症例

肺動静脈瘻の3手術例

藤田保健衛生大学胸部外科，同短期大学専攻科*

服部良信	杉村修一郎	入山正
渡辺浩次*	根木浩路	山下満
杉村裕志	星野竜	山本徹
金子完		

Pulmonary Arteriovenous Fistula : A report of 3 cases

Yosihnobu HATTORI, Shuichiro SUGIMURA, Tadashi IRIYAMA,
Kouji WATANABE*, Kouji NEGI, Mitsuru YAMASHITA,
Hiroshi SUGIMURA, Ryou HOSHINO, Tooru YAMAMOTO
and Kan KENeko

*Department of Thoracic Surgery, Fujita Health University School of Medicine,
Fujita Health University College*.*

当科で手術を施行した3例の肺動静脈瘻を考察を加えて報告する。症例1は33歳の男性で、発熱で入院。心尖部で心雑音を聴取し、胸部X線写真で左下肺野に異常陰影を認めた。肺動脈造影で、左S⁶の肺動静脈瘻と診断し、舌区部分切除術を施行した。症例2は41歳の女性で、右片麻痺のため入院。脳梗塞と診断され、右背部の血管性雑音と胸部X線写真で右下肺野に異常陰影を指摘された。IV-DSAで右S⁸の肺動静脈瘻と診断し、下葉切除術を施行した。症例3は52歳の女性で、労作時の呼吸困難のため入院。手指にチアノーゼを認め、右前胸部で血管性雑音を聴取した。Rendu-Osler-Weber病を合併していた。胸部X線写真で右下肺野に異常陰影を認め、IV-DSAやヘリカル3D-CT等で右S⁴とS⁸の肺動静脈瘻と診断し、中下葉切除術を施行した。切除した下葉の肺静脈の異常な拡張、壁の肥厚を認め、動静脈瘻の潜在的な存在の可能性が示唆された。

索引用語：肺動静脈瘻 (Pulmonary arteriovenous fistula), Rendu-Osler-Weber病 (Rendu-Osler-Weber disease), 外科治療 (Surgical treatment)

はじめに

肺動静脈瘻 (PAVF) は1897年Churtonによって初めて報告されて以来、比較的稀な疾患とされてきた。しかし、近年この疾患の報告例が増加している。当科で手術を施行したPAVFの3例を、文献的考察を加えて報告する。

症 例

症例1：33歳の男性で、既往歴・家族歴に特記すべき事はなかった。1985年7月発熱で某病院に入院した。心尖部の心雑音と胸部X線写真で左下肺野に異常陰影を指摘され、8月28日精査目的で当院呼吸器内科に転院した。入院時、心尖部で吸気に増強するLevin 2/6度の収縮期雑音を聴取した以外、理学的所見に異常は認めなかった。血

液検査で多血症を認めたが、生化学検査に異常は認めなかった。肺機能検査では%VC111%, FEV_{1.0}%77%, 動脈血ガス分析(ABGA)ではPCO₂40.6Torr, PO₂71.8Torr, 酸素飽和度94.5%であった(Table. 1)。気管支鏡検査では異常を認めなかった。肺動脈造影では、異常肺動脈が左肺門部からS⁵に至り、動静脈瘻を形成し、拡張した肺静脈となり左房に還流していた(Fig. 1)。左S⁵のPAVFと診断し、10月15日手術を施行した。異常血管を高位で結紮し、舌区部分切除術を施行した。

症例2：41歳の女性で、既往歴・家族歴に特記すべき事はなかった。1992年1月18日意識障害と右片麻痺のため某病院に入院し、脳梗塞と診断された。右背部の血管性雑音と胸部X線写真で右下肺野に異常陰影を指摘され、2月19日精査目的で当院呼吸器内科に転院した。入院時、右背部で血

管性雑音を聴取した以外、理学的所見に異常は認めなかった。胸部X線写真で右下肺野に異常陰影を認めた(Fig. 2)。血液検査では、末梢血、生化学検査に異常は認めなかった。肺機能検査では%VC110%, FEV_{1.0}%83%, ABGAではPCO₂36.9Torr, PO₂86.1Torr, 酸素飽和度95.4%であった(Table. 1)。気管支鏡検査では異常を認めなかった。胸部CTでは右S⁸に異常血管を認めた。IV-DSAでは右A₈が拡張し、動静脈瘻を形成し、拡張した肺静脈となり左房に還流していた(Fig. 2)。右S⁸のPAVFと診断し、10月15日下葉切除術を施行した。

症例3：52歳の女性で、家族歴には特記すべき事はなかった。小児期より易鼻出血があり、易疲労感のため運動は普通の人並みにはできなかった。数年前より労作時の呼吸困難が増強してきたため、精査目的で1996年10月某病院に入院した。胸部X線写真で右下肺野に異常陰影を認め、精査の結果右S⁴とS⁸のPAVFと診断された。Rendu-Osler-Weber病(ROWD)を合併していた。手術目的で当科に紹介され、1997年1月27日入院した。入院時、手指にチアノーゼとばち状指を認め、右前胸部で血管性雑音を聴取した。胸部X線写真で右中肺野と下肺野に異常陰影を認めた(Fig. 3)。血液検査で多血症を認めたが、生化学検査は異常を認めなかった。肺機能は%VC94%, FEV_{1.0}%83%で、動脈血ガス分析ではPCO₂34.8Torr, PO₂62.2Torr, 酸素飽和度91.6%であった(Table.

