

## MRA が診断に有用であった肺底動脈体動脈起始症の2例

釋舎 竜司, 永井 清久, 今井 茂樹, 梶原 康正, 吉田耕一郎\*,  
中島 正光\*, 松島 敏春\*, 石田 敦久\*\*, 森 俊博\*\*\*

近年 magnetic resonance imaging (MRI), ならびに magnetic resonance angiography (MRA) の撮像技術の進歩により, 血管の走行や解剖学的異常が動脈造影とほぼ同様の精度で非侵襲性に描出できるようになった。また, 高速撮像法と MRI 用造影剤の急速静注法の導入により血行動態を経時的に観察評価できるようにまでなっている。

今回我々は, 肺底動脈体動脈起始症2例の MRI, ならびに MRA を施行することにより病変部に流入する異常動脈と, その起始する血管を描出することができ, 血管造影検査と同等の所見を得ることができた。

第一の症例は15歳の健康な男性。左前胸部血管性雑音を指摘され, 胸部造影 CT 上, 左下肺野に血管性腫瘍が認められ, 肺動静脈瘻や肺分画症が疑われた。術前に MRA ならびに血管造影検査が施行され, とともに胸部大動脈左側から分枝する異常血管と, それが左肺底区に分布している所見が得られた。肺底動脈体動脈起始症の診断で, 左下葉切除術と異常動脈根部結紮術が施行された。

第二の症例は61歳の男性で, 潰瘍性大腸炎と, ピリン系薬剤およびそばアレルギーの既往がある。胸部単純写真にて左肺野に異常陰影を指摘され, 胸部造影 CT にて異常血管と左下肺野に血管性腫瘍が認められた。MRA を施行したところ, 腹部大動脈から分枝する拡張した異常血管が, 横隔膜を貫き左肺底区に分布している所見が得られた。この症例についても, 肺底動脈体動脈起始症と診断された。

(平成11年12月20日受理)

### Usefulness of Magnetic Resonance Angiography in the Diagnosis of Systemic Origin of an Aberrant Artery to the Basal Segment of the Lung : Description of Two Cases

Ryoji TOKIYA, Kiyohisa NAGAI, Shigeki IMAI, Yasumasa KAJIHARA,  
Kouichirou YOSHIDA\* , Masamitsu NAKAJIMA\* ,  
Toshiharu MATSUSHIMA\* , Atsuhisa ISHIDA\*\* and Toshihiro MORI\*\*\*.

A definitive diagnosis of pulmonary anomalous systemic arterial supply requires angiographic visualization of the anomalous feeding artery and draining vein. We report two patients with systemic origin of an aberrant artery to the basal segment of the lung. Magnetic Resonance

川崎医科大学 放射線科

〒701-0192 倉敷市松島577

\* 同 内科呼吸器部門

\*\* 同 外科胸部心臓血管部門

\*\*\*岡山中央病院

Department of Radiology, Kawasaki Medical School :

577 Matsushima, Kurashiki, Okayama, 701-0192 Japan

Division of Respiratory Diseases, Department of Medicine

Division of Thoracic and Cardiovascular Surgery, Department of Surgery

Okayama Central Hospital

Angiography (MRA) was found to be as effective as routine angiography in visualization of these abnormal vessels. MRI and MRA especially are safe, noninvasive and useful alternatives for the diagnosis of anomalous systemic arterial supply to the basal lung.

A 15-year-old boy was admitted to our hospital because of a left chest murmur on auscultation. Chest computed tomography (CT) showed a tumorous shadow in the left posterior basal segment (S<sup>10</sup>). MRA clearly disclosed aberrant arteries arising from the thoracic aorta. Chest tomography showed no defect in visible bronchi. Aortography showed one aberrant artery arising from the thoracic aorta, circulating in the basal segment of the left lower lobe, and returning to the left pulmonary vein. A pulmonary arteriogram revealed a defect of A<sup>8~10</sup>. Based on the above described examinations, this case was diagnosed as a case of systemic arterial supply to a normal basilar segment of the left lung. Resection of left lower lobe was performed. In the resected specimen, the bronchi of the left lower lobe had a normal structure and showed a normal pattern of distribution.

