

## 一側肺動脈狭窄に対するステント留置後3か月後に肺血流の不均衡分布が改善された単心室，BCPS術後の1症例

(平成13年3月6日受付)

(平成13年8月22日受理)

大阪大学大学院医学系研究科生体統合医学小児発達医学講座小児科学，同 機能制御外科学\*，  
現 大阪厚生年金病院小児科\*\*

北 知子 松下 享 小垣 滋豊 三輪谷隆史 石井 円  
佐野 哲也\*\* 市川 肇\* 松田 暉\* 岡田伸太郎

**key words** : ステント留置術，肺血流床，肺血流シンチグラフィー，右心バイパス手術

### 要 旨

BCPS術後の単心室患児(9歳)の左肺動脈狭窄に対してステントによる拡大術を施行し，肺血流シンチグラフィーにて肺血流分布の変化を追った。ステントを留置することにより，左肺動脈狭窄部位は4.6 mm から8.8 mm にまで拡張したが，直後の経皮的動脈血酸素飽和度や血行動態的指標の改善は認めず，翌日の肺血流シンチグラフィーでは右肺と左肺のカウント比は5.0と血流分布の左右差は全く改善していなかった。しかしステント留置3か月後の同検査では1.6と左肺への血流の増加を認めた。血液ガスや経皮的動脈血酸素飽和度は依然改善を認めなかったが，術前17.0 g/dlと増加傾向にあった血中ヘモグロビン濃度は，留置後7か月には14.7 g/dlと多血症の進行が抑えられていた。

非拍動性の肺血流下では肺血管床の発育には時間を要する可能性が示唆され，右心バイパス手術症例の治療戦略を考える上で考慮すべきものと思われた。

### はじめに

近年，術後の末梢性肺動脈狭窄の治療としてバルーンやステントによる拡大術が試みられ，その有効性が報告されている<sup>1)</sup>。これらの有効性は，通常留置後早期から肺血流不均衡分布の改善等から確認されているが<sup>2)</sup>，右心バイパス手術後のような低圧系で非拍動流下にある肺循環においても同様の変化が早期から期待出来るのかは明らかではない。

今回我々は，肺動脈血流が静脈系の血流特性を有するBidirectional cavopulmonary shunt (BCPS)術後の単心室患児の左肺動脈狭窄に対してステント留置術を施行し，経時的に肺血流分布や血行動態的指標の変化を追跡した。本症例の経験をふまえ，肺動脈への血流

供給の状態による肺血管床の発育の違いについて若干の考察を含めて報告する。

### 症 例

症例：9歳男児。身長131 cm，体重26 kg

診断：単心室，共通房室弁，肺動脈弁狭窄

既往歴，家族歴：特記すべきことなし。

現病歴：出生後の心雑音および全身性チアノーゼを認め，諸検査にて上記疾患と診断された。徐々にチアノーゼの増強を認めたため，生後3か月時に他院にて左modified Blalock-Taussig shunt術(BTS)が施行された。5歳時に当院に紹介。6歳時に施行した心臓カテーテル検査では右肺動脈径9.3 mm，左肺動脈径7.8 mmと左右差を認めていた。同年にBCPS及び左肺動脈BTS部に対してパッチ拡大術を施行した。8歳時に心臓カテーテル検査を施行(表)，肺動脈造影像では右肺動脈径12.5 mmに対して左肺動脈径は4.6 mmと細く著明な左右差を認めた(図1a)。また同時に行った心

別刷請求先；(〒565 0871)大阪府吹田市山田丘2-2  
大阪大学大学院医学系研究科生体統合医学 D-5 小児発達医学講座小児科学

北 知子

室造影像では、心室から肺動脈に順行性に流れる血流はほとんど認めず、肺動脈閉鎖に近い状態と考えられた。左肺動脈狭窄に対してバルーンによる拡大を試みたが有効ではなく、右上肢から行った Tc-MAA を用いた肺血流シンチグラムでは、血流のほとんどは右肺に流れ著しい左右差を認めた(図 2 a)。この時点で Fontan 型手術は不可能と考え、動脈血酸素飽和度の上昇及び左肺動脈と肺血管床の発育を目的に、9 歳時に

