

ラステリ術後の右肺動脈狭窄に対するバルーン血管形成術により 右肺動脈-左房交通を形成した一例

田中 敏克¹⁾, 齋木 宏文¹⁾, 富永 健太¹⁾, 藤田 秀樹¹⁾
城戸佐知子¹⁾, 大嶋 義博²⁾

兵庫県立こども病院循環器科¹⁾, 心臓血管外科²⁾

Key words:

balloon angioplasty, complication,
right pulmonary artery to left atrium
communication

Right Pulmonary Artery to Left Atrium Communication as a Complication of Pulmonary Artery Balloon Angioplasty for Right Pulmonary Artery Stenosis after Rastelli Operation

Toshikatsu Tanaka,¹⁾ Hirofumi Saiki,¹⁾ Kenta Tominaga,¹⁾ Hideki Fujita,¹⁾ Sachiko Kido,¹⁾ and Yoshihiro Oshima²⁾

Departments of ¹⁾Cardiology and ²⁾Cardiovascular Surgery, Hyogo Prefectural Kobe Children's Hospital, Kobe, Japan

A 14-year-old girl with a double outlet right ventricle with pulmonary atresia and patent ductus arteriosus had undergone a Rastelli operation and pulmonary artery plasty at the age of 4 years and was diagnosed with bilateral pulmonary artery stenosis using echocardiography. Cardiac catheterization demonstrated that the right ventricular pressure was 56% of that in the left ventricle due to bilateral pulmonary artery stenosis. Balloon angioplasty (BAP) was performed using a high-pressure balloon for bilateral lesions. Soon after dilation of the right pulmonary artery, her arterial oxygen saturation dropped from 100 to 90%. A right pulmonary artery angiogram showed direct communication to the left atrium. Although traumatic right pulmonary artery to left atrium communication as a complication of BAP is very rare, attention should be paid when performing this procedure.

要 旨

症例は14歳女児。両大血管右室起始，肺動脈閉鎖，動脈管開存の診断で4歳時にラステリ手術および左右肺動脈形成術が施行された。その後，心エコーで肺動脈狭窄の進行を認めたため，心臓カテーテル検査を施行したところ，両側の肺動脈分岐部狭窄を認め，右室圧は体血圧の56%となっていた。両側の肺動脈狭窄に対し，高耐圧バルーンでバルーン血管形成術(BAP)を施行した。右肺動脈を拡張した直後から酸素飽和度が100%から90%へ低下し，右肺動脈造影で左房への交通が確認された。BAPの合併症として，右肺動脈-左房交通はきわめて稀であるが，注意すべき合併症の一つである。

症 例

症例は14歳，女児。出生時より心雑音に気付かれ，心エコーで両大血管右室起始，肺動脈閉鎖，動脈管開存と診断された。プロスタグランディン製剤の投与なしでも動脈管の閉鎖傾向がなかったため，外来で経過観察され，4歳時に一次的に14 mm monocusp 弁付きパッチを用いたラステリ手術および左右肺動脈形成術が施行された。肺動脈は動脈管の流入部を切離し，自己心膜を用いて形成された。6歳時に転居のため当院

紹介となり，9歳時に心臓カテーテル検査を施行した(Table 1)。両側の肺動脈分岐部狭窄(左肺動脈狭窄部径5.0 mm，右肺動脈狭窄部径4.0 mm)を認めたが軽度であったため，経過観察の方針となった。その後，心エコーで肺動脈狭窄の進行による右室圧上昇を認めたため，バルーン血管形成術(BAP)目的で入院となった。

肺動脈造影で両側の分岐部狭窄を認め，左肺動脈狭窄部径6 mm，右肺動脈狭窄部径7.5 mm(Fig. 1)，左右肺動脈から主肺動脈の引き抜き圧較差はそれぞれ左8 mmHg，右14 mmHgで，右室圧/左室圧比0.56(Table 2)

平成21年12月3日受付 別刷請求先：〒654-0081 兵庫県神戸市須磨区高倉台1-1-1

平成22年6月8日受理

兵庫県立こども病院循環器科 田中 敏克

Table 1 Cardiac catheterization data 5 years after operation

| | |
|--------------------------|----------|
| Pressure data (mmHg) | |
| RA (a/v/m) | 9/6/5 |
| RV (s/e) | 41/9 |
| mPA (s/d/m) | 40/6/17 |
| lPA (s/d/m) | 31/5/16 |
| rPA (s/d/m) | 23/7/16 |
| LV (s/e) | 77/8 |
| Ao (s/d/m) | 78/51/64 |
| Pressure gradient (mmHg) | |
| lPA-mPA | 10 |
| rPA-mPA | 15 |
| RVp/LVp | 0.53 |