The other patient, a 61-year-old man was referred to our hospital after an abnormal shadow was found in the left lobe of the lung by a chest X-ray film and a plain CT scan. Chest enhanced CT revealed a tumorous shadow in the left posterior basal segment (S<sup>10</sup>). MRA showed that this shadow consisted of tumorous vessels and was connected to the abdominal aorta.

The left bronchial tree appeared normal during fibroptic bronchoscopy. From these findings, we determined that this patient had an systemic arterial supply to the normal basal segments.

(Accepted on December 20, 1999) *Kawasaki Igakkaishi* 26(1): 25-31, 2000

**Key Words** ① **Magnetic resonance angiography**  
 ② **Systemic origin of an aberrant artery to the basal segment of the lung**  
 ③ **Pryce Type I pulmonary sequestration** ④ **Angiography**

## はじめに

肺分画症やその他の先天性肺血管形成異常を診断、治療するに際し、異常血管の起始する部位を明らかにし、さらにその異常血管が分布する範囲を特定する必要がある。近年、高磁場MRI装置の普及、撮像法の高速化ならびにMRI用造影剤の急速静注法の導入によりmagnetic resonance angiography (MRA)は、非侵襲性に血管の走行や解剖学的異常を動脈造影とほぼ同様の精度で描出できるようになり、また、血行動態を経時的に観察評価できるようになった。

今回我々は、GE社製Signa Horizon (1.5 T)を使用し、稀な疾患である肺底動脈体動脈起始症2例のMRAを施行した。pulse sequenceは、

Fast SPGR (efgre 3d)法を用い、1回の呼吸停止下に、約20秒間の撮像を行った。得られた画像はMIP (maximum intensity projection)再構成し血管像を構築した。病変部に流入する異常動脈を証明し、その起始する血管を同定することが、血管造影検査と同等に可能であったので、文献的考察を加えここに報告する。

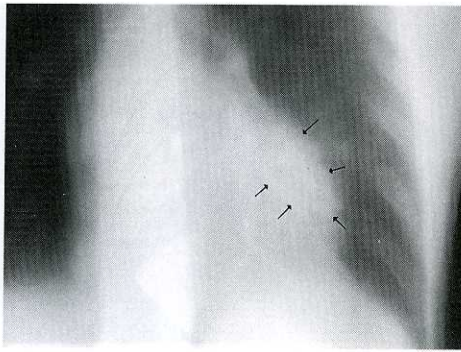
## 症例 1.

患者：15歳、男性

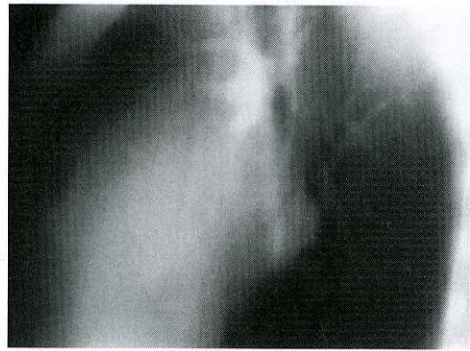
既往歴：特記すべき事なし

家族歴：特記すべき事なし

現病歴：1997年5月の学校健診にて、左前胸部血管性雑音を指摘され、近医受診。胸部単純写真では異常は認められなかったが、胸部CT上、左下肺野に異常陰影が認められたため翌年3月に精査を目的に入院。

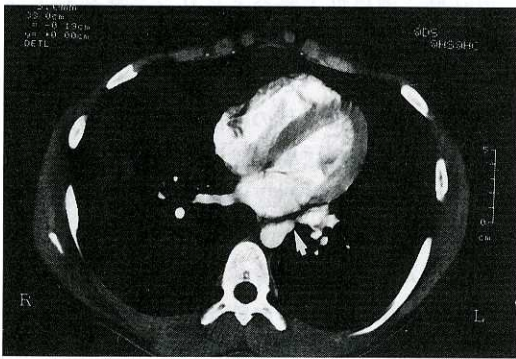


a (正面像)



b (側面像)

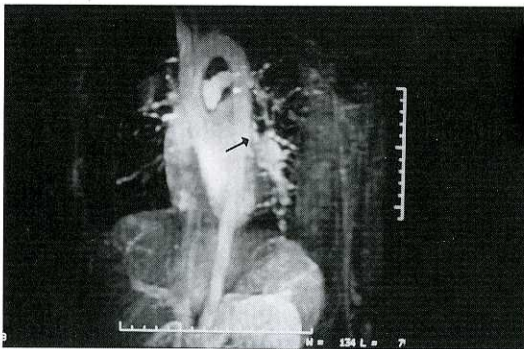
**Fig. 1.** A conventional chest tomogram shows : a ; a tumorous shadow (arrows) between the heart and the thoracic vertebrae and the left bronchial tree, which appears normal, b ; that the left main pulmonary artery does not have 8 th~10 th branches.