Table. 1 Laboratory findings on admission

	case 1	case 2	case 3
WBC (/μl)	4800	3200	4800
RBC (/μl)	511X10 ⁴	403X10 ⁴	545X10 ⁴
Hb (g/dl)	15.7	12.1	15.9
Ht (%)	45.8	36	40.1
Plt (/μl)	28.4X10 ⁴	17.5X10 ⁴	22.5X10 ⁴
Arterial blood gas analysis(room air)			
pH	7.406	7.45	7.384
PCO ₂ (Torr)	40.6	36.9	34.8
PO ₂ (Torr)	71.8	86.1	62.2
HCO ₃ (mMol/l)	25.5	25.6	20.7
BE (mMol/l)	1.3	2.5	-3.6
O ₂ Sat. (%)	94.5	95.4	91.6
Pulmonary function			
%VC (VC ml)	111% (4590)	110% (3210)	94% (2420)
FEV _{1.0} % (FEV _{1.0} ml)	77% (3390)	83% (2700)	83% (2450)
MMF (l/sec)	2.65	2.95	2.39
FRC (ml)	2910	2290	2450
RV (ml)	1240	1240	1530

Fig. 1 Left pulmonary angiogram showing a pulmonary arteriovenous fistula (arrow) in case 1.

Fig. 2 Plain chest X-ray (left) showing an abnormal shadow (arrow) in the right lower lung field and pulmonary digital subtraction angiogram (right) demonstrating a pulmonary arteriovenous fistula (arrow) in case 2.

1)。IV-DSAでは右A4とA8が拡張し、動静脈瘻を形成し、拡張した肺静脈となり左房に還流していた (Fig. 3)。胸部CT (Fig. 4) とヘリカル3D-CT (Fig. 5) では右S⁴とS⁸にPAVFを認めた。2月3日中下葉切除術を施行した。切除した下葉

では、動静脈瘻以外の部位の肺静脈が異常に拡張し、壁は肥厚して、肺動脈壁の偏在性肥厚も認めた。

考 察

肺動静脈瘻は大半が先天性の血管異常が原因と考えられる肺内の動静脈の短絡であり、近年この疾患に対する関心の高まりと診断能の向上により、その報告例が増加している。PAVFの男女の発生頻度は、報告により必ずしも一定していない¹⁻⁴⁾。好発年齢は、10歳代次いで20歳代が^{3,4)}、50歳代次いで10歳代⁵⁾が多いと報告されている。

PAVFは過半数が単発性である^{1,4,6)} (Table. 2) が、多発性のものはROWDを合併する事が多いと報告されている⁶⁾。またPAVFにROWDを合併する頻度は欧米では47-62%^{2,6)}であり、本邦では従来3-12%^{3,4)}とされていたが、川村ら¹⁾は41%と報告し、欧米と差はないようである。PAVFの発生部位は右下葉が最も多く、次いで右上葉、左上葉であった^{4,6,7)} (Table. 3)。

PAVFの臨床症状には、労作時呼吸困難、ばち状指、チアノーゼなどがあり、合併症として胸腔内破裂、咯血、脳梗塞、脳膿瘍、失神発作などが報告されている^{4,8)}。しかし、半数以上は無症状で検診などで発見されている^{1,5,9,10)}。

Fig. 3 Plain chest X-ray (left) showing two abnormal shadows (arrows) in the right middle and lower lung fields and pulmonary digital subtraction angiogram (right) demonstrating two pulmonary arteriovenous fistulas (arrows) in case 3.

Fig. 4 Chest CT demonstrating two pulmonary arteriovenous fistulas (arrows) in case 3.

Fig. 5 Helical 3D-CT demonstrating two pulmonary arteriovenous fistulas (arrows) in case 3.

