

巨大な浅大腿動脈仮性瘤に対して人工血管置換術を施行した血管ベーチェット病の1例

向井田昌之¹ 湊谷 謙司¹ 片岡 剛¹ 鎌田 武¹ 金 一¹
熊谷 和也¹ 安孫子明彦² 中島 隆之³ 岡林 均¹

要 旨：症例は33歳，女性。右大腿の腫脹・疼痛を自覚し精査施行。巨大右浅大腿動脈瘤，右深部静脈血栓症，右冠動脈瘤を伴った血管ベーチェット病の診断を得，炎症反応の低下を待って手術を施行。動脈瘤を切除し，浅大腿動脈から膝窩動脈への人工血管バイパス術を施行した。術後2年7カ月の現在，吻合部仮性瘤等の合併症なく経過している。（J Jpn Coll Angiol, 2010, 50: 369–374）

Key words: vascular Behçet's disease, pseudoaneurysm, femoral aneurysm

序 言

ベーチェット病は口腔粘膜症状，眼症状，皮膚症状，外陰部症状を4大症状とする慢性再発性の全身性炎症性疾患であり，そのなかの特殊型として神経，腸管，血管ベーチェット病が知られている。血管ベーチェット病は動脈系・静脈系の両方に血管炎をおこし，静脈血栓症や動脈瘤や閉塞を形成する。とくに動脈瘤の破裂は致死的事から，早期の治療が必要となる¹⁾。今回われわれは，巨大浅大腿動脈瘤に対して人工血管置換術を施行した症例を経験したので報告する。

症 例

症例：33歳，女性。

既往歴：ぶどう膜炎，口腔内アフタ，陰部潰瘍。

家族歴：特記事項なし。

嗜好品：喫煙歴(-)。

現病歴：平成19年7月頃より歩行時の右下肢痛を自覚するようになった。杖歩行をしていたが徐々に下肢が腫脹してきたため8月上旬に近医を受診した。下肢CT (computed tomography)検査で右浅大腿動脈瘤を指摘され，

精査目的に当院を紹介された。下肢血管エコー検査で右浅大腿動脈の巨大仮性瘤を認め，早期の手術を目的に入院となった。

入院時現症：身長1599 cm，体重71.8 kg，体温36.8℃。脈拍82/分整，右上肢血圧136/83 mmHg，左上肢血圧136/88 mmHg。ABI；右0.60，左1.15。

眼球結膜：貧血・黄疸なし。視力は右裸眼0.03，左裸眼0.03。眼内の炎症は消失している。頸静脈怒張なし。口腔内アフタなし，陰部潰瘍なし。呼吸音；清，ラ音なし。心雑音聴取せず。頸部血管雑音聴取せず。大腿周囲径；右54 cm，左46 cm，右大腿から膝にかけて小児頭大の拍動性腫瘍を触知する。両下腿に結節性紅斑を認める。

血液検査所見：WBC 9400/ μ l，Hb 9.8 g/dl，Plt 479 \times 10³/ μ l，APTT(比)1.11，PT(比)1.01，フィブリノーゲン566.5 mg/dl，赤沈；1時間値64 mm，2時間値109 mm，針反応(-)，CK 59 IU/l，CRP 3.0 mg/dl，HLA タイピング B51 陽性。

下肢CT所見(Fig. 1)：右浅大腿動脈遠位に壁在血栓を伴った91 \times 85 mmの仮性瘤を認めた。瘤の辺縁部は線維化があると考えられ，平衡相で造影された。動脈瘤部より末梢側の深部静脈内に血栓を認めた。