RA: right atrium, RV: right ventricle, mPA: main pulmonary artery, lPA: left pulmonary artery, rPA: right pulmonary artery, LV: left ventricle, Ao: aorta, RVp/LVp: ratio of right ventricular to left ventricular systolic pressure

であった。全身麻酔の影響で右室圧上昇の程度は比較的軽度であるが、狭窄の程度としては中等度以上であると考え、BAPの相対的適応と判断し、家族のインフォームドコンセントを得た上で施行した。バルーンカテーテルは両側ともNuMED社製ホプキントンZ-MED II 直径14 mm 長さ3 cmを使用した。まず左肺動脈狭窄に対してバルーンを10気圧まで拡張したところwaistは消失し、術後の造影で狭窄部径は10 mmに拡大し、左肺動脈から主肺動脈への引き抜き圧較差は消失した。引き続き、同様に右肺動脈狭窄に対してバルーンを10気圧まで拡張したが、waistは軽度残存した(Fig. 2)。バルーンをdeflateしたところ、その直後より経皮酸素飽和度(SpO₂)が100%から90%へ低下した。血圧・心拍数の低下や、気道出血・換気量の低下などはみられなかった。右肺動脈造影を施行したところ、狭窄部径には変化なく、狭窄部から直接左房への造影剤の流入が確認された(Fig. 3)。BAP前の造影ではそのような所見は認めておらず、BAPにより右肺動脈と左房の天井に交通が形成されたと考えた。右肺動脈から主肺動脈への引き抜き圧較差は10 mmHgで、BAP前と比べ若干の改善を認める程度であった(Table 2)。SpO₂の低下以外には心タンポナーデなどの合併症を認めなかった。すぐに外科的治療を行うべきかどうかについて心臓血管外科と検討した結果、軽度の酸素飽和度の低下を認める以外には症状がないこと、BAP直後の肺動脈壁は脆弱化しているため、可能であれば形成術は期間をあけた方が良いと判断し、しばらく外来経過観察の方針とした。



Fig. 1 Right pulmonary artery angiogram (RAO 30° cranial 30°). The diameter of the stenotic portion was 7.5 mm (arrow).

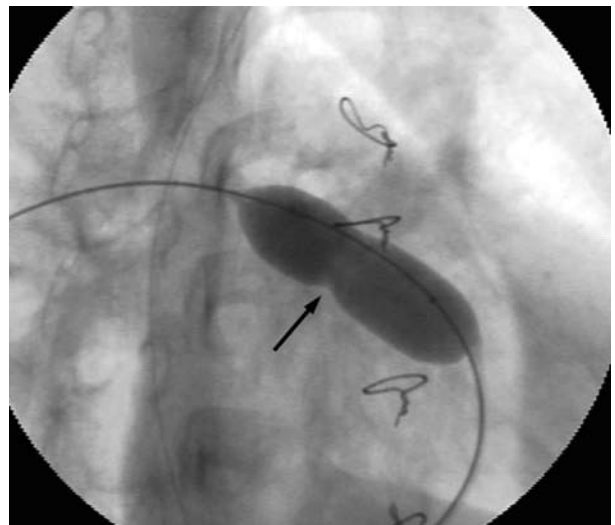


Fig. 2 Balloon angioplasty for the right pulmonary artery using 14 mm high pressure balloon catheter (RAO 30° cranial 30°). The waist slightly remained (arrow).

外来で観察中の全身状態は良好で特に症状も認めなかったが、SpO₂値90%前後の状態が持続した。6カ月後に再度カテーテル検査を施行し、Qp/Qs 0.95、RVp/LVp 0.46、右肺動脈から主肺動脈への引き抜き圧較差は8 mmHgであった(Table 2)。肺動脈造影で同部位に短絡が残っていることを確認した。右肺動脈狭窄が軽度残存し、BAP前から見られた中等度以上の肺動脈弁閉鎖不全も合併していることから、外科的治療を行う方針となった。術中所見で、右肺動脈の走行と平行に、長さ約10 mmにわたり左心房との交通孔が見



Fig. 3 Right pulmonary artery angiogram after balloon angioplasty (RAO 30° cranial 30°). The direct communication between right pulmonary artery and left atrium was revealed (arrow).

