

線維筋性異形成による上腕動脈瘤の一手術例

加藤 俊介¹ 井上 芳徳¹ 広川 雅之¹
菅野 範英¹ 明石 巧² 岩井 武尚¹

要 旨：上肢動脈に発生する動脈瘤はまれであり仮性動脈瘤が多い。若年女性に発生した真性上腕動脈瘤の一手術例を経験したので報告する。症例は25歳，女性で，主訴は左上腕部の拍動性腫瘍である。術前検査にて左上腕動脈に径1.5×1.2cmの嚢状動脈瘤を認めた。腎動脈や頸動脈に病変を認めなかった。今後の瘤拡大，塞栓症を危惧して動脈瘤切除，自家静脈間置術を施行した。術後経過は順調で第8病日に軽快退院した。病理所見で瘤壁の約1/3周にわたり中膜と内弾性板が欠損し中膜は著しく菲薄化していたが，外弾性板と外膜は保たれていた。病理所見や発生頻度より線維筋性異形成と診断した。先天性の中膜の脆弱性の可能性があり嚴重な経過観察とした。上腕動脈瘤は積極的な手術適応であり，病理組織学的検索も含めた詳細な原因検索が望ましい。(日血外会誌 12 : 103-107, 2003)

索引用語：上腕動脈瘤，嚢状動脈瘤，線維筋性異形成，若年者

はじめに

上肢に発生する動脈瘤は一般的ではなく，そのほとんどは仮性動脈瘤である¹⁾。上腕動脈瘤は若年男性で外傷により発生することが多く，真性動脈瘤はまれであり発生部位は尺骨動脈が最多である²⁻⁵⁾。今回われわれは若年女性に発生した真性上腕動脈瘤の一手術例を経験したので文献的考察を加えて報告する。

症 例

患 者：25歳，女性。

主 訴：左上腕部の拍動性腫瘍。

既往歴，家族歴：特記すべきことなし。中高時代に剣道部に所属していた。

現病歴：1999年，左上腕内側に拇指頭大の腫瘍に気づき，近医を受診した。Computed Tomography(CT)，超音波断層検査にて上腕動脈瘤と診断された。2000年

11月16日 当科に入院した。

入院時身体所見：身長162.4cm，体重46kg，体温37.2°C，血圧(右)102/66mmHg，心拍数72回/分(整)，結膜：貧血(-)，黄疸(-)，頸部血管雑音：聴取せず，胸腹部：異常なし，四肢：左上腕部，肘窩より8cm中枢側に約2×2cm大の拍動性腫瘍を触知した。橈骨動脈拍動に左右差なくAllen試験は陰性であった。

入院時検査所見：WBC 3800/mm³，RBC 410万/mm³，Hb 12.3g/dl，HT 36.6%，Plt 27.2万/mm³，TP 6.8 g/dl，Alb 3.9 g/dl，BUN 11 mg/dl，Cr 0.7 mg/dl，LDH 144 IU，AST 12 IU/l，ALT 8 IU/l，γ-GTP 17mg/dl，T-Bil 1.1 mg/dl，T-Chol 164 mg/dl，Glu 85 mg/dl，CRP 0.1 mg/dl

ガラス板試験(-)，トレポネーマ抗体(-)，HBS抗原(-)，HCV抗体(-)，リウマトイド因子3，ANA(-)，抗DNA抗体2.0倍，抗Sm抗体(-)，抗RNP抗体(-)

IVDSA：肘窩より8cm中枢側に径1.8×1.4cm大の嚢状動脈瘤を認めた(Fig. 1)。

CT：肘窩より8cm中枢側に径1.8×1.4cm大の嚢状動脈瘤を認めた。動脈瘤より中枢側の上腕動脈や，尺骨・橈骨動脈に異常所見を認めなかった。

Duplex超音波検査：左上腕動脈に径1.5×1.2cmの嚢状動脈瘤を認めた。また，他の動脈についても可及的に

1 東京医科歯科大学外科(Tel: 03-5803-5253)

