

成人期動脈管開存症術後胸部大動脈瘤に対する 胸部ステントグラフト留置術の経験

豊田 泰幸, 堀田 孟行, 新津 宏和, 岡田 良晴,

織井 恒安, 松下 努, 蜂谷 貴

長野県厚生連佐久総合病院佐久医療センター心臓血管外科

要 旨

成人期動脈管開存症 (PDA) 術後に生じる根治部の瘤化は比較的稀とされている。しかしながら実際に成人期に動脈管閉鎖が行われた症例に遭遇した場合、動脈瘤破裂等の危険性は高いとされる。動脈管組織はその脆弱性ゆえ開心術による瘤切除、閉鎖は困難を伴う。近年、血管内治療が動脈瘤治療に対する低侵襲術として急速に普及してきている。今回我々は成人期 PDA 根治後遠隔期に閉鎖部が瘤化、拡大した2症例を経験した。これらの症例に対し低侵襲化をめざして胸部ステントグラフト留置術 (TEVAR) を施行し良好な結果を得たので報告する。

キーワード: patent ductus arteriosus, thoracic artery aneurysm, thoracic endovascular aorta repair

I. 背景

動脈管開存症 (PDA) は新生児期の閉鎖が不完全で、以降も動脈管が開存したままの病態である。多くは小児期に心雑音等で診断され治療される。しかしながら極めて稀であるが成人期まで無症候性に経過し、心不全、感染性心内膜炎等の精査で偶発的に診断されるケースもある。成人期に診断された PDA に対する治療法は外科的修復や経カテーテル的閉鎖術が確立している。しかしながら、術後の閉鎖部の瘤化の頻度、治療法に関してはその疾患の頻度の問題もあり未知である。今回我々は成人期 PDA 術後遠隔期に動脈径の拡大を認めた2症例を経験した。これらの症例に対して低侵襲手術を目的に胸部ステントグラフト留置術 (TEVAR) を行い、良好な成績を得たので報告する。

II. 症例

1. 症例 1

74歳女性。31歳時に PDA に伴う心不全に対し他院にて左側開胸にて閉鎖術を施行された。当時の手術記事を確認すると緊急体外循環用に左大腿動静脈を確保したうえで第三開胸にてアプローチした。直視下に観察すると血管径約 10mm の動脈管を認め、かつ下行大動脈側は瘤化していた。Dacron Patch™ から作成した tape にて三重結紮し手技を終了したと記載されていた。術後は特に定期的な画像評価はされていなかった。最近になり唸声を主訴に当院紹介となった。

胸部 CT にて PDA 閉鎖部に一致して最大径 40mm の瘤化を認めた (Fig. 1)。唸声の原因は PDA 結紮部の瘤化による反回神経麻痺と判断し手術適応とした。

1) 既往歴

31歳時動脈管閉鎖術施行。

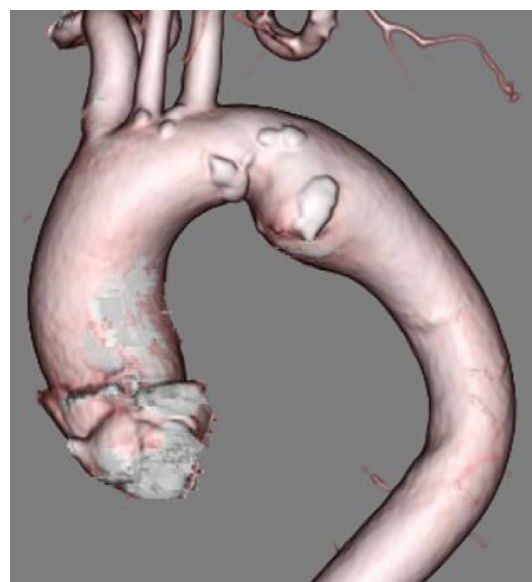


Fig. 1 Preoperative 3D CT showed the postoperative patent ductus arteriosus aneurysm. The maximum diameter was 40 mm.

