

●症 例

造影 CT により早期発見し未破裂のまま治療しえた Rasmussen 動脈瘤の 1 例

入来 豊久^{*,a} 森野英里子^a 高崎 仁^a 杉山 温人^a 小林 信之^a

要旨：34 歳男性。発熱，咳嗽，血痰，右胸痛を主訴に前医受診。肺結核の診断にて国立国際医療研究センター呼吸器内科紹介入院となった。入院後は抗結核薬の投与と対症療法によりすみやかに血痰は消失したが，胸部造影 CT を施行し，Rasmussen 動脈瘤の存在が判明したため未破裂のままコイルによる肺動脈塞栓術を施行することができた。本症例のように空洞を伴う肺結核患者に血痰・喀血がみられる場合は，まれな合併症である Rasmussen 動脈瘤も考慮し，胸部造影 CT を行う必要があると考えられた。

キーワード：Rasmussen 動脈瘤，肺結核，喀血，造影 CT，塞栓術

Rasmussen's aneurysm, Pulmonary tuberculosis, Hemoptysis,
Contrast-enhanced computed tomography, Embolization

緒 言

Rasmussen 動脈瘤は，肺動脈のびらんが原因で形成される結核性肺空洞内の仮性動脈瘤である¹⁾。近年では比較的まれな疾患となっているが，化学療法時代前は，その破裂は活動性肺結核患者の咯血死の重要な要因であった^{1)~5)}。

今回，我々は胸部造影 CT により早期に動脈瘤を発見し，未破裂のまま肺動脈塞栓術により治療しえた Rasmussen 動脈瘤の 1 例を経験したので，文献的考察を加えて報告する。

症 例

患者：34 歳，男性。

主訴：発熱，咳嗽，血痰，右胸痛。

既往歴：特記事項なし。

家族歴：特記事項なし。

生活歴：喫煙：20 本/日×15 年，飲酒：機会飲酒。

現病歴：3ヶ月前から増悪する咳嗽と 1 週間前からの発熱，血痰，右胸痛を主訴に 2010 年 9 月 21 日前医を受診した。胸部単純 X 線写真で右中肺野の空洞性病変，右下肺野の浸潤影を認め，喀痰抗酸菌塗抹陽性 (2+)，

TB-PCR 陽性であり，肺結核の診断にて 9 月 25 日国立国際医療研究センター呼吸器内科紹介入院となった。

入院時身体所見：身長 161.5 cm，体重 48.9 kg，BMI 18.7 kg/m²，体温 36.8℃，血圧 94/59 mmHg，脈拍 101 回/min・整，呼吸回数 18 回/min，酸素飽和度 96% (室内気)，頭頸部：眼瞼結膜に貧血あり，頸部リンパ節腫大なし，胸部：右胸部に coarse crackle を聴取，心音は整で雑音・過剰心音なし，腹部：平坦，軟，圧痛なし，腸蠕動音正常，肝・脾腫なし，神経学的に明らかな異常なし，四肢：ばち状指あり，浮腫なし。

入院時検査所見 (Table 1)：WBC 増多 (10,820/μl) と正球性貧血 (Hb 10.4 g/dl，MCV 81.0 fl)，肝胆道系酵素の上昇と低ナトリウム血症，CRP 上昇 (17.34 mg/dl) を認めた。

画像検査所見：胸部単純 X 線写真正面像 (Fig. 1A) では右上肺野，下肺野に浸潤影を認め，右第 2 弓は一部不鮮明化しており，右中肺野に空洞性病変，左中肺野に粒状影，結節影を認めた。側面像 (Fig. 1B) では右 S6 領域に空洞性病変，右中葉，下葉背側に浸潤影を認めた。胸部造影 CT 肺野条件 (Fig. 1C) では右中葉に気管支透亮像を伴う浸潤影，右下葉 S10 にも浸潤影を認めたが，縦隔条件 (Fig. 1D) では右 S10 に空洞性病変を認め，内部に液体貯留と，10 mm 大の造影される円形の領域がみられた。同部は肺動脈と連続しており，肺動脈の仮性瘤形成の所見であり Rasmussen 動脈瘤と診断した。

入院後の経過：入院後は，イソニアジド (isoniazid：INH)，リファンピシン (rifampicin：RFP)，エタンブトール (ethambutol：EB) の抗結核薬 3 剤による治療を開始し，入院時に認めていた肝機能障害は速やかに改善し