Table. 2 Number of pulmonary arteriovenous fistula

	Bosher 6)	Saitou 4)	Kawamura 1)
single	212 (61%)	110 (58%)	46 (53%)
multiple	117 (33%)	57 (30%)	41 (47%)
unilateral	50 (14%)	24 (13%)	10 (12%)
bilateral	50 (14%)	33 (17%)	31 (36%)
unknown	21 (6%)	23 (12%)	
total cases	350	190	87

Table 3 Location of polmonary arteriovenous fistula

	Bosher 6)	Moyer 7)	Saitou 1)
right upper lobe	17 (9%)	23 (8%)	17 (11%)
right middle lobe	34 (17%)	50 (18%)	30 (20%)
right lower lobe	50 (26%)	96 (34%)	53 (35%)
left upper lobe	36 (19%)	50 (18%)	23 (15%)
left lower lobe	56 (29%)	67 (23%)	29 (19%)
total cases	193	286	152

PAVFは、経過観察中の死亡率が11-25%と報告^{2,11)}とされており、たとえ無症状であっても前述の合併症の危険があるので、積極的な治療が必要である。ただし、PAVFに肺高血圧を合併する症例¹²⁾には、慎重に手術適応を検討しなければならない。PAVFに対する外科療法は、従来は肺葉切除が最も多かった^{1,4,6,12)}、近年では肺を温存する目的で部分切除や核出術¹⁴⁾などが選択されるようになってきた。瘻が末梢で比較的小さいものには、胸腔鏡下の部分切除術も報告されている¹⁵⁾。さらにカテーテルによる塞栓術も報告されている¹⁶⁾が、大循環系への塞栓症の危険や、瘻が大きい場合には確実性にかかることなどがあり、必ずしも良い方法とは考えられない。症例3では、動静脈瘻以外の肺静脈の壁の肥厚を伴う異常な拡張がみられたことより、動静脈瘻の潜在的な存在の可能性が示唆され、また肺高血圧を伴う症例では手術後に肺高血圧が悪化したり¹⁷⁾、残存肺にPAVFが発生した¹⁸⁾との報告もあり、特にROWDを合併する場合には、十分な術後の経過観察が必要であると考ええる。

参考文献

- 川村光夫, 高橋保博, 坂田勇司他: オスラー病を合併した肺動静脈瘻とHLA抗原. 日胸外会誌 42: 492-498, 1994
- Muri JW: Arteriovenous Aneurysm of the Lung. Am J Surg 89: 265-271, 1955
- 伊藤 進, 長谷川英之, 後藤隆人他: 肺動静脈瘻の1例と本邦66例の臨床的検討. 日臨外医会誌 39: 75-82, 1978
- 斉藤道顕, 戸田 央, 小野田万丈他: 肺動静脈瘻の臨床的検討. 日臨外医会誌 44: 1147-1152, 1983
- 郡 良文, 須磨幸蔵, 城間賢二他: 最近2年間に経験した肺動静脈瘻の4例. 胸部外科 40: 389-396, 1987
- Bosher LH, Blake DA, Byrd BR: An analysis of the pathologic anatomy of pulmonary arteriovenous aneurysms with particular reference to the applicability of local excision. Surgery 45: 91-104, 1959
- Moyer JH, Glantz G, Brest AN: Pulmonary Arteriovenous Fistulas Physiologic and Clinical Considerations. Am J Med 32: 417-435, 1962
- Burke CM, Safai C, Nelson DP, et al: Pulmonary Atriovenous Malformations: A Critical Update. Am Rev Dis 134: 334-339 1986
- 宇高徹総, 青江 基, 森山重治他: 肺動静脈瘻11例の治験例. 胸部外科 48: 389-393, 1995
- 佐々木隆志, 原 信之, 一瀬幸人他: 肺動静脈瘻8例の検討. 日胸臨 48: 580-585, 1989
- Dines D, Arms RA, Bernatz PE: Pulmonary Atriovenous Fistulas. Mayo Clin Proc 49: 460-465, 1974
- Sperling DC, Vheitlin M, Sullivan RW, et al: Pulmonary Atriovenous Fistulas with Pulmonary Hypertension. CHEST 71: 753-757, 1977
- Dines D, Seward JB, Bernatz PE: Pulmonary Atriovenous Fistulas. Mayo Clin Proc 58: 176-181, 1983
- 松村公人, 沢田勤也, 福岡誠吾他: Parker氏核出術による肺動静脈瘻の1治験例. 日胸外会誌 32: 102-109, 1984
- Minami M, Fujii Y, Mizuta T, et al: Video-assisted thoracoscopic local excision of pulmonary arteriovenous fistula. J Thorac Cardiovasc Surg 112: 1395-1397, 1996
- Taylor BG, Cockerill EM, Manfredi F, et al: Therapeutic Embolization of the pulmonary Artery in Pulmonary Arteriovenous Fistula. Am J Med 64: 360-365, 1978
- Rodan BA, Godwin JD, Chen JTT, et al: Worsening Pulmonary Hypertension After Resection of Arteriovenous Fistula. AJR 137: 864-866, 1981
- 伴場次郎, 友安 浩, 谷村繁雄他: 肺動静脈瘻に対する手術療法の検討. 胸部外科 37: 370-375, 1985