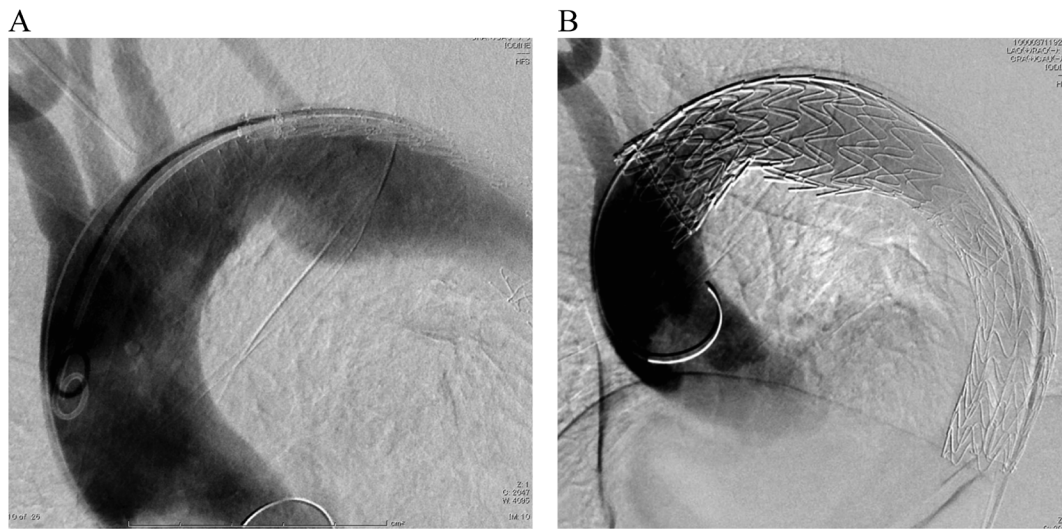


Fig. 2 A, B: CTAG™ (28×28×100 mm) and (34×34×150 mm) were deployed following axial-axial bypass.

2) 家族歴

特記なし.

3) 生活歴

飲酒歴：なし. 喫煙歴：なし.

4) 入院時現症

身長：151.5 cm, 体重：55.3 kg.

体温：心拍数：72回/分, 呼吸数：12回/分.

血圧：136/72 mmHg, 経皮的酸素飽和度（室内気）：97%.

5) 経過

手術の方針に関して前回の手術において PDA 結紮に人工物を使用して動脈管遺残組織周囲の癒着が懸念された. さらに確実な遺残組織切除には人工心肺を使用し, 循環停止のもと, 切除部のパッチ形成が必要と思われた. そのため再開胸手術はリスクが極めて高く, 術式としては低侵襲手術を目的に TEVAR を選択した. スtent グラフト中枢側留置の landing zone を確保するために両側鎖骨下間バイパスを併用した 1-debranch TEVAR の方針とした. Fusion™ 7 mm にて両側鎖骨下間バイパスを行った後に CTAG™ (1 本目 28×28×100 mm, 2 本目 34×34×150 mm) を右大腿動脈アプローチにて積み上げ留置した (Fig. 2A, B). 術後造影 CT 検査にて動脈瘤の sealing を確認した (Fig. 3). 術後 5 年の経過において大動脈瘤径の拡大を認めていない. 現在外来通院中である.

2. 症例 2

65 歳男性. 35 歳時に感染性心内膜炎の精査にて偶然 PDA と診断され, 他院にて正中開胸にて PDA 閉



Fig. 3 The aneurysm was sealed successfully with stent graft.

鎖術を施行された. 当時手術を施行した施設に治療経過, 手術記録を問い合わせたが既に破棄されており, 詳細な治療経過は確認できなかった. 以後の医療機関受診歴はなかった. 今回脳梗塞にて入院した際に施行された胸部 CT にて弓部大動脈小弯側に最大径 75 mm の巨大動脈瘤を認め当科紹介となった. 動脈瘤肺動脈側に石灰化を認めた (Fig. 4A, B). 破裂のリスクが高く手術適応と判断した.

