

●症 例

肺動脈と交通し mosaic attenuation を呈した縦隔型気管支動脈瘤

石岡 佳子^a 當麻 景章^a 糸賀 正道^a
坂本 博昭^b 掛端 伸也^c 田坂 定智^a

要旨：縦隔型気管支動脈瘤は稀だが破裂すると致死的となりうるため、無症状であっても治療が必要となる。症例は40歳女性。造影CTで上縦隔に径28mmの気管支動脈瘤を認めた。下肺野には mosaic attenuation を認め、気管支動脈と肺動脈との交通が示唆された。血管造影では気管支動脈瘤から肺動脈へのシャントを認め、気管支動脈塞栓術を施行したところ、mosaic attenuation は減弱した。肺動脈と交通し、肺野の mosaic attenuation を呈した縦隔型気管支動脈瘤を経験したため報告する。

キーワード：縦隔型気管支動脈瘤，気管支動脈-肺動脈吻合，気管支動脈塞栓術，モザイクアテニュエーション
Mediastinal bronchial artery aneurysm, Bronchopulmonary anastomosis,
Bronchial arterial embolization (BAE), Mosaic attenuation

緒 言

気管支動脈瘤は比較的稀な疾患であり、なかでも縦隔型の報告は少ないが、無症状で縦隔腫瘍として発見された例¹⁾や、血胸で発症した例が報告されている^{2)~4)}。本症は破裂すると致命的になることもあり、未破裂であっても治療が必要となる⁵⁾。

今回我々は、縦隔腫瘍として偶発的に発見された縦隔型気管支動脈瘤の1例を経験した。気管支動脈と肺動脈との交通を示唆する肺野の mosaic attenuation を認め、コイルによる気管支動脈塞栓術後に改善したため、文献的考察を加えて報告する。

症 例

患者：40歳，女性。
主訴：胸部異常陰影。
既往歴：帝王切開。
家族歴：特記事項なし。
生活歴：現喫煙者，15本×20年間。専業主婦。
現病歴：人間ドックの胸部CTで縦隔腫瘍を指摘され、

前医を受診。造影CTで気管支動脈瘤と診断され、加療目的に当科を紹介受診した。

入院時現症：身長166cm，体重53kg，体温36.6℃，脈拍71回/min，血圧111/61mmHg，経皮的動脈血酸素飽和度 (SpO₂) 97% (室内気)，意識清明。心音は整で，第2肋間の胸骨右縁と左縁に収縮期に増強する連続性雑音を聴取。呼吸音に異常なし。皮疹・結節などの皮膚所見なし。その他特記所見なし。

入院時検査所見：明らかな異常を認めなかった。

画像所見：胸部単純X線写真では縦隔陰影の右上肺野への突出を認めた (図1)。胸部造影CTでは、気管分岐



図1 初診時胸部単純X線検査。右上縦隔の突出を認める (矢印)。

連絡先：田坂 定智

〒036-8562 青森県弘前市在府町5

^a 弘前大学大学院医学研究科呼吸器内科学講座

^b 青森県立中央病院呼吸器内科

^c 弘前大学大学院医学研究科放射線診断学講座

(E-mail: tasaka@hirosaki-u.ac.jp)

(Received 25 Jul 2018/Accepted 24 Oct 2018)

