フレキシブル・ファイバー・ブロンコスコープにより 観察した食道後部大動脈弓の一例

—その気道狭窄が同側の気管支肺炎を併発したと思われる一例—

*加藤 秀雄, 栗山廉二郎, 志村 政文
高村 研二, 高野 浩太, 北本 治
**池田 晃治, 中江 純夫, 金 有生

A Case of Right Aortic Arch Examined by Flexible Fiberoptic Bronchoscopy (Stenosis of the Right Main Stem was Strongly suggestive as the Cause of the Right Bronchopneumonia)

Hideo Kato, M.D., F.C.C.P., Renjiro Kuriyama, M.D.

Masafumi Shimura, M.D. Kenji Takamura, M.D.

Kota Kono, M.D. Osamu Kitamoto, M.D., F.C.C.P.,

Koji Ikeda, M.D. Sumio Nakase, M.D. Yuse Kim, M.D.

From the Department of Medicine and Chest Surgery, Kyorin University School of Medicine.

We examined an asymptomatic patient with a right retro-esophageal aortic arch for a suspected mediastinal tumor by radiographically and bronchoesophagologically.

No evidence of malignancy was discovered, however stenosis of the airway due to compression from out side were noticed around the middle part of the trachea and bilateral upper main stem bronchi, and extremely stenotic lumen due to compression from anterior and posterior with slight inflammatory signs were localized at the carina and right upper stem bronchus, by flexible fiberoptic bronchoscopy. Attendant pulsation of these area were also noted during examination.

These tracheo-bronchial findings were strongly suggestive as the cause of a recent episode of right middle bronchopneumonia.

緒 言:

大動脈弓部の先天性奇型には重複大動脈弓, 背側大動脈根部遺残, 異型鎖骨下動脈などがあるが, 今回われわれは縦隔洞腫瘍の疑いのもとに気管支ファイバースコープを行い, 縦隔洞腫瘍, 食道癌, 腫大リンパ節等による圧迫もしくは外科的手術, 肋膜肺腫等による変形とは異なり, 極めて特異的所見を呈した右側食道後部大動脈弓の一例を経験したので, その気管食道科学的観察を中心として報告する。

症 例:

症例は56才の男性, 現病歴として1975年4月頃より背部の圧迫感及びびっばられる感じが現われた。夏に入り症状が強く食思減退があったが, 秋に入って食欲は回復, 全身状態も良好となった。その間咳嗽, 喀痰, 発熱等はなかった。1975年10月17日, 以前より胃病と思っていたので受診し精密検査を受けたところ, 慢性胃炎及び十二指腸炎が発見されたが, 同時に胸部X線所見で異常を指摘され, 1975年10月29日縦隔洞腫瘍の疑いで当院に紹介され入院した。

*杏林大学医学部第一内科 (主任 北本治教授)

**同 胸部外科 (主任 池田晃治教授)

入院時現症：

体格栄養中等度，血圧に左右差なく，その他特記事項なく胸部聴診音も正常であり，頸静脈の怒張，パチ型指も認められなかった。自覚症として嘔声，呼吸困難，嚥下障害等は全くなく，肺機能検査でも FEV_{1.0%}=78，%VC=94 で血液ガスも正常であった(付表 I，II)。既往歴として12才迄風邪をひきやすく，しばしば発熱及び咳嗽が強く現われた。また走ると右前胸部痛があり咳嗽及び喀痰を自覚したという。20才前後では過労の際著明な動悸と呼吸困難を訴えた。20才時に胃潰瘍，22才時に肺炎及び肋膜炎，46才時に身体検査で一側肺の膨脹不全を指摘され，51才頃より聴力

は低下，神経性難聴と言われたという。

家族歴：

10人兄弟の末子で同胞10人中5人は幼小児期に死亡したが，病名は不詳であったという。両親及び兄，姉は45才以上になって進行性難聴となり，70才以上で殆んど聞えなくなっている。

胸部X線所見：

正面像では上大動脈部の腫瘤様陰影増大し，心陰影内の右第2号及び心尖部に相当する部位に，比較的明瞭な境界線が重って見られた(図1)。側面像では第2胸椎より第5胸椎の範囲に塊状の腫瘤影が中縦隔に位