左肺動脈狭窄に対してステント留置術を施行した。

全身麻酔下にて右内頸静脈を外科的に剥離・露出し、直視下に 10 Fr. のロングシースを挿入、左肺動脈狭窄部に 12 mm 及び 30 mm 長の Palmaz Iliac Stent (Johnson & Johnson 社製) 各 1 個を径 10 mm のバルーンにマウントして留置した(図 1 b)。これにより左肺動脈径は 4.6 mm から 8.8 mm にまで拡張したが、留置直後の血液ガスや経皮的動脈血酸素飽和度は術前と変化はなかった。翌日の胸部レントゲン写真においても左肺血流の増加は認めなかった。また留置翌日に行った肺血流シンチグラムでも、術前同様に著しい肺血流分布の左右差を認めた(図 2 b)。しかしながら 3 か月後の同検査ではその左右差は改善し、右肺と左肺のカウント比(Rt/Lt)は留置術翌日の 5.0 から 1.6 へ著明に改善していた(図 2 c)。さらに、経過観察中の SpO<sub>2</sub> は 82% 前後と大きな変化を認めなかったが、ステント留置前は 17.0 g/dl と徐々に増加しつつあった血中ヘモグロビン値が留置後 7 か月には 14.7 g/dl となっており、進行する多血症を抑制していた。

表 心臓カテーテル検査(8歳時)

	圧(mmHg)	SaO <sub>2</sub> (%)
SVC	(10)	69
RA	(2)	73
rtPA	(10)	70
ltPA	(10)	77
LA	(5)	
ltPV		92
Ao	104/69(84)	84

( ): 平均圧

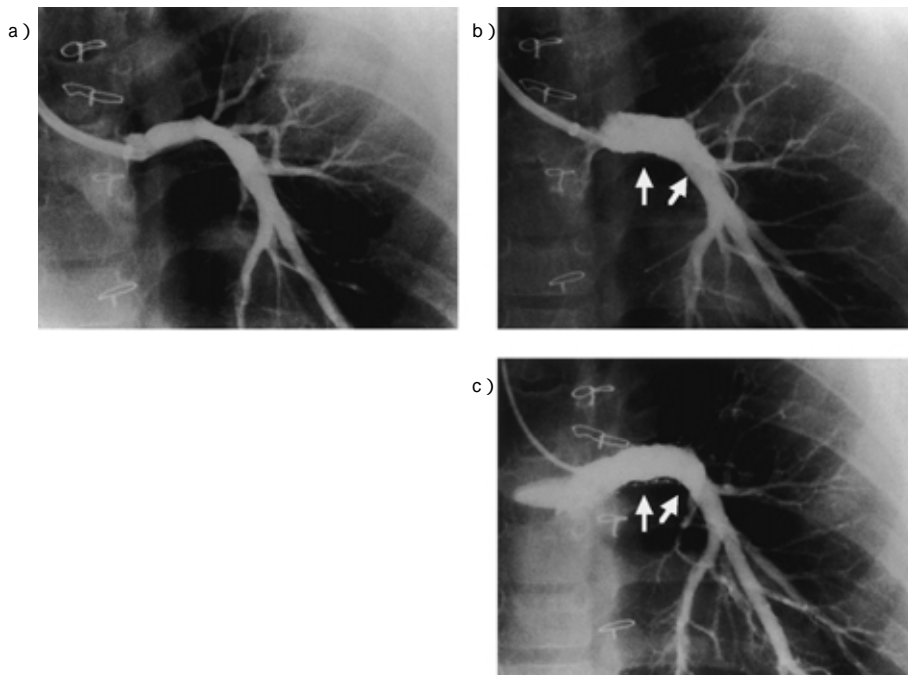


図 1 肺動脈造影像

a); ステント留置前、左肺動脈の狭窄を認める。b); ステント留置直後、左肺動脈狭窄部は十分に拡大された。矢印はステント留置部。c); ステント留置後 9 か月時、ステント内側に薄く内膜の増生を認める。矢印はステント留置部。

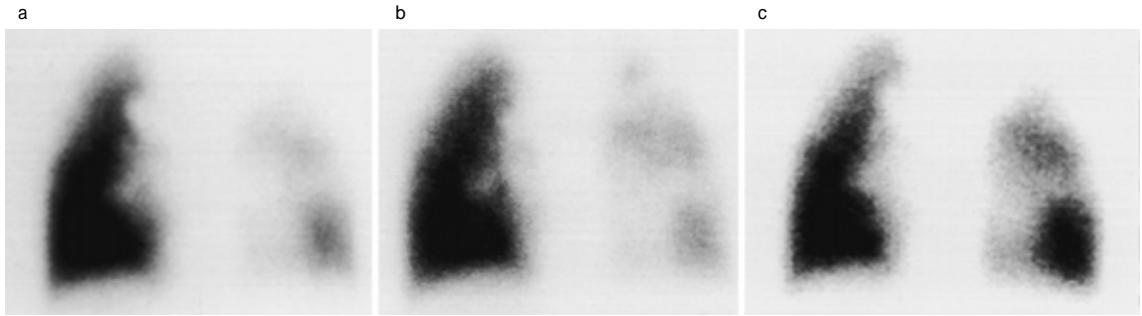


図2 肺血流シンチグラム

a); スtent留置前, 著しい血流の不均衡分布を認める. b); スtent留置翌日, 留置前と同様の不均衡分布を認める (Rt/Lt=5.0). c); スtent留置後3か月時, 左右の不均衡分布は改善されている (Rt/Lt=1.6).