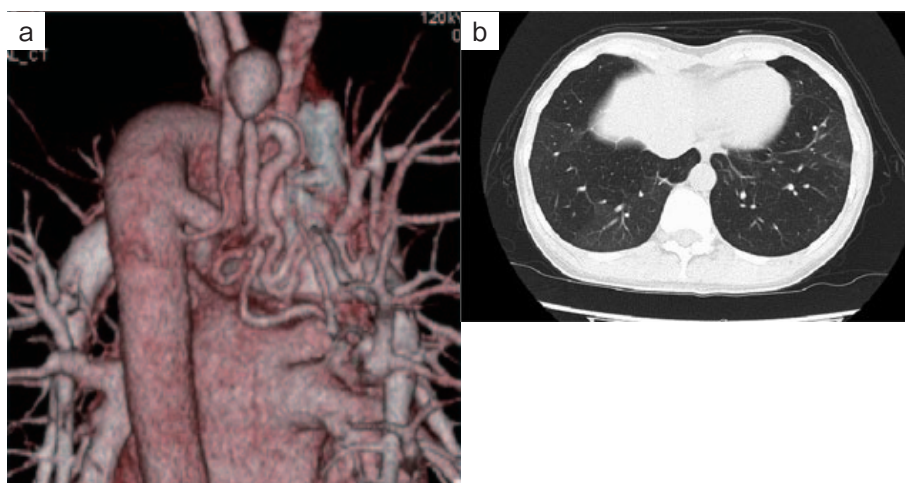


図2 胸部造影CT検査. (a) CTアンギオグラフィーでは、気管分岐部レベルの下行大動脈から分岐した気管支動脈が椎体の前を横切ってから上行し、上縦隔の椎体右側で径28mmの瘤形成が確認される。流出血管は拡張・蛇行している。(b) 肺野条件（スライス厚：5mm、Window level：-650、window width：1,500）では、特に右下肺野にmosaic attenuationを認める。

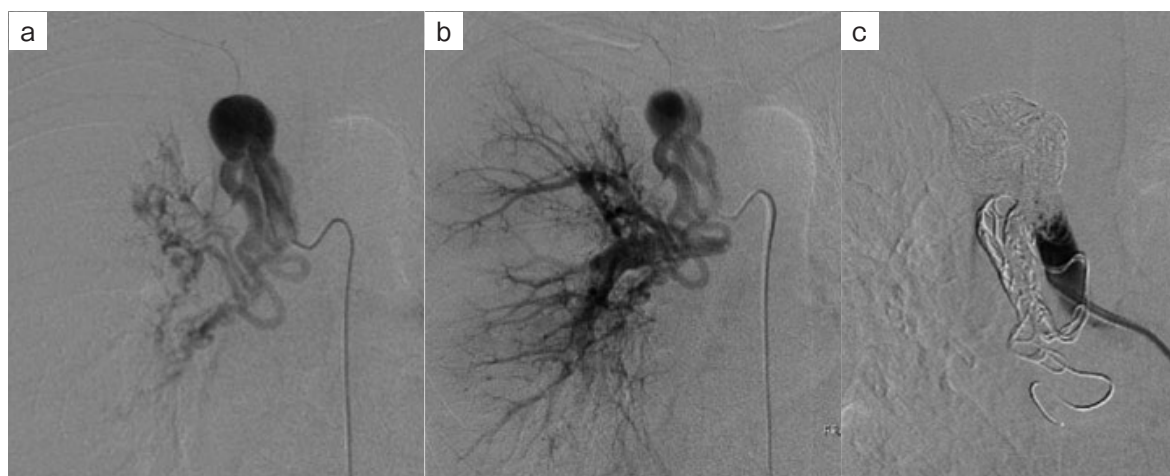


図3 気管支動脈造影検査. (a) 下行大動脈から分岐した右気管支動脈に動脈瘤が造影された。(b) その後、右肺動脈が本幹まで造影され、気管支動脈-肺動脈吻合が示唆された。(c) BAE後の造影では、血流の遮断が確認された。

部レベルの下行大動脈から分岐した気管支動脈が椎体前面を上行し、上縦隔椎体右側で径28mmの気管支動脈瘤の形成が認められた。流出血管は拡張・蛇行し、吻合先は明らかではなかった（図2a）。肺野条件では右下肺野優位のmosaic attenuationを認めた（図2b）。

心臓超音波検査：駆出率64.9%、左室内径短縮率35.7%と、心筋の収縮に問題はなかったが、左室拡張末期径54.7mm、左室収縮末期径35.2mmと左室容量負荷が示唆された。三尖弁逆流はなく、肺高血圧の所見も認められなかった。

