

嚢腫内容の自然滲出を認めた膝窩動脈外膜嚢腫の1手術例

遊佐 祐子¹ 井上 芳徳¹ 猪狩 亨²
菅野 範英¹ 小池 盛雄² 岩井 武尚¹

要 旨：外膜嚢腫は粘液変性により外膜や中膜間にコロイド様物質が貯留して動脈内腔狭窄や閉塞を来す疾患である。今回われわれは本症と診断し病理組織学的に粘液様物質を認めなかった1例を経験した。症例は59歳，男性で，主訴は間歇性跛行であった。左膝窩動脈末梢の動脈拍動減弱を認め，造影CT，血管撮影で左膝窩動脈の拡張と嚢腫による狭窄像を認めた。その2ヶ月後MRIで同部位の完全閉塞と背側筋間の液体成分貯留を認めた。さらにその2ヶ月後の術中所見では左膝窩動脈拍動は微弱で，壁は硬く，拡張は認めなかった。同部を切除し対側の大伏在静脈で間置した。病理組織学的所見では従来の報告と異なり，中膜筋層の走行が乱れ線維化を伴っており，中膜から外膜に新旧混在した細胞成分を伴わない裂隙を多数認め，内部に粘液様物質を認めなかった。これら所見から最初に中膜変性が生じ，代償性に肥厚した外膜に外力が加わり裂隙の発生と消退が繰り返されたと推定した。(日血外会誌 13 : 561-564, 2004)

索引用語：膝窩動脈外膜嚢腫，膝窩動脈切除術，中膜変性，外膜裂隙形成

はじめに

間歇性跛行を呈する膝窩動脈病変には閉塞性動脈硬化症，パージャー病，膝窩動脈捕捉症候群，膝窩動脈外膜嚢腫などがあげられる。中でも外膜嚢腫は動脈外膜の粘液変性により外膜や中膜間にコロイド様物質が貯留して動脈内腔の狭窄もしくは閉塞を来し下肢の虚血症状を呈する病態であり，膝窩動脈に好発する比較的古来の疾患である。本症例は1954年にEjrupおよびHiertonne¹が外腸骨動脈に発生した症例を報告して以来，1998年にLevien²が323例を集計している。わが国では1960年に石川・三島³が報告しており，1997年に前田⁴により53例が集計されている。今回われわれは本症と判断し血行再建を施行し軽快したが，コロイ

ド様物質を認めなかった1例を経験したので文献的考察を加えて報告する。

症 例

症 例：59歳，男性。

主 訴：間歇性跛行(左下腿，約100m，5分の立位で回復)。

既往歴：22歳時 - 十二指腸潰瘍，50歳時 - 甲状腺機能亢進症，57歳時 - 高尿酸血症，59歳時 - 異型狭心症。喫煙 - 60本/日×20年間。アルコール - 水割り2杯/日×約30年間。

スポーツ歴：ゴルフ。

現病歴：1999年7月ゴルフの際に休息により軽快する左下腿のしびれ感を自覚した。徐々に症状が増悪し，左足背部冷感や蒼白も出現するようになったため，2000年1月当科を初診した。精査にて左膝窩動脈外膜嚢腫を疑い，手術目的にて2000年4月入院となった。入院時の自覚症状はやや軽快傾向にあった。

入院時身体所見：全身状態良好，血圧 - 130/80mmHg，脈拍 - 76/分・整，動脈拍動 - 左膝窩動脈以下で動脈拍

1 東京医科歯科大学外科(Tel: 03-5803-5255)

〒113-8519 東京都文京区湯島1-5-45

2 同 病因，病理学

受付：2003年12月24日

受理：2004年6月18日

動の軽度低下を認める以外、特記すべき異常所見を認めなかった。足関節 / 上腕動脈圧比 (ABI) は右1.30, 左1.20であった。

血液学的所見: WBC 5700 / μl , RBC 519×10^4 / μl , Hb 16.0g / dl, Hct 48.6%, Plt 16.3×10^4 / μl , BUN 18mg / dl, Crea 1.0mg / dl, AST 27IU / dl, ALT 14IU / dl, CRP 0.1mg / dl。

造影CT (2000 / 2 / 3): 左膝窩動脈は長さ約25mmにわたり拡張し、同領域では血管内腔が低吸収域により圧迫されていた (Fig. 1)。

MRI (2000 / 3 / 30): 左膝窩動脈は長さ約28mmにわたり血流途絶を認めたが、末梢側は側副血行路により造影されていた。また同部の背側の筋間に液体成分の貯留が認められた (Fig. 2)。