Table 2 Cardiac catheterization data before and after balloon angioplasty

| | Before balloon angioplasty | Soon after balloon angioplasty | 6 months after balloon angioplasty |
|--------------------------|-------------------------------|-----------------------------------|---------------------------------------|
| Pressure data (mmHg) | | | |
| RA (a/v/m) | 8/8/7 | — | 5/5/4 |
| RV (s/e) | 42/9 | 31/11 | 29/7 |
| mPA (s/d/m) | 40/6/21 | 31/4/17 | 25/4/12 |
| lPA (s/d/m) | 32/8/18 | 30/4/15 | 20/6/13 |
| rPA (s/d/m) | 26/8/17 | 23/7/15 | 17/4/10 |
| LV (s/e) | 75/10 | 67/10 | 63/8 |
| Ao (s/d/m) | 74/49/60 | 67/42/52 | 63/39/48 |
| Pressure gradient (mmHg) | | | |
| lPA-mPA | 8 | 0 | 4 |
| rPA-mPA | 14 | 10 | 8 |
| RVp/LVp | 0.56 | 0.46 | 0.46 |
| SaO ₂ (%) | | | |
| Ao | 99 | 90 | 88 |
| PV | — | — | 95 |
| Qp/Qs | 1.0 | — | 0.95 |

RA: right atrium, RV: right ventricle, mPA: main pulmonary artery, lPA: left pulmonary artery, rPA: right pulmonary artery, LV: left ventricle, Ao: aorta, PV: pulmonary vein, RVp/LVp: ratio of right ventricular to left ventricular systolic pressure, Qp/Qs: ratio of pulmonary to systemic flow

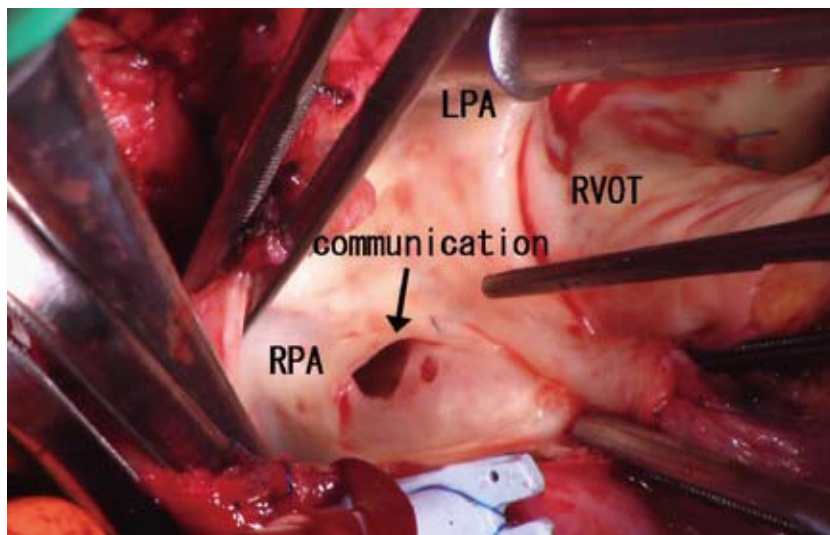


Fig. 4 Intraoperative finding.
Arrow indicates the communication between right pulmonary artery and left atrium.
RPA: right pulmonary artery, LPA: left pulmonary artery, RVOT: right ventricular outflow tract

Table 3 Success rate and major complications of balloon angioplasty

| Author Published year | Rothman et al 1990 | Gentles et al 1993 | Kan et al 1990 |
|--------------------------|-----------------------|-----------------------|-------------------|
| Study period | 1984–1989 | 1990–1992 | — |
| Number of patients | 135 | 52 | 156 |
| Age | 6.6 (0.1–38.5) | 7.0 (0.3–34.8) | 7.7 (0.2–46.3) |
| Success rate | 58% | 72% | - |
| Complications | | | |
| death | 4 | 1 | 5 |
| perforation or rupture | 3 | 2 | 9 |
| aneurysm | 11 | 2 | 2 |
| pulmonary edema | 4 | — | 1 |
| total occlusion | 4 | 1 | — |
| injury of femoral vein | 1 | — | — |
| complete heart block | — | 1 | — |
| paradoxical embolism | — | — | 1 |

られた(Fig. 4). 左心房壁の交通孔は6-0プロリーンの二重の連続縫合で閉鎖し、同時に、21 mm Freestyle 弁を用いた右室流出路再建・ePTFEパッチを用いた両側肺動脈形成を施行し、術後経過良好であった。