現在, 本症例は Fontan 型手術を考慮中である.

### 考 察

Stent留置術は, 冠動脈や末梢動脈の狭窄に対して開発された治療法であり, 従来からのバルーンによる拡大が困難な症例においても良好な成績を上げている<sup>3,9)</sup>. 近年, 本法は先天性心疾患領域にも応用され, 末梢性肺動脈狭窄<sup>5)</sup>や大動脈縮窄<sup>6)</sup>, 動脈管への留置<sup>7)</sup>等幅広く用いられ, その治療としての地位が確立されつつある. 中でも, 術後の末梢性肺動脈狭窄へのStent留置術は, 外科的治療やバルーンによる拡大が困難な症例に対して積極的に用いられ, 両者に比較しても良好な成績を上げている<sup>8)</sup>.

今回我々は, BCPS 術後の一側肺動脈狭窄に対して, 患側の肺血管床の発育および肺血流増加による換気血流不均衡分布の改善を目的にStent留置術を施行した. Stent留置により, 肺動脈狭窄部は4.6 mm から8.8 mm と約190% にまで拡大したにも関わらず, 術前後の動脈血酸素飽和度は変化なく, 翌日の肺血流シンチグラムでも明らかな改善は認められなかった. しかしながら3か月後に再度施行した肺血流シンチグラムでは, 不均衡分布は著しく改善しており, 血中ヘモグロビン濃度の上昇も抑制出来ていた. 通常一側肺動脈狭窄解除の効果としては, 圧較差の改善や肺血流不均衡分布の改善<sup>9)</sup>などが報告されている. しかしながらこれらの報告はいわゆる通常の拍動流下での検討であり, 我々の症例のように非拍動流下にあるStent留置術の効果としても術後早期から期待出来るのかは明らかではなく, 非拍動流下でのStent留置後の経時的な評価も報告がない. 今回の経験から, BCPS 4

Fontan 型手術後のような非拍動性血流下での一側肺動脈狭窄拡大術では, 血流分布の改善すなわち患側の肺血管床の発育には時間を要するものと考えられる. よって右心バイパス手術では, 肺循環の適応に時間を要する事を考慮して治療戦略を立てる事が重要であると思われる.

一方, 肺血流の不均衡分布や肺血管床の減少は Fontan 型手術においては予後を左右する危険因子の一つである<sup>10)</sup>. Moore ら<sup>11)</sup>は, 我々の症例と同様に BCPS 後の一側肺動脈狭窄8例に対してStent留置術を行い, 5症例がFontan 術へ到達できたとしている. 彼らの対象患者と今回の症例とは年齢差があることから一概に判断はできないが, Stentによる肺動脈の拡張によりFontan 術への希望が持てるようになったと思われる. このように, Stent留置術は根治術後の肺動脈狭窄だけではなく, よりよい根治手術を目指すための段階的治療の1手段として更なる適応の拡大が期待できるものと思われる.

しかしながら, 留置したStentの内膜増生による再狭窄に関する検討は未だ明らかではない. 本症例の場合, Stent留置後9か月時に血行動態の評価およびStentのre-dilationを目的に心臓カテーテル検査を施行したが, 肺動脈造影により軽度の内膜増生を認めた(図1c). さらなる肺血管床の発育を期待するところであるが, 上大静脈あるいは下大静脈のような非拍動性血流下へのStent留置後遠隔期に新生内膜の増殖を認めた報告もあり<sup>12)</sup>, 今後も慎重な経過観察が必要と思われる.

