* 1996; **10**: 499-503.
5. 神津吉基, 館 良輔, 二川俊郎, 泉 浩, 鈴木健司. 妊娠中の緊張性血胸で発症した破裂肺動静脈瘻に対し外科切除を施行した 1 例. *日呼外会誌* 2015; **29**: 505-11.
6. 柳川和範, 山根光量, 岡田拓也, 桐野基浩, 蓮池俊明, 大塚章人, 他. 高度の肺高血圧を呈し著明な肺動脈の粥状硬化を認めた真性多血症の 1 例. *日内会誌* 2005; **94**: 969-72.
7. 杉田浩章, 原 祐郁, 宮崎真奈美, 上野洋資, 川瀬裕志. Rendu-Osler-Weber 病に合併した肺動静脈瘻の 1 例. *日臨外会誌* 2014; **75**: 2442-6.
8. Nguyen ET, Silva CI, Seely JM, Chong S, Lee KS, Müller NL. Pulmonary artery aneurysms and pseudoaneurysms in adults: findings at CT and radiography. *AJR Am J Roentgenol* 2007; **188**: W126-34.

Intrapulmonary pulmonary artery rupture followed by massive hemothorax: A case report

Takashi Ohki^{*1}, Yoshiki Shigematsu^{*1}, Kiyoshi Nakashima^{*2}

Takeo Yagi^{*2}, Suguru Yamamoto^{*2}, Shunzo Hatooka^{*1}

^{*1}Department of Respiratory Surgery, Ichinomiya-Nishi Hospital

^{*2}Department of Respiratory Medicine, Ichinomiya-Nishi Hospital

Sudden rupture of the intrapulmonary pulmonary artery followed by hemothorax is a rare condition. We report a case in which hemoptysis occurred after pulmonary artery rupture followed by massive hemothorax, which required an emergency thoracotomy. The patient was a male in his 60s. Hemoptysis occurred suddenly at home, and the patient was brought to our hospital by ambulance. Chest computed tomography showed hemopneumothorax, but the cause was unknown at the time of examination. The patient's vital signs worsened, and we performed an emergency thoracotomy, during which we observed extensive lacerations in, and bleeding from, the lateral surface of the S1 + 2 segments of the left lung. Left upper lobectomy was performed, followed by temporary closure of the lacerations. He was discharged on the 10th postoperative day and is currently under observation. Examination of the resected specimen revealed a rupture of the pulmonary artery in the left upper lobe as the source of bleeding. Although abnormalities in the hemodynamics of the pulmonary circulatory system were suggested, obvious background diseases such as pulmonary arteriovenous fistula and pulmonary hypertension were not identified.