考 察

一般的に、末梢性肺動脈狭窄に対するBAPの適応は、1)右室圧が体血圧と同等もしくはそれ以上に上昇している、2)健側の肺高血圧を認める、3)患側の肺血流が

著明に低下している、4)何らかの症状を有する、とされている^{1,2)}。本症例では、左右肺血流の不均衡や肺高血圧は認めず、右室/左室圧比0.56と右室圧の上昇も高度ではなかったが、狭窄部の肺動脈径が体格に比して細いこと(左6 mm, 右7.5 mm)、これまでの報告でBAPの成功率は50~70%と比較的高い^{1,2)}ことから、相対的治療適応ありと判断し、施行した。一方、その合併症として、血管破裂、気道出血、動脈瘤形成、肺浮腫、奇異性塞栓などが報告されている^{3,4)}(Table 3)。

しかし、今回われわれが経験した、肺動脈と左心房の交通を形成したという報告は、検索し得た限りではみられない。

このような合併症が生じた原因について考察する。一般的にBAPに用いられるバルーン径/狭窄部径比は3~4倍とされているが^{1, 3)}、本症例においては約2倍であり、バルーンが過大であったとは考えられない。また、造影にはNuMED社製マルチトラックカテーテルを使用し、BAP前の造影・BAP・BAP後の造影とも、ガイドワイヤーは同じ部位で保持し、入れ替えは行っておらず、ガイドワイヤーや造影用のカテーテルによる肺動脈穿孔とは考え難い。本症例は術後10年経過しており、術後の癒着のため、肺動脈周囲は結合組織で非常に硬くなっていたが、肺動脈壁と左心房壁が接した癒着部位は他の部位よりも脆弱で、バルーン拡張によりその部分が裂けたのではないかと推測される。これに類似した合併症として、完全大血管転位に対する大動脈スイッチ術後の肺動脈狭窄に対するBAP後に大動脈肺動脈窓を形成した報告が散見される^{5, 6)}。それと同じようなメカニズム、すなわち、大動脈スイッチ術後の場合は肺動脈狭窄部やその近傍の肺動脈壁が大動脈壁に、本症例の場合は左心房壁に、解剖学的に接しているために、術後の癒着によりその部位での穿孔を生じる可能性があると考ええる。また、本症例では主肺動脈が短く、左右肺動脈がY字型に引き伸ばされた形態になっていた(Fig. 1)ことも、右肺動脈壁と左心房上壁との強固な癒着の原因になったのかもしれない。しかし、BAP施行前に心エコーやMRIなどの画像診断で癒着の程度を評価するのは困難と思われる。したがって、特に術後年数の経過した症例に高耐圧バルーンを用いて右肺動脈に対してBAPを行う

場合には、同様の合併症が起こりえる危険性があり、その適応の決定は慎重に行うべきであり、また、対策として、使用するバルーンのサイズは通常よりも小さいものをまず選択するのが望ましいであろう。

術後の右肺動脈分岐部狭窄に対するBAP施行後に酸素化が低下した場合には、本合併症の発生も念頭におき、肺動脈造影所見の丹念な読影や、肺動脈内に留置したカテーテルからのコントラストエコーなどによる検索を行う必要があると考える。

【参考文献】

- 1) Rothman A, Perry SB, Keane JF, et al: Early results and follow-up of balloon angiography for branch pulmonary artery stenosis. *J Am Coll Cardiol* 1990; **15**: 1109-1117
- 2) Gentles TL, Lock JE, Perry SB: High pressure balloon angioplasty for branch pulmonary artery stenosis. *J Am Coll Cardiol* 1993; **22**: 867-872
- 3) Kan JS, Marvin WJ, Bass JL, et al: Balloon angioplasty-branch pulmonary artery stenosis: results from the valvuloplasty and angioplasty of congenital anomalies registry. *Am J Cardiol* 1990; **65**: 798-801
- 4) Baker CM, McGowan FX, Keane JF, et al: Pulmonary artery trauma due to balloon dilation: recognition, avoidance and management. *J Am Coll Cardiol* 2000; **36**: 1684-1690
- 5) Preminger TJ, Lock JE, Perry SB, et al: Traumatic aortopulmonary window as a complication of pulmonary artery balloon angioplasty: Transcatheter occlusion with a covered stent. A case report. *Cathet Cardiovasc Diagn* 1994; **31**: 286-289
- 6) 寺野和宏, 河内貞貴, 安藤達也, ほか: 完全大血管転換術後の肺動脈分岐部狭窄に対するバルーン拡張術20日後に発症した大動脈肺動脈窓の3カ月乳児例. *日小循誌* 2008; **24**: 140-144