(付表 I)
Laboratory findings (1) N.B. 56 y/o male

Hb	16.2g/dl	TP	6.8g/dl	Na	140mEq/l
RBC	449×10 ⁴ /mm ³	A/G	1.5	K	4.1 "
Ht	44%	Alb	59.5	Cl	109 "
CI	1.12	α ₁ -gl	3.5	P	2.5mg/dl
Ret	13%	α ₂ -gl	9.7	Ca	8.9 "
WBC	6,800/mm ³	β-gl	10.7		
PBC	16.4×10 ⁴ /mm ³	γ-gl	16.4		
ZTT	10.3	SGOT	14IU/l	-urine-	
TTT	0.7	SGPT	6 "	ph	5.5
TC	186mg/dl	SLDH	269 "		1.028
TBil	0.5 "	CPK	2.8mIU/l	protein	(-)
DBil	0.2 "	ALP	7.3	sugar	(-)
FBS	94mg/dl	AMY	63	urobilinogen	(±)
Creat	0.9 "	ACP	2.1KAU	urobilin	(±)
ESR	3mm/hr	CRP	(-)	Wa-R	(-)

(付表 II)
Laboratory findings (2) N.B. 56 y/o male

VC	3,380ml	Sptum cytology	
%VC	96%	Bacteria	(-)
FEV _{1.0%}	78%	M. tuberculosis	(-)
TLC	6,580ml		
RV	3,200ml	Biopsy of the scalene lymph node	
RV/TLC	49%	Sinus histiocytosis	
		lymphadenitis simplex	
ph	7.340		
PO ₂	97mmHg	Bronchoscopy	
PCO ₂	42.6mmHg	visualization; bronchial stenosis no evidence of malignancy	
HCO ₃	23.8mEq/l	chronic bronchitis	
		biopsy by brush: Class I

(図 1)

(図 3)

(図 2)

(図 4)

置し、気管から気管分岐部付近迄を前方に圧排し、特に気管分岐部直上付近は狭窄が著明で分岐部はゆがんだ形のシルエットとなっていた(図 2)。断層像では背部より 10cm のところに気管分岐部から横隔膜にかけて、右方に凸形をした境界明瞭な陰影がみられた(図 3)。

食道造影では正面像で第 2 狭窄部位より口側が左方に圧排され、第 2 斜位では、その辺縁は正であるが捻転したようにみられ、第 1 斜位では中縦隔に存在する腫瘤様陰影に沿って圧排された辺縁正の狭窄像がみられた。なお狭窄部位より口側は幾分拡張気味であった。このような著明な狭窄像にも拘らず、前述の如く

嚥下障害は全く訴えなかった(図 4, 5)。

気管支造影所見：

正面像で気管は、その中央付近より気管分岐部付近迄狭窄があり、特にその右壁に変化が強くみられ、第 4 胸椎付近を頂点とする逆「く」の字型の狭窄像があったが、これは気管外、特にその右外側に存在する何ものかにより圧迫された変形と思われた。また気管分岐部付近の左右気管支への造影剤の流入は、正常気管

(図5)

支への流入態度と異なり、その付近の外部からの圧迫の程度及び方向に応じた流入速度、及びレリーフ像を示した(図6)。また左右上気管支幹は右側は異常に広く、左側は幾分歪んでそれぞれの左右径の比は約3:1であった。著明な狭窄、拡張、変形所見がみられたにも拘らず造影剤ののりもよく、これからは悪性所見は考えられなかった(図7)。

気管支ファイバースコピー所見:

(図6)

気管は声門下腔より気管上部にかけて膜様部の膨隆及び右外側よりの圧迫所見があり(図8)、中部では右前方よりの圧迫像となり(図9)、下部に至るに従い内腔の変化は増強し、気管分岐部直上では前後径の短縮が最も著しく(図10)、気管分岐部より右上葉分岐部迄の右主気管支は、前後より圧迫されていた。気管支、気管支幹の変形にも拘らず右上葉枝は3枝共狭窄がみられず、分岐角がゆるやかで容易にそれぞれの内腔を観察し得た。上葉を分岐した後の右気管支幹は前後より圧迫され、前後径対左右径の比は約1:10となっていた(図11)。右中下葉分岐部付近に至ると狭窄は急激に減少し中葉壁が多少浮腫状となり、粘稠分泌物が貯溜していたが、下葉枝は殆んど正常であった(図12)。左主気管支は右前方より圧迫された形となっており、左側壁及び膜様部はほぼ正常で分岐部より左上下葉分岐部迄の気管支幹の内腔の横断面は、丁度右側をクリップで狭み、左にゆるやかな弧を描く紡錘形となっていた(図13)。左上下葉分岐部付近にはゼリー様の粘稠分泌物が付着していたが、上葉支、下葉支共に殆んど正常であった。内腔の広範囲に亘る変形にも拘らず、浮腫、充血、分泌亢進など軽度であった他、易出血性、浸潤、腫瘤等の悪性像はみられなかった。念のため気管分岐部付近の充血、浮腫の強かった部分より行った擦過細胞診は、パパニコロークラスIであった。以上