連絡先：入来 豊久

〒860-0811 熊本市中央区本荘 5-16-10

*現所属：熊本地域医療センター呼吸器科

^a独立行政法人国立国際医療研究センター呼吸器内科
(E-mail: toyo_iriki1231@hotmail.com)

(Received 24 Nov 2011/Accepted 7 Feb 2012)

Table 1 Laboratory data on admission

Hematology		Biochemistry		Sputum
WBC	10,820/ μ l	Alb	2.2 g/dl	Smear (2+)
Neu	67%	BUN	10.6 mg/dl	TB-PCR (+)
Lymph	24%	Cr	0.65 mg/dl	
Mono	6%	UA	3.6 mg/dl	
Eosino	1%	T-Bil	0.4 mg/dl	
Baso	0%	AST	116 IU/L	
RBC	3.93×10^6 / μ l	ALT	100 IU/L	
Hb	10.4 g/dl	LDH	387 IU/L	
Ht	32.3%	ALP	881 IU/L	
MCV	81.0 fl	γ -GTP	180 IU/L	
Plt	30.5×10^4 / μ l	Na	128 mEq/L	
		K	4.2 mEq/L	
		Cl	93 mEq/L	
		CRP	17.34 mg/dl	
		Glu	108 mg/dl	
		HbA1c (JDS)	5.7%	

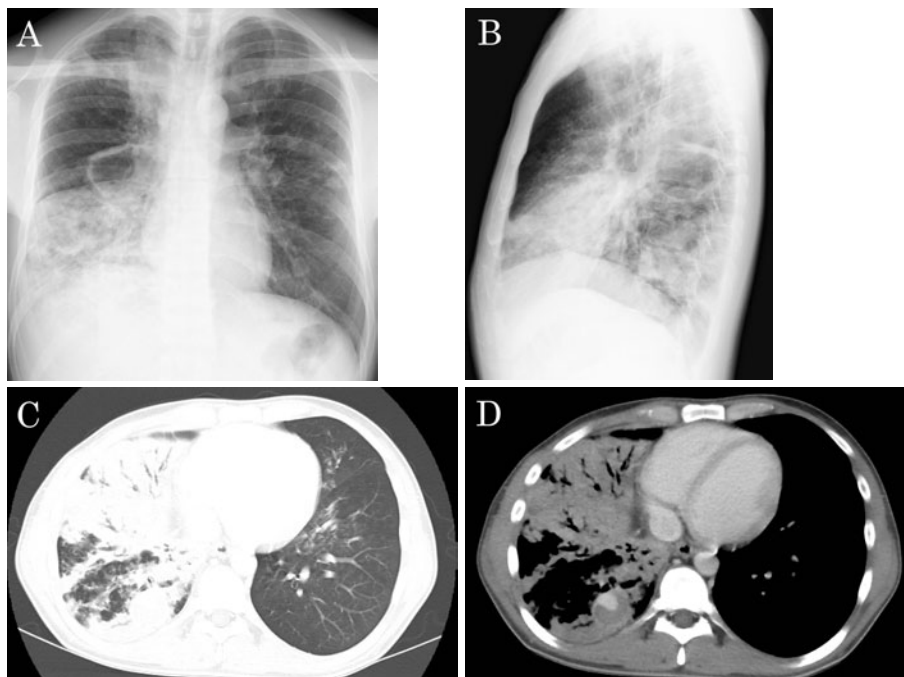


Fig. 1 (A, B) Chest radiograph on admission shows consolidation in the right upper and lower lung fields, a cavity in the right middle lung field, and a nodular shadow in the left middle lung field. (C, D) Contrast-enhanced chest computed tomography on admission shows a 10 mm pseudoaneurysm in the tuberculous cavity within the consolidative right lower lobe.

