

## 肺動静脈瘻に対するコイル塞栓術と奇異性脳塞栓

広島市民病院小児循環器科  
鎌田 政博

藤田らの論文は、多発性肺動静脈瘻(pulmonary atriovenous fistula: PAVF)に対するコイル塞栓術の有用性について述べたもので、その診断過程におけるhelical CT検査の重要性についても言及している。PAVFはチアノーゼ、ばち状指、赤血球増多症を3主徴とする病態で、脳梗塞、脳膿瘍、痙攣、血栓症、大量咯血、血胸などを合併する。小児期に発症するのは10%未満にすぎず<sup>1)</sup>、PAVFが何十年も高圧を受け続けてのち、成人期に顕性化する<sup>2)</sup>。その治療目的は前述した合併症の予防にあるが、最も重要なのは神経学的合併症であり、中でもPAVFを介しての奇異性脳塞栓は脳梗塞の原因として注目されている。小児例を経験することはきわめてまれと考えられるが、われわれ小児循環器科医が先天性心疾患成人例を扱うことも決してまれでなく、PAVFに対するコイル塞栓術とともに概説する。

## 1. PAVFにおける奇異性脳塞栓

まず心原性血栓症全体についてみると、その発生部位の約70%は脳であり、逆に心臓性脳塞栓は脳梗塞全体の約15%を占めている<sup>2)</sup>。患者の45%には塞栓の源と考えられる静脈血栓が見つかり、70%では経口避妊剤の使用、運動不足、肥満、癌の合併など、血栓性静脈炎が形成されやすい状態を伴っている<sup>3)</sup>。その発症は血栓性脳梗塞(数時間かけて進行)と異なり急激で、覚醒中に起こることが多く、出血性梗塞像を呈することが少なくない。梗塞部位は中大脳動脈かその枝に多く、椎骨脳底動脈、前大脳動脈領域の塞栓はともに10%程度と少ない<sup>2)</sup>。なお、心エコー検査で見える血栓のサイズは4mm前後であるが、この大きさは中大脳動脈を塞栓するのに十分な大きさである<sup>2)</sup>。

一方、PAVFに限ってしてみると、Whiteら<sup>4)</sup>の76例(5~76歳、平均43歳)の報告では、脳梗塞、一過性脳虚血と考えられる症状をそれぞれ18%、37%に、脳梗塞、脳内動静脈瘻に一致するCT所見を36%、5%に認めている。脳塞栓の発生頻度を単純型、複雑型に分けて比較すると、後者では瘻内に隔壁を有するため、単純型に比して奇異性脳塞栓を合併しにくい。また、単発型、多発型の比較検討はMoussouttasら<sup>5)</sup>の報告に詳しい。すなわち、単発型26例(24~76歳)の32%、多発型49例(11~76歳)の60%に脳梗塞像を認め、多発型に脳梗塞の発生率が高い理由を、塞栓の通過し得る動静脈瘻の総断面積が大きいと推測している。なお、左心系に血栓が形成される心房細動などでは、内頸動脈系に多くの脳梗塞が発生するが、塞栓子の多くが下肢などで形成されるPAVFでは、椎骨脳底動脈領域に脳梗塞が発生しやすいとの報告もあり興味深い<sup>6)</sup>。

## 2. コイル塞栓術

奇異性脳塞栓を反復して起こさないようにするためには、PAVFの閉鎖・除去と長期的な抗凝固療法が必要である。PAVFの塞栓術で重要なことは、流入動脈をできるだけ瘻の直前で閉塞すること、塞栓物質や血栓を流出させないこと、健常肺に分布する動脈を閉塞しないことであり、流入動脈の形態・分枝様式、瘻直前の正常肺動脈の分枝状態などを術前に把握しておく必要がある。超選択的造影検査を行えば診断率は非常に高くなるが、血管造影は全肺野で行わなければならない、造影剤と被曝量が多くなる。その点、helical CTでは単純型、複雑型の鑑別も可能で、3D画像と素画像を一緒に評価すれば、95%例で血管構築を正確に評価できたとの報告もある<sup>7)</sup>。藤原らの症例においても、3D画像をはじめCT検査により非常に有用な情報が提供されており、塞栓術前にはぜひ行っておきたい検査であろう。なお、CT検査に際しては、流入動脈など描出したい血管の大きさを閾値を変える必要があり、閾値の設定が悪いと血管像が消失してしまうため注意が必要である。

治療対象となる動静脈瘻は直径3mm以上の流入動脈を有するもので<sup>8)</sup>、ほとんどの場合、塞栓にはコイルか着脱式バルーンが用いられる。いずれの塞栓子を選択するかは個人の好みと経験に基づいて決定されるが、流入動脈の大きさが、3~4mm:コイル, 4~9mm:着脱式バルーン, >9mm:コイル単独か着脱式バルーンを併用する、など両者を使い分けた報告もある<sup>8)</sup>。われわれも、チアノーゼを主訴に紹介された乳児例に対し13個のGianturcoコイルを使用して塞栓術を行った経験がある<sup>9)</sup>。多くの小児循環器科医にとっては、動脈管の塞栓術などで使い慣れたコイルの方が扱いやすいのではないだろうか。

