

大動脈縮窄症に伴った胸部大動脈瘤：外科治療におけるpitfall

川田 忠典 山田 真 饗場 正宏 丸田 一人 松岡 穰
尾頭 厚 岡田 良晴 松尾 義昭 道端 哲郎 高場 利博

要 旨：過去約20年間に手術治療を行った先天性大動脈縮窄症および高安動脈炎による異型大動脈縮窄症46例中，胸部大動脈瘤を合併した8例を対象として，外科治療に伴うpitfallについて検討した。

大動脈瘤が縮窄部近傍に存在した2例では合併症なく瘤および縮窄部の摘出，人工血管置換が行われた。そのうちの1例は偽性大動脈縮窄症でその瘤壁は被薄で易破裂性であり，偽性大動脈縮窄症であっても瘤形成を来すことがあり，定期的な経過観察を怠るべきでないことを示唆した。感染性の仮性瘤の肺内破裂例では瘤への直達手術はハイリスクであり，非解剖学的バイパス術後の瘤と肺の合併切除が有用であった。大動脈基部瘤(AAE)合併例では基部再建に非解剖学的バイパスを併置することにより術後管理は容易であった。上行大動脈瘤例で，大動脈弁閉鎖不全を伴う場合には，外科治療は一期的か二期的かの選択，術式の適切な選択はpitfallを回避するために重要である。非解剖学的バイパスは手技的に容易で，縮窄症に伴う術後合併症を最小限に留め，遠隔期機能も良好であることから，選択されてよい術式と考えられた。(日血外会誌 12 : 627-632, 2003)

索引用語：胸部大動脈瘤，大動脈縮窄症，非解剖学的バイパス術，高安動脈炎

はじめに

先天性の大動脈縮窄症はほとんどが小児期に手術治療がなされ，術式については高頻度に瘤形成を来すパッチ形成術が避けられるようになり，本症に瘤病変を伴うことは近年まれとなった。とは言え，ときには外科治療を必要とする縮窄症と胸部大動脈瘤の合併例に遭遇することがある。その際，術式の適切な選択を誤ると重大なpitfallに落ち込む可能性がある。そこで，われわれはこれまでに経験した高安動脈炎による場合も含めた胸部大動脈瘤合併大動脈縮窄症例の各々の治療経緯から外科治療におけるpitfallについて検討した。

対象と方法

1980年から2002年の間の大動脈縮窄症の手術例は先天性42例，高安動脈炎による異型大動脈縮窄症4例の計46例である。そのうち胸部大動脈瘤を合併した8例を本検討対象例とした(Table 1)。先天性大動脈縮窄症には2例の偽性大動脈縮窄症が含まれた。

先天性大動脈縮窄症の1例および動脈炎の1例のみが女性で，年齢は7歳から67歳，平均37.5±19.0歳であった。

結 果

大動脈縮窄部に近接して発生した大動脈瘤(Table 2)

8例中，3例は大動脈縮窄部位の近傍に瘤が存在した。症例1は縮窄部より遠位側の二房性紡錘状瘤で瘤壁の石灰化像を認めた。症例2では大動脈造影上，遠位弓部の延長と腔内web像および外方に突出する近位下行大動脈の状瘤を認めた。上下肢間に圧較差はな

昭和大学医学部第一外科(Tel: 03-3784-8702)

〒142-8555 東京都品川区旗の台1-5-8

受付：2003年7月30日

受理：2003年10月7日

第31回日本血管外科学会総会 シンポジウム3 胸部大動脈手術のpitfall(瘤と縮窄症)

く、大動脈瘤を伴った偽性大動脈縮窄症と診断された。両例とも左開胸下に縮窄部とともに瘤摘出，人工血管置換が合併症なく行われた。症例2における嚢状瘤は血液を透見出来るほど瘤壁が薄く，易破裂性であった。病理所見では中膜の被薄化が高度で，壁の内因性異常が疑われた(Fig. 1)。