たため入院前に処方されていたセフカペンピボキシル (cefcape pivoxil : CFPN-PI) による混合型の薬物性肝障害が原因であったと考え、ピラジナミド (pyrazinamide : PZA) を追加し、計4剤とした。それに加え、鎮咳薬、止血剤の投与を行い、血痰は治まっていたが、第13病日に施行した胸部造影CT (Fig. 2) で動脈瘤は増大しており、破裂による咯血のリスクが高いと考え肺

動脈塞栓術の適応と判断した。第19病日に気管支動脈および肋間動脈から動脈瘤へ血流の供給がないことを確認のうえ、右肺動脈造影を施行した。右A10に約25 mm大の肺動脈瘤を認め、Rasmussen動脈瘤 (Fig. 3A) の所見と考えた。同部に対してコイルによる肺動脈塞栓術を施行した。塞栓直後の右肺動脈造影 (Fig. 3B) と第31病日に施行した胸部造影CT (Fig. 4) で肺動脈瘤

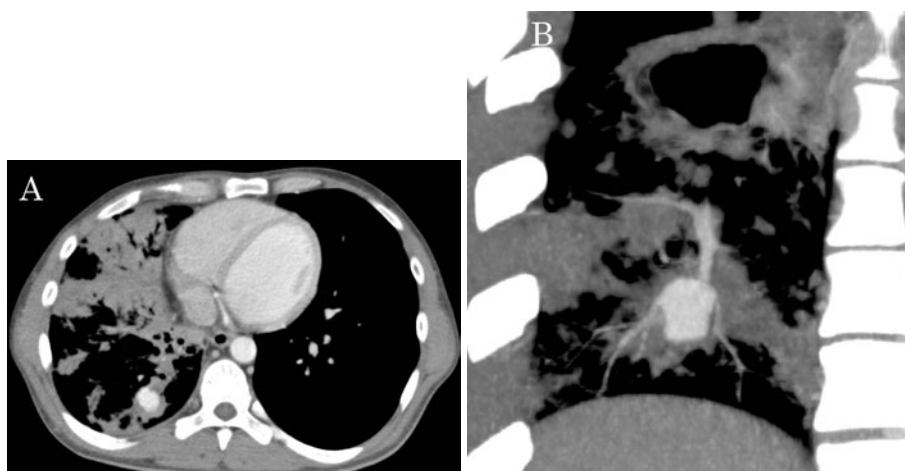


Fig. 2 (A) Contrast-enhanced chest computed tomography on the 13th hospital day shows an increase in the pseudoaneurysm's size. (B) Right anterior oblique (RAO).



Fig. 3 (A) A right pulmonary angiogram demonstrates the Rasmussen's aneurysm arising from a branch of the right inferior pulmonary artery. (B) A postembolization angiogram demonstrates complete occlusion of the feeder artery and no filling of Rasmussen's aneurysm.

の描出を認めず、塞栓術が有効であったことを確認した。その後排菌の陰性化を認め、第108病日に退院した。

考 察

Rasmussen 動脈瘤は、肺動脈のびらんが原因で形成される結核性肺空洞内の仮性動脈瘤である¹⁾。1841年にFearnが咯血死した肺結核患者の剖検で結核性空洞内に破裂した肺動脈瘤を発見したと最初に報告している²⁾。1939年にAuerbachは、1,114例の慢性結核性空洞のある剖検患者の病理学的検討を行い、45例(4%)に肺動脈瘤を認め、結核性空洞に隣接する肺動脈の壁が脆弱化し、瘤を形成するまでの過程を詳細に示した³⁾。我が国では、1952年に星野が200例の結核死剖検例のうち9例(4.5%)で肺空洞壁動脈瘤を発見したとの報告がある³⁾。



Fig. 4 Contrast-enhanced chest computed tomography after embolization shows no pseudoaneurysm.

Table 2 Patients with Rasmussen's aneurysm in previous reports, and the present case