下肢MRI(magnetic resonance imaging)所見：右浅大腿動脈に見られる仮性瘤の辺縁部と瘤のすぐ末梢の瘤化し

¹岩手医科大学心臓血管外科

²岩手医科大学循環器・腎・内分泌内科

³盛岡友愛病院血管外科

2010年5月14日受付 2010年7月7日受理

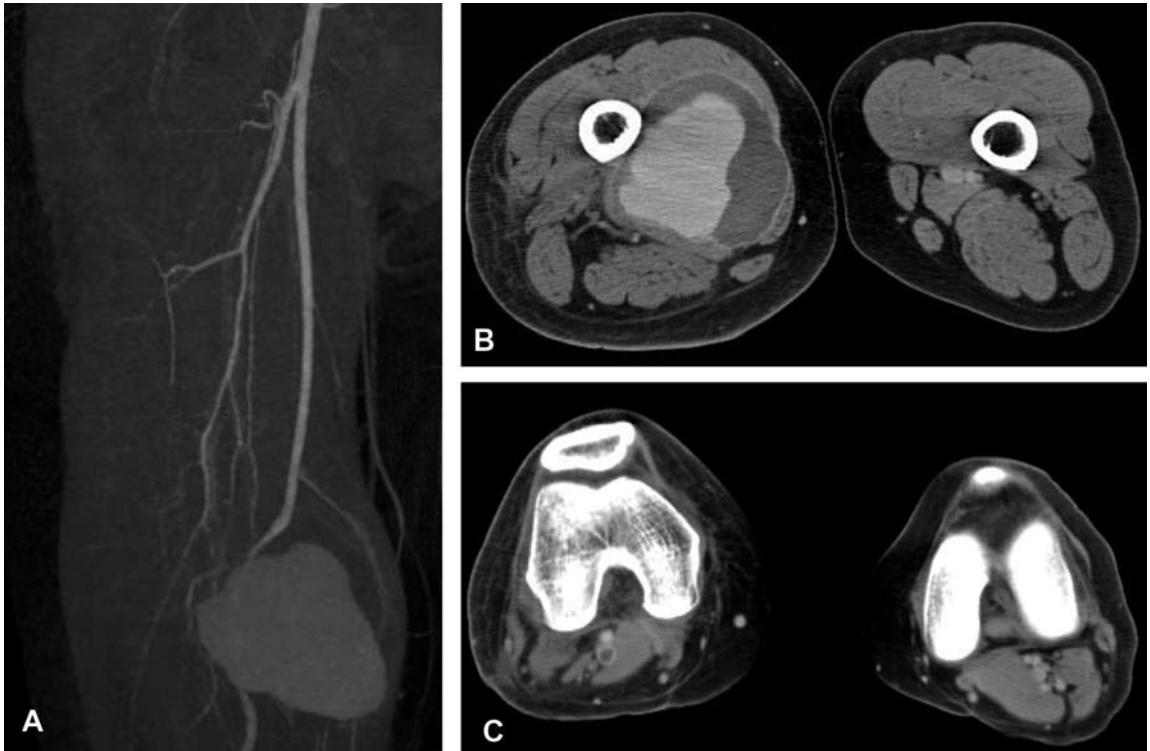


Figure 1 Two-dimensional CT angiographic images.

A: A large irregularly shaped aneurysm was present at the right distal superficial femoral artery.

B: Axial image showing the aneurysm with mural thrombus and a halo enhancement of aneurysmal wall.

C: Axial image showing the thrombosis in the right popliteal vein.

ていない浅大腿動脈の壁が造影された。

冠動脈 CT 所見(**Fig. 2**) : 右冠動脈の #1 に直径 14 mm 大の瓢箪型の冠動脈瘤を認めた。右冠動脈が嚢状瘤に移行する部位で実測約 40% の狭窄を認めた。

下肢血管超音波検査所見 : 右膝窩静脈に輝度の低い血栓が存在した。

以上の所見より、血管パーチェット病による動脈瘤とそれに伴う深部静脈血栓症と診断した。CRP の上昇および CT 検査での瘤壁の辺縁の炎症所見に対して、プレドニゾロン(30 mg)の投与を開始した。巨大動脈瘤の破裂の危険性はあるものの、炎症反応の低下を待ち手術を行う方針とした。入院 5 日目の血液検査で WBC 9430/ μ l, CRP 0.2 mg/dl と炎症反応が低下してきたため、7 日目に肺塞栓症の予防目的で下大静脈フィルターを挿入し、8 日目に手術を施行した。