2 東京医科歯科大学病因，病理学

〒113-8519 東京都文京区湯島 1-5-45

受付：2002年8月26日

受理：2003年4月1日

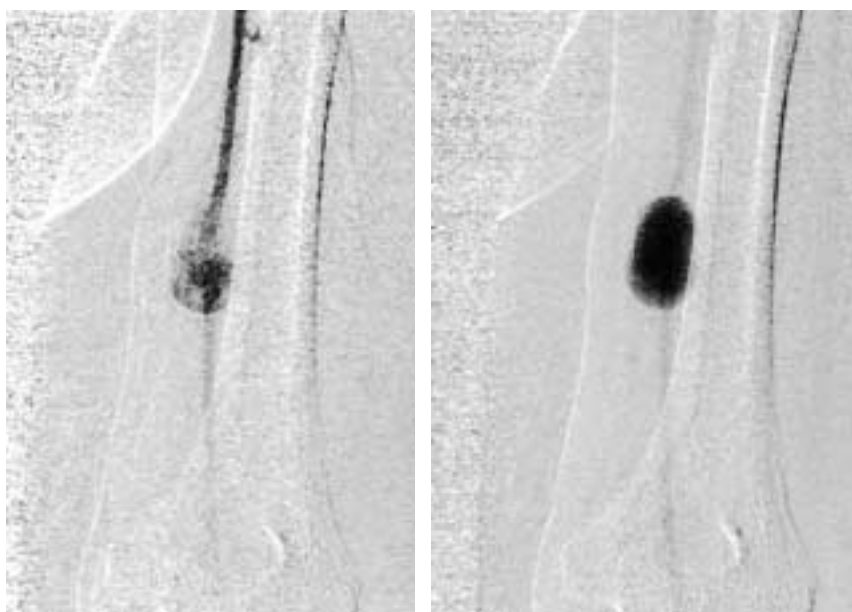


Fig. 1 Preoperative IVDSA
Preoperative IVDSA showed a saccular aneurysm, 1.8×1.4cm in a diameter, which was located 8cm proximal to the left cubitus.

検索したが両側腎動脈，内外頸動脈などに動脈瘤や狭窄などの病変を認めなかった。

手術所見：左上腕動脈に嚢状動脈瘤を認めた。中枢および末梢側動脈に硬化性病変および壁肥厚所見を認めなかった。

上腕動脈を露出し，全身ヘパリン化の後に上腕動脈をブルドック鉗子にて遮断した。動脈瘤を切除したが周囲との癒着はなかった。6-0ポリプロピレン糸を用いて2点支持の連続縫合にて，大伏在静脈グラフト置換術を施行した(Fig. 2)。

病理所見：瘤壁の約1/3周にわたって中膜，内弾性板が欠損し壁は著しく菲薄化していたが，外弾性板・外膜は認められ，真性動脈瘤と診断した。瘤の頸部では内膜の著明な線維性肥厚を認めた(Fig. 3)。好中球浸潤は認めなかった。

術後経過：術後経過は順調で第8病日に軽快退院した。術後14カ月後のDuplex超音波検査では，吻合部に狭窄はなく流速波形も良好であった。

考 察

上肢に動脈瘤を有する患者は，腫瘤触知を主訴として受診することが多い。加えて神経圧迫による痺れや痛

み，血栓の塞栓による局所虚血を訴えることもある^{4,5)}。術前検査としては超音波検査が第一選択となるが⁶⁾，グレイスケール単独で診断した場合，上肢動脈瘤8例のうち4例を単純嚢胞と誤診したとの報告もある¹⁾。動脈撮影にて確定診断が容易に得られ動脈瘤の形状や末梢動脈閉塞の有無を評価できるが，侵襲度の面から超音波検査で診断した後に動脈撮影の適応を検討する。Duplex超音波検査を用いれば動脈瘤の形状や末梢動脈閉塞の有無を手関節まで診断可能である。しかし検査に時間を要すること，検者に依存することより，手術術式を決定するには動脈撮影を施行すべきであろう。

成因としては線維筋性異形成(fibro-muscular dysplasia: FMD)，外傷，ベーチェット病や梅毒などの炎症性動脈疾患，マルファン症候群などの先天性疾患が挙げられている⁷⁾。外傷(鈍的または貫通性)は最も一般的な上肢動脈瘤の原因である⁸⁾。本症例でも剣道部所属の際に患部への反復する外傷が存在していた可能性がある。外傷性動脈瘤の特徴的な病理所見は，著明に肥厚した動脈壁，不整な内膜，中膜弾性線維の破壊である⁹⁾。また鈍的外傷による真性動脈瘤の報告は極めて稀であり^{10,11)}，本症例の病理所見が真性瘤であったこと，外傷から発生までの期間が10年前後と長いことより，外

