

経過観察中に肺化膿症を発症した肺底動脈体動脈起始症の 1 切除例 —当科での手術症例からみた手術適応の検討

山澤 隆彦, 森田 一郎¹⁾, 石田 敦久²⁾, 久保 裕司, 葉山 牧夫,
稲垣英一郎, 清水 克彦, 中田 昌男, 正木 久男, 種本 和雄

症例は27歳女性。13歳時より胸部異常陰影を指摘されるが無症状であったため経過観察していた。2001年11月咽頭痛, 膿性痰, 39℃台の発熱を認め9日間発熱が持続し, 近医で肺化膿症と診断され, 肺分画症が強く疑われたため精査目的で入院となった。胸部CT・大動脈造影・肺動脈造影を施行し肺葉内肺分画症(肺底動脈起始異常症)と診断し, 左後側方切開による左下葉切除術を施行した。左下葉には1/3を占める膿瘍が存在し, 下行大動脈から肺内に流入する異常動脈と奇静脈を介して左房へ還流する血管を認めた。肺葉内肺分画症に感染をきたし肺化膿症に至ったものと考えられた。肺葉内肺分画症の手術適応について若干の考察を加えて報告する。

(平成18年10月17日受理)

An Adult Case of Intralobar Pulmonary Sequestration

Takahiko YAMASAWA, Ichiro MORITA, Atsuhisa ISHIDA, Hiroshi KUBO, Makio HAYAMA, Eiichiro INAGAKI, Katsuhiko SHIMIZU, Masao NAKATA, Hisao MASAKI and Kazuo TANEMOTO

A case of Pryce I type intralobar pulmonary sequestration is reported. A 27-year-old woman was admitted to our hospital, complaining of cough and increasing fever. She has had a lung abscess since she was a junior high school student. A cystic mass shadow was detected in S₁₀ of the left lung on chest CT scan. Aortography showed that the arterial supply into the mass was provided by the descending aorta. Angiography showed that the flow returned to the right atrium via an azygos vein. A left lower lobectomy was performed. Intralobar pulmonary sequestration was diagnosed. (Accepted on October 17, 2006) *Kawasaki Medical Journal* 33(2): 153-158, 2007

Key Words ① 肺底動脈体動脈起始症 ② 肺葉内肺分画症 ③ 手術適応

緒 言

肺分画症とは, 正常肺と気管支の交通がなく, 胸部大動脈, 腹部大動脈などの体循環系から血

管支配を受ける, 正常肺から分離された無機能的な肺組織と定義される。

肺分画症は, 分画肺が正常肺と同じ臓側胸膜に覆われる肺葉内肺分画症と正常肺から完全に分離し壁側胸膜と臓側胸膜の両者に包まれる肺

川崎医科大学 胸部心臓血管外科
〒701-0192 倉敷市松島577

1) 川崎病院外科

2) 心臓病センター榊原病院

e-mail address: cbq09700@pop12.odn.ne.jp

Division of Thoracic and Cardiovascular Surgery, Department of Surgery, Kawasaki Medical School: 577 Matsushima, Kurashiki, Okayama, 701-0192 Japan

葉外肺分画症に分類される。さらに近年では、正常肺組織が体循環から血液供給を受ける Pryce I 型の肺葉内肺分画症は肺底動脈体動脈起始症として現在では先天性肺血管異常として独立した疾患として扱われるようになってきた。今回我々は、肺底動脈体動脈起始症の一例を経験したので、当科で経験した肺分画症症例 6 例とともに報告し、その手術適応について考察した。

症 例

患者：27歳，女性

主訴：発熱・咽頭痛・膿性痰

既往歴：アトピー性皮膚炎

喫煙歴：なし

家族歴：なし

現病歴：13歳時、健診にて胸部異常陰影を指摘されていたが症状が認められず、25歳まで陰影の増大傾向もなかったため放置していた。25歳時に会社の健診にて再び胸部異常陰影を指摘され胸部 CT にて肺分画症が疑われた。当院呼