Report No.	Age/sex	Chief complaint	Location	Diagnostic image	Treatment of RA	Outcome	Other clinical features
1 ⁸⁾	50/M	hemoptysis	RUL	PA	BAE→PAE (coil)	improved	
2 ⁹⁾	61/M	comatose	RUL (1), LUL (2)	PA	Chemo only	death	multiple (3), AV fistulas (2)
3 ¹⁰⁾	40/M	hemoptysis	RUL (3)	PA	BAE→PAE (coil)	improved	multiple (3)
4 ¹¹⁾	24/M	hemoptysis	LUU (1), NR (2)	CECT, PA	BAE→PAE (coil)→Ope	improved	multiple (3)
5 ¹¹⁾	24/M	hemoptysis	NR	CECT, PA	BAE→PAE (coil)	improved	
6 ¹¹⁾	34/F	hemoptysis	NR	CECT, PA	BAE→PAE (coil)	improved	
7 ¹²⁾	50/M	hemoptysis	RLL	CECT, PA	Ope	death	
8 ¹³⁾	62/M	cough	LUL	CECT, PA	Chemo only	improved	
9 ¹³⁾	43/M	fever, cough	LLL	CECT	Chemo only	improved	
10 ¹⁴⁾	42/M	hemoptysis	RLL	CECT, PA	BAE→PAE (coil)	improved	
11 ¹⁴⁾	62/M	hemoptysis	LUL	CECT, PA	PAE (coil)	improved	
12 ¹⁵⁾	54/M	hemoptysis, CPA	LUL	PMCT, autopsy		death	
13 ¹⁶⁾	56/M	hemoptysis	LUL	CECT, PA	PAE (coil)	improved	
14 ¹⁷⁾	54/M	hemoptysis	RUL	CECT, PA	PAE→BAE	improved	
15 ¹⁸⁾	56/M	hemoptysis	RLL	CECT	(PAE)→PIT (thrombin)	improved	failed PAE
16 ¹⁸⁾	46/M	hemoptysis	RUL	CECT	(PAE)→PIT (NBCA)→Ope	improved	failed PAE, MDR-TB
17 ¹⁹⁾	40/M	hemoptysis, CPA	LLL	CECT, PA	PAE (glue)	death	
18 ²⁰⁾	47/F	hemoptysis, CPA	LUL	CECT, PA	(PAE)	death	failed PAE
Present case	34/M	hemoptysis	RLL	CECT, PA	PAE (coil)	improved	

RA, Rasmussen's aneurysm; M, male; F, female; CPA, cardiopulmonary arrest; RUL, right upper lobe; RML, right middle lobe; RLL, right lower lobe; LUL, left upper lobe; LLL, left lower lobe; PA, pulmonary angiography; CECT, contrast-enhanced computed tomography; PMCT, postmortem computed tomography; BAE, bronchial arterial embolization; PAE, pulmonary arterial embolization; Ope, operation; Chemo, chemotherapy (antituberculous drugs); PIT, percutaneous injection therapy; NBCA, *N*-butyl-cyanoacrylate; AV fistulas, arteriovenous fistulas; MDR-TB, multidrug resistant tuberculosis; NR, not recorded.

化学療法時代以前は、その破裂は肺結核患者の咯血死の重要な要因であったが^{1)~5)}、結核対策の進歩と1944年に発見されたストレプトマイシン (streptomycin : SM) に始まる強力な抗結核薬の登場により近年では比較的可成りな合併症となっている。活動性肺結核患者では、咯血はよくみられる症状であり、原因としては、気管支拡張した領域に供給される気管支動脈、肺動脈瘤 (Rasmussen 動脈瘤)、結核性空洞内に形成された fungus ball (アスペルギローマ)、あるいは、肺癌の合併などがある。咯血の原因のほとんどは気管支動脈を起源とするものであり⁶⁾、その他の体循環動脈 (non-bronchial systemic arteries : NBSAs) を起源とするものはより少ない。肺動脈を起源とする咯血の頻度は10%未満であるとの報告もあるが⁷⁾、Rasmussen 動脈瘤の破裂も大咯血をきたしうるので留意が必要である。

著者らが検索しえた範囲での Rasmussen 動脈瘤の症例報告18例と本症例の計19例に関して検討を行った (Table 2)^{8)~20)}。年齢は24~62歳 (平均46歳) で、男性が17例、女性が2例と圧倒的に男性が多かった。ほとんどの症例で咯血がみられた。発生部位は多発例も存在するが^{9)~11)}、右上葉7例、右中葉0例、右下葉4例、

左上葉8例、左下葉2例と肺結核の特徴と一致して上葉が多い傾向にあった。Rasmussen 動脈瘤は、時に fungus ball 様の陰影を呈しアスペルギローマとの鑑別が問題となることがあるが⁸⁾、小さく、斑状の浸潤影に囲まれているため一般的には胸部単純 X 線写真での評価は困難であり、胸部造影 CT は動脈瘤の位置と造影能を示し診断に有用である⁶⁾¹⁴⁾¹⁹⁾。また、肺動脈瘤の確認には、肺動脈造影が必要である²¹⁾。検討症例すべて造影 CT、あるいは肺動脈造影により診断されていた。肺結核は、肺動脈の仮性動脈瘤の唯一の原因ではなく、敗血症性肺塞栓症、胸部外傷、悪性腫瘍、あるいは Swan-Ganz カテーテルの合併症などによっても生じ、さまざまな治療法の報告がある。今回検討した Rasmussen 動脈瘤の症例のうち14例 (73.7%) で肺動脈塞栓術が施行され、そのうち10例 (71.4%) で塞栓に成功しており、その安全性と効果から治療の第一選択と考えられる。塞栓物質としては、①固形塞栓物質 (一時塞栓物質、永久塞栓物質)、②液体塞栓物質があり、膠などの一時塞栓物質、ヒストアクリル (*N*-butyl-cyanoacrylate : NBCA) などの液体塞栓物質を用いた報告例もあるが、検討症例では永久塞栓物質であるコイルによる塞栓術の報告が9例と最も多