塞栓術に使用するコイルの大きさは非常に重要で、藤田らは血管径より1~2mm大きいサイズのコイルを使用している。その他、血管径より1mm大きいコイルを使用して安全に閉塞可能であったとの報告もあるが<sup>10)</sup>、コイルが小さすぎるとコイルによる奇異性塞栓が発生する可能性がある。逆に大きすぎるコイルは長く伸びてしまうため、塞栓効果が弱いだけでなく、カテーテル先端の位置が移動し、健常肺に分布する血管を塞栓してしまう危険性がある。したがって、正確な血管径の評価が必須で、コイル/血管径比、PAVFの形態なども参考にして決定すべきであろう。Perryら<sup>11)</sup>は血管径の1.1~1.4倍のコイルを使用して異常血管を塞栓しているが、流入動脈より流出動脈の径が大きい動静脈瘻では、より大きいコイルが必要となる可能性があり、流出静脈よりも大きな径のコイルを核として留置、そこに複数のコイルを絡めていくなどの工夫が必要であろう。なお、健常肺に至る血管の血流は、塞栓前にはsteal effectにより減少しているため描出されにくく、特に大きめのコイルを使用する場合には注意しなければならない<sup>12)</sup>。

PAVFの塞栓術に際しては、以下に示すようにさまざまな合併症が起こりうる<sup>4,8)</sup>。まず、胸膜炎の合併は10~31%に上るともいわれ、塞栓術後1週間以内(特に48時間以内)に発症して3~6日持続、時に軽い発熱を伴う。原因としては胸膜を底部とする瘻の塞栓や、正常な肺動脈枝の梗塞が考えられている。空気塞栓はカテーテル先端がウエッジした状態でコイル塞栓を行う場合、特に直径3~4mmの小さなPAVFを塞栓する際に起こりやすい。臨床的には口周囲の知覚異常、狭心痛、心電図変化(通常20分以内)などを伴うが、短期間で改善することが多い。また、重大な合併症として塞栓子の動脈系への迷入がある。PAVFでは流入動脈が瘻を介して流出静脈に直接つながっている。特に単純型では流入動脈より流出動脈の径が大きいことが多く、塞栓子の瘻への脱落は動脈塞栓に直結するため最大限の注意を要する。

なお、完全塞栓した動静脈瘻が、術前に同定できなかった小さな輸入動脈により灌流され、再開通する症例がある。塞栓後に動脈血酸素分圧が90mmHg以上なければ小さな動静脈瘻が残存していると考えられ<sup>4)</sup>、Leeらは塞栓術の1カ月、1年後には胸部X線写真と動脈血ガス分析を、3~5年ごとには小さなPAVFの成長をみるために、CT検査を行うことを勧めている<sup>8)</sup>。

## 【参考文献】

- 1) Kuhn JP: Disorders of pulmonary circulation, in Kuhn JP, Slovis TL, Haller JO (eds): Caffey's Pediatric Diagnostic Imaging. Philadelphia, Mosby, 2004, pp1073-1095
- 2) Cardiogenic brain embolism. Cerebral embolism task force. Arch Neurol 1986; 43: 71-84
- 3) Jones HR Jr, Caplan LR, Come PC, et al: Cerebral emboli of paradoxical origin. Ann Neurol 1983; 13: 314-319
- 4) White RI Jr, Lynch-Nyhan A, Terry P, et al: Pulmonary arteriovenous malformations: Techniques and long-term outcome of embolotherapy. Radiology 1988; 169: 663-669
- 5) Moussouttas M, Fayad P, Rosenblatt M, et al: Pulmonary arteriovenous malformations: Cerebral ischemia and neurologic manifestations. Neurology 2000; 55: 959-964
- 6) 木村和美, 古賀政利, 松本省二, ほか: 肺動静脈瘻による奇異性脳塞栓症の臨床的検討。注目すべき右左シャント疾患。臨床神経 2002; 42: 849-854
- 7) Remy J, Remy-Jardin M, Giraud F, et al: Angioarchitecture of pulmonary arteriovenous malformations: Clinical utility of three-dimensional helical CT. Radiology 1994; 191: 657-664
- 8) Lee DW, White RI Jr, Eglin TK, et al: Embolotherapy of large pulmonary arteriovenous malformations: Long-term results. Ann Thorac Surg 1997; 64: 930-940
- 9) 手納寿世, 鎌田政博, 大月審一, ほか: 乳児期肺動静脈瘻の1例: カテーテル治療と非侵襲的検査法。呼吸と循環 1999; 47: 295-298
- 10) 松浦克彦, 小林泰之, 田中 修, ほか: 肺動静脈瘻に対する経カテーテル塞栓術の臨床的検討。日本医放会誌 1998; 58: 266-270
- 11) Perry SB, Keane JF, Lock JE: Pediatric interventions, in Baim DS and Grossman W (eds): Cardiac Catheterization, Angiography, and Intervention, 5th ed. Baltimore, Lippincott Williams & Wilkins, 1966, pp713-732
- 12) Dutton JA, Jackson JE, Hughes JM, et al: Pulmonary arteriovenous malformations: Results of treatment with coil embolization in 53 patients. AJR Am J Roentgenol 1995; 165: 1119-1125