吸器内科にて大動脈、肺動脈血管造影が施行され肺葉内肺分画症と診断された。予防的意味から外科的切除を勧められたが症状がないため、経過観察となった。

27歳時に咽頭痛・膿性痰、39℃台の発熱を認め 9 日間発熱が持続し、食欲不振となったため、近医受診したところ白血球 $20000/\text{mm}^3$ で、胸部単純 X 線にて鏡面像を伴う腫瘤陰影を認めたため当院に入院となった。

理学所見：身長 155.8 cm 体重 44 Kg 体温 39.8℃ 貧血・黄疸もなく、心・肺・腹部に異常所見を認めなかった。

入院時検査所見：白血球 $21500/\text{mm}^3$ 、CRP 34.9 mg/dl と高度の炎症反応が認められた (Table 1)。

胸部単純 X 線写真：正面像にて左下肺野に左心陰影に重なって辺縁は整、境界明瞭、内部性状は不均一な niveau を伴う 3.5 cm 大の空洞性病変を認めた (Fig. 1)

胸部造影 CT 所見：左 S₁₀ に背側胸膜に接し隔壁を伴う内部不均一な腫瘤影を認めた。胸膜外に分画肺を認めなかった (Fig. 2)。

経食道超音波検査：下行大動脈から分岐する異常動脈を認めた。

大動脈造影：下行大動脈から直接分岐する異常動脈を認め、選択的血管造影を行った。異常動

Table 1. 入院時検査所見

WBC $21500/\text{mm}^3$	Na 13.6 mEq/l
RBC $408 \times 10^4/\text{mm}^3$	K 4.1 mEq/l
Hb 12.7 g/dl	Cl 100 mEq/l
Hb 12.7 g/dl	Ca 8.7 mEq/l
Plt $28.6 \times 10^4/\text{mm}^3$	
TP 7.5g/dl	動脈血液ガス分析
BS 10.5 mg/dl	Ph 7.476
T-Bil 0.6 mg/dl	Pco ₂ 32.6 T or r
ALP 1 251.U/l	PO ₂ 68.1 T or r
GG T 131.U/L	BE 0.7 mEq/l
LDH 574U/L	
Alb 3.9 g/dl	肺機能検査
GPT 8 IU/L	VC 3.01 L
GOT 17 IU/L	%VC 10.1.7%
Crn 0.63 mg/dl	FEV ₁₀ 2.48 L
BUN 10 mg/dl	FEV _{10%} 81.8%
UA 5.2 mg/dl	
Amy 391.U/l	