症例3は大動脈縮窄複合で乳児期に縮窄部のsubclavian flap angioplasty, VSD閉鎖術が行われている。7歳時，縮窄形成部のmycotic aneurysmの左肺内破裂による喀血を主訴として緊急入院した。窒息死防止のため，緊急的に8mmの人工血管にて上行腹部大動脈バイパスを置いたのち，遠位弓部および瘤より末梢側の下行大動脈を結紮し，瘤のisolationを計った。翌日，動脈瘤を含めて左肺上葉切除を行い瘤口は縫合閉鎖した。切除組織より黄色ブドウ球菌が同定されたため左胸腔ドレーナージチューブは排液の培養陰性化を待って，術後12病日に抜管した¹⁾。

3例とも経過良好であったが，症例3は術後7年で

上下肢間圧較差が30mmHgとなり，追加手術が考慮されている。

大動脈縮窄部より近位に発生した大動脈瘤

縮窄部より近位に瘤形成を来したのは5例であった。症例4は大動脈弓部の延長蛇行あるも上下肢間圧較差はなく，二尖大動脈弁を伴った偽性大動脈縮窄症で急

Table 1 Coarctation of the thoracic aorta associated with thoracic aortic aneurysm.

		Aneurysm combined	
Congenital			
Simple	Co/A	14	4
	Co/A complex	26	1
	Pseudo-Co/A	2	2
Takayasu arteritis			
	Atypical Co/A	4	1
Total		46	8 (17.4%)

Co/A: coarctation of the aorta

Table 2 Thoracic aortic aneurysms associated with coarctation of the aorta: Operative technique and postoperative outcome.

Case No	Age / Sex	Symptom	PG	Type of aneurysm	Op. technique	Adjunct	Early and long-term outcome
Aneurysm at or distal to the coarctation							
1	32 / m	(-)	25	calcified fusiform	resection & grafting	temporary bypass	alive & well (22 years)
2	21 / f	(-)	(-)	saccular	resection & grafting	left heart bypass	alive & well (7 years)
3*	7 / m	hemoptysis	35	ruptured pseudo-aneurysm	extra-anatomical bypass left upper lobectomy suture closure of aneurysm orifice		alive & well 7 years after surgery, lost to follow-up thereafter
Aneurysm proximal to the coarctation							
4*	49 / m	chest pain syncope	(-)	aortic dissection type A, bicuspid AV	graft replacement of ascending aorta	total CPB	alive (21 years, CRF)
5*	33 / m	dyspnea	58	AA + AR (4+)	aortic root reconstruct	total CPB	died of MOF (11 POD)
6*	37 / m	chest pain	50	AAE bicuspid AV	aortic root reconstruct. extra-anatomic bypass (Asc - AA)	total CPB	died of hepatoma 12 years after surgery
7	54 / m	dyspnea	80	AAE + AR (3+)	aortic root reconstruct. extra-anatomic bypass (Asc - AA)	total CPB	alive & well (9 years)
8*	67 / f Takayasu arteritis	chest pain	20	fusiform	resection & grafting extra-anatomic bypass (Desc - AA)	F-F bypass	alive & well (3.5 years)

*: have been already reported elsewhere

PG: pressure gradient between upper and lower limbs, CPB: cardiopulmonary bypass, AAE: annuloaortic ectasia, AV: aortic valve, Asc: ascending aorta, AA: abdominal aorta, Desc: descending aorta, F-F: femoro-femoral.