手術所見 : 全身麻酔下に手術を開始した。初めに右鼠

径部に約 3 cm の皮膚切開を入れ右浅大腿動脈起始部を露出した。続いて動脈瘤直上の皮膚を縦切開し、動脈瘤中枢側の浅大腿動脈の露出を試みたが周囲組織との癒着が強固で剥離は困難であった。そこで右浅大腿動脈起始部を遮断して動脈瘤全体を切開した。瘤は仮性瘤で多量の壁在血栓を認めた。血栓を除去し、瘤の中枢側と末梢側の浅大腿動脈にバルーンカテーテルを挿入して出血をコントロールした。瘤の中枢側と末梢側で浅大腿動脈を剥離・露出すると、いずれも動脈壁は薄く吻合には適さないと判断した。そこで中枢側は右浅大腿動脈起始部に、末梢側は Hunter 管の末梢の膝窩動脈にそれぞれ端々吻合する方針とした。まず expanded polytetrafluoroethylene(Gore-Tex)6 mm の人工血管と浅大腿動脈をテフロンフェルト補強下に 6-0 モノフィラメント糸の連続縫合により端々吻合した。さらに吻合部仮性瘤予防のため、中枢側吻合部を人工血管で覆った。末梢側も、同様にテ

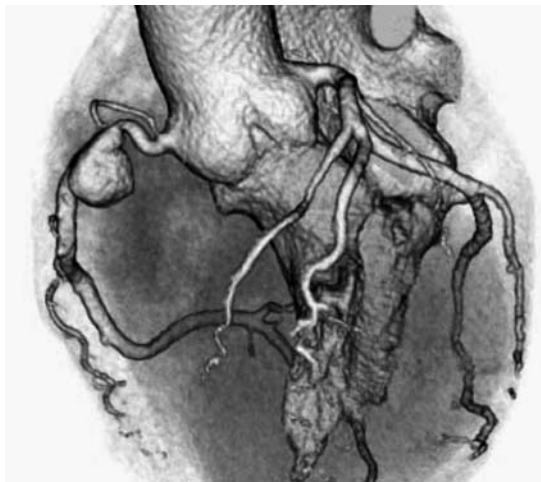


Figure 2 Three-dimensional coronary CT angiogram showed a right coronary artery aneurysm with a proximal site stenosis. The diameter of the aneurysm was 14 mm.

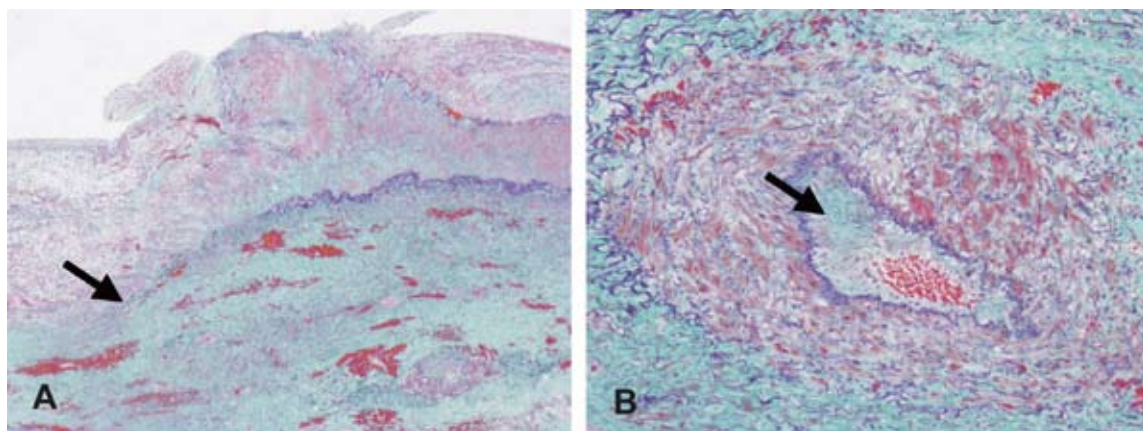


Figure 3 Cross-sectional histopathology (Elastica-Masson stain) of right superficial femoral artery pseudoaneurysm. A: (orig. $\times 20$) Loss of elastic fiber (arrow), destruction of elastic lamina, fibrosis of the media and adventitia. B: (orig. $\times 100$) Intimal hyperplasia (arrow) of the vasa vasorum with fibrotic deterioration of the media.