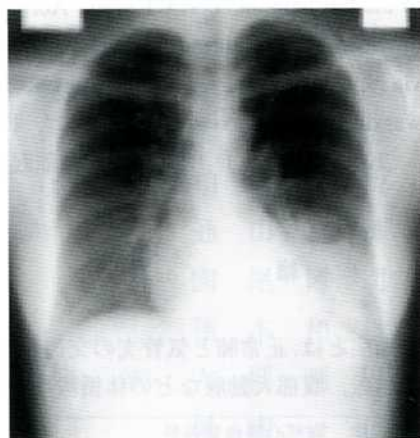


Fig. 1. 胸部 X-P

胸部 X-P：左下肺野に辺縁は整、境界明瞭、内部性状は不均一な niveau を伴う 3.5 cm 大の空洞性病変を認める。

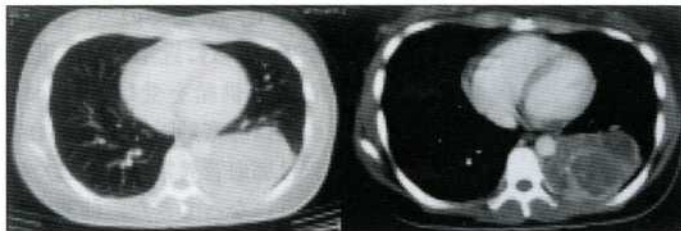


Fig. 2. 胸部CT

胸部CT：左S10に境界明瞭で被膜が造影される内部均一な腫瘤影を認める。

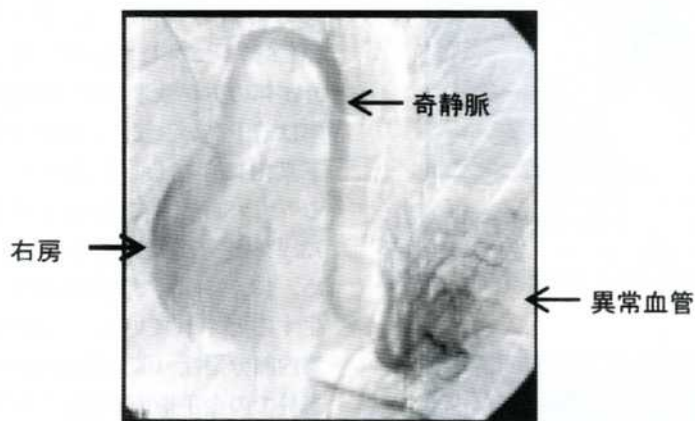


Fig. 3. 大動脈造影

下行大動脈から直接分岐する異常血管が認められ選択的に造影を行った。異常動脈から血液供給を受けた左下肺の還流血液は、静脈相で奇静脈→上大静脈→右房へと造影された。

脈から血液供給を受けた左下肺の還流血液は静脈相で奇静脈-上大静脈-右心房へと造影された (Fig. 3)。

肺動脈造影：左下葉への肺動脈の欠損を認めた (Fig. 4)。

以上より左下葉内の Pryce I 型の肺葉内肺分画症に感染をきたし肺化膿症を併発したものと診断した。

手術所見：左後側方切開で開胸した。異常動脈は下行大動脈からの異常分枝で、還流静脈は奇静脈であった。肺葉外に分画肺は認めなかった。左下葉の約1/3を感染性腫瘤が占めていたため、型どおり左下葉切除術を施行した (Fig. 5)。

術後経過：術後合併症なく、経過良好にて術後19日目に退院となった。

病理所見：空洞および肺実質に大量の膿を認め、肺化膿症の像が認められた (Fig. 6)。肉

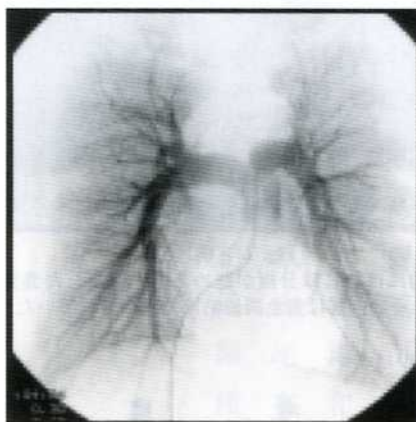


Fig. 4. 肺動脈造影

左下葉への肺動脈の欠損が認められた。

眼所見上肺内に異常流入動脈と奇静脈を介して左房へ還流する血管を認めた。

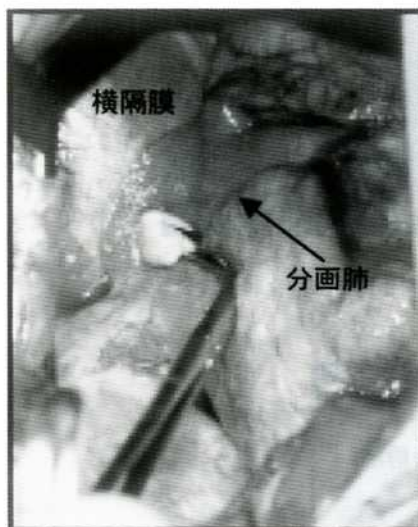


Fig. 5. 手術所見

左後側方切開で開胸した。異常動脈は下行大動脈からの枝で、還流静脈は奇静脈であった。左下葉の約1/3を感染性腫瘍が占める肺葉内肺分画症と診断し、左下葉切除術を施行した。

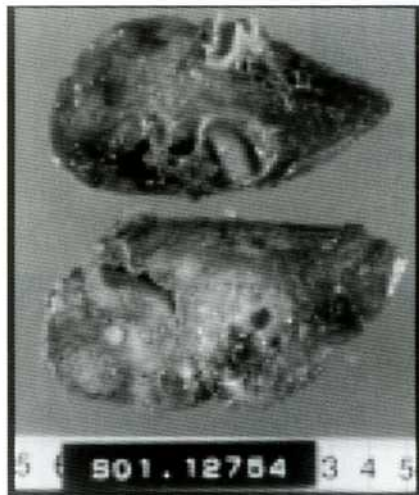


Fig. 6. 病理所見

肉眼的には肺には分画が認められ、拡張した嚢胞が多発し、その内部は黄色調の粘液で満たされていた。

考 察

1946年 Pryce は体循環から異常動脈が肺組織へ流入する先天異常を肺分画症とする立場から、肺葉内肺分画症を異常動脈が正常肺へ流入する I 型、異常動脈が分画肺と正常肺へ流入す