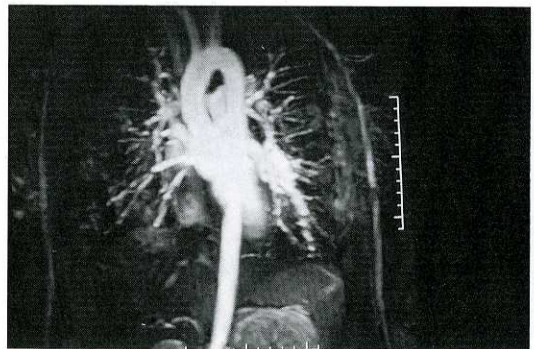
**Fig. 2.** A chest enhanced CT scan shows that the tumorous shadow (arrow) is connected with the thoracic aorta by a bundle-like shadow. Both of these lesions were stained with contrast medium.

現症：生来，健康な男性。身体学的所見では，左側胸郭の変形と左前胸部に血管性雑音が認められた。心エコー上，軽度の左室肥大と三尖弁での逆流を指摘されたが，血液学的検査，心電図所見，呼吸機能に異常は認められなかった。

画像所見：入院時胸部断層写真正面像 (Fig. 1a) で，左下肺野に心陰影と重なる腫瘤影を認めた。両側の気管支の走行は正常に分布していたが，側面像 (Fig. 1b) にて左肺動脈の8，9，10番が認められなかった。胸部造影CT (Fig. 2) では，左肺下葉領域に大動脈と同時期に造影される腫瘤性病変と，それに連続する肺静脈の拡張が認められ，肺動静脈奇形に伴う動静脈瘻や肺分画症などの血管性病変が疑われた。同血管性病変のMRA (Fig. 3a,b) を施行し，

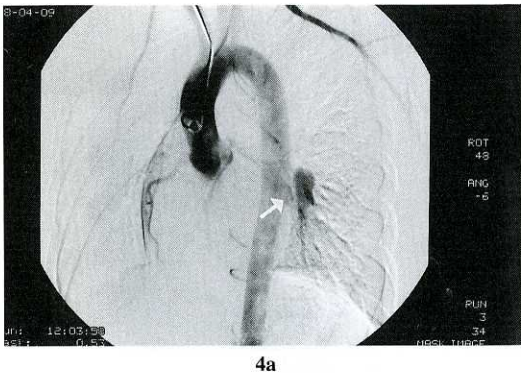


3a

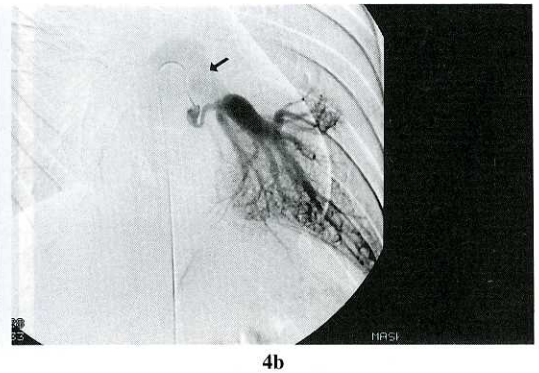


3b

**Fig. 3a, b.** Gd-enhanced MRA of the chest reveals an abnormal vessel (arrow) originating from the thoracic aorta. Imaging Parameters of MRA : pulse sequence efgre3d, TR/TE 8.2/1.4 ms, flip angle 30° , FOV 40×40 cm, slice thickness 6mm, imaging matrix 256×128



4a



4b

**Fig. 4a, b.** Aortograms disclose an abnormal artery (white arrow) originating from the thoracic aorta. The venous phase of the aortogram shows the abnormal artery returning to the left lower pulmonary vein (black arrow).

