非血管性腫瘍による破裂性仮性大動脈瘤の2例

中 村 裕 昌 小 宮 達 彦 田 村 暢 成
坂 口 元 一 小 林 平 古 川 智 邦
松 下 明 仁 砂 川 玄 吾 村 下 貴 志

症例1は69歳、女性。両下肢浮腫、呼吸困難があり、腹部仮性大動脈瘤の左総腸骨静脈への破裂と診断し、腹部大動脈人工血管置換術および瘻孔閉鎖術を施行した。大動脈壁の免疫組織学的検索では悪性中皮腫の診断であった。症例2は47歳、女性。呼吸困難のため来院され、造影CTで下行大動脈の嚢状瘤破裂と診断し、緊急で下行大動脈人工血管置換術を施行した。1年後のCTで下行大動脈周囲に160×70 mmの巨大腫瘍を認めた。生検の結果、malignant schwannomaの診断であった。動脈瘤には、まれに非血管性腫瘍によるものがあることを念頭にいれて、術前診断をする必要がある。日心外会誌 37 巻 1 号：56-59 (2008)

Keywords：非血管性腫瘍，大動脈瘤

Two Cases of False Aneurysm Rupture Induced by Nonvascular Tumor

Hiromasa Nakamura, Tatsuhiko Komiya, Nobushige Tamura, Genichi Sakaguchi, Taira Kobayashi, Tomokuni Furukawa, Akihito Matsushita, Gengo Sunagawa and Takashi Murashita (Department of Cardiovascular Surgery, Kurashiki Central Hospital, Kurashiki, Japan)

We presented here 2 cases of rare nonvascular tumor involving the aorta. Case 1: A 69-year-old woman. She presented leg edema and dyspnea on admission. Computed tomography revealed abdominal aortic aneurysm perforating left common iliac vein. Abdominal aortic aneurysm replacement and fistula closure were done on an emergency basis. Immunohistologic examination revealed that malignant mesothelioma invaded the aortic wall. Case 2: A 47-year-old woman presented with dyspnea. Enhanced computed tomography revealed rupture of the descending aortic aneurysm (saccular type). Aortic replacement was done on an emergency basis. One year after the operation, computed tomography revealed a giant mass (160×70 mm) surrounding the descending thoracic aorta. On biopsy, malignant schwannoma was found to invade the descending aorta. Sometimes nonvascular tumors form aneurysms. So we should be careful in diagnosis before operation. Jpn. J. Cardiovasc. Surg. 37: 56-59 (2008)

動脈瘤の発生原因は動脈硬化が多いが、腫瘍による動脈瘤形成もまれではあるが報告されている¹⁾。今回われわれは、術前に診断にいたらなかった非血管性腫瘍による動脈瘤形成の2症例を経験したので、文献的考察を加えて報告する。

症例1：69歳、女性。

主訴：呼吸困難。

既往歴：胃潰瘍（内服加療により治癒）。

家族歴：とくになし。

現病歴：2006年6月末より両下肢のむくみを自覚、その後近医を受診し利尿剤を処方された。経過観察されていたが改善の兆候なく、しだいに呼吸困難の症状が出現したため当院を受診された。

入院時現症：身長152 cm，体重51 kg，血圧110/60 mmHg，心雑音なし。腹部にbruit，thrill，両下肢に浮

腫を認めた。

入院時検査所見：BNP 1,061 pg/ml，GOT 52 IU/l，GPT 101 IU/l， γ -GTP 109 IU/l，T-Bil 0.9 mg/dl，Cre 0.73 mg/dl，BUN 15 mg/dl，CRP 0.1 mg/dl。

画像所見：胸部単純X線写真では心胸郭比55%で両側胸水を認めた。心エコー検査では左室壁運動は問題なく、中等度の三尖弁閉鎖不全症および下大静脈の拡張を認めた。腹部造影CTおよびMRIでは、腹部大動脈の分岐部背側に仮性動脈瘤を認め、左総腸骨静脈と連続していた(図1)。心臓カテーテル検査では、総腸骨分岐部直上の腹部大動脈から左総腸骨静脈への血液の流入、静脈の拡張および下大静脈の圧排所見を認めた。