### まとめ

BCPS 術後の単心室患児の左肺動脈狭窄に対しステントを挿入し、その直後と3か月後に肺血流シンチグラフィを施行した。肺血流シンチグラム上、ステント留置翌日では右肺と左肺の血流比は5.0だったが3か月後には1.6と血流の左右差が改善されていた。これらより、非拍動流性の肺血流下では肺血管床の発育には時間を要する可能性が示唆された。

### 文 献

- 1) O'Laughlin MP, Perry SB, Lock JE, Mullins CE : Use of endovascular stents in congenital heart disease. *Circulation* 1991 ; 83 : 1923 1939
- 2) O'Laughlin MP, Slack MC, Grifka RG, Perry SB, MD, Lock JE, Mullins CE : Implantation and intermediate-term follow-up of stents in congenital heart disease. *Circulation* 1993 ; 88 : 605 614
- 3) Levine MJ, Leonard BM, Burke JA, Nash ID, Salifan RD, Diver DJ, Bain DS : Clinical and angiographic results of balloon-expandable intracoronary stents in right coronary artery stenosis. *J Am Coll Cardiol* 1990 ; 2 : 332 339
- 4) Palmaz JC, Richter GM, Noeldge G, Schatz RA, Robinson PD, Gardiner GA Jr, Becker GJ, McLearn GK, Denny DF Jr, Lammer J, Paolini RM, Rees CR, Alvarado R, Heiss HW, Root HD, Rogers W : Intraluminal stents in atherosclerotic iliac artery stenosis : Preliminary report of a multicenter study. *Radiology* 1988 ; 168 : 727 731
- 5) Fogelman R, Nykanen D, MD, Smallhorn JF, McCrindle BW, Freedom RM, Benson LN : Endovascular stents in the pulmonary circulation. *Circulation* 1995 ; 92 : 881 885
- 6) Morrow WR, Smith VC, Ehler WJ, VanDellen AF, Mullins CE : Balloon angioplasty with stent implantation in experimental coarctation of the aorta. *Eur Heart J* 1998 ; 19 : 1401 1409
- 7) Schneider M, Zaerner P, Sidiropoulos A, Konertz W, Hausdorf G : Stent implantation of the arterial duct in newborns with duct-dependent circulation. *Eur Heart J* 1998 ; 19 : 1401 1409
- 8) 佐野哲也, 松下 享, 黒飛俊二, 小垣滋豊, 三輪谷隆史, 福嶌教偉, 大竹重彰, 松田暉, 岡田伸太郎 : 肺動脈狭窄に対する治療戦略. *日小循誌* 1998 ; 14 : 671
- 9) Oyen WJ, van Oort AM, Tanke RB, van Mill GJ, Aengevaeren WR, Corstens FH : Pulmonary perfusion after endovascular stenting of pulmonary artery stenosis. *J Nucl Med* 1995 ; 36 : 2006 2008
- 10) Fontan F, Fernandez G, Costa F, Naftel DC, Tritto F, Blackstone EH, Kirklin JW : The size of the pulmonary arteries and the results of Fontan operation. *J Thorec Cardiovasc Surg* 1989 ; 98 : 711 724
- 11) Moore JW, Spicer RL, Perry JC, Mathewson JW, Kirkpatrick SE, George L, Uzark K, Mainwaring RL, Lamberti JJ : Percutaneous use of stents to correct pulmonary artery stenosis in young children after cavopulmonary anastomosis. *Am heart J* 1995 ; 130 : 1245 49
- 12) Ward CJB, Mullins CE, Nihill MR, Grifka RG, Wesley Vick G : Use of intravascular stents in systemic venous and systemic venous baffle obstructions. *Circulation* 1995 ; 91 : 2948 2954

Improvement of unbalanced pulmonary perfusion after stenting in a patient of single ventricle with bidirectional cavopulmonary shunt

Tomoko Kita, Tohru Matsushita, Shigetoyo Kogaki, Takashi Miwatani, Tsubura Ishii, Hajime Ichikawa\*, Hikaru Matsuda\*, Tetsuya Sano\*\* and Shintaro Okada  
Department of Developmental Medicine ( Pediatrics ) Osaka University Graduate School of Medicine  
\*Division of Cardiovascular Surgery, Department of Surgery ,  
\*\* Department of Pediatrics, Osaka Kouseinenkin Hospital

We experienced a case of unbalanced pulmonary perfusion with single ventricle after bidirectional cavopulmonary shunt. The case, a nine years old boy, had severe left pulmonary artery stenosis so that unbalanced distribution of pulmonary perfusion evaluated by the nuclear medicine perfusion scan. Repeated balloon dilatations were not effective and 2 stents were placed with sufficient size( 190% dilatation ). However, an unbalanced distribution remained on the next day scan( Rt/Lt ; 5.0 ). His activity and SpO<sub>2</sub> did not changed compared with those before stenting. Three months later, a pulmonary perfusion scan was performed again and demonstrated the improvement of pulmonary distribution( Rt/Lt ; 1.6 ). Also his hemoglobin concentration was decreased at that moment. Our experience suggests that the development of the pulmonary vascular beds under non-pulsatile blood flow may take more time than that under pulsatile blood flow.

---