下肢血管撮影 (2000 / 2 / 8): 左膝窩動脈は正面像で長さ約28mmにわたり造影が淡く、狭窄を呈していたが、狭窄部の中枢側および末梢側の血管壁には動脈硬化性病変は認められなかった (Fig. 1)。

血管カラードブラ法 (2000 / 1 / 31): 左膝窩動脈が一部隔壁を有する低エコー病変により圧排され、狭窄を呈していた。

以上の所見より外膜嚢腫による左膝窩動脈閉塞を疑い、トレッドミル歩行負荷にて左腓腹部に高度跛行を認めため手術適応とした。

手術所見: 2000年4月4日、右大伏在静脈を約13cmにわたり採取した後、後方経路にて膝窩動脈を露出した。膝窩動脈は腓腹動脈を分枝する近位側で約4cmにわたりわずかに拡張し、後壁側はやや暗赤色調に変色していた。この範囲で動脈拍動は触知されず、動脈壁は硬く触知された。同部位を切除し、自家静脈による間置術を施行した (Fig. 2)。術中動脈撮影では満足すべき画像が得られ、血流量90ml / 分、流量波形も3相性と良好であった。術後1年目の動脈撮影所見も狭窄などの異常所見を認めず満足すべきものであった (Fig. 2)。

摘出標本: 摘出した膝窩動脈は全長約5cm、最大径11mmで、断面では血管内腔に新鮮な血栓を認め、血管壁内には約半周にわたる裂隙を認めた (Fig. 2)。

病理組織学的所見: 切除した動脈の内腔は比較的新鮮な血栓により閉塞していた。中膜筋層の走行が乱れ線維化を伴っており、裂隙を認める部位では菲薄化していた。外膜には線維性肥厚と炎症所見を伴わない裂

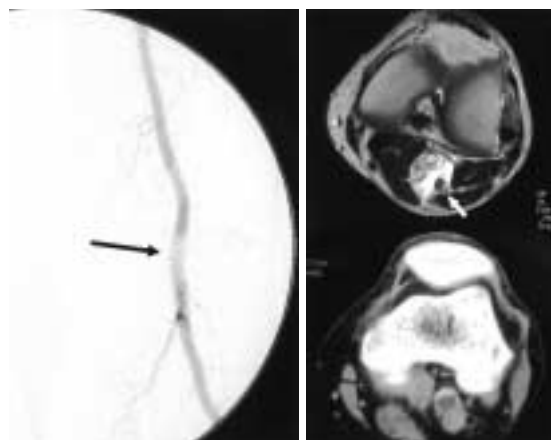


Fig. 1 A: Preoperative angiogram revealed stenosis of the popliteal artery.
B: Preoperative MRI showed popliteal artery occlusion and fluid collection spreading between the calf muscles.
C: Preoperative CT revealed that the popliteal artery was slightly dilated and empressed by the low density area.

隙が多数認められ、裂隙内には少量のフィブリン、赤血球のみであった。中膜から外膜に連続する裂隙の一部に出血が散在していた (Fig. 3)。

考 察

外膜嚢腫は動脈外膜の粘液変性により外膜と中膜間にコロイド様物質が貯留して動脈内腔の狭窄もしくは閉塞を来す膝窩動脈に好発する比較的古まな疾患である^{1,2)}。

本症の成因として、1) 外傷起因説³⁾、2) 胎生期形成異常説⁵⁾、3) 粘液産生組織の動脈壁内迷入説⁵⁾、などが提唱されているが、いまだに定説はないとされ、反復する運動負荷が関与しているとする報告がある⁶⁾。間歇性跛行以外に特徴的の症状はないが、症状の消長を認めることがある⁷⁻⁹⁾。

血管撮影では砂時計様狭窄、三日月様の緩やかな狭窄を呈し、動脈硬化性変化を認めないとされている⁴⁾。CTでは膝窩動脈またはその近傍に嚢腫性病変が認められ有用性の高い検査とされるが¹⁰⁾、血栓性閉塞を来した膝窩動脈瘤との鑑別には超音波断層検査 (エコー) が有用とされており¹¹⁾、以上の血管撮影、CT、エコーの検査が標準的な診断方法とされている。MRIでは嚢腫



Fig. 2 A: Operative findings; The left popliteal artery was pulsated slightly and palpated stiffness with very slight dilatation.
 B: The resected popliteal artery was 5cm long and 11mm in diameter. The arterial lumen was filled with fresh thrombus and the clefts were located at media and adventitia semicircumferentially.
 C: Postoperative angiogram showed no abnormal findings.