以上より腹部大動脈に形成された仮性大動脈瘤の左総腸骨静脈への破裂が疑われ、準緊急で腹部大動脈人工血管置換術および瘻孔閉鎖術を施行した。

手術所見：腹部正中切開でアプローチした。開腹したさいに腸管の浮腫状変化があり、動静脈瘻による静脈圧の上昇のためと考えられた。腹部大動脈は周辺組織と高度に癒

着しており、とくに下大静脈・両側内外腸骨静脈との癒着が激しかった。エコーで瘻孔を検索したところ、総腸骨動脈分岐部直上背側に約2 cmの内膜欠損が存在し、この下に仮性瘤が形成されていた。動静脈瘻は仮性瘤と左総腸骨静脈との間に存在した。両側内外腸骨動脈、大動脈、下腸間膜動脈をクランプし、大動脈を切開した。このさい瘻孔からの静脈血の流出を防ぐために、下大静脈と左総腸骨静脈を圧迫しておいた。瘻を4-0 prolene連続縫合で閉鎖した。つぎにINTERGARD WOVEN (14×8 mm, INTERVASCULAR 社製) を大動脈および両側総腸骨動脈に吻合した。手術時間は4時間10分、術中輸血は行わ

なかった。

術後経過：経過良好で術後14日目に退院となった。しかし、退院2カ月後に下肢疼痛のため外来受診した。CTで骨転移、筋肉転移を認めた。大動脈壁の病理所見では、悪性中皮腫を認めた(図2)。

症例2：47歳、女性。

主訴：呼吸困難。

既往歴：高血圧(未治療)。

家族歴：とくになし。

現病歴：2005年3月末より背部痛が出現していた。4月初旬に呼吸困難を訴え当院を受診された。

入院時現症：身長150 cm、体重80 kg、血圧200/80 mmHg、心雑音なし。

入院時検査所見：Hb 10.1 mg/dl, GOT 31 IU/l, GPT 45 IU/l, γ -GTP 225 IU/l, T-Bil 1.3 mg/dl, Cre 0.86 mg/dl, BUN 16 mg/dl, CRP 2.24 mg/dl。

画像所見：胸部造影CTでTh9レベルの下行大動脈にだるま状の造影域が存在し、大動脈との連続を認めた。また、右胸腔にdensityの高い大量の胸水を認めた(図3)。

以上より下行大動脈瘤(嚢状)の右胸腔への破裂と考え、緊急で下行大動脈人工血管置換術を行う方針となった。

手術所見：分離肺換気、右側臥位とし、左第7肋間開胸でアプローチした。また、左大腿動静脈より送血管・脱血管を挿入し、人工心肺を開始した。Epi-aortic echoでは破

図1 腹部造影CT

腹部大動脈の分岐部背側に仮性動脈瘤を認め、左総腸骨静脈と連続している。

図2 大動脈壁病理所見

免疫染色では、mesothelin(-)であるが、AE1/AE3, calretininが陽性であり、悪性中皮腫が疑われる。

裂性動脈瘤は Th 9 レベルで右側に突出していた。瘤の上下でクランプして瘤を切開した。大動脈の右側の内膜に径 3 cm の欠損を認め、そこから右胸腔に破裂していると考えられた。Gelweave (24 mm ストレート, Vascutek 社製) を用いて人工血管置換術を施行した。手術時間は 5 時間 50 分、術中出血量は 534 ml であった。

術後経過：血圧コントロールに難渋したがとくに合併症なく術後 21 日目に退院となった。その後外来でフォローを行っていたが、2006 年 2 月に腰背部痛が出現し、当科を受診された。

CT で下行大動脈周囲に 160×70 mm の巨大腫瘍が存在した (図 4)。これが心臓および下大静脈を圧排していた。MRI, PET で充実性の領域と囊胞成分主体の領域が存在し、生検の結果、malignant schwannoma との結果であった (図 5)。腫瘍が下行大動脈を巻き込んでいるため根治切除は困難と判断し、現在化学療法により加療中である。

図 3 胸部造影 CT

Th 9 レベルの下行大動脈にだるま状の造影域が存在し、大動脈と連続している。また、右胸腔に density の高い大量の胸水を認める。

考 察

今回経験した 2 自験例は悪性中皮腫および悪性神経鞘腫と、ともに比較的希な悪性腫瘍である。

両症例ともに腫瘍による仮性瘤形成と考えられる。腫瘍による動脈瘤を感染や動脈硬化によるそれと、CT や MRI の画像診断で鑑別することは難しい。しかし、画像所見を再度確認してみると、症例 1 は、1) 静脈 (下大静脈・左総腸骨静脈) 内に腫瘍がせり出し結節影をつくっていること、2) 腫瘍に造影効果がでている (CT 値が 30 → 49 → 66 と上昇) 点などから術前診断は可能であったと考えられる。しかし、動脈瘤破裂という急を要する状況においては困難である。本 2 症例は、1) 比較的若年であった、2) 画像所見では動脈硬化性変化に乏しく、感染を疑わせる動脈瘤周囲の不整像などがなかった、3) 血液検査で炎

