

当院における特発性咯血症の検討 - 患者背景、出血源、治療方法と結果について -

洛和会音羽病院 呼吸器内科

土谷 美知子・坂口 才・味水 瞳・中西 陽祐・林 康之・森川 昇・西山 聖也

洛和会音羽病院 放射線科

久保 聡一

独立行政法人国立病院機構姫路医療センター 呼吸器内科

小南 亮太

洛和会音羽病院 京都呼吸器センター

長坂 行雄

【要旨】

当院にて気管支動脈塞栓術 (bronchial artery embolization、以下BAE) を行った特発性咯血症患者6例について検討した。5例に喫煙歴を認め、出血部位は4例が右上葉であった。3例が3月に発症した。

手術的切除に至った1例を除き、5例であらかじめ気管支動脈をターゲットとした3次元CT (3D-CT) を施行し、異常な気管支動脈を確認して責任血管と判断した。そのうち3例は気管支動脈径が2mm以上に拡張していた。3例において気管支鏡検査を省略して3D-CTの所見を参考にBAEを実施し、いずれも1回の施行にて原因となる気管支動脈を同定・塞栓し、以後再発を認めなかった。

3D-CTで原因血管を推定できる場合には、気管支鏡検査を省略してより迅速にBAEを行うことができると思われた。

Key words : 特発性咯血症、気管支動脈塞栓術、気管支動脈3次元CT、季節性、喫煙歴

【諸 言】

咯血の原因疾患として、肺癌、肺結核、肺非結核性抗酸菌症、肺アスペルギルス症、気管支拡張症、気管支炎、肺胞出血などが挙げられる。しかし、画像所見で明らかな咯血の器質的原因を指摘できない特発性咯血症も7~25%存在すると言われている¹⁾。

当院では、咯血症例に対して胸部CTを撮影する際に、気管支動脈をターゲットとした3次元CT (3D-CT) も実施し、出血源の同定を行った上で気管支動脈塞栓術 (bronchial artery embolization、以下BAE) を試みている。

2011年から2014年の間に当院にて経験した特発性咯血症

患者6例について、患者背景、出血源、治療方法について検討し、考察を加えて報告する。

【症例①】

特に基礎疾患を有さない52歳男性が、誘因なく朝から咯血したため入院した。胸部CTにて右中葉のすりガラス状陰影を認めたが出血の原因となる背景病変を認めなかった (図1A)。3D-CTで軽度拡張した右気管支動脈を同定し (図1B)、気管支鏡検査にて右中葉からの出血を確認した (図1C)。同血管に対してBAEを施行し (図1D)、以後咯血は認めなかった。



図1A 症例1の胸部CT

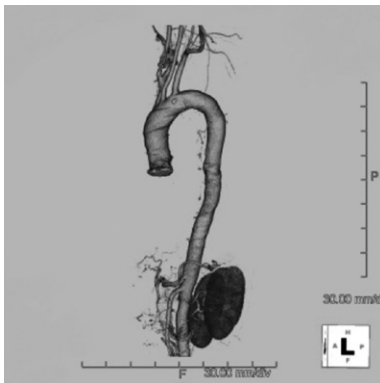


図1B 症例1の3D-CT



図1C 症例1の気管支鏡

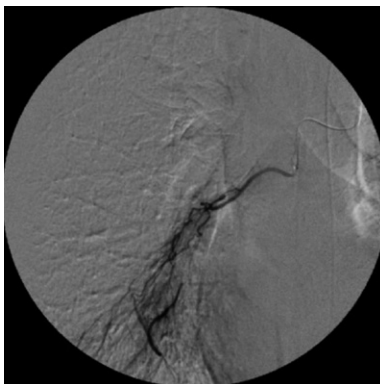


図1D 症例1の気管支動脈造影所見

【症例②】

COPD、高血圧症、C型肝炎などにて当院通院中の80歳男性が当日未明から咳嗽とともに血痰を認めたため入院した。胸部CTにて右上葉のすりガラス状陰影以外に有意の病変を認めなかったが、3D-CTにて右上葉に分布する気管支動脈の拡張を確認した(図2A、B)。気管支鏡検査にて右上葉からの出血を認めた(図2C)。3D-CTにて確認した気管支動脈に対してBAEを施行した(図2D)。以後咯血は認めなかった。