かった。緊急性の高い血行動態の不安定な患者においては、膠による塞栓術のほうがコイル塞栓術より処置に時間がかからず有用であるとの意見もある¹⁹⁾。また、コイル塞栓術の不成功例では液体塞栓物質を用いた超音波下あるいは透視下での経皮的注入療法の報告もある¹⁸⁾。葉切除は、耐術能のある患者においては代替治療となりうるが²²⁾、血行動態の不安定な患者においては死亡率が高いため、血管内治療が第一選択となる⁶⁾¹⁹⁾。気管支動脈塞栓術後に咯血が持続し、肺動脈造影で Rasmussen 動脈瘤が判明する症例も多くみられる⁸⁾¹⁰⁾¹¹⁾¹⁴⁾。空洞性病変を伴う肺結核患者においては、気管支動脈塞栓術後も持続する咯血や気管支動脈とその他の体循環動脈の造影検査で異常血管が認められない場合、肺動脈造影まで行うべきである⁷⁾¹⁰⁾¹⁴⁾²³⁾。以前は主に死亡後の剖検で Rasmussen 動脈瘤と診断される症例が多かったが、医療者の Rasmussen 動脈瘤に対する認識と抗結核薬、画像診断の発達により、予後が改善してきていると考えられる。しかし、検索しえた Rasmussen 動脈瘤の症例報告のうち咯血による死亡例が 5 例 (26%) あり、見逃すと致死的となりうる肺結核の重要な合併症であることになりはならず、早期診断、早期治療が望まれる。

本症例では、抗結核薬の投与と対症療法のみですみやかに血痰が消失したが、胸部造影 CT により未破裂の Rasmussen 動脈瘤が判明した。血痰や咯血は肺結核の症状としてよく知られており、気管支拡張などでも生じうることから、血痰が軽度の場合は造影 CT を施行せずに経過観察される場合もある。しかし、破裂すれば致死的となりうる病態であることから、肺結核、特に空洞を有する患者の血痰・咯血の原因として Rasmussen 動脈瘤を念頭に置き積極的に造影 CT を施行する必要があると考えられる。

本稿の要旨は第 86 回日本結核病学会総会 (2011 年、東京) において発表した。

謝辞：本稿を終えるにあたり、本症例の血管造影、肺動脈塞栓術を施行していただいた国立国際医療研究センター放射線科 岡藤孝史先生、蓮尾金博先生に深謝いたします。

引用文献

- 1) Rasmussen V. On haemoptysis, especially when fatal, in its anatomical and clinical aspects. *Edinburgh Med J* 1868; 14: 385-401.
- 2) Fearn GW. Aneurysm of the pulmonary artery: letter to the editor. *Lancet* 1841; 1: 679.
- 3) Auerbach O. Pathology and pathogenesis of pulmonary arterial aneurysm in tuberculous cavities. *Am Rev Tuberc* 1939; 39: 99-115.
- 4) Plessinger VA, Jolly PN. Rasmussen's aneurysms

and fatal hemorrhage in pulmonary tuberculosis. *Am Rev Tuberc* 1949; 60: 589-603.