フロンフェルト補強下に 6-0 モノフィラメント糸の連続縫合により端々吻合した。膝窩動脈の壁の性状は良好であり、末梢側吻合部は人工血管で覆わなかった。止血操作を行い閉創した。

病理診断(**Fig. 3**) : A : 動脈壁は弾性線維が断裂している部位があり仮性動脈瘤を形成していた。動脈壁が保たれている部位では、中膜・外膜は線維化し周囲組織との癒着を認めた。B : Vasa vasorum は内膜の肥厚による

内腔の狭小化と弾性線維の断裂を認めた。以上より、炎症細胞の浸潤は認められなかったが、血管炎による炎症性変化の像と考えられた。

術後経過 : 術後経過は良好であった。術後 5 病日に胸・腹部 CT 検査で肺塞栓および下大静脈フィルターに血栓がないことを確認し、下大静脈フィルターを抜去した。CRP の陰性化を待って退院した。退院時投薬はプレドニゾロン 10 mg/日、ワルファリン 2.5 mg/日、シロスタゾール



Figure 4 Computed tomography with three-dimensional reconstruction at one year after operation. The graft was patent and no aneurysm formed at the anastomotic sites.

200 mg/日であった。術後1年に施行した下肢CT検査 (Fig. 4)では、吻合部に仮性瘤は認められなかった。術後2年7カ月の現在、下肢血管エコー検査では吻合部仮性瘤や深部静脈血栓症の再発は認めていないが、ブドウ膜炎が再発しプレドニゾロンを20 mg/日に増量し経過観察中である。

考 察

パーチェット病は若年者に好発し、地域別では東南アジア、中東、地中海沿岸に多く分布する。本邦では北海道、東北に多く、平成19年時点で約17000名と世界一の症例数が登録されている。パーチェット病の症状は多彩なため、症状の組み合わせで診断され、日本では2003年に改定された厚生労働省のパーチェット病診断基準が用いられている。本症例では、主症状として結節性紅斑が認められ、副症状として冠動脈瘤、浅大腿動脈瘤、深部静脈血栓症が認められることから、血管パーチェット病と診断された。血管パーチェット病の頻度は、パーチェット病全体の約4~29%¹⁻³⁾とされている。血管病変は多発性に動脈系にも静脈系にも生じ、静脈血栓症が頻度として最も多く、動脈系は閉塞性・拡張性病変を呈し、若年男性に圧倒的に多いとされている⁴⁾。Kimらは血管

パーチェット病のうち3.7%に動脈瘤を認め、病変部位は腸骨動脈以下が30%、鎖骨下動脈が21%、腹部大動脈が15%、肺動脈が13%であったと報告している²⁾。本症例は、冠動脈瘤、右巨大浅大腿動脈瘤および右深部静脈血栓症が認められており、われわれが検索した限りでは、若年女性に発症した浅大腿動脈瘤の報告はなく、非常に稀な症例と考えられた。

パーチェット病の病態は、何らかの遺伝素因が基盤にあり、そこに感染などが関与し白血球をはじめ免疫系の異常活性化が生じ、強い炎症を引き起こすと考えられている。なかでもサイトカインである腫瘍壊死因子(tumor necrosis factor)を大量に産生することが報告されており、腫瘍壊死因子による動脈壁の破壊が要因となって仮性瘤が形成されると考えられている^{5,6)}。血管パーチェット病の動脈瘤の破裂の危険性は、動脈硬化性病変と違い大きさに関係なく、経過観察中に破裂した症例の報告⁷⁾も散見される。そのため、動脈瘤と診断された場合には、注意深い経過観察を要し、増大傾向が認められた場合には早急の手術が必要と考えられる。パーチェット病における動脈瘤の治療ははまだ確立されていないが、免疫抑制療法が有効と言われている。外科的治療としては、人工血管置換や血管内ステント治療、結紮術などが行われ