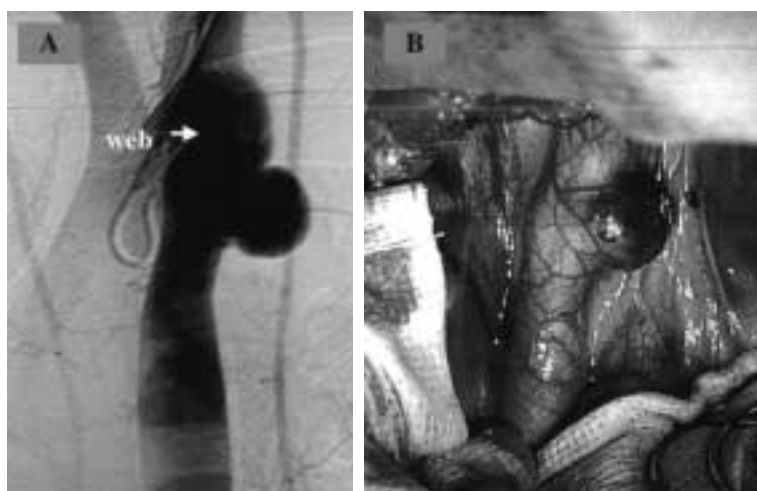


Fig. 1 A: Preoperative aortogram in case 2 showing elongated distal aortic arch, web-like septum in the isthmus and saccular aneurysm protruding laterally.
B: Aneurysm wall is so thin that intraluminal turbulent blood stream can be seen from the outside.

性上行大動脈解離を併発した。緊急に大腿動脈送血による体外循環下の上行大動脈置換が行われた。慢性腎不全を有するが術後の遠隔期予後は良好である²⁾。

症例5～7は大動脈基部瘤(AAE)を合併し、2例は大動脈弁逆流による心不全症状、1例は切迫破裂による胸痛を主訴とした。上下肢間圧較差は50～80mmHgであり、症例5に対しては腋窩-大腿動脈一時バイパス作成後、大腿動脈送血、症例6は上行送血のみ、症例7は上行+大腿動脈送血にて体外循環下に大動脈基部再建術を行った。縮窄を放置した症例5は術後急性腎不全から多臓器不全を併発し二期的なバイパス術を施行する前に失った³⁾。一方、症例6、7に対しては上行-腹部大動脈間バイパス術を大動脈基部再建と同時に施行し、術後の上下肢間圧較差は消失するとともに、術後管理は容易であった⁴⁾(Fig. 2)。高安動脈炎と考えられた異型大動脈縮窄症の症例8は腎動脈レベルの腹部大動脈の石灰化を伴った高度狭窄に胸部下行大動脈瘤を合併した。瘤切除後の大動脈の両側断端壁の石灰化はなく、人工血管吻合は比較的容易であった。人工血管に吻合した側枝人工血管の遠位端を腎動脈下の腹部大動脈にバイパス路として端側吻合した。術後は上下肢間圧較差なく、経過良好であり、遠隔期も炎症症状の再燃は見られていない⁵⁾。

考 察

大動脈縮窄症に動脈瘤を併発することはその自然歴のなかでそれほどまれなことではなかったようであり^{6,7)}、

縮窄症に対するVosschulteによるパッチ形成術では遠隔期に高率に瘤形成を併発することが知られている⁸⁾。しかし、近年、縮窄症に対しては小児期に手術的修復がなされ、かつ、遠隔期に合併症の少ない術式が選択されることによって大動脈縮窄症に大動脈瘤を合併することは比較的まれとなった。

大動脈縮窄症に胸部大動脈瘤を合併した場合、縮窄部と瘤の発生部位との位置的關係が外科的治療に際するpitfallに關与する。瘤が縮窄部の近傍に発生している場合の縮窄部および瘤の摘出に際しては開胸時の出血のリスクが高い以外、通常の胸部下行大動脈置換と同様のリスクであり、縮窄に伴った前脊髄動脈系への側副血行路の発達是对麻痺発生のリスクをむしろ減少させると考えられる。症例2、4は偽性大動脈縮窄症に嚢状瘤および上行解離を来した例である。偽性大動脈縮窄症は先天性の弓部異常であり、本来の大動脈縮窄症の発生と病因論的には近似している。Gayらによれば偽性大動脈縮窄症は近位の大動脈弓部の延長、蛇行があり、一見縮窄症様であるが、安静時に上下肢間に血圧差がないか、あっても25mmHg以下のものを指すとされている⁹⁾。症例2は末梢弓部の延長と動脈腔内webにより偽性大動脈縮窄症と診断した。瘤発生は内因性の壁異常¹⁰⁾あるいは血液の乱流によるとされ¹¹⁾、感染によるmycotic aneurysmの場合もあり、易破裂性と考え、診断次第の早期外科治療が肝要である^{10,12)}。偽性大動脈縮窄症では大動脈迂曲部より遠位の下行大動脈に血液乱流によると考えられる解離発生の報告がある⁹⁾。上行