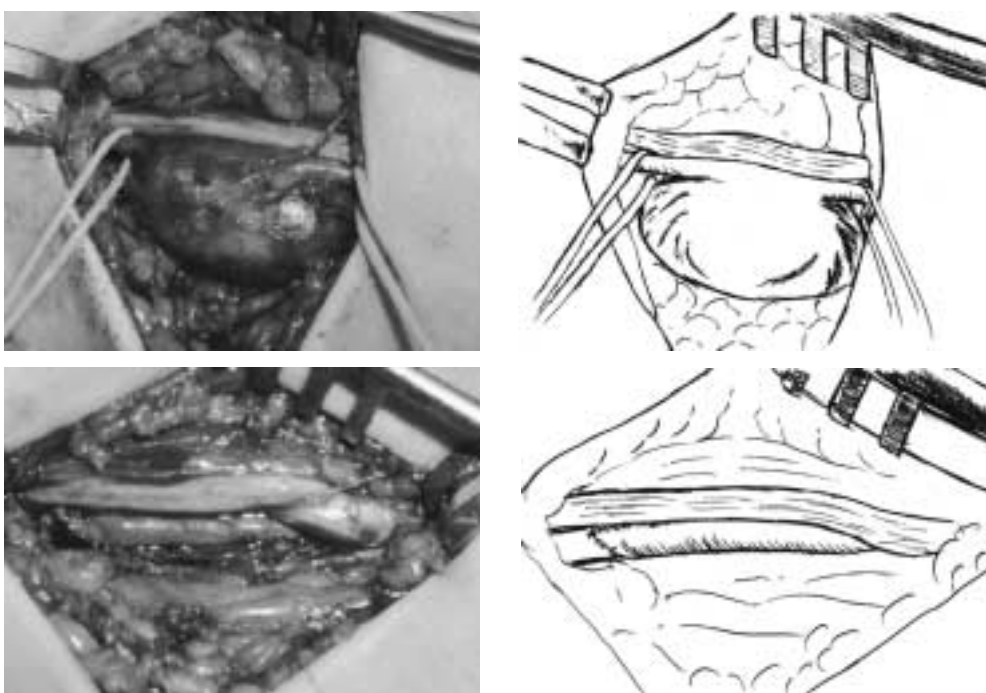


Fig. 2 Intraoperative findings

Intraoperative findings showed a saccular aneurysm without any obvious abnormal findings at the either proximal and distal arteries, which was resected with vein graft interposition.

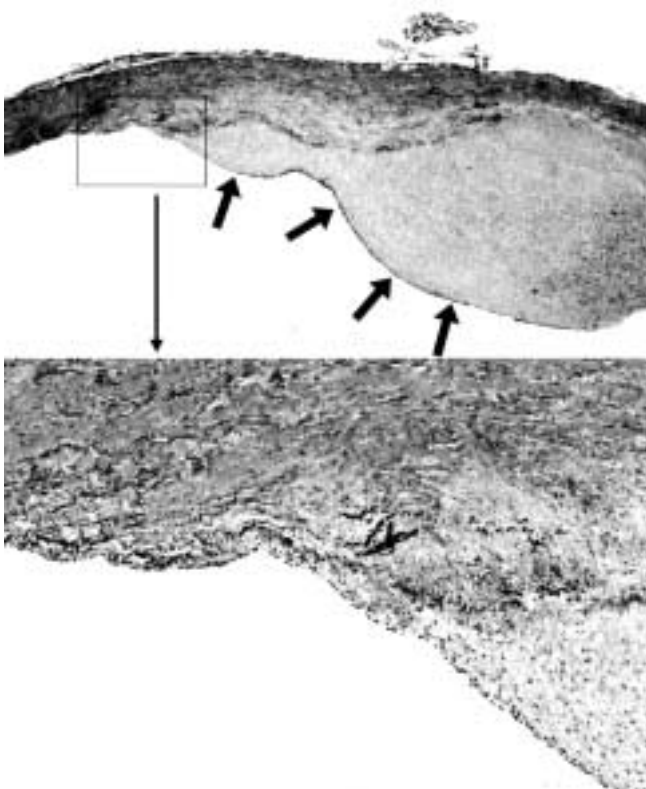


Fig. 3 Pathological findings

Pathological findings revealed marked thinning of the media and defect at the one-third circumference of internal elastic lamina as well as preserved external elastic lamina and adventitia, which indicated true-type aneurysm. Arrows show that intima is markedly thickened and fibrosis is present. The causative factor was suggested to be fibromuscular dysplasia (medial fibroplasia type). (Elastica Van Gieson stain, low power field and high power field)