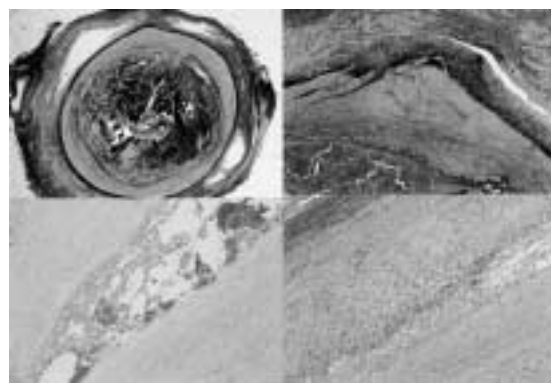


Fig. 3 A: The arterial lumen was filled with fresh thrombosis and the adventitia was thickened.
 Pathological findings. A lot of clefts was located at the adventitia without inflammation and mucoid deposition. Some clefts had hematoma with medial thinning. (A: low-power elastica van Gieson stain, B: low-power elastica van Gieson stain, C: high-power Hematoxylin & Eosin stain, D: high-power Hematoxylin & Eosin stain)

内容の性状把握が可能であるという利点がある¹²⁾。

本症例においては完全閉塞所見と筋間液体成分貯留を認めたMRI所見と動脈狭窄所見を呈したCT・血管造影所見とが異なっていたが、これは囊腫の自然流出による経時的変化によるものと考えられ、入院時に症状が軽度改善していたことから推定され得る。

治療は原則として狭窄例には囊胞壁切除が、閉塞例には動脈切除 + 自家静脈間置術を施行すべきであるとされ^{6,7,10)}、最近ではCTガイド下穿刺¹³⁾、経皮経管の血管形成術(percutaneous transluminal angioplasty: PTA)⁴⁾などの低侵襲的治療も行われるようになってきている。しかしながら自験報告例において中膜に粘液変性所見を伴う囊胞が存在したことから、たとえ狭窄例であっても囊胞壁切除のみでは再発する可能性があること、再手術となった場合に神経や静脈損傷の危険性が高くなることより、動脈切除 + 自家静脈間置術を原則としておくべきであろう。

病理組織学的所見には外膜の変性疾患とされているが³⁾、病変の主座が中膜にあるとする報告もある^{7,14,15)}。肉眼的特徴は動脈外膜内に多房性囊胞が存在し、内腔に粘稠度の高いコロイド状の透明な液体が存在することであり^{11,16)}、この囊胞により動脈内腔は圧迫さ

れ、狭窄と血栓形成が持続する。組織学的には囊胞壁は少数の単核球と組織球の浸潤を伴う肥厚した結合織より構成されており、囊胞内面には、被覆細胞は認めないとされている^{15,17)}。囊胞の内容は、ヒアルロン酸を含むPAS染色陽性の多糖類、アルシアンブルー染色で青色に染まる酸性ムコ多糖類で、ガングリオン内容と酷似していると報告されている^{6,7,10)}。動脈壁には内膜肥厚を認めるものの粥状変化、石灰化、炎症所見は認めないと報告されている^{7,16)}。本自験例では、中膜筋層の走行が乱れ線維化を伴っており、中膜から外膜に新旧混在した細胞成分を伴わない裂隙を多数認め、内部に粘液様物質を認めなかった。これまでに囊腫が自然破壊、自然退縮した症例が報告されているが^{5,9)}、本症例の経過および病理所見により、最初に中膜変性が生じ、外膜が代償性に肥厚し、その肥厚した外膜に外力が反復して加わったことにより裂隙の発生と消退が繰り返されたと推定した。以上よりこれまで明らかになっていない膝窩動脈外膜囊腫の成因、自然経過を考える上で非常に貴重な1症例を経験した。