胸部大動脈左側より分枝する異常血管が屈曲、拡張して左肺底区に流入している像が得られた。後日行われた胸部大動脈 digital subtraction angiography (DSA) では、MRA と同様の所見と静脈相において、異常血管から左肺静脈を経て左房へ向かう血流が認められた (**Fig. 4a,b**)。また、肺動脈造影を施行し、左肺動脈 8, 9, 10番の欠損を確認した (**Fig. 5**)。術前の肺換気と血流シンチグラフィでは、左下肺野外側の換気と血流の低下が認められた。

治療経過：1998年8月、左肺底動脈体動脈起始症の診断で、左下葉切除術と異常動脈根部結紮が施行された。異常血管は胸部大動脈より分枝しており、左肺底区 (S<sup>10</sup>) に流入していた。同部位の組織学的検討では、肺、気管支の構造や走行に異常は認められなかった。

症例 2.

患者：61歳、男性

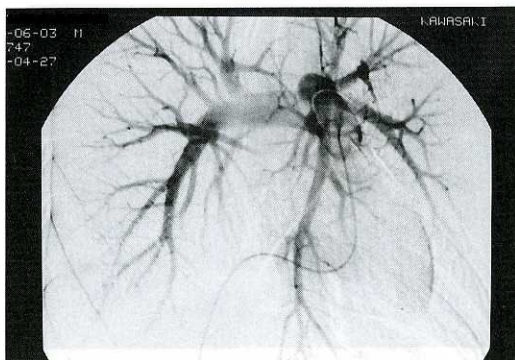
既往歴：潰瘍性大腸炎とピリン系薬剤および食物（そば）アレルギー

家族歴：特記すべき事なし

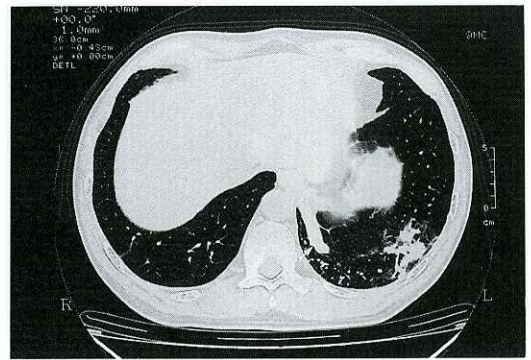
現病歴：1998年1月の検診目的での胸部単純写真にて、左肺野に異常陰影を指摘された。胸部CTでも異常陰影が認められたため、2月に精査を目的に入院。

現症：入院時の胸部身体学的所見に異常所見は認められず、また、血液学的ならびに、生化学的検査においても明らかな異常所見は認められなかった。

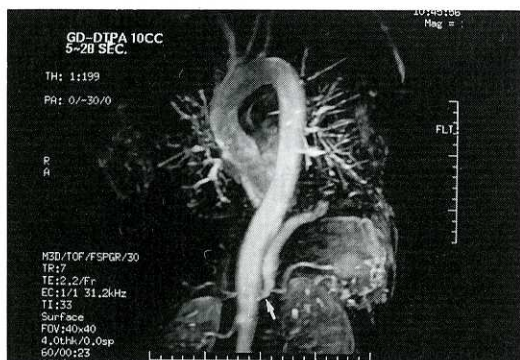
画像所見：胸部造影CT (**Fig. 6**) では、左S<sup>10</sup> 領域に動脈相で良く造影される蛇行した血管性病変が疑われた。また、この異常血管は、



**Fig. 5.** A pulmonary angiogram shows a loss of blood supply to the basal segments (A 8-10). The venous phase of a pulmonary arteriogram shows a normal left lower pulmonary vein.



