肺動静脈瘻を伴った僧帽弁狭窄症の治療

和田 朋之 葉玉 哲生* 森 義 顕 重 光 修
宮 本 伸 二 迫 秀 則* 吉 松 俊 英* 内 田 雄 三
森 宣** 清 末 一 路**

55歳女性で、両側肺動静脈瘻に僧帽弁狭窄症を合併した比較的珍しい症例を経験した。肺高血圧を認めず手術適応と考え、肺動静脈瘻に対してまず経カテーテル塞栓療法を施行した。その約2か月後に人工弁による僧帽弁置換術を施行し、良好な成績が得られた。心疾患を合併した肺動静脈瘻に対しては手術療法と塞栓療法の併用が有効だと思われる。日心外会誌 25 巻 4 号：271-274 (1996)

Keywords：肺動静脈瘻，僧帽弁狭窄症，経カテーテル塞栓療法，僧帽弁置換術

A Case of Mitral Stenosis Associated with Pulmonary Arteriovenous Fistula

Tomoyuki Wada, Tetsuo Hadama*, Yoshiaki Mori, Osamu Shigemitsu, Shinji Miyamoto, Hidenori Sako*, Toshihide Yoshimatsu*, Yuzo Uchida, Hiromu Mori**, Hiro Kiyosue** (Department of Surgery II, Cardiovascular Surgery* and Radiology**, Oita Medical University, Oita, Japan)

We present a rare case of mitral stenosis with bilateral pulmonary arteriovenous fistulae (PAVF). A 55-year-old female who complained of dyspnea did not have pulmonary hypertension. She underwent successfully mitral valve replacement with an artificial valve 2 months after transcatheter coil embolization for PAVF. The combination with mitral valve replacement and transcatheter embolization is regarded as a useful procedure for mitral valve disease associated with PAVF. Jpn. J. Cardiovasc. Surg. 25: 271-274 (1996)

肺動静脈瘻(以下 PAVF)は、1897 年 Churton¹⁾により初めて報告されて以来、その報告は数を増してきており、PAVF の外科治療の報告も増加している。しかし、心疾患を合併した PAVF の報告は少なく、未だその治療成績は良好とはいえない²⁾。近年 PAVF に対し経カテーテル塞栓療法が施行されるようになってきており良好な成績を得ている³⁾。最近われわれは僧帽弁狭窄症に PAVF を合併した症例に対し、塞栓療法施行後に僧帽弁置換術を行い良好な成績を得たので、若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

患者：55 歳，女性。

主訴：呼吸困難。

既往歴：1994 年 5 月，脳梗塞。

家族歴：特記事項なし。

現病歴：1990 年ごろから労作時呼吸困難を自覚していたが放置していた。1993 年 4 月ごろより、咳嗽が継続するため近医を受診した。僧帽弁狭窄症と診断され、以後外来通院していた。1994 年 5 月，言語障害が出現し脳梗塞と診断され、僧帽弁狭窄症の手術目的で当科に紹介された。

入院時現症：口唇，爪床にチアノーゼを認めた。胸骨左縁第 4 肋間に拡張期ランブル，右下肺野に背側から連続性雑音を聴取した。動脈血ガス分析所見は PaO₂ が 56.4 mmHg，PaCO₂ が 33.5 mmHg，SaO₂ が 90.7%と低酸素血症を認めた。

入院時検査所見：血液一般検査では白血球数 4700，赤血球数 438 万，Hb 11.2 g/dl，Ht 36.8%，血小板数 25 万で，生化学検査では LDH が 478 IU/l とやや高値である以外に異常は認めなかった。胸部単純 X 線所見上，左下肺野に心陰影に重なる直径約 2 cm の腫瘍陰影を認めた(図 1)。超音波検査で，僧帽弁弁尖の肥厚と中等度の僧帽弁逆

1995 年 3 月 14 日受付，1995 年 10 月 9 日採用
大分医科大学第 2 外科，*心臓血管外科，**放射線医学教室
〒 879-55 大分県大分郡狭間町医大ヶ丘 1-1