治療経過：右気管支動脈にガイディングカテーテルを留置し、マイクロカテーテルを挿入、気管支動脈造影検査を施行したところ、下行大動脈から分岐した右気管支

動脈に動脈瘤が造影された（図3a）。さらに、蛇行・枝分かれした流出血管から右肺動脈が末梢より逆行するように本幹まで造影されたため、相当量の気管支動脈-肺動脈シャントの存在が示唆された（図3b）。また、左気管支動脈は2本確認され、右気管支動脈起始部から分岐した1本を造影したが、左肺動脈の造影はわずかであった。続いて気管支動脈塞栓術（bronchial arterial embolization：BAE）を行った。まず流出血管にコイルを留置して順行性血流がなくなったことを確認。その後、瘤内を塞栓し、最後に流入血管にもコイルを留置。計10本のコイルで塞栓を行ったところ、血流は完全に遮断された（図3c）。左気管支動脈についてはシャント量が少ないためBAEを行わず、翌日に退院となった。



図4 BAE 1ヶ月後の胸部造影CT検査 (スライス厚: 5mm. Window level: -650, window width: 1,500). 肺野のmosaic attenuationは改善した。

BAE 1ヶ月後の造影CTでは右気管支動脈の動脈瘤は造影されず、肺野のmosaic attenuationもほぼ消失した(図4)。心臓超音波検査では左室拡張末期径49.2mm, 左室収縮末期径33.0mmと改善。左房径は術前31.6mmから28.2mmと正常範囲内で軽度低下, 肺体血流比は術前0.6から0.9と1に近づき, 左心系への容量負荷の軽減が示唆された。術後1年経過時点で右気管支動脈の再開通は認められていない。

考 察

縦隔型気管支動脈瘤は頻度が低く、まとまった報告は少ない。68例の文献的報告では、男女比44:24, 平均年齢59.4歳⁶⁾。瘤径は破裂例(平均21.5mm), 非破裂例(平均27.5mm)であり, 破裂リスクと瘤径に関連は認められなかった⁶⁾。別の報告では, 35例のうち, 発見時に有症状だったのは24例で, 破裂例は16例(45.7%), うち2例が死亡していた⁵⁾。このように, 無症状であっても速やかな治療が必要となる。

治療としては侵襲性の低いBAEが第1選択とされるが, 手技が困難な例や, 再開通をきたし再塞栓や手術が必要となることもある⁷⁾。縦隔型気管支動脈瘤35例についての報告では, 初回治療でBAEを行ったのは14例で, うち1例で後に手術を施行され, 4例で再度BAEを施行された⁵⁾。本症例では再発を認めていないが, 今後も経過観察を行う必要がある。

気管支拡張症などの慢性呼吸器疾患例では気管支動脈-肺動脈吻合を伴う二次性気管支動脈瘤を生じることがあるが, 本症例では明らかな呼吸器疾患の既往がなかった。Pumpは剖検肺で小さな気管支動脈-肺動脈吻合を報告⁸⁾しており, 橋詰らもpre-capillaryレベルの気管支動脈-肺動脈吻合を報告している⁹⁾。したがって, 本症例でも先天性気管支動脈-肺動脈吻合が存在した可能性はあるが, 肺外気管支動脈瘤形成の成因は不明である。

健常肺での吻合形成機序は明らかになっていない。下川路らは肺動脈と直接交通した気管支動脈瘤の手術症例を検討し, 動脈瘤が内・中・外膜の3層構造を保持した真性動脈瘤であったことなどから, 気管支動脈血流入による容量・圧負荷が動脈瘤の形成要因となったと推測している¹⁰⁾。本症例でも, 右気管支動脈の造影直後に右肺動脈全体が造影されるような量のシャントが認められ, また既存の肺疾患もなく, 先天性の吻合による容量・圧負荷が原因となった可能性が考えられた。BAE施行前の心臓超音波検査では左室への容量負荷が認められたが, 術後には改善されていた。

本症例では術前の胸部CTで右下肺野優位にmosaic attenuationを認めたが, mosaic attenuationの原因として, ①末梢気道病変によるair trapping, ②末梢肺の血流不均等, ③感染や間質性肺炎などによる炎症細胞浸潤などが挙げられる¹¹⁾¹²⁾。本症例では, 明らかな感染や間質性肺炎などを認めていない。また, 術後に行った呼吸機能検査では, 肺活量3.59L, 努力性肺活量3.45L, 1秒量2.99L, 1秒率86.67%, $\dot{V}_{50}/\dot{V}_{25}$ 2.52と正常範囲であり, フローボリュームカーブにも閉塞性変化は認めずair trappingは否定的と思われた。術前後で肺血流量の比較をしておらず推測になるが, 心臓超音波検査では左室容量負荷が術前後で減少したことや二次小葉レベルでのmosaic attenuationが観察されBAE後に改善したことから, 末梢レベルの肺動脈から肺静脈にかけて血流の増加や不均等があった可能性があると思われた。

