

膝屈曲状態での左下肢痛を契機に診断された 左膝窩動脈外膜嚢腫の1例

岡島 年也¹ 大平 篤志¹ 中島 隆之² 片岡 剛²
中村 眞一³ 川副 浩平² 平盛 勝彦¹

要 旨：33歳の男性。主訴は膝屈曲状態での左下肢痛。左膝窩部に腫瘤を触知し、ankle brachial pressure indexは正常値であったが、左膝屈曲時に0.70まで低下した。膝屈曲位での血管造影で左膝窩動脈に限局性の狭窄、下肢CTで左膝窩動脈の外膜に沿った嚢胞を認め、左膝窩動脈外膜嚢腫と診断し、手術を行い症状は改善した。特定の肢位で下肢虚血症状を来す場合、本症の可能性も念頭に置く必要がある。(J Jpn Coll Angiol, 2005, 45: 643-646)

Key words: peripheral artery disease, popliteal artery, cystic adventitial disease

序 言

膝窩動脈外膜嚢腫は稀な末梢動脈疾患であり、その報告例は少ない。われわれは、膝屈曲状態での左下肢痛を契機に診断された左膝窩動脈外膜嚢腫に、手術を行い良好な結果を得た1例を経験したので、若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

患者：33歳，男性。建設作業員。

主訴：膝屈曲状態での左下腿部疼痛。

家族歴・既往歴：特記事項なし。下肢に外傷の既往なし。喫煙は生来なし。

現病歴：1999年頃から膝を曲げた際に時に軽度の左下腿部のしびれと冷感、および疼痛を自覚するため近医を受診した。身体学所見と下肢MRIで明らかな異常は認められず、経過観察されていた。以後も上記症状を時々自覚していたものの、膝の伸展ですぐに改善するため放置していた。2003年6月頃より、次第に同肢位での症状が増悪してきたため精査加療を目的に当科へ紹介された。

初診時現症：身長173cm，体重69kg。心音と肺野に異常はなかった。下肢に浮腫やチアノーゼはなかったものの、左膝窩部に径2cm大の非拍動性腫瘤を触知した。両下肢の動脈拍動は触知良好で左右差もなかった。しかし、膝屈曲状態で左足部の動脈拍動に明らかな減弱を認めた。頸部と腹部および鼠径部に血管雑音を聴取しなかった。

血液生化学検査：異常所見なし。

足関節上腕血圧比(ankle brachial pressure index: ABI)：膝伸展位の状態では、右が1.10，左が1.20で両側とも正常値であった。しかし、左膝屈曲状態で測定した際の左ABIは0.70まで低下した。

画像検査所見：

下肢血管エコー図検査：両側の腸骨～大腿～膝窩～下腿動脈に明らかな血行障害はなかった。しかし、左膝窩動脈に接して三日月状の低エコー領域が認められた。この低エコー内部に血流はなかった。

下肢血管造影：膝伸展位では、両側の腸骨～大腿～膝窩～下腿動脈まで狭窄病変や動脈硬化性病変ならびに動脈偏移などの異常所見はなかった。一方、左膝屈曲位で行った際には、左膝窩動脈に辺縁の平滑な限局性狭窄像が認められた(Fig. 1)。病変部以外の動脈に異常所見はみられなかった。

¹岩手医科大学第二内科

²岩手医科大学附属循環器医療センター心臓血管外科

³岩手医科大学中央臨床検査部病理

2005年6月10日受付 2005年9月27日受理

下肢X線CT検査：下肢CT angiography (CTA) では、膝伸展位での血管造影と同様に明らかな病変はみられなかった (Fig. 2A)。しかし、左膝窩動脈レベルでのCT横断像で、左膝窩動脈の外膜周囲に沿って嚢胞状の低吸収領域が認められた (Fig. 2B)。

以上の臨床所見および画像所見より、左膝窩動脈外膜嚢腫と診断し、手術を行った。

治療経過：手術は外膜嚢腫を含めた膝窩動脈を約4cm切除し、同側の大伏在静脈を用いて左膝窩動脈置換術を施行した。切除病変部の肉眼的所見 (Fig. 3A) では、血管内腔に狭窄病変はなく、動脈外壁に限局した嚢腫が認められた。また、Elastica van Gieson染色を用いた組織学的所見では、嚢胞は外膜から発生し、嚢胞壁は結合組織の増生により形成されていることが確認された (Fig. 3B)。嚢胞の内容物は半透明なゼリー状の内容物であった。術後6日目に下肢CTAを行い、移植血管の開存と左膝窩動脈以下への血行が良好であることを確認した。また、左膝屈曲位でのABIが1.10まで改善し、下肢虚血症状も出現しなくなり、術後9日目に退院した。