図1 胸部X線写真
左下肺野に矢印のごとく、異常陰影を認める。

図2 胸部CT

流を認めた。DDRは低下し、僧帽弁弁口面積は 0.96 cm^2 と低下、圧較差は 12.7 mmHg であった。胸部CT所見では、左肺S6区域、右肺S4区域に拡張蛇行した血管陰影を認め、左房の拡張も認めた(図2)。右心カテーテル検査で、中心静脈圧は 6 mmHg 、肺動脈圧は $25/11$ (平均 17) mmHg 、肺動脈楔入圧は 13 mmHg 、心係数は 2.46 l/min/m^2 であった。肺動脈造影所見上、左A10、右A6より輸入動脈をもつPAVFを認めた。左はかなり太い輸出動脈も認められた(図3)。

肺動脈塞栓術：1994年8月、金属コイルによるPAVF塞栓術を施行した。塞栓術施行後の血管造影ではPAVFは完全閉塞しており、動脈血ガス分析の結果、 PaO_2 は 93.7 mmHg 、 PaCO_2 は 44.3 mmHg 、 SaO_2 は 97.5% と著明に改善した。また塞栓術後の右心カテーテル検査で中心静脈圧は 9 mmHg 、肺動脈圧は $25/10$ (平均 17) mmHg 、肺動脈楔入圧は 11 mmHg 、心係数は 2.2 l/min/m^2 であった。

手術所見：1994年10月、僧帽弁置換術を施行した。弁尖は肥厚し交連部が癒合していたため交連切開術を試みたが、僧帽弁逆流が改善せず、 25 mm のMedtronic Hall®弁を用いて置換した。拡張血管が同一視野で確認できれば、塞栓を確実にするために結紮することも考慮していたが、

図3 肺動静脈造影
両側肺動静脈瘻を認める。

PAVF自体を確認することはできなかった。

術後経過：ICU入室時、肺動脈圧は $29/13$ (平均 20) mmHg 、肺動脈楔入圧は 14 mmHg 、心係数は 2.03 l/min/m^2 であった。術後1か月目のカテーテル検査では、肺動脈圧は $30/13$ (平均 20) mmHg 、肺動脈楔入圧は 13 mmHg 、心係数は 2.03 l/min/m^2 で、以後良好な経過をとって退院した。

考 察

PAVF は胎生期の毛細血管形成不全のため肺毛細血管が欠如し、代わりに肺動静脈間を短絡する血行路が残存する先天性疾患であるといわれている⁴⁾。放置すれば拡張した肺静脈が破裂し、血胸、大量咯血など生命に危険を及ぼす可能性があるため、発見されれば治療の適応を検討されなければならない。

本疾患は主として外科治療の適応とされてきたが、心疾患を合併した症例に対しては必ずしもその成績は良好であるとはいえない。手術療法には瘻結紮術、瘻核出術、瘻を含めた肺部分切除もしくは肺葉切除などがあげられるが、肺組織切除による呼吸予備能の低下や、瘻閉鎖による肺動脈圧の上昇は、いずれも心臓手術にとって好ましいものではない。肺高血圧のある PAVF は手術が困難、もしくは禁忌であるとする報告者^{2,4,5)}が多い。本邦でも、肺高血圧合併例においては良好な成績がえられていない。野尻ら⁶⁾は平均肺高血圧を中等度以上、軽度、高血圧なしの3段階に分け、中等度以上は手術禁忌であり、軽度の症例は肺高血圧の原因疾患の修復が行えれば、左房負加を軽減でき瘻切除も同時に施行できるとしている。手術施行後の死亡例はすべて致死的な右心不全によるものであるが、成功例において平均肺動脈圧がどれくらい変化したかについては、詳細な報告がない。

最近では経静脈カテーテルによる PAVF 塞栓術が施行されるようになってきており、良好な成績が報告されている^{3,7)}。塞栓物質としては金属コイルと離脱式バルーンが代表的であるが、それぞれに長所、短所がありその選択にはまだ確立された見解はない。共通の問題点として、完全な塞栓が行えない場合、塞栓術に起因した血栓の遊離が致命的な結果を招きかねないが、成功すれば肺機能が最大限に温存できる利点がある。

心疾患を合併した PAVF の治療は 1959 年 Le Roux ら⁴⁾による最初の報告、および自験例を含めて、われわれの知りえた限りでは 16 例の報告がみられるにすぎない。そのうち僧帽弁狭窄症の合併が 11 例と過半数を占めている^{8~12)}。自験例も、