1) 既往歴

小脳梗塞, 動脈管開存症閉鎖術, 2 型糖尿病.

2) 家族歴

特記なし.

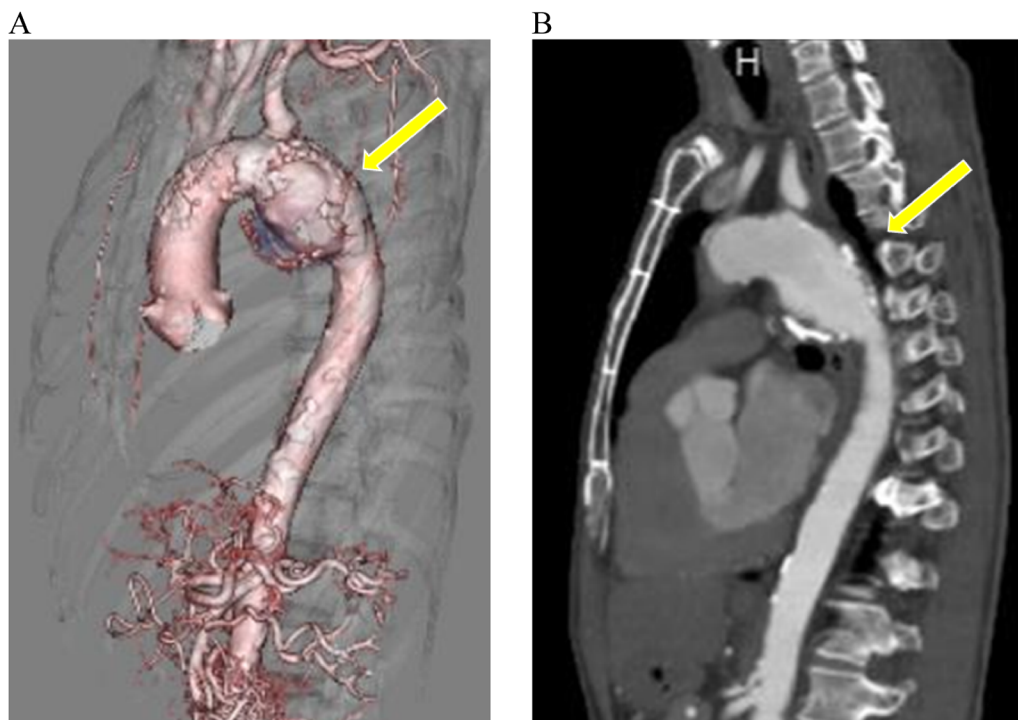


Fig. 4 Preoperative CT showed the postoperative patent ductus arteriosus aneurysm with calcified lesions in the lesser curvature of the distal aortic arch. The maximum diameter was 75 mm.

3) 生活歴

飲酒歴：なし，喫煙歴：なし。

4) 入院時現症

身長：168.4 cm，体重：49.4 kg。

体温：36.6度，心拍数：68回／分，呼吸数：12回／分。

血圧：129/52 mmHg，経皮的酸素飽和度（室内気）：97%。

胸部正中に手術痕。

5) 経過

再手術前の造影 CT 検査の所見から，初回手術時には何らかの人工物にて主肺動脈側より動脈管開口部を閉鎖したと推測された。しかしながら再正中開胸手術は癒着剥離，人工心肺使用等の手術リスクを伴う。そのため血管内治療を選択し，両側鎖骨下間バイパスを併用した TEVAR を行う方針とした。全身麻酔下に中枢側 landing zone を確保するために Fusion™ 7 mm にて両側鎖骨下間バイパスを行った。さらに左鎖骨下動脈から動脈瘤内へのリークを予防するために左鎖骨下動脈塞栓を Amplatzer™ Vascular Plug にて行った。引き続き右大腿動脈より Valiant™ (34×30×167 mm) を留置展開した (Fig. 5A, B)。術後は瘤径拡大なく現在外来通院中である。