傷性としては非典型的であった。

FMDの最も一般的な型である medial fibroplasia typeの特徴は、内弾性板と中膜の欠損、外膜の存在^{12,13)}、他の部位での中膜肥厚による内腔狭窄であり、本症例の所見と一致する点が多い。しかし他の部位での中膜肥厚による内腔狭窄は本症例では認められなかった。また好発部位である内外頸動脈、腎動脈には異常を認めなかった。しかしFMDによる上腕動脈瘤の報告も散見されており^{14,15)}、本症例はFMD(medial fibroplasia type)であると診断した。本症例の成因は先天的な中膜の脆弱性によると推定された。また、内膜肥厚の原因としては、内膜への血栓付着を認めたことから瘤形成による二次的な所見と考えた。また、検査所見において炎症所見を認めず、腎性高血圧症と大動脈弁不全(高安病)、蝶形紅斑や光線過敏、関節痛、抗Sm抗体陽性(Systemic lupus erythematosus)、口腔内アフタや外陰部潰瘍(ベーチェット病)、発熱、不定形発疹、眼瞼充血(川崎病)といった各疾患に特徴的な症候も認めなかったため、炎症によるものは除外した。

また、炎症性変化を伴わず中膜の消失を示す病態としてsegmental mediolytic arteritis(SMA)が挙げられるが、病理像として中膜の平滑筋の変性による菲薄化および真性血管の増生が特徴であり¹⁶⁾、本症例の所見と一致しない。また臨牀的にもIgG、IgAの値や尿蛋白に異常を認めることが多く¹⁷⁾、この点でも典型的ではないと考えた。

本症例では瘤の増大化傾向は不明であり圧迫症状や虚血症状を認めなかったが、将来的な圧迫症状の出現、破裂の危険性、塞栓源の可能性を危惧して手術適応とした。本症例のように無症状の上腕動脈瘤は、治療せずに経過観察していると1/3の症例に症状が出現するという報告もあり¹⁾、予防的な手術が勧められている。加えて本症例では病理検索によって原因が先天的な中膜の脆弱性にある可能性が示唆され、他部位の血管病変も念頭において嚴重な経過観察が必要であることが判明した。病理組織学的検討により確定診断する意味でも上腕動脈瘤は手術適応とするのが望ましい。

近年interventional radiology(IVR)が嚢状動脈瘤の治療として注目されており、瘤の間口が狭い真性瘤で感染を伴わない動脈瘤が適応となる。鎖骨下から腋窩動脈領域での嚢状動脈瘤に対するIVRおよび非解剖学的バイパス術を併用した治療例は報告されているが^{18,19)}、現

在までのところ、われわれが調べ得た範囲内では上腕動脈瘤に対するIVR施行例は報告されていない。

結 語

若年女性に発生した上腕動脈瘤の一例を経験した。手術後の病理学的検討により線維筋性異形成と診断し、他部位の血管病変にも注意する必要があることが判明した。発生頻度の観点から外傷による単発性の病変と断定せず、積極的に手術適応とするとともに病理組織学的検索も含めた原因検索が望まれる。

文 献

- 1) Gray, R. J., Stone, W. M., Fowl, R. J., et al.: Management of true aneurysms distal to the axillary artery. *J. Vasc. Surg.*, **28**: 606-610, 1998.
- 2) Applebaum, R. E., Caniano, D. A., Sun, C.-C., et al.: Synchronous left subclavian and axillary artery aneurysms associated with melorheostosis. *Surgery*, **99**: 249-253, 1986.
- 3) Mays, E. T.: Traumatic aneurysm of the hand. *Am. Surg.*, **36**: 552-557, 1970.
- 4) Clark, E. T., Mass, D. P., Bassiouny, H. S., et al.: True aneurysmal disease in the hand and upper extremity. *Ann. Vasc. Surg.*, **5**: 276-281, 1991.
- 5) McClinton, M. A.: Tumors and aneurysms of the upper extremity. *Hand Clin.*, **9**: 151-169, 1993.
- 6) Dooley, T. W., Welsh, C. F. and Puckett, C. L.: Noninvasive assessment of microvessels with the duplex scanner. *J. Hand Surg[Am.]*, **14**: 670-673, 1989.
- 7) 星野俊一: 診断と治療上の特異点と術式。上腕, 前腕, 手掌, および指動脈瘤。外科Mook, **50**: 212-216, 1988。
- 8) Ho, P. K., Weiland, A. J., McClinton, M. A., et al.: Aneurysms of the upper extremity. *J. Hand Surg[Am.]*, **12**: 39-46, 1987.
- 9) Abbott, W. M. and Darling, R. C.: Axillary artery aneurysms secondary to crutch trauma. *Am. J. Surg.*, **125**: 515-520, 1973.
- 10) Green, D. P.: True and false traumatic aneurysms in the hand. *J. Bone Joint Surg.*, **55**: 120-128, 1973.
- 11) 脇田 昇, 志田 力, 顔 邦男, 他: 反復する鈍的外傷が誘因と考えられた真性上腕動脈瘤の1手術例。日心外会誌, **21**: 479-483, 1992。
- 12) Holm-Bentzen, M., Gerstenberg, T., Horn, T., et al.: Medial fibroplasia: involvement of renal artery and small re-