(図7)

(図8)
声門下腔

(図9)
気管中央

の諸検査より縦隔洞腫瘍の疑い以外に大動脈の異常も考えられたので大動脈造影を行った。

大動脈造影：

右大腿動脈より逆行性に行った大動脈造影では上行大動脈は気管及び食道の右側と右主気管支の前方を越え、次いで弓部はこれらの後方を走行し、その左側に出てから下行大動脈となり、再び食道及び気管の背側を通った後、胸椎の右側を下行し横隔膜付近ではまた

胸椎の左側に移動していた(図14)。

本検査により動脈管索の存在は確認されなかったが、右大動脈弓に属する食道後部大動脈弓、左背側大動脈弓根部遺残による大動脈憩室及びそれより起始する左鎖骨下動脈が明らかとなり、それらが気管、気管分岐部付近の右気管支及び気管をつつむように走行していることがわかり、右側食道後部大動脈弓(Right retro-esophageal aortic arch)と診断された。

(図10)
カリーナ直上

(図13)
左上気管支幹

(図11)
右気管支幹及び右上葉枝口

(図12)
右中下葉枝

考 案：

大動脈弓の先天性奇型としては重複大動脈弓、右側大動脈弓、異型鎖骨下動脈、大動脈憩室¹⁾²⁾³⁾⁴⁾などがあり、本邦では1946年益子らの1例に始まり、石川らの30例⁵⁾及び池田らの2症例⁶⁾⁷⁾が報告されている。

本例は左側第IV弓が発生過程で退化吸収されたため、右側の第IV弓及び背部大動脈を介して上行大動脈、大動脈弓部、胸腔内下行大動脈が食道及び気管をとり囲むように、血管輪を形成した⁸⁾。右側食道後部大動脈弓の症例であり、内外の文献にも見られる如く多くは無自覚であり、また縦隔洞腫瘍の疑いがもたれたり、誤診されたりすることも多い。そしてそれらの報告は主としてX線診断に関する記載があるが、中には気管、気管支の圧迫¹⁰⁾¹¹⁾や、鎖骨下動脈瘤の破綻を伴ったもの¹²⁾や、大動脈弓の先天性奇型の血管造影に関する研究や手術例、大動脈の先天性奇型の合併についての統計的報告等である¹³⁾¹⁴⁾。

また気管、食道の著しい圧迫症状を呈したものについて、気管内所見を含めての詳細な報告¹⁵⁾があるが、本例のように気管、食道の圧迫症状がなく、縦隔洞腫瘍の疑いのもとにファイバースコープを用いて圧迫部分を越えた末梢までを詳らかに観察したものはない。

気管支鏡的に鑑別を要する気道狭窄を来すものとしては、甲状腺、胸腺の腫大圧迫によるもの、縦隔洞腫瘍として奇型腫、胸腺腫、神経性腫瘍、リンパ性腫瘍、食道癌など、気管、気管支壁の炎症性肥厚、壁浸潤型、腫瘤型及び外圧型などの悪性腫瘍、陳旧性肺、肋膜病巣による気管、気管支のねじれ、外傷、手術に

(図14)

(pt=B.N.54yr old M)

RETRO-ESOPHAGEAL AORTIC ARCH

よる同上変化, 陳旧性埋没気道異物, 喘息, 枯草熱等のアレルギー変化, 放射線深部治療による狭窄などがあげられる。

これらの鑑別点としては易出血性を含めての気管, 気管支内腔の悪性変化及び炎症性変化の有無, 内径の変化及びその広がり, 程度, 充血, 分泌過多, タテジワ, ヨコジワ, 壁の硬さ, 肉芽, 拡大腺窩, 瘢痕, 萎縮性変化などの付随症状の有無及び経ファイバースコープによる細菌学的, 細胞学的所見等があげられる。

本例のように内腔の変化のわりには気管, 気管支壁に悪性所見がなく, 右中葉支口の白色粘稠分泌物貯溜の他は, 気道全般に炎症性所見もみられなかったことと, 気管分岐部を中心として, 気管下部及び左右主気管支の上中気管支幹に局限して, 強度の内径の変化が存在し, しかもそれが気管, 気管支をとり囲むように外から圧迫していたことから, 気管分岐部付近に密着してそれを連続的に圧迫する良性の腫瘍, つまり大動脈の異常走行が想像された。前述の如く気道内腔を変化させる疾患は数多くあり, 血管神経原性のものは比較的稀とされており, 鑑別診断の順位としてはおろそかにされやすい。