考 察

四肢の動脈外膜嚢腫は、動脈の外膜内に発生した嚢腫により、動脈内腔が分節的に狭窄や閉塞を来し、四肢の虚血症状を呈する疾患である。1954年に初めてEjrupとHiertonnが膝窩動脈外膜嚢腫を報告している¹⁾。Ishikawaは四肢動脈外膜嚢腫234例を論文で集計し、その発生部位を調査した結果、膝窩動脈が195例と大半が膝窩動脈であったとしている²⁾。本症の成因に関しては、いまだ明確な結論は得られていない。男女比では15:1と圧倒的に男性に多く、外傷の既往がなく、動脈硬化性危険因子の少ない若年男性に好発するとされる。Lewisらは、間歇性跛行患者1,200例のうち1例に発見される程度とされ、その頻度は極めて稀であったと報告している³⁾。

臨床所見は、嚢胞が動脈内腔を圧排することによる下肢虚血症状、主に間歇性跛行であり、急性動脈閉塞症状を来す場合も多いとされる。また、膝伸展時には足部の動脈拍動が触知されるものの、膝屈曲時にその拍動が消失することが本症を疑う重要な所見とされている。診断の確定には、下肢血管エコー図検査、下肢血管造影、下肢造影X線CTなどの画像検査が用い



Figure 1 Angiography of the left popliteal artery. The arteriogram shows smoothly tapering stenosis of the popliteal artery at the level of the flexed knee joint.

れ、中でも血管造影が有用とされる⁴⁻⁶⁾。血管造影での典型的所見は、膝窩動脈に限局した狭窄や閉塞像で、病変部以外に動脈硬化所見に乏しいとされる。狭窄の場合、滑らかな全周性の限局性狭窄像 (hourglass appearance)、あるいは偏側性狭窄の際には側面像で動脈壁が前方から半月状に圧迫される狭窄像 (scimitar sign) を呈し、膝の屈曲により狭窄像は増強するといわれている。

本症例も動脈硬化性危険因子を有していない青年男性で、膝屈曲位で出現する下肢痛、また、同肢位での足部の末梢動脈拍動の減弱という特徴的な臨床所見から、同症の可能性を強く疑い、次いで各種画像検査を行い本症と診断した。特に、本症例のように特定の肢位でのみ下肢虚血症状が出現する場合、症状の出現する肢位で血管造影を施行することが診断に有用であると考えられた。本症の主な治療には、嚢胞内容物の吸引、嚢胞切除術、動脈置換術などがあり、狭窄例では嚢胞切除術、閉塞例では動脈置換術が行われることが



Figure 2 CT findings.

The left panel shows absence of signs of atherosclerotic change or occlusive disease according to CT angiography.

Axial CT image at the level of the popliteal artery during the arterial phase after contrast administration shows a cystic structure (small arrow) in the outer vessel wall compressing the lumen of the popliteal artery (large arrow).

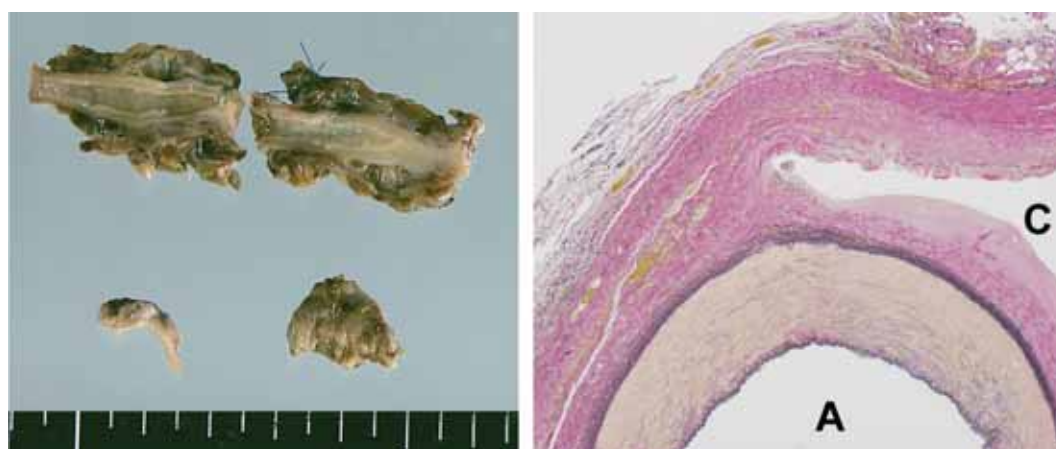


Figure 3 Findings in the resected adventitial cyst.