る II 型、分画肺のみへ流入する III 型に分類した¹⁾。さらに近年では、正常肺組織が体循環から血液供給を受ける Pryce I 型の肺葉内肺分画症は肺底動脈体動脈起始症として現在では先天性肺血管異常の独立した疾患として扱われるようになってきた。肺葉内肺分画症と肺葉外肺分画症の比率は Savic の 540 例では肺葉内肺分画症 400 例 (74.1%) に対して肺葉外肺分画症は 140 例であった²⁾。一方、本邦における財前らの 87 例の集計では、肺葉内肺分画症 71 例 (81.6%) に対して肺葉外肺分画症は 16 例であり本邦の方が欧米に比べ肺葉内肺分画症の発生率は若干高い。また、肺葉内肺分画症は 95% が下葉内に存在し、左右別では左に 58% 存在する^{3), 4)}。Savic らによると肺葉内肺分画症は 73.9% が胸部大動脈から異常血管の発生を認め、18.7% の例で腹部大動脈から異常動脈が発生するとされている²⁾。本症例は Pryce I 型肺葉内肺分画症 (肺底動脈体動脈起始症) であり、当科での全手術例 6 例においても肺底動脈体動脈起始症が 4 例、肺葉外肺分画症が 2 例であった。術式を検討すると症状が認められない時期に手術を施行した 2 症例の肺分画症の内、1 症例においてのみ、肺葉切除術でなく、肺部分切除で留まっている。肺分画症は無症状で経過することもあるが、文献的には症状として血痰、咯痰が認められたために診断のきっかけとなった症例が多く、若年者で胸部 X 線上異常影があり咯血を伴えば肺分画症を疑うことが重要である。確定診断には、Pryce I 型肺葉内肺分画症の場合は異常流入動脈が比較的太いことから⁵⁾ 3D-CT や造影 MRI が診断に有用であるが^{6), 7)}、小さな血管病変の描出に対しては限界があるとされている⁸⁾。また、肺分画症には流入動脈が複数あるものや気管支動脈から分岐したものなどもあり、その診断には血管造影がまだまだ不可欠な検査となっている⁹⁾。

肺分画症の治療としては外科切除が唯一の治療法である¹⁰⁾。手術適応は議論のある所であるが、肺葉内肺分画症では自覚症状を伴う例が多く、感染の反復、咯血、穿孔を認めた場合は手

術適応として良いとされている。本症例も検診にて異常陰影を指摘されたものの、無症状であったため15年間の長期間経過観察された。発熱、咽頭痛、膿性痰を初発とした肺化膿症を併発したのち手術を施行したため、炎症の波及が広範囲に及び肺葉切除術を余儀なくされた。

無症状で経過する症例と、いずれ症状が出現する症例を鑑別する事は困難であり、無症状の場合でも分画肺にアスペルギルス菌体^{(1)~(4)}、結核病変などの不顕性感染が存在することが報告されていることから無症状期に手術を施行することは重要と考える。当科で扱った肺分画症症例を一覧表にして示す (Table 2)。当院での標準的な治療法としては肺葉内肺分画症では肺葉切除、出来れば区域切除、肺葉外肺分画症では分画肺摘出が標準術式と考えている。当科において合計6症例の手術が行われたが2症例以外はいずれも症状が認められてから治療が行われた。肺葉内肺分画症では感染の可能性が高いため、何らかの症状が出てから手術が行われることが多く肺葉切除が選択されるのに対し、健康診断発見で無症状の段階での手術及び肺葉外肺分画症の症例では炎症などが周囲に波及していないため、肺部分切除または分画肺のみの摘出が可能な場合もある。原らも炎症性変化が波及した場合、切除の拡大が必要となり、肺分