図2A 症例2の胸部CT

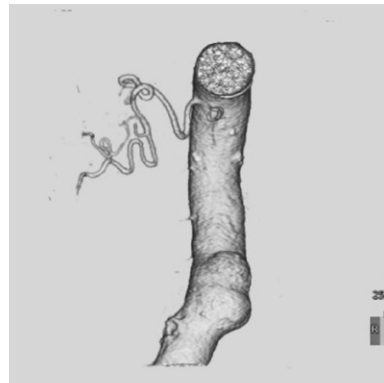


図2B 症例2の3D-CT



図2C 症例2の気管支鏡

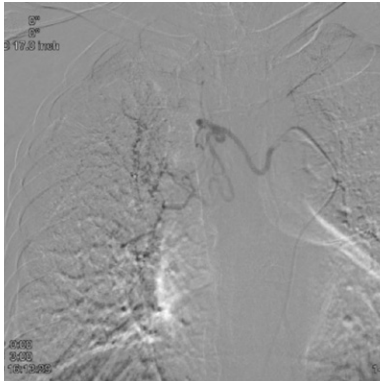


図2D 症例2の気管支動脈造影所見

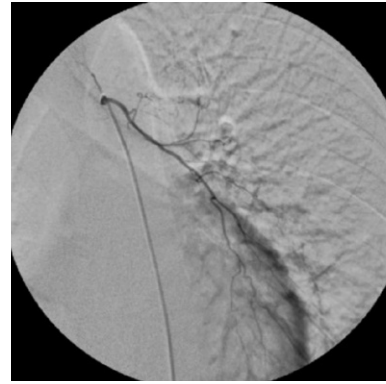


図3C 症例3の気管支動脈造影所見

【症例③】

既往のない27歳男性が突然咯血して入院した。胸部CT上、両肺野に血液の吸い込み像と思われるびまん性陰影を認めたが出血源と思われる病変はなかった（図3A）。気管支鏡検査で左下葉からの出血が確認された（図3B）が、造影検査では気管支動脈の異常はなかった（図3C）。左下葉へ分布する気管支動脈に対してBAEを2度行ったが咯血を繰り返すため左下葉切除術を施行し、以後再発は認めなかった。切除肺には出血の原因となる病理学的異常を認めなかった。

【症例④】

既往歴のない39歳男性が前日からの繰り返す咯血にて入院した。CT上、右上葉の浸潤影を認めたが背景に出血の原因となるような病変は認められず（図4A）、気管支動脈3D-CTにて右気管支動脈の拡張を認めた（図4B）。気管支鏡検査は省略して同血管に対してBAEを施行し（図4C）、以後咯血を認めなかった。



図3A 症例3の胸部CT

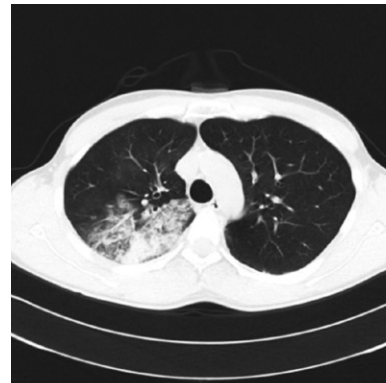


図4A 症例4の胸部CT

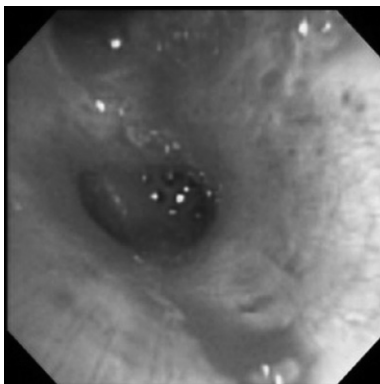


図3B 症例3の気管支鏡

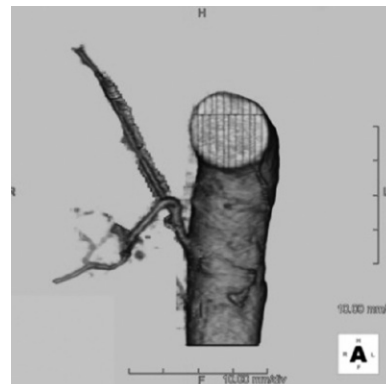


図4B 症例4の3D-CT

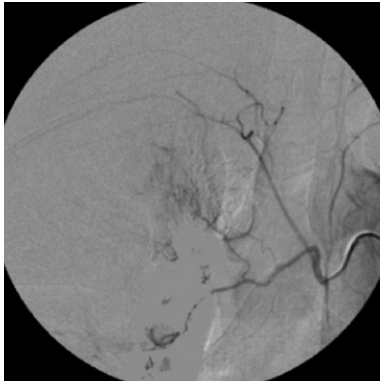


図4C 症例4の気管支動脈造影所見

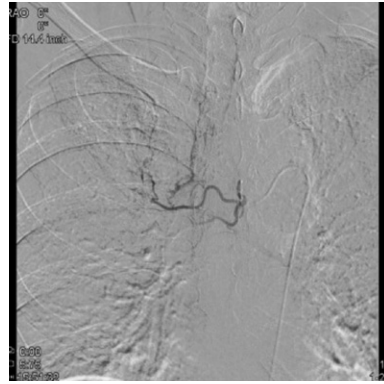


図5C 症例5の気管支動脈造影所見

【症例⑤】

既往のない65歳女性が、前日から咳嗽に伴う咯血を繰り返すため当院入院した。CTにて肺野に器質的異常を認めなかったが右上葉の浸潤影を認め（図5A）、3D-CTにて右上葉に分布する気管支動脈の拡張を認めた（図5B）。気管支鏡検査は省略し同血管に対してBAEを施行し（図5C）、以後再発を認めなかった。