ているが³⁸⁻⁴⁰⁾、一番の問題点は、人工血管との吻合部や血管穿刺部位に仮性瘤が生じることである。Kim らは、23 例の血管ペーチェット病のうち、16 名に血管内治療(ステントあるいはコイル塞栓術)、7 名に人工血管置換術を施行した。血管内治療は全例成功し、平均 47 カ月の観察期間で 18.8% にステント閉塞や仮性動脈瘤との再交通等の合併症を認めたが死亡例はなかった。人工血管置換術を行った症例では 42.9% に仮性動脈瘤の再発や動脈瘤関連死等の合併症を認めたと報告している²⁾。血管ペーチェット病では、正常と思われる血管でも遠隔期に障害をきたす可能性があり、血管内治療は有力な選択肢の一つであると考えられるが、症例別の詳細な検討が必要である。本症例は、数カ月で急激に動脈瘤が増大してきたため、破裂の危険性が高く早急の治療が必要であった。また、瘤は浅大腿動脈末梢側の巨大動脈瘤であり、血管内治療は困難と判断し、人工血管置換術の方針とした。自家静脈を用いた血行再建術は、術後に静脈が瘤化した症例の報告があり^{11, 12)}、炎症が静脈にも及んでいる可能性があること、深部静脈血栓症を高率に合併するため側副血行路として大伏在静脈を確保しておく必要があることなどの理由から、本症例では人工血管を選択した。吻合の際には、吻合部の仮性瘤の発生を予防するために、テフロンフェルトの補強下に人工血管と端々吻合し、さらに中枢側吻合部は人工血管で覆い、二重に補強を加えた。われわれは人工血管で吻合部を覆う方法を、吻合部の止血困難な症例などに対してしばしば用いて良好な結果を得ている。この方法の有効性について詳細に検討した報告は認められないが、吻合部全体を固い材料で補強することで、仮性瘤を形成しにくくすると推測されること、フェルトを用いて吻合すると吻合部の修復過程が遅延する可能性があることより、吻合部全体を人工血管で覆う方法を用いた。また、周術期以降から長期にわたり炎症を抑え寛解期を継続させることで吻合部仮性瘤を軽減できるとの考えより¹³⁾、術後に炎症反応が遅延・再上昇しないように、術直後もプレドニゾロンを 30 mg/日 で再開し、定期的に白血球数と CRP を測定し全身の炎症反応を厳重にコントロールした。

血管ペーチェット病の冠動脈瘤や狭窄病変に対する治療は、保存的治療が優先される。破裂症例や動脈瘤の拡大、重症虚血を合併した場合は、冠動脈バイパス手術や経皮的冠動脈形成術が緊急的に行われるが、ステント再狭窄や動脈穿刺部の瘤化、吻合部仮性瘤や静脈グラ

フトの閉塞、上行大動脈の仮性瘤など、いずれも遠隔期の成績は良好ではないと報告されている¹⁴⁻¹⁷⁾。本症例は右冠動脈に 14 mm 大の動脈瘤と 40% の狭窄を認めるが、胸痛などの症状がなく虚血も証明されていないため、全身の炎症のコントロールを行いながら、厳重に経過観察していかなければならない。また、血管ペーチェット病の深部静脈血栓症は静脈壁の炎症が要因となって血栓症が生じると考えられているため、ワルファリンの投与だけでは血栓症の再発を予防することは難しく¹⁸⁾、抗血小板薬や全身の免疫抑制療法を加え、定期的に経過観察していく必要があると考えている。

結 論

右冠動脈瘤と深部静脈血栓症を合併した右巨大浅大腿動脈瘤に対し、瘤切除および人工血管置換術を施行した。術後 2 年 7 カ月、吻合部仮性瘤などの再発なく順調に経過している。

文 献

- 1) Sasaki S, Yasuda K, Takigami K et al: Surgical experiences with peripheral arterial aneurysms due to vasculo- Behçet's disease. *J Cardiovasc Surg*, 1998, **39**: 147-150.
- 2) Kim WH, Choi D, Kim JS et al: Effectiveness and Safety of Endovascular Aneurysm Treatment in Patients With Vasculo- Behçet's Disease. *J Endovasc Ther*, 2009, **16**: 631-636.
- 3) Kuzu MA, Ozaslan C, Koksoy C et al: Vascular involvement in Behçet's disease. *World J Surg*, 1994, **18**: 948-954.
- 4) Yoshida S, Akiba H, Tamakawa M et al: Pseudoaneurysm of the superficial femoral artery in Behçet's disease with spontaneous thrombosis followed by CT angiography. *Cardiovasc Intervent Radiol*, 1998, **21**: 342-344.
- 5) Kobayashi M, Ito M, Nakagawa A et al: Neutrophil and endothelial cell activation in the vasa vasorum in vasculo- Behçet's disease. *Histopathology*, 2000, **36**: 362-371.
- 6) Kalko Y, Basaran M, Aydin U et al: The surgical treatment of arterial aneurysms in Behçet's disease: a report of 16 patients. *J Vasc Surg*, 2005, **42**: 673-677.
- 7) Hamuryudan V, Yurdakul S, Moral F et al: Pulmonary arterial aneurysms in Behçet's syndrome: a report of 24 cases. *Br J Rheumatol*, 1994, **33**: 48-51.
- 8) Kasirajan K, Marek M, Langsfeld M et al: Behçet's disease: Endovascular management of a ruptured peripheral arterial aneurysm. *J Vasc Surg*, 2001, **34**: 1127-1129.
- 9) Liu CW, Ye W, Liu B et al: Endovascular treatment of aortic