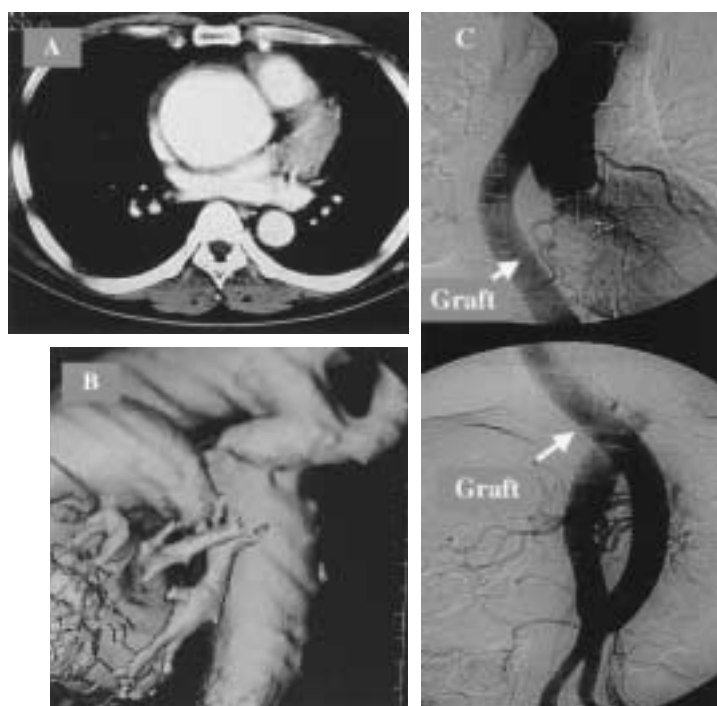


Fig. 2 Preoperative CT showing a dilated aortic root (A) and dislocated left subclavian artery and coarctation of the aorta (B) in case 7. C: Postoperative aortogram showing reconstructed aortic root with a valved conduit and an extra-anatomical bypass from the ascending to the abdominal aorta.

解離の自験例4は乱流刺激よりは大動脈弁が二尖弁であったこと、あるいは運動時の上半身血圧上昇が解離の原因であったと推測される²⁾。偽性大動脈縮窄症であっても嚴重な定期的観察を怠ると瘤形成による破裂の経過をとり手術治療のチャンスを失うというpitfallがある。

症例4は偽性大動脈縮窄症であったため、大腿動脈送血による体外循環下に合併症なく上行置換が行われたが、もしも本来の縮窄症であった場合にはいくつかのpitfallが予測される。解離の緊急診断を目的としたCTや超音波検査などの画像診断上、縮窄症の併存が容易に見逃される可能性がある。その際、大腿動脈のみからの送血による体外循環下の手術では脳の虚血性障害の危険性があり、術後も血行動態が不安定であると縮窄病変の残存は腹部内臓、腎機能障害の原因となりうる。大動脈縮窄症の外科治療を先行させたのち、二期的に解離病変に対し上行置換を行い救命した報告があるが¹³⁾、解離に対する外科治療を先行させるのが最近の常道であろう。その際、安全な周術期管理上、術中の腋窩、大腿動脈送血の併用、縮窄部に対する修復術やバイパス術の同時施行が考慮される。