しかしながら稀ではあるが, ファイバースコーピストにとって時としては, 鑑別診断上重要な意味をもつということを銘記させられた極めて貴重な症例と言える。

(図15)

う。なおフレキシブル・ファイバー・ブロンコスコープでみられた各部の狭窄所見を局所解剖学的に理解するために(図15)は, 極めて役立つと思われるので Knight L. et al. の文献中より引用した。これにより本例の気管, 気管支及び食道の圧迫部位と程度, 気管支, 食道造影とフレキシブル・ファイバー・ブロンコスコープとの相関々係も比較的容易に把握し得よう。また胸部X線所見及び造影所見で気道狭窄が著明であったにも拘らず, 自覚症として何等狭窄症状の訴えもなく, 肺機能検査でも拘束性障害も閉塞性障害もなかったが, その後咳嗽, 喀痰の増強, 悪寒, 発熱, 呼吸

(図16)

困難を伴って発症, 入院加療を余儀なくされた右中葉の気管支肺炎(図16)と右上気管支幹狭窄との関連は否定し得ないものと思われた。

本疾患の合併症として気道圧迫による呼吸器感染及び換気障害の発症, 食道圧迫による嚥下障害の発症及び動脈硬化を生じた場合の縦隔臓器, 神経等との相互圧迫による続発症の増強などがあるが, 本例もそれらを念頭において目下経過観察中である。

結 語:

縦隔洞腫瘍の疑いをもたれた先天性大動脈弓部奇型としては極めて稀な食道後部大動脈弓の一例を, 気管, 気管支の狭窄を来す各種疾患を考慮に入れつつ, 鑑別診断の意味で気管食道科学的観察を行い, 特にフレキシブル・ファイバースコピにより内腔の変化を詳細に観察記録し, この右側上気管支幹の強度狭窄が同側の気管支肺炎の併発と深い関係があると思われた一例を報告した。

参 考 文 献

- 1) Barry, A.: The aortic arch derivatives in the human adult, *Anat. Record*, 111: 221-238, 1951.
- 2) Wheeler, P.C. et al.: The left aortic diverticulum as a component of a constricting vascular

ring, report of two neonatal cases, *Am. J. Roentgenology*, 89: 989-994, 1963.

- 3) Herbert, W.H. et al.: Anomalous origin of left pulmonary artery from ascending aorta and right patent ductus arteriosus, *CHET*, 63: 459-461, 1973.
- 4) Garti, I.J. et al.: Right aortic arch with mirror-image branching causing vascular ring. A new classification of the right aortic arch patterns, *British J. Radiology*, 46: 115-119, 1973.
- 5) 石川徹他: 右側大動脈弓30例のX線学的考察, *臨床放射線*, 15: 30-43, 1970.
- 6) 池田晃治他: 大動脈弓部奇形31例の臨床知見, *外科診療*, 965-973, 1973.
- 7) 池田晃治他: 背部大動脈根部遺残による大動脈弓部異常症2例の検討, *心臓*, 3: 1339-1346, 1971.
- 8) Felson, B., et al.: The two types of right aortic arch, *Radiology*, 81: 745-759, 1963.
- 9) Barson, M.G.: Right aortic arch, *Circulation*, XLIV: 1137-1145, 1971.
- 10) Dupon, H. et al.: Détresse respiratoire par anomalie des arcs aortiques chez le nouveau-né, *Arch. Fr. pediatr.*, 29: 557-558, 1972.
- 11) Murphy, D.R. et al.: Tracheobronchial compression due to a vascular sling, *Surg. Gynec. & Obstetrics*, 572-578, 1964.
- 12) Dikman, S.H. et al.: Right aortic arch with ruptured aneurysm of anomalous left subclavian artery, *Am. J. Cardiology*, 34: 245-249, 1974.
- 13) Lanfranchi, J. et al., Les anomalies congenitales des arcs aortiques, *Etude angiographique*, *Arch. Mal. du Coeur*, 63: 868-895, 1970.
- 14) Mathew R. et al.: The significance of right aortic arch in D-transposition of the great arteries, *Am. Heart J.* 87: 314-317, 1974.
- 15) Rivier, A.: Compression oeso-trachéales par malformations artérielles, *Pract. oto-rhino-laryng.* 33: 93-109, 1971.
- 16) Knight, L. et al.: Right aortic arch, Types and associated cardiac anomalies, *Circulation*, 50: 1047-1051, 1974.

(別刷請求: 〒181 三鷹市新川6-20-2)
杏林大学医学部第一内科
加藤 秀雄

(投稿受付 1976年8月16日)