【症例⑥】

既往のない70歳男性が突然咯血して当院に入院した。CTにて両側上葉のすりガラス状陰影を認めたが出血の原因となる病変は認めなかった（図6A）。3D-CTにて右気管支動脈の著しい拡張を認め（図6B）、同血管に対してBAEを施行した（図6C）。以後再発は認めなかった。気管支鏡検査は省略した。

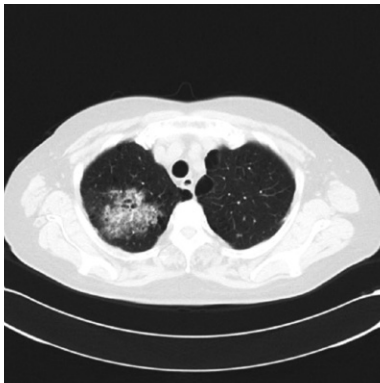


図5A 症例5の胸部CT



図6A 症例6の胸部CT

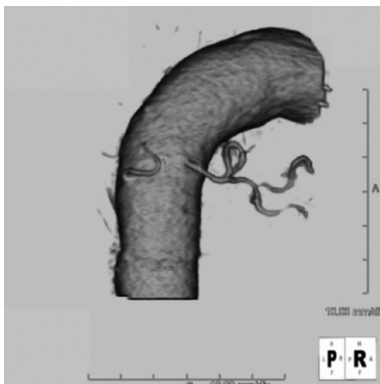


図5B 症例5の3D-CT

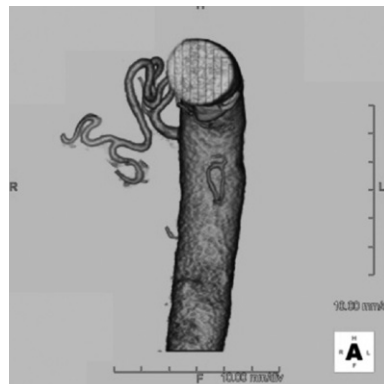


図6B 症例6の3D-CT



図6C 症例6の気管支動脈造影所見

【結果】

上記6例の背景、出血部位を表に示す（表1）。全例において抗血小板薬や抗凝固薬の使用歴はなく、出血素因も認めなかった。

6例中5例に喫煙歴を認め、喫煙歴のない1例は気管支動脈の拡張と蛇行が強く、いわゆる「蔓状血管腫」に典型的な画像所見であった。出血部位は4例が右上葉であった。また、発症時期は3例が3月、2例が7月であった。

手術的切除に至った1例を除き、5例においてあらかじめ気管支動脈をターゲットとした3D-CTを施行し、原因となる気管支動脈を同定した上でBAEを行った。いずれの症例も1回のBAEにて原因となる気管支動脈を同定・塞栓し、以後再発を認めなかった。

【考察】

特発性咯血症は、気管支拡張症や悪性疾患などの既存の気管支肺病変を認めない原因不明の気道出血を指す。咯血

症例の16～22%を占めるとの報告がある^{2) 3) 4)}。出血を生じる原因として、気管支粘膜直下に拡張した気管支動脈が存在しそれが気道に向けて破綻する機序が考えられている^{5) 6)}。

今回、我々の報告した特発性咯血症6例のうち、5例に喫煙歴を認めた。特発性咯血症は喫煙者に多く、特発性咯血症例の42～79%を占めるとの報告がある⁷⁾。喫煙による気道の慢性炎症や気道壁のhypervascularityが出血の機序と考えられている^{8) 9)}。

また、6例中4例で右上葉が原因部位であった。特発性咯血症の出血部位として上葉、特に右側が多いとする報告があり⁷⁾ それに合致する結果であった。喫煙による炎症の分布は上葉優位であるとされており^{10) 11)}、出血の好発部位と関連があると思われる。

我々の症例のうち半数にあたる3症例において出血が3月に集中していた。フランスで特発性咯血症の発症時期について検討した報告によると、月別の累積入院患者数は冬の終わりから春先にかけて増加し、3月がピークであった¹²⁾。冬期間に咯血が多い原因として気道感染の関与が考えられる。また、脳出血¹³⁾ やくも膜下出血¹⁴⁾、鼻出血¹⁵⁾ が冬期間に多いとの報告もあることから、寒冷暴露が出血イベントそのものの原因として関与している可能性もある。