- 5) 星野日出男. 空洞壁動脈瘤の病理組織学的研究. *結核* 1952; 27: 419-22.
- 6) Remy J, Lamaitre L, Lafitte JJ, et al. Massive hemoptysis of pulmonary arterial origin: diagnosis and treatment. *Am J Roentgenol* 1984; 143: 963-9.
- 7) Khalil A, Parrot A, Nedelcu C, et al. Severe hemoptysis of pulmonary arterial origin: signs and role of multidetector row CT angiography. *Chest* 2008; 133: 212-9.
- 8) Remy J, Smith M, Lamaitre L, et al. Treatment of massive hemoptysis by occlusion of a Rasmussen aneurysm. *Am J Roentgenol* 1980; 135: 605-6.
- 9) Lundell C, Flink E. Arteriovenous fistulas originating from Rasmussen aneurysm. *Am J Roentgenol* 1983; 140: 687-8.
- 10) Santelli ED, Katzs DS, Goldschmidt AM, et al. Embolization of multiple Rasmussen aneurysms as a treatment of hemoptysis. *Radiology* 1994; 193: 396-8.
- 11) Sanyika C, Corr P, Royston D, et al. Pulmonary angiography and embolization for severe hemoptysis due to cavitary pulmonary tuberculosis. *Cardiovasc Intervent Radiol* 1999; 22: 457-60.
- 12) Patankar T, Prasad S, Deshmukh H, et al. Fatal hemoptysis caused by ruptured giant Rasmussen's aneurysm. *Am J Roentgenol* 2000; 174: 262-3.
- 13) Kim HY, Song KS, Goo FM, et al. Thoracic sequelae and complications of tuberculosis. *Radiographics* 2001; 21: 839-58.
- 14) Picard C, Parrot A, Boussaud V, et al. Massive hemoptysis due to Rasmussen aneurysm: detection with helicoidal CT angiography and successful steel coil embolization. *Intensive Care Med* 2003; 29: 1837-9.
- 15) Hamano J, Shiotani S, Yamazaki K, et al. Postmortem computed tomographic (PMCT) demonstration of fatal hemoptysis by pulmonary tuberculosis. *Radiat Med* 2004; 22: 120-2.
- 16) Jayet PY, Denys A, Zellweger JP, et al. Successful embolization of Rasmussen's aneurysm for severe haemoptysis. *Swiss Med Wkly* 2004; 134: 705-6.
- 17) van den Heuvel MM, van Rensburg JJ. Images in clinical medicine: Rasmussen's aneurysm. *N Engl J Med* 2006; 355: e17.
- 18) Lee K, Shin T, Choi J, et al. Percutaneous injection therapy for a peripheral pulmonary artery pseudoaneurysm after failed transcatheter coil embolization. *Cardiovasc Intervent Radiol* 2008; 31: 1038-41.
- 19) Keeling AN, Costello R, Lee MJ. Rasmussen's aneu-

- rysm: a forgotten entity? *Cardiovasc Intervent Radiol* 2008; 31: 196-200.
- 20) Shih SY, Tsai IC, Chang YT, et al. Fatal haemoptysis caused by a ruptured Rasmussen's aneurysm. *Thorax* 2011; 66: 553-4.
- 21) Cooper JP, Jackson J, Walker JM. False aneurysm of the pulmonary artery associated with cardiac catheterization. *Br Heart J* 1993; 69: 188-90.
- 22) Ungaro R, Saab S, Almond CH, et al. Solitary peripheral pulmonary artery aneurysms. *J Thorac Cardiovasc Surg* 1975; 71: 566-71.
- 23) 岡田宗正, 吉武記一, 松永尚文. 咯血に対する塞栓術. *臨放* 2006; 51: 1386-95.

Abstract

Contrast-enhanced chest computed tomography leads to early diagnosis and prompt treatment of unruptured Rasmussen's aneurysm

Toyohisa Iriki^{*,a}, Eriko Morino^a, Jin Takasaki^a, Haruhito Sugiyama^a and Nobuyuki Kobayashi^a

^{*}Division of Respiratory Diseases, Kumamoto Regional Medical Center

^aDepartment of Respiratory Medicine, National Center for Global Health and Medicine

A 34-year-old man was referred to our hospital after a diagnosis of pulmonary tuberculosis with complaints of fever, cough, hemoptum, and right chest pain. Admission contrast-enhanced chest computed tomography revealed a Rasmussen's aneurysm. He was treated with antituberculous drugs for pulmonary tuberculosis. On the 13th hospital day, the aneurysm increased in size. He underwent successful coil embolization of the unruptured pulmonary artery aneurysm and its feeding vessel. A Rasmussen's aneurysm is a rare complication of pulmonary tuberculosis. As in this case, a history of hemoptum or hemoptysis in patients with cavitary tuberculosis suggests the possibility of Rasmussen's aneurysm. A contrast-enhanced chest computed tomography is a useful diagnostic tool for Rasmussen's aneurysm.