**Fig. 6.** A chest CT scan shows a tumor shadow (arrow) and an enhanced vessel shadow in the left lower lung field.



**Fig. 7.** Gd-enhanced MRA of the chest shows an abnormal vessel (arrow) originating from the abdominal aorta. Imaging Parameters of MRA : pulse sequence efgre3d, TR/TE 7/2.2 ms, flip angle 30°, FOV 40×40 cm, slice thickness 4 mm (slice ZIP×2), imaging matrix 256×128 (in-plane ZIP512)

腹部大動脈レベルより分枝していた。その周囲には間質性的変化が認められたが、明らかな気管支の異常や分画肺は認められなかった。

MRA (Fig. 7) を施行したところ、腹部大動脈から分枝する拡張した異常血管が、横隔膜を貫き左肺底区に分布している所見が得られた。この症例では、患者の同意が得られず血管造影検査は施行されなかったが、以上の画像診断より肺底動脈体動脈起始症と診断された。

治療経過：現在の年齢になるまで、特に本疾患による症状の出現は認められていないため、引き続き経過観察となった。

## 考 察

肺脈管系先天性奇形による疾患は、肺分画症がもっとも有名である。Pryce ら<sup>1)</sup>は、肺分画症を異常動脈の観点から、3型に分類、異常動脈が正常肺組織へ灌流するものをI型。異常動脈が正常肺組織、ならびに隣接した分画肺組織へ灌流するものをII型。異常動脈が分画肺組織へのみ灌流するものをIII型とした。本症は、この分類によると、I型に属すると考えられるが、今日広く認められている Kohler<sup>2)</sup>の「正常肺と気管支の交通がなく、大動脈あるいはその分枝から血流を受ける、正常肺から分離された無

機能な肺組織」という肺分画症の定義に従えば、肺分画症とは別の疾患として取り扱うべきものであり、欧米文献では systemic arterial supply to a normal lung あるいは systemic arterialization of lung without sequestration などとして報告されているものに属すると考えられる<sup>3)-10)</sup>。本邦でも1985年小川が肺底区動脈大動脈起始症と呼称を提唱<sup>11)</sup>して以来、肺分画症とは別の疾患群としての報告が増加しつつある。

本症は先天性の肺動脈形成異常で、肺分画症とは異なり、正常な気管支肺胞に、大動脈から直接分枝した異常血管が流入する。これまでの報告例の多くは肺底区に異常血管が分枝し、その支配領域の肺動脈は欠損していた。また、肺実質を灌流した血液は肺静脈を介して左房に流入する、いわゆる左-左シャントの状態であった。

本症の診断においては動脈より分枝する、異常動脈を証明することが必要であり、CT検査<sup>12),13)</sup>や超音波検査<sup>14)</sup>が診断に有用であったと報告されている。竹政ら<sup>12)</sup>による turbo-FLASH法をもちいた dynamic MRI で、動脈相から静脈相までの血行動態が経時的に追跡可能であったが、血管造影検査と比べると時間および空間分解能は劣るとされている。

今回我々は、肺底動脈体動脈起始症2例に対し、dynamic CT, MRA, 血管造影検査を施行し、異常血管の起始、走行を描出することができた。dynamic CT では、異常動脈の起始部は良好に描出されたが、撮像範囲が狭く、蛇行する異常血管の走行を全て描出することは、不可能であった。MRA では呼吸停止下、Gd-DTPA を急速静注し Fast SPGR (efgre3d) 法にて dynamic MRA を施行した。症例1については、同時期に施行された血管造影検査と比較検討を試みた。今回我々の経験した2症例においても、肺底動脈体動脈起始症を診断するにあたり、異常血管の起始、走行を描出することは3D-MRA と血管造影検査において著差は認められなかった。しかし、異常血管から肺静脈を経て左房に環流する血行動態を MRA で経時的に描出すること

は不十分であった。その原因として、今回の3Dでの撮像には高速化に限界があることがあげられる。空間分解能を診断に十分なレベルに保つためには時間分解能を犠牲にせざるを得ず、本症のような大動脈から流入する速い血流を有する疾患では動脈相と静脈相を分離するのに十分な時間分解能を得ることが困難であった。また、限られた検査時間内に病変部における造影剤のダイナミックな流れを、正確なタイミングで画像化することは容易なことではなかった。しかしながら血管造影検査の同意が得られない症例やヨード造影剤に過敏性を有する患者に対しては、有用な検査と考えられた。

今後の課題として、さらに短時間で空間分解能および時間分解能の向上を得るため、装置、撮像条件と造影剤の投与法の改良が必要と考えられた。

最後に、本症例の治療方針は、合併症として大量咯血、動静脈瘻、感染等の可能性があることから、ほぼ全例に手術適応があるとされてい

る<sup>15)</sup>。しかし、自覚症状のないものでは経過観察されている例<sup>16)</sup>や、大量咯血をきたした症例において、経カテーテル血管塞栓術を異常血管に施行することで良好な治療成績が得られたという報告<sup>17)</sup>もあり、治療の点でも今後、検討されるべきである。