結 語

囊腫内容の自然滲出を認めた膝窩動脈外膜囊腫の1例を経験したので、若干の文献の考察を加えて報告した。

文 献

- 1) Ejrup, B. and Hiertonn, T.: Intermittent claudication. Three cases treated by free vein graft. *Acta Chir Scand*, **108**: 217-230, 1954.
- 2) Lewis, J. Levien and Carol-Anne, Benn.: Adventitial cystic disease: A unifying hypothesis. *J. Vasc. Surg.*, **28**: 193-205, 1998.
- 3) 石川浩一, 三島好雄, 小林 茂: 膝窩動脈外膜囊腫について. *日外会誌*, **61**: 264-273, 1960.
- 4) 前田英明, 根岸七雄, 石井良幸, 他: 膝窩動脈外膜囊腫の2治験例. *日心外会誌*, **26**: 108-111, 1997.
- 5) Nicolau, H., Calen, S., Gourul, J., et al.: Adventitial cysts of the popliteal artery. *Ann. Vasc. Surg.*, **2**: 196, 1988.
- 6) 池田浩之: 膝窩動脈外膜囊腫の1例. *外科*, **49**: 1064-1068, 1987.
- 7) 野田 寛, 藤岡顕太郎, 善甫宣哉, 他: 膝窩動脈外膜囊腫の1治験例. *日臨外医会誌*, **53**: 203-208, 1992.
- 8) Owen, E. R. T. C., Speechly-Dick, E. M., Kour, N. W., et al.: Cystic adventitial disease of the popliteal artery-A case of spontaneous resolution. *Eur. J. Vasc. Surg.*, **4**: 319-321, 1990.
- 9) 古永晃彦, 善甫宣哉, 秋山紀雄, 他: 自然退縮を来した膝窩動脈外膜囊腫の1例. *日外会誌*, **93**: 1501-1503, 1992.
- 10) 八木 誠, 廣瀬 光, 柴垣一夫, 他: 膝窩部囊胞から派生したと考えられる膝窩動脈外膜囊腫の1例. *日臨外医会誌*, **52**: 1638-1644, 1991.
- 11) 伊藤勝陽, 福岡治仁, 内藤 晃, 他: 膝窩動脈外膜囊胞の1例. *臨放*, **33**: 1159-1161, 1988.
- 12) 杉井重雄, 池田浩之, 高木良三, 他: 膝窩動脈外膜囊腫の1例. *日臨外医会誌*, **51**: 1584-1589, 1990.
- 13) 中村俊一郎, 益川邦彦, 米山克也, 他: CTガイド下穿刺吸引療法による膝窩動脈外膜囊腫の1治験例. *臨外*, **48**: 547-550, 1993.
- 14) Inoue, Y., Iwai, T., Ohashi, K., et al.: A case of popliteal cystic degeneration with pathological considerations. *Ann. Vasc. Surg.*, **6**: 525-529, 1992.
- 15) 秋山芳伸, 青山浩幸, 茂木克彦, 他: 膝窩動脈外膜囊腫の2例. *日臨外会誌*, **59**: 1920-1923, 1998.
- 16) 木村哲也, 村岡隆介, 千葉幸夫, 他: 膝窩動脈外膜囊腫の1例. *日臨外医会誌*, **58**: 2999-3001, 1997.
- 17) 伊禮 功, 物部泰昌, 広川満良, 他: 膝窩動脈外膜囊胞の1例 組織学的・免疫組織化学的検討. *川崎医会誌*, **20**: 53-57, 1994.

A Case of Spontaneous Exagranation in Cystic Adventitial Degeneration of the Popliteal Artery

Yuko Yusa¹, Yoshinori Inoue¹, Toru Igari²,
Norihide Sugano¹, Morio Koike² and Takehisa Iwai¹

¹ Department of Surgery, Tokyo Medical and Dental University

² Department of Pathology, Tokyo Medical and Dental University

Key words: Popliteal cystic adventitial degeneration, Popliteal artery resection, Medial degeneration, Cleft formation of adventitia

Cystic adventitial degeneration is a clinical entity of colloidal deposition at the adventitia and media, resulting in arterial stenosis or occlusion. A slightly diminished pulsation at the left popliteal artery was recognized, then enhanced computed tomography (CT) and angiogram revealed that the arterial stenosis caused by a cystic lesion, and magnetic resonance imaging (MRI) exhibited popliteal artery occlusion and fluid collection spreading between the calf muscles two months later. The left popliteal artery was very slight pulsated and stiff without dilatation, which was resected and interposed with a contralateral reversed great saphenous vein. The postoperative course was uneventful and postoperative angiogram showed no abnormal findings. A lot of the clefts were located at the adventitia without cell infiltration and mucoid deposition, which seemed to form at various times. It was suggested that degenerative change occurred at the media resulting in compensatory thickening of the adventitia where the clefts formed and were destructed.

(*Jpn. J. Vasc. Surg.*, **13**: 561-564, 2004)