Vosschulteの提唱したpatch aortoplastyでは高率に形成部対側の動脈壁に瘤形成を来すとされるが⁸⁾、subclavian flap angioplasty法でもflap repair部に起こりうる事が報告されている^{14,15)}。非破裂例では瘤切除、人工血管置換術が普遍的であるが、瘤と周囲組織の高度の癒着のため術中肺損傷、反回神経麻痺、出血再開胸が高率である⁸⁾。しかも、瘤壁は被薄で、ときには仮性瘤の場合もあり瘤剥離中の破裂のリスクが極めて高い¹⁶⁾。体外循環を併用し、大動脈弓部遮断が危険な場合には低体温循環停止法も併用すべきである¹⁶⁾。自験症例3は黄色ブドウ球菌感染によるsubclavian flap形成部位に一致して発生した仮性瘤の肺内破裂で、瘤壁は細胞浸潤を伴った癒着組織のみで動脈壁の痕跡は認められなかった。瘤摘出後の解剖学的血行再建はハイリスクと考え、非解剖学的バイパス造設後、肺を含めた瘤切除で救命しえた。

瘤形成が縮窄部より近位の上行大動脈瘤あるいは大動脈弁病変を伴った大動脈基部の瘤では外科的管理上、いくつかの回避すべきpitfallがあげられる。従来、両病変に対し二期的手術が一般的に行われてきたが、その場合、どちらの病変の治療を先行させるかという

論議が残されている。大動脈縮窄の修復を先行させた場合には術後の後負荷は低下し、瘤破裂のリスクを軽減する。さらに、二次的手術に際しては安全な体外循環が可能となる利点がある。一方、術中には後負荷の増大による瘤破裂、心不全のリスク増大があり、大動脈弁逆流が高度な場合、術後の拡張期圧の低下による冠灌流障害から重症心不全に陥る危険性がある¹⁷⁾。

上行大動脈瘤および大動脈弁手術が先行された場合には腹部内臓、腎の低灌流、上半身高血圧が血行動態の不安定な術直後の患者管理を困難とさせる可能性があり、人工弁が使用され抗凝固療法が必要な場合には二期手術における出血量増大の危険性が高まる。一次的な手術の場合には出血のリスク、過大侵襲による術後合併症の増大、術中臓器低灌流のリスクが避けられない。自験例は3例とも心不全あるいは瘤の切迫破裂のため一次的手術が必要であった。しかし、そのうちの1例は大動脈基部再建後、出血制御のため人工血管を自己血管壁で被覆し、Cabrol trickを設置したため、バイパス手術は二期的に行う予定とし縮窄症を放置した。そのため、術後血行動態が不安定な時期の早期に術後腎不全からMOFに移行し、救命しえなかった。

症例6,7は大動脈基部再建後、上行から腹部大動脈間に非解剖学的バイパス術を加えた。術後の後負荷の軽減、腹部内臓器灌流維持が保証されることにより術後管理は容易であった。一次的手術における出血のリスク、過大侵襲を回避する手段として非解剖学的バイパス手術の意義がある。症例6では術後12年目に肝癌で失うまで、症例7は術後9年目まで、CT検査による経過観察中、バイパス人工血管に関する不測の合併症はまったく認めていない。

大動脈縮窄症の再手術困難例や他の心血管病変を伴った縮窄症の同時手術としてWukasch, Cooley¹⁷⁾によって推奨された上行から腹部大動脈までの非解剖学的バイパス術は手技的に容易である反面、バイパス路が長いことによる遠隔期の人工血管関与の合併症、吻合部離開などが危惧された。人工血管に対する長期的な機械的刺激の軽減を計り、かつ人工血管の腸管壁への侵食防止上、後腹膜經由で脊椎体に沿わせて、腹部大動脈に端側吻合を行った。バイパス人工血管をなるべく短くするために、遠位端は心膜腔後方の下行大動脈あるいは横隔膜下腹部大動脈¹⁸⁾なども選択されるが、長期遠隔期の観点からも、これらの非解剖学的の