- pseudoaneurysm in Behçet's disease. *J Vasc Surg*, 2009, **50**: 1025–1030.
- 10) Tuzun H, Besirli K, Sayin A et al: Management of aneurysms in Behçet's syndrome: an analysis of 24 patients. *Surgery*, 1997, **121**: 150–156.
- 11) Yanagiya A, Kazui T, Nakanishi K et al: A case of aneurysmal dilatation of a saphenous vein graft for subclavian aneurysm in a patient with Behçet's disease. *Nippon Gaka Gakkai Zasshi*, 1987, **88**: 903–906.
- 12) Bedirhan MA, Onursal E, Barlas C et al: Unusual complication of femoro-popliteal saphenous vein bypass--aneurysm formation. *Eur J Vasc Surg*, 1991, **5**: 583–586.
- 13) Honjo O, Yunoki K, Shichijo T et al: Peripheral pseudoaneurysm in active Behçet's disease: surgical and perioperative therapeutic strategies. *Ann Vasc Surg*, 2006, **20**: 664–668.
- 14) Gokhan I, Suat NO, Denyan M et al: Coronary artery bypass grafting in a 26-year-old man with total occlusion of the main coronary artery related to Behçet's disease. *J Thorac Cardiovasc Surg*, 2001, **122**: 1247–1249.
- 15) Arishiro K, Nariyama J, Hoshiga M et al: Vascular Behçet's disease with coronary artery aneurysm. *Internalmedicine*, 2006, **45**: 903–907.
- 16) Harrison A, Abolhoda A, Ahsan C et al: Cardiovascular complications in Behçet's syndrome: acute myocardial infarction with late stent thrombosis and coronary, ventricular, and femoral pseudoaneurysms. *Texas Heart Inst J*, 2009, **36**: 498–500.
- 17) Sismanoglu M, Omeroglu SN, Mansuroglu D et al: Coronary artery disease and coronary artery bypass grafting in Behçet's disease. *J Card Surg*, 2005, **20**: 160–163.
- 18) Ahn JK, Lee YS, Jeon CH et al: Treatment of venous thrombosis associated with Behçet's disease: immunosuppressive therapy alone versus immunosuppressive therapy plus anticoagulation. *Clin Rheumatol*, 2008, **27**: 20–205.

A Giant Pseudoaneurysm of Superficial Femoral Artery in Behçet's Disease

Masayuki Mukaida,¹ Kenji Minatoya,¹ Tsuyoshi Kataoka,¹ Takeshi Kamata,¹ Hajime Kin,¹
Kazuya Kumagai,¹ Akihiko Abiko,² Takayuki Nakajima,³ and Hitoshi Okabayashi¹

¹Department of Cardiovascular Surgery, MHC Iwate Medical University, Morioka, Japan

²Division of Cardiology, Department of Internal Medicine, MHC Iwate Medical University, Morioka, Japan

³Department of Vascular Surgery, Morioka Yuai Hospital, Morioka, Japan

Key words: vascular Behçet's disease, pseudoaneurysm, femoral aneurysm

A 33-year-old woman with vasculo-Behçet's disease was admitted for a pulsating mass and sudden pain in the right thigh. She was diagnosed as having a pseudoaneurysm of the superficial femoral artery, deep vein thrombosis, and a right coronary artery aneurysm. The patient was treated with oral steroid therapy to reduce inflammation and proceeded to operation. The prosthetic graft interposition was selected to prevent a postoperative anastomotic aneurysm. The patient has been well for 31 months since the operation. (*J Jpn Coll Angiol*, 2010, **50**: 369–374)