気管支動脈の太さは通常1.2mmまでだが、3D-CTを施行した5例中3例で2mm以上に拡張した気管支動脈を認めた。拡張が軽度な場合も屈曲蛇行を強く認め、咯血の責任血管と判断した。これら異常な気管支動脈をBAEの際に気管支動脈造影で確認して塞栓術を施行し、1回の施行で出血のコントロールを得た。一方、複数回のBAEで出血のコントロールが得られず肺葉切除に至った1例は、気管支動脈の異常を

表1 咯血症例のまとめ

	症例①	症例②	症例③	症例④	症例⑤	症例⑥
年齢、性別	52男	82男	27男	39男	65女	70男
喫煙歴	有	有	有	有	有	無
発症月	7月	3月	3月	7月	3月	10月
出血部位	右中葉	右上葉	左下葉	右上葉	右上葉	右上葉
気管支動脈径	1.6mm	3.7mm	1.4mm	3.1mm	1.7mm	3.5mm
再発	無	無	有	無	無	無

ほとんど認めなかった。

Menchiniらは、特発性咯血症34例中、BAE後の再発を5例に認め、複数回のBAEで出血がコントロールされずに手術に至った症例は3例であったと報告した⁷⁾。彼らの検討では、咯血の再発リスクと気管支動脈の造影所見との間に関連性はなかった。我々は少数例での検討であるため、さらなる症例を蓄積してBAE後の再発リスクを検討する必要がある。

咯血症例に対して気管支鏡下に出血部位の同定を試みる場合、出血により視野確保が困難なことがある。また、検査時に止血されている場合は出血部位を同定しがたい。さらに、気管支鏡検査によって出血の助長や呼吸状態の悪化を招く可能性もある。今回、6例中3例は3D-CTにて原因血管を特定できたために気管支鏡検査を省略してBAEを実施し、良好な成績を得た。3D-CTで原因血管を推定できる場合には、気管支鏡検査を省略してより迅速にBAEを行うことができると思われた。

【結 語】

当院における特発性咯血症患者の特徴として、喫煙歴を背景として3月に発症する傾向を認めた。出血部位は右上葉に多かった。

3D-CTによって出血源となる気管支動脈を同定することが出来れば、気管支鏡検査を省略して迅速にBAEを実施することが可能である。

※本論文の要旨の一部は第54回日本呼吸器学会学術講演会にて発表した。

【参考文献】

- 1) Savale L et al : Cryptogenic Hemoptysis. From a benign to a life-threatening pathologic vascular condition. Am J Respir Crit Care Med 175 : 1181-1185, 2007.
- 2) Hayakawa K, et al : Bronchial artery embolization for hemoptysis : immediate and longterm results. Cardiovasc Intervent Radiol. 15 : 154-159, 1992
- 3) Mal H, et al : Immediate and long-term results of bronchial artery embolization for lifethreatening hemoptysis. Chest 115 : 996-1001, 1999
- 4) Kato A, et al : Bronchial artery embolization for hemoptysis due to benign diseases: immediate and long-term results. Cardiovasc Intervent Radiol 23 : 351-357, 2000
- 5) 禹哲漢 他 : 特発性気管支動脈破裂の2例. 気管支学 29 : 227-231, 2007
- 6) Sweerts M, et al : Dieulafoy's disease of the bronchus. Thorax 50 : 697-698, 1995
- 7) Menchini L, et al. : Cryptogenic haemoptysis in smokers : angiography and results of embolisation in 35 patients. Eur Respir J 34 : 1031-1039, 2009
- 8) McDonald D. : Angiogenesis and remodelling of airway vasculature in chronic inflammation. Am J Resp Crit Care Med 164 : 539-545, 2001
- 9) Jeffery PK. : Remodeling in asthma and chronic obstructive lung disease. Am J Respir Crit Care Med 164 : S28-S38, 2001
- 10) Soejima K, et al. : Longitudinal follow-up of smoking-induced lung density changes by high-resolution computed tomography. Am J Respir Crit Care Med 161 : 1264-1273, 2000
- 11) Remy-Jardin M, et al : Longitudinal follow-up study of smoker's lung with thin-section CT in correlation with pulmonary function tests. Radiology 222 : 261-270, 2002
- 12) Boulay F, et al. : Seasonal variation in cryptogenic and noncryptogenic hemoptysis hospitalizations in France. Chest 118 : 440-444, 2000
- 13) PM, et al. : Is stroke incidence related to season or temperature? Lancet 347 : 934-936, 1996
- 14) Lejeune JP, et al. : Association of occurrence of aneurysmal bleeding with meteorologic variations in the north of France. Stroke 25 : 338-341, 1994
- 15) Tomkinson A, et al. : Hospital epistaxis admission rate and ambient temperature. Clin Otolaryngol 20 : 239-240, 1995