## ま と め

1) 今回我々は、稀な疾患である肺底動脈体動脈起始症2例のMRI、ならびにMRAを施行した。

2) MRAを施行することにより、病変部に流入する異常動脈を証明し、その起始する血管を同定することが可能であった。MRAは、肺底動脈体動脈起始症の診断に有用と考えられた。

3) MRAと血管造影検査の比較検討では、異常血管の描出能においては、ほぼ同等の所見を得ることができたが、異常血管の血行動態を把握する上では血管造影検査が優っていた。

## 文 献

- 1) Pryce DM, Sellors TH, Blair LG : Interlobar sequestration of lung associated with an abnormal pulmonary artery. *Br J Surg* 35 : 18-29, 1947
- 2) Kohler R : Pulmonary sequestration. *Acta Radiol Diagn* 8 : 337-352, 1969
- 3) Sade RM, Clouse M, Ellis FH Jr. : The spectrum of pulmonary sequestration. *Ann Thorac Surg* 18 : 644, 1974
- 4) Kirks DR, Kane PE, Free EA, Taybi H : Systemic arterial supply to normal basilar segments of the left lower lobe. *Am J Roentgenol* 126 : 817, 1976
- 5) Hessel EA, Boyden EA, Stamm SJ, Sauvage LR : High systemic origin of the sole artery to the basal segments of the left lung : Findings, surgical treatment, and embryologic interpretation. *Surgery* 67 : 624, 1970
- 6) Filsak ME, Chandrasekar AJ, Marsam RE, Ali MM : Systemic arterialization of lung without sequestration. *Am J Roentgenol* 138 : 751, 1982
- 7) Campbell DC, Murney JA, Dominy DE : Systemic arterial blood supply to a normal lung. *JAMA* 182 : 497, 1962
- 8) Litwin SB, Plauth WH Jr., Nadas AS : Anomalous systemic arterial supply to the lung causing pulmonary arterial hypertension. *N Engl J Med* 283 : 1098, 1970
- 9) Painter RL, Billing DM, Epstein I : Anomalous systemic arterialization of the lung without sequestration. *N Engl J Med* 279 : 866, 1968
- 10) 山崎史朗, 川田光三, 相馬康宏, 福田豊紀, 井上 正 : 限局性気管支狭窄を伴った肺領域への異常動脈の1例 - とくに pulmonary sequestration との関連について - . *日胸外会誌* 23 : 1022, 1975
- 11) 小川純一, 井上宏司, 小出司郎策, 川田志明, 正津 晃, 奏 順一 : 肺底区動脈大動脈起始症に対し肺動脈再建を行った1例. *胸部外科* 38 : 316, 1985

- 12) 竹政和彦, 小林 剛, 宮村恵一, 東谷秀樹, 中山俊威, 中村清一: 肺底動脈体動脈起始症の1例 - Dynamic MRI の有用性 - . 画像診断 15 : 1265, 1995
- 13) 松木 充, 清水雅史, 相模昭彦, 芦名謙介, 平石久美子, 松井律夫, 榎林 勇, 福田泰樹, 立花秀一: MRI が診断に有用であった左肺底動脈体動脈起始症の1例. 画像診断 16 : 89, 1996
- 14) 友近康明, 松崎益徳, 時澤郁夫, 和崎雄一郎, 藤原敬且, 江里健輔, 岡田和好, 村田武穂, 楠川禮造: 経食道心エコー法によって確認し得た左肺底動脈体動脈起始症の1例. 心臓 23 : 895, 1991
- 15) 湯浅幸吉, 清水 健, 小林有希, 南部静洋, 大谷信夫: Pryce I 型分画症の手術経験. 日胸疾会誌 34 : 111, 1996
- 16) 影山貴一, 大山賀久: 肺動脈起始異常症 (Pryce I 型) の CT 像. 映像情報 25 : 693, 1993
- 17) Bruhlmann W, Weishaupt D, Goebel N, Imhof E: Therapeutic embolization of a systemic arterialization of lung without sequestration. Eur Radiol 8 : 355, 1998