バイパス術は本症の一次的手術の術式として選択されてよいと考えている。

Koshinoらによって大動脈基部再建に縮窄部を含めた弓部置換術を行った報告があるが、術中の止血には難渋したとされる¹⁹⁾。

最後に、高安病による異型大動脈縮窄症に胸部大動脈瘤を伴った場合その外科的治療にもいくつかのpitfallがある。

高安病に伴う縮窄症と瘤では動脈壁の肥厚、石灰化が高度な場合が多く、人工血管吻合の困難な場合がある²⁰⁾。縮窄に対する後負荷軽減上、瘤切除と同時に胸部下行腹部大動脈バイパス術をおくべきであり、腹部臓器への分枝に閉塞を伴う場合、その再建を怠ると術直後の臓器灌流障害のリスクがある。さらに、手術侵襲による炎症の再燃、ステロイド療法中の場合は易感染性のリスクがある、などがpitfallとしてあげられる。

結 論

縮窄症あるいは偽性縮窄症に伴う瘤は易破裂性の場合があり、診断次第の早期手術が望ましい。

上行大動脈瘤では同時二期手術かの選択が重要であり、一次的に行う場合、非解剖学的バイパス術は容易かつ術後管理上、有用で、長期遠隔期の機能も良好であり、術後のpitfallへ落ち込むことの防止上、選択されてよい術式である。

文 献

- 1) 小山照幸, 川田忠典, 平 泰彦, 他: 肺内破裂した大動脈縮窄症術後mycotic aneurysmの1手術治験例. 日胸外会誌, **40**: 427-431, 1992.
- 2) 日向三郎, 川田忠典, 小山照幸, 他: 偽性大動脈縮窄症に合併したA型解離性大動脈瘤の1治験例. 胸部外科, **45**: 935-938, 1992.
- 3) 山田 眞, 道端哲郎, 高場利博, 他: Annuloaortic ectasiaを呈した大動脈縮窄症極型の1例. 日胸外会誌, **36**: 130-134, 1988.
- 4) 小山照幸, 川田忠典, 安藤直明, 他: Annuloaortic ectasiaを合併した大動脈縮窄症に対する一次的手術治験例. 日胸外会誌, **39**: 128-132, 1991.
- 5) 饗場正宏, 川田忠典, 沖 淳義, 他: 大動脈炎症候群が疑われた胸部下行大動脈瘤を伴った腹部大動脈縮窄症の1手術治験例. 日心外会誌, **31**: 404-407, 2002.
- 6) Skandalakis, J. E., Edwards, B. F., Gray, S. W., et al.: Coarctation of the aorta with aneurysm. Intern. Abstr. Surg., **111**: 307-326, 1960.