- nal arteries in renal vascular hypertension. *Scand. J. Urol & Nephrol.*, **27**: 263-265, 1993.
- 13) Sottirai, V., Fry, W. J. and Stanley, J. C.: Ultrastructural characteristics of experimental arterial medial fibroplasia induced by vasa vasorum occlusion. *J. Surg. Research*, **24**: 169-177, 1978.
- 14) Olson, L. A., Faber, D. B., LeMar, J. V., et al.: Fibromuscular hyperplasia of the brachial artery - failure of calcium channel therapy. *Angiology*, **15**: 790-796, 1984.
- 15) Shipolini, A. R. and Wolfe, J. H. N.: Fibromuscular dysplasia and aneurysm formation in the brachial artery. *Eur. J. Vasc. Surg.*, **7**: 740-743, 1993.
- 16) Juvonen, T., Räsänen, O., Reinilä, A., et al.: Segmental mediolytic arteritis - electronmicroscopic and immunohistochemical study. *Eur. J. Vasc. Surg.*, **8**: 70-77, 1994.
- 17) Juvonen, T., Niemelä, O., Reinilä, A., et al.: Spontaneous intraabdominal haemorrhage caused by segmental mediolytic arteritis in a patient with systemic lupus erythematosus - an underestimated entity of autoimmune origin? *Eur. J. Vasc. Surg.*, **8**: 96-100, 1994.
- 18) Levey, D. S., Teitelbaum, G. P., Finck, E. J., et al.: Safety and efficacy of transcatheter embolization of axillary and shoulder arterial injuries. *J. Vasc. Intervent. Radiol.*, **2**: 99-104, 1991.
- 19) Kretschmer, G. J., Lechner, G. and Polterauer, P.: Bleeding aneurysm of the axillary artery, managed by a combined approach: interventional radiology and extra-anatomic bypass: *Thorac. Cardiovasc. Surg.*, **31**: 119-121, 1983.

True Brachial Artery Aneurysm Surgically Treated in a Young Woman

Shunsuke Kato¹, Yoshinori Inoue¹, Masayuki Hirokawa¹, Norihide Sugano¹,
Takumi Akashi² and Takehisa Iwai¹

¹ Department of Surgery, Tokyo Medical and Dental University, Graduate School

² Department of Pathology, Tokyo Medical and Dental University, Graduate School

Key words: Brachial artery aneurysm, Fibromuscular dysplasia, Medial fibroplasia type,
Saccular artery aneurysm

Upper extremity arterial aneurysms have been reported sporadically. Most are false-type, due to injury. A rare case of true brachial artery aneurysm in a young woman is described. A 25-year-old woman complained of a pulsating mass in the left arm. Preoperative examination revealed saccular artery aneurysm located in the left brachial artery. No inflammatory change was revealed by blood examinations. An aneurysmectomy and saphenous vein graft interposition was performed. The postoperative course was uneventful and pathological findings revealed marked thinning of the media and a defect in one-third of the circumference of the internal elastic lamina as well as preserved external elastic lamina and adventitia, which indicated true-type aneurysm. The causative factor was suggested to be fibromuscular dysplasia (medial fibroplasia type). Brachial artery aneurysm should be treated aggressively by surgery and evaluated thoroughly to delineate its pathogenesis.

(*Jpn. J. Vasc. Surg.*, **12**: 103-107, 2003)