III. 考察

成人期 PDA は極めて稀であるが治療戦略には苦慮

する病態である。治療法は新生児，乳児診断症例に対しては術式として単純結紮，clipping 等が一般的である。対して成人期に診断された症例では PDA 組織の石灰化，組織の脆弱が予想される。そのため体外循環使用下に，時には循環停止下に PDA 組織の切除，パッチ形成，人工血管置換を行うことが推奨される。今回我々が経験した症例 1 に関して当時の手術記事を確認した。PDA 組織の性状についての記載はなかったが，体外循環を使用することなく単純結紮でシャントの閉鎖を行ったと記録されている。しかしながら PDA 組織の遺残に体血圧がかかり，その結果遠隔期に瘤化し唸声の原因となった。そのため初回手術において人工心肺使用，循環停止下に PDA 遺残組織の確実な切除を行うべきであったと思われる。

症例 2 は当時の手術記事が残っておらず推測の域をでないが胸部正中開胸痕を認めた。また CT にて動脈管閉鎖部に一致して石灰化の所見を認めた。そのため人工心肺使用下に主肺動脈を切開し，動脈管開口部を何らかの素材にて閉鎖したものと推測された。しかしながら下行大動脈側からの遺残動脈管組織に動脈圧は残存しており，結果として遠隔期に瘤化したものと推測された。

いずれの症例も動脈管閉鎖部の動脈側に動脈管組織の遺残があり，結果として長期にわたり動脈圧がかかり，遠隔期に瘤として診断されたものと思われる。成人期に動脈管閉鎖が行われた症例において，閉鎖部に生じる動脈瘤は通常の動脈瘤に比べ破裂の危険性が高



Fig. 5 A, B: Aortogram before and after stent graft implantation showed Valiant™ (34×30×167mm) deployment following bilateral axillary bypass and embolization with Amplatzer™ Vascular Plug.



Fig. 6 Postoperative CT showed that the aneurysm was sealed successfully with stent grafts.

いとされる^{1,2)}。そのため遠隔期の瘤再拡大を予防するためには初回開胸手術における動脈管組織の確実な切除が必要である。

動脈管術後瘤に対する開胸手術に関しては数例の報告がある。Egami らの報告は58歳の症例で、34歳時に左側開胸にてPDAを離断、閉鎖された。術後24年で閉鎖部瘤化を認め再左側開胸にて瘤切除、パッチ閉鎖を施行し良好な結果を得たとしている³⁾。またNishigawa らは左側開胸にてPDA結紮後19年にて動脈管閉鎖部の瘤化を認めた症例に対して、正中開胸にてオーパンス Tent グラフト留置を併用した全弓部

置換術の症例を報告している⁴⁾。

正中開胸、肺動脈側からのPDA閉鎖後の症例に関してはFujii らの報告がある。術後10年で動脈側からの体血圧にて動脈管が瘤化、かつ動脈管が再開通しており、再開胸を回避する目的でTEVARを施行し良好な結果を得たとしている⁵⁾。

このように再開胸、血管内治療の報告があるが、再開胸による遺残動脈管組織の切除は極めてリスクが高い。そのためTEVARは、血管内治療にて動脈管組織に対して動脈側から動脈瘤壁への減圧を図ることで開心術を回避できる点で有効と思われる。Simon や Soeda らは動脈管瘤化症例に対してTEVARを施行し良好な経過であったと報告している^{6,7)}。これらの報告はPDAに対して未治療の瘤化に対するTEVARである点で我々の症例やFujii らの報告⁵⁾とは異なるが、動脈側より動脈管遺残組織への減圧を図る点では原理は同じである。