- 7) Edwards, J. E.: Aneurysm of the thoracic aorta complicating coarctation. *Circulation*, **48**: 195-201, 1973.
- 8) Ala-Kulju, K. and Heikkinen, L.: Aneurysms after patch graft aortoplasty for coarctation of the aorta: long-term results of surgical management. *Ann. Thorac. Surg.*, **47**: 853-856, 1989.
- 9) Gay, W. A. Jr., Young, W. G. and Durham, N. C.: Pseudocoarctation of the aorta. A reappraisal. *J. Thorac. Cardiovasc. Surg.*, **58**: 739-745, 1969.
- 10) 柳谷信之, 藤井尚文, 西村和典: 縮窄部位の近位側に発生した大動脈瘤を伴う偽性大動脈縮窄症の一手術例. *日心外会誌*, **26**: 65-68, 1997.
- 11) Imai, Y., Harada, T., Yamada, H., et al.: Left cervical aortic arch with aortic coarctation and saccular aneurysm. *Jpn. Circ. J.*, **64**: 544-546, 2000.
- 12) Shindo, S., Katsu, M., Kojima, A., et al.: Thoracic aortic aneurysm associated with pseudocoarctation of the aorta. *Jpn. J. Thorac. Cardiovasc. Surg.*, **50**: 520-522, 2002.
- 13) Lawson, R. A. M. and Fenn, A.: Dissection of an aneurysmal ascending aorta in association with coarctation of the aorta. *Thorax*, **34**: 606-611, 1979.
- 14) Martin, M. M., Beekman, R. H., Rocchini, A. P., et al.: Aortic aneurysms after subclavian angioplasty repair of coarctation of the aorta. *Am. J. Cardiol.*, **61**: 951-953, 1988.
- 15) Nguyen, D. M., Tsang, J. and Tchervenkov, C. I.: Aneurysm after subclavian flap angioplasty repair of coarctation of the aorta. *Ann. Thorac. Surg.*, **68**: 1392-1394, 1999.
- 16) Roth, M., Lemke, P., Schonburg, M., et al.: Aneurysm formation after patch aortoplasty repair (Vosschulte): reoperation in adults with and without hypothermic circulatory arrest. *Ann. Thorac. Surg.*, **74**: 2047-2050, 2002.
- 17) Rupilanchas, J. J., Villagra, F., Maronas, J. M., et al.: Coarctation of the aorta and severe aortic insufficiency: what to repair first? *Am. J. Surg.*, **134**: 428-430, 1977.
- 18) Wukasch, D. C., Cooley, D. A., Sandiford, F. M., et al.: Ascending aorta-abdominal aorta bypass: Indications, technique, and report of 12 patients. *Ann. Thorac. Surg.*, **23**: 442-448, 1975.
- 19) Koshino, T., Morishita, K., Tamiya, Y., et al.: A single-stage operation for bicuspid aortic valve, annulo-aortic ectasia, hypoplastic aortic arch, and coarctation of the aorta: a case report. *Ann. Thorac. Cardiovasc. Surg.*, **5**: 202-205, 1999.
- 20) Ninomiya, M., Makuuchi, H., Naruse, Y., et al.: Descending aortic aneurysm with Takayasu's disease. *Jpn. J. Thorac. Cardiovasc. Surg.*, **48**: 455-459, 2000.

Thoracic Aortic Aneurysm Associated with Coarctation of the Aorta: Pitfalls in Surgical Treatment

Tadanori Kawada, Makoto Yamada, Masahiro Aiba, Masahito Maruta, Jo Matsuoka,
Atsushi Bitou, Yoshiharu Okada, Yoshiaki Matsuo, Tetsuro Michihata and Toshihiro Takaba

First Department of Surgery, Showa University School of Medicine, Tokyo, Japan

Key words: Thoracic aortic aneurysm, Coarctation of the aorta, Extra-anatomical bypass, Takayasu's arteritis

Thoracic aortic aneurysms were associated in 8 among the 46 patients with congenital aortic coarctation or atypical coarctation due to Takayasu's arteritis. Pitfalls in surgical treatment were evaluated in these patients.

Resection of the aneurysm and prosthetic graft replacement of the thoracic aorta was performed without any complication in 2 patients whose aneurysms were located near the site of coarctation. However, the aneurysmal wall was so thin that immediate surgery seemed to be essential in 1 of these patients. In a case with ruptured mycotic aneurysm of the isthmus that had previously been repaired with subclavian flap angioplasty for coarctation of the aorta, extra-anatomical bypass grafting and left upper lobectomy including aneurysm was successfully performed. In aneurysm of the ascending aorta with or without aortic valve regurgitation, appropriate selection of single- or two-stage operation and operative techniques are mandatory to avoid falling into a surgical pitfall. When single-stage operation is selected, concomitant extra-anatomical bypass grafting is easy to perform and might be useful to minimize the risk of coarctation-related complications during both the early and long-term postoperative periods. In cases of Takayasu's arteritis, heavily calcified aortic wall adjacent to the aneurysm often hinders a safe and secure anastomosis of the prosthetic graft. (*Jpn. J. Vasc. Surg.*, **12**: 627-632, 2003)