僧帽弁狭窄症に両側 PAVF を合併した特殊な症例であったが、僧帽弁閉鎖不全症を伴い、肺高血圧を認めなかったため手術の適応と考えた。肺に直接侵襲を加えることによる残存肺機能障害を考慮し、まず経カテーテル塞栓術を採用した。さらに PAVF が閉塞したのを確認した後、僧帽弁置換術を施行した。塞栓術後にある程度の肺動脈圧の上昇を予測していたが、予想に反して大きな変化は認められなかった。これは塞栓術によって必要最小限の PAVF が閉塞でき、健常肺血管床を最大限に残すことができたことに関係していると思われる。また塞栓後に、Sapru ら¹³⁾による剖検例で示されたような肺血管の器質的変化が左房圧増加によって促進すると考えるならば、この時点で弁置換術を施行したのも合理的だと考えている。さらに PAVF が解剖学的に心臓手術との同時手術が困難な位置にあり、人工心肺による肺からの出血も考慮すれば、2 期的に手術するのが妥当と思われる。ここで当然ながら塞栓術の必要性も重要視される。

僧帽弁狭窄症合併 PAVF に対し、肺葉切除のみ、もしくは肺葉切除と弁置換術等の併用療法是報告されているが⁸⁾、塞栓術施行後に弁置換術を施行したという報告はない。人工弁に対する抗凝固療法とコイル塞栓術との関係においてまだ未知のものであるが、今後これらの点に十分に注意しつつ、経過観察してゆく必要があると思われる。

結 語

両側肺動静脈瘻に僧帽弁狭窄症を合併した珍しい症例に対し、経カテーテル塞栓術および僧帽弁置換術を併用し良好な成績がえられた。

文 献

- 1) Churton, T.: Multiple aneurysms of the pulmonary artery. Br. Med. J. 1: 1223, 1897.
- 2) 江石清行, 遠藤真弘, 林 久恵ほか: 僧帽弁狭窄症を伴った肺動静脈瘻の 1 治験例. 呼吸と循環 33: 1501-1505, 1985.
- 3) 野木村宏, 今泉 強, 富井明望ほか: 肺動静脈瘻に対する手術療法と離脱式バルーン塞栓療法の経験. 胸部外科 45: 595-597, 1992.
- 4) Le Roux, B. T.: Pulmonary arteriovenous fistula. Q. J. Med. 28: 1-19, 1959.

- 5) Sperling, D. C., Cheitlin, M., Sullivan, R. W. et al.: Pulmonary arteriovenous fistula with pulmonary hypertension. *Chest* **71**: 753-757, 1977.
- 6) 野尻知里, 坂田隆造, 西脇 登ほか: 心疾患に合併した肺動静脈瘻の手術とその問題点. *胸部外科* **34**: 284-288, 1981.
- 7) Grady, R. M., Sharkey, A. M. and Bridges, N. D.: Transcatheter coil embolization of a pulmonary arteriovenous malformation in a neonate. *Br. Heart J.* **71**: 370-371, 1994.
- 8) Lee, P. K., So, S. Y. and Chow, J. S. F.: An unusual cause of central cyanosis in a patient with rheumatic heart disease. *Thorax*. **41**: 333-334, 1986.
- 9) Chow, L. T., Chow, W. and Ma, K.: Progressive enlargement with replacement of the entire right middle lobe in a patient with concomitant mitral stenosis. *Med. J. Australia* **158**: 632-634, 1993.
- 10) 西田 宏, 田中 孝, 和田 汪ほか: 肺動静脈瘻を伴う部分肺静脈環流異常兼僧帽弁狭窄症の一手術経験. *胸部外科* **25**: 597-600, 1972.
- 11) Pinto, B. V., Mashru, M. R., Desai, A. G. et al.: Congenital pulmonary arteriovenous fistula with rheumatic mitral stenosis-a rare association. *Indian Heart J.* **38**: 473-475, 1986.
- 12) 内山貴堯, 南 寛之, 山下三千年ほか: 僧帽弁狭窄症を伴った肺動静脈瘻の 1 例. *日胸外会誌* **37**: 1396-1399, 1989.
- 13) Sapru, P., Hutchinson, S. and Hall, I.: Pulmonary hypertension in patient with pulmonary arteriovenous fistulae. *Br. Heart J.* **31**: 559-569, 1969.