The left panel shows that macroscopically the arterial lumen is normal while cystic change is present in the adventitia.

The right panel is a photomicrograph of the adventitial cyst.

No evidence of atherosclerotic change, necrosis, or inflammatory cell infiltration is present in the arterial wall. Fibrous hyperplasia can be seen surrounding the cyst (Elastica van Gieson stain, $\times 20$).

A: arterial lumen, C: cystic lumen.

多い。しかし、嚢胞内容物の除去や不十分な嚢胞切除では、再発がみられることもある⁷⁻⁹⁾。本症例の場合、嚢胞切除を検討したものの、術中所見で多房性の嚢胞が認められたことから再発などの危険性も考慮し、大伏在静脈を用いて膝窩動脈置換術を選択した。

現在、本症例については術後約1年が経過し、再発や下肢虚血症状もなく経過良好である。今後も注意深い経過観察を継続するつもりである。

結 語

膝屈曲状態での左下肢痛を契機に診断された左膝窩動脈外膜嚢腫の1例を経験した。膝窩動脈外膜嚢腫は稀な末梢動脈疾患であるものの、特定の肢位で下肢虚血状態を来す場合には、本症の可能性も念頭に置いて診療を行う必要がある。

なお、本論文の要旨は第45回日本脈管学会総会において発表した。

文 献

- 1) Ejrup B, Hiortonn T: Intermittent claudication; three cases treated by free vein graft. *Acta Chir Scand*, 1954, **108**: 217–

230.

- 2) Ishikawa K: Cystic adventitial disease of the popliteal artery and of other stem vessels in the extremities. *Jpn J Surg*, 1987, **17**: 221–229.
- 3) Lewis GJT, Douglas DM, Reid W et al: Cystic adventitial disease of the popliteal artery. *Br Med J*, 1967, **3**: 411–415.
- 4) 笠島 学, 宮崎幹也, 杉山茂樹他: 超音波で診断しえた膝窩動脈外膜嚢胞症の1例. *超音波医*, 1984, **11**: 1.
- 5) Rizzo RJ, Flinn WR, Yao JS et al: Computed tomography for evaluation of arterial disease in the popliteal fossa. *J Vasc Surg*, 1990, **11**: 112–119.
- 6) 石川浩一, 三島好雄, 小林 茂: 膝窩動脈外膜嚢腫について. *日外会誌*, 1960, 264–273.
- 7) Rich NM: Popliteal entrapment and adventitial cystic disease. *Surg Clin North Am*, 1982, **62**: 449–465.
- 8) 前田英明, 根岸七雄, 石井良幸他: 膝窩動脈外膜嚢腫の2治験例—本邦53例の検討—. *日本心外会誌*, 1997, **26**: 108–111.
- 9) 森田 稔, 安達武彦, 中西昌美他: 膝窩動脈外膜嚢腫の1例—屈曲位動脈造影所見を中心に— . *臨放*, 1981, **26**: 153–156.

Adventitial Cyst of the Left Popliteal Artery Diagnosed by Limb Pain with Bending Position of Knee Joint: A Case Report

Toshiya Okajima,¹ Atsushi Ohira,¹ Takayuki Nakajima,² Tsuyoshi Kataoka,² Shinichi Nakamura,³ Kouhei Kawazoe,² and Katsuhiko Hiramori¹

¹Second Department of Internal Medicine, Iwate Medical University, Iwate, Japan

²Department of Cardiovascular Surgery, Memorial Heart Center, Iwate Medical University, Iwate, Japan

³Division of Pathology, Central Clinical Laboratory, School of Medicine, Iwate Medical University, Iwate, Japan

Key words: peripheral artery disease, popliteal artery, cystic adventitial disease

We report a case of 33 year old man with cystic adventitial disease of the popliteal artery causing left lower limb pain.

Ankle brachial pressure index was normal, but ABI was decreased to 0.70 after bending his left knee joint. Angiography showed a smooth tapered stenosis of the popliteal artery. Computed tomography (CT) showed a cystic lesion around the popliteal artery.

The patient was successfully treated with resection of the cyst and reverse saphenous vein bypass graft.

(*J Jpn Coll Angiol*, 2005, **45**: 643–646)