Table 2. 1995年6月より2003年3月までに当科で手術した6症例

年齢	性別	主 訴	分 類	術 式
75歳	男性	胸部異常陰影	肺葉外	右上葉部分切除
16歳	男性	学校検診時血管性雑音	Pryce I型	左下葉切除
31歳	女性	全身倦怠感	Pryce I型	左下葉切除
27歳	女性	発熱	Pryce I型	左下葉切除
75歳	女性	血痰	Pryce I型	左下葉切除
19歳	男性	胸部異常陰影	肺葉外	右下葉切除

画症が疑われる場合は周囲に不可逆的変化を来す以前に積極的に診断を進め、診断がついた場合、全身状態、特に肺機能を考慮した上で手術を勧めるべきであると述べている⁽⁵⁾。重篤な臨床症状が認められない場合、特に患者が若年者もしくは高齢者である場合には、全身麻酔のリスクおよび手術侵襲のリスクのため患者の手術治療の同意が得にくいことが多く、放置される傾向にある。しかし最近では胸腔鏡補助下での手術も行われており、早期の診断と正確な術前の血管の同定により低侵襲な手術を行うことが出来るという選択肢を患者に提示し、早期診断、早期治療を勧めることが必要であると再認識した。

結 語

15年間の経過観察されていた肺底動脈体動脈起始異常症の一手術症例について報告した。また当科での肺分画症手術症例6例について手術適応も含め検討した。

引 用 文 献

- 1) Pryce DM : Lower accessory pulmonary artery with intralobar sequestration of lung. J Pathol 58 : 457-467, 1946
- 2) Savic B, Birtel FJ, Tholen W, et al : Lung sequestration : report of seven cases and review of 540 published cases. Thorax 34 : 96-101, 1979
- 3) 財前義雄, 池田恵一, 他 : 小児肺分画症の一例。 - ならびに本邦小児報告例86例の統計的観察 - 日小外誌 17 : 119-27, 1981
- 4) 石田治雄, 林奥, 他 : 肺分画症の診断と治療。肺と心 39(3) : 210-18, 1992
- 5) 鎌形正一郎, 林奥, 広部誠一, 他 : 大循環系からの異常動脈を伴った肺病変。日小兒外会誌 34, 261-267, 1998
- 6) 服部良信, 杉村修一郎, 入山 正, 他 : 肺分画症のヘリカル3D-CTによる異常動脈の描出。日呼外会誌 12 : 660-666, 1998

- 7) 水本雅彦, 石川信義: 肺分画症に対する MRI, MRI-Angiography の有用性について. 日小児会誌 100: 650-654, 1996
- 8) 三木 均, 濱本 研: MR Angiography. 画像診断別冊 174-181, 1995
- 9) 高木洋行, 宮入純一, 羽田原之: Pryce I型肺葉内肺分画症(肺底区動脈大動脈起始症)の1例 日臨外誌 61: 1456-1459, 2000
- 10) 田久保康隆, 藤永卓司, 陳 和夫, 他: 検診次腫瘤影にて発見された肺葉内肺分画症の一例. 日呼外会誌 9: 854-858, 1995
- 11) 西村元宏, 河内秀幸, 西山勝彦: 成人肺葉外肺分画症の一切除例. 日呼外会誌 14: 128-132, 2000
- 12) 関谷 充, 千葉麻子, 家永浩樹, 他: Aspergillus の不顕性感染を認め, 血清腫瘍マーカーが高値を示した肺分画症の1例. 日呼吸会誌 37: 433-437, 1999
- 13) 門山周文, 藤野道夫, 長谷島伸親, 他: Aspergillus の不顕性感染を認めた肺葉内肺分画症の1例. 胸部外科 49: 959-962, 1996
- 14) 久貝忠夫, 金城守人: 血清 CA19-9高値と呈したアスペルギルス感染肺葉外肺分画症の1治験例. 日胸部外科 49: 959-962, 1996
- 15) 原 政樹, 松崎 泰憲, 枝川 正雄, 前田 正幸, 清水 哲哉, 富田 雅樹, 鬼塚 敏男: 難治性の非定型抗酸菌症を伴った肺葉内肺分画症の1切除例. 日呼外会誌 15: 779-784, 2001