今回のような血管内治療を選択した症例では遺残動脈管閉鎖部の瘤化の原因についての病理学的な評価は不可能であるが、成人期診断症例では高血圧症、脂質異常症、糖尿病等の成人疾患による動脈管手術部への影響の可能性も否定はできない。また、我々の症例はいずれも成人期根治症例であるが、新生児期に根治を施行した症例でも瘤化の可能性は否定できない。新生児期での動脈管閉鎖術は国内でもかなりの症例数があるが、遠隔期にわたりfollow されている症例は稀であると思われる。実際に小児期に根治術を施行されたものの、PDA結紮後短期間に動脈瘤化にて再手術を要した症例の報告もある⁸⁾。そのためたとえ小児期手術症例であっても遠隔期には根治部の瘤化の可能性に関しても考慮すべきであると思われる。

IV. 結語

当院で経験した成人期 PDA 閉鎖後遠隔期に合併した胸部動脈瘤に対して低侵襲目的に TEAVR を施行した 2 症例を報告した。成人期動脈管閉鎖に際しては確実な動脈管組織の切除が必須であると思われた。しかしながら術後遠隔期に瘤化した症例に対して TEVAR は再開胸、および人工心肺を使用した手術を回避できるため有用な手技である。

利益相反

本論文において開示すべき利益相反 (COI) はない。

文 献

- 1) Varma PK, Vallath G, Neema PK, et al. Clinical profile of post-operative ductal aneurysm and usefulness of sternotomy and circulatory arrest for its repair. *Eur J Cardiothorac Surg.* 2005; **27**: 416–9.
- 2) Khau Van Kien P, Wolf JE, Mathieu F, et al. Familial thoracic aortic aneurysm/dissection with patent ductus arteriosus; genetic arguments for a particular pathophysiological entity. *Eur J Hum Genet.* 2004; **12**: 173–80.
- 3) Egami J, Tada Y, Takagi A, et al. False aneurysm as a late complication of division of a patent ductus arteriosus. *Ann Thorac Surg.* 1992; **53**: 901–2.
- 4) Nishigawa K, Yoshitaka H, Kuinose M, et al. Total arch replacement with open stent-grafting for aneurysm of ductus arteriosus after surgery for patent ductus arteriosus. *J Card Surg.* 2010; **25**: 557–9.
- 5) Fujii K, Saga T, Kitayama H, et al. Successful closure of a patent ductus arteriosus using an aortic stent graft. *Ann Thorac Cardiovasc Surg.* 2012; **18**: 71–4.
- 6) De Freitas S, Connolly C, Neary C, et al. Ductus arteriosus aneurysm presenting as hoarseness; successful repair with an endovascular approach. *J Surg Case Rep.* 2016; **2016**: rjw060.
- 7) Soeda T, Yokoi Y, Yuri K, et al. An innovative exclusion technique for ductus arteriosus with a novel stent graft. *Gen Thorac Cardiovasc Surg.* 2012; **60**: 621–3.
- 8) Malhotra A, Gupta S, Kaushal RP, et al. Aneurysm following ligation of patent ductus arteriosus: myth or reality? *Asian Cardiovasc Thorac Ann.* 2013; **21**: 85–7.

Successful Thoracic Endovascular Aortic Repair of Postoperative Ductus Aneurysm in Older Adults

Yasuyuki Toyoda, Tomoyuki Hotta, Hirokazu Niitsu, Yoshiharu Okada,
Kouan Orii, Tsutomu Matsushita, Takashi Hachiya

Department of Cardiovascular Surgery, Saku Central Hospital Advanced Care Center

Abstract

Postoperative patent ductus arteriosus (PDA) aneurysm in adults is a rare but potentially fatal complication. The ductus tissue is fragile, so reoperation with open heart surgery for resection of the aneurysm carries a high degree of risk. Endovascular repair has emerged as a safe and less invasive surgical intervention for aortic aneurysms. Here, we report two cases of postoperative ductus arteriosus aneurysm in older adult patients undergoing surgery for PDA closure. Thoracic endovascular aortic repair for shielding for the aneurysm was performed to avoid the high surgical risk. The postoperative courses were successful in both cases.

Key words : patent ductus arteriosus, thoracic artery aneurysm, thoracic endovascular aorta repair