縦隔型気管支動脈瘤は破裂すると致死的となりうるため, 無症状であっても治療が必要となる。本症例のようにmosaic attenuationを呈する症例もあることから, air trappingがないにもかかわらずmosaic attenuationを認めた場合には, 造影CTなどにより縦隔を含めた血流異常の検索を行うことが必要と考えられた。

著者のCOI (conflicts of interest) 開示: 本論文発表内容に関して申告なし。

引用文献

- 1) Tanaka K, et al. Giant mediastinal bronchial artery aneurysm mimicking benign esophageal tumor: a case report and review of 26 cases from literature. *J Vasc Surg* 2003; 38: 1125-9.
- 2) 勝田倫子, 他. 血胸で発見された気管支動脈瘤の1例. *日呼吸会誌* 2009; 47: 895-9.
- 3) 大町直樹, 他. 嘔吐を契機に血胸で発症した縦隔型気管支動脈瘤破裂の1例. *日呼吸会誌* 2013; 2: 63-7.
- 4) 岸田賢治, 他. 血胸で発症した縦隔型気管支動脈瘤破裂の1例. *日臨外会誌* 2013; 74: 3268-72.

- 5) 正津晶子, 他. 気管支動脈起始部に発生した縦隔型気管支動脈瘤の1例. 気管支学 2006 ; 28 : 526-31.
- 6) 星 晋, 他. 気管支拡張症に合併した縦隔型気管支動脈瘤の1例. 気管支学 2014 ; 36 : 509-13.
- 7) 佐野正明, 他. 縦隔型気管支動脈瘤破裂の治療経験. 気管支学 2011 ; 33 : 177-81.
- 8) Pump KK. The bronchial arteries and their anastomoses in the human lung. Dis Chest 1963; 43: 245-55.
- 9) 橋詰寿律, 他. 形態観察に基づく気管支循環と肺循環の関連について. 気管支学 2006 ; 28 : 15-9.
- 10) 下川路伊亮, 他. 肺動脈と直接連結した特発性気管支動脈瘤. 日呼吸会誌 2008 ; 46 : 202-5.
- 11) Ridge CA, et al. Mosaic attenuation. AJR Am J Roentgenol 2011; 197: W970-7.
- 12) 岩澤多恵. 肺野のモザイクパターン. 日胸臨 2015 ; 74 : 553-62.

Abstract

Mediastinal bronchial artery aneurysm connecting to the pulmonary artery showing mosaic attenuation of the lungs on computed tomography

Yoshiko Ishioka^a, Kageaki Taima^a, Masamichi Itoga^a,
Hiroaki Sakamoto^b, Shinya Kakehata^c and Sadatomo Tasaka^a

^aDepartment of Respiratory Medicine, Hirosaki University Graduate School of Medicine

^bDivision of Respiratory Medicine, Aomori Prefectural Central Hospital

^cDepartment of Radiology, Hirosaki University Graduate School of Medicine

Background: Mediastinal bronchial artery aneurysm is rare, but rupture of such an aneurysm is potentially life-threatening and requires treatment. A 40-year-old female was referred to our department because of an abnormal shadow on her chest roentgenogram. Contrast-enhanced computed tomography (CT) showed a bronchial artery aneurysm of 28mm in diameter in the superior mediastinum as well as mosaic attenuation of the lungs, suggesting bronchopulmonary anastomosis. Angiography showed an aneurysm connecting to the right pulmonary artery. After bronchial arterial embolization, the mosaic attenuation diminished. Herein we report a case of mediastinal bronchial artery aneurysm connecting to the pulmonary artery, showing mosaic attenuation of the lungs, which was successfully treated with bronchial arterial embolization.