図 5 病理所見

異型の著明な細胞増殖を全域に認める。S 100(+)であり、一部に平滑筋の性格を認め、上皮性の marker はいずれも陰性であった。

図 4 術後 CT および MRI

CT で下行大動脈周囲に 160×70 mm の巨大腫瘍が存在、これが心臓および下大静脈を圧排していた。MRI で充実性の領域と囊胞成分主体の領域が存在している。

症反応も低く発熱などの症状もなかった。以上の点より、動脈硬化性や感染性の動脈瘤とは考えにくく、頻度としては非常に低い腫瘍なども原因として考慮すべきであった。

中膜・外膜由来の腫瘍 (mural type) は瘤もしくは mass を形成し、内膜由来の腫瘍 (intimal type) は血管閉塞をきたすといわれている。非血管原性悪性腫瘍による仮性動脈瘤形成の報告はあるが²⁾、その過程は明確にはわかっていない。形成のメカニズムとして、腫瘍が血管壁に浸潤し血管の破綻が起こり、その結果腫瘍内に破裂して形成されると考えられる。

悪性中皮腫の1例は McAuley らの提唱する動静脈瘻の triad³⁾ (1) 突然に発症する高拍出性心不全, 2) thrill, 血管雑音を伴う拍動性腫瘍, 3) 下肢の虚血, 腫脹) を認めており、造影 CT で血栓や不整形の血管腔を伴った約 6×3.5 cm の mass lesion が存在していた。これが大動脈と連続していたため仮性動脈瘤と考えた。そしてこれが拡張した左総腸骨静脈と連続しており、MRA でも動脈から静脈への速い速度での血液の流入を認めたため、仮性大動脈瘤の左総腸骨静脈への破裂が疑われた。このため、準緊急で腹部大動脈人工血管置換術および瘻孔閉鎖術を施行した。

悪性中皮腫の発生部位としては胸膜に多く 90%以上、腹膜に 6~10%との報告がある。その他、心膜腔、精巣鞘膜組織での発生もあるが、その頻度は低い。また、上大静脈に浸潤し上大静脈症候群を起こしたという報告⁴⁾がある。

一方、悪性神経鞘腫 (malignant schwannoma: MS) は肋骨脊柱管領域では、交感神経が origin と考えられる。縦隔に発生する MS の多くは無症状であり、胸部レントゲンで偶然発見されることが多い。まれに肺炎や咳、胸痛などを主訴として見つかることがある。また、本自験例のように後縦隔に発生した MS で大動脈に浸潤し破裂をひき起こした症例報告もある⁵⁾。

ともに予後不良な腫瘍であり、悪性中皮腫は悪性胸膜中

皮腫でみると、Butchart の病期分類 I, II, III でそれぞれ 16 カ月, 9 カ月, 5 カ月である。治療の原則は外科的腫瘍切除であるが、なんらかの外科的切除を行ったもののほうが放射線あるいは化学療法のみ、あるいはそれらの組み合わせの患者よりも長期生存の傾向にあるという。Watanabe らは、初発・再発時に積極的な追加切除、化学療法を併用した集学的な治療を行い、平均生存期間は 37.0±11.7 カ月と報告している⁶⁾。一方、悪性神経鞘腫については、Das Gupta らが 5 年生存率は 50%と 124 例の検討で報告している⁷⁾。

結 語

悪性中皮腫、悪性神経鞘腫により動脈瘤を形成したまれな症例を経験した。腫瘍由来の動脈瘤は希ではあるが、若年性のものや動脈硬化に乏しいもの、感染の可能性の低いものに対しては、悪性腫瘍が関係している場合もあり注意を要する。

文 献

- 1) Cantwell, C. P. and Stack, J.: Abdominal aortic invasion by leiomyosarcoma. *Abdom. Imaging* **31**: 120-122, 2006.
- 2) Szucs-Farkas, Z., Toth, J., Szollosi, Z. et al.: Pseudoaneurysm and ilio-caval fistula caused by malignant fibrous histiocytoma of the aorta—CT diagnosis and angiographic confirmation. *Eur. Radiol.* **12**: 450-453, 2002.
- 3) McAuley, C. E., Peitzman, A. B., deVries, E. J. et al.: The syndrome of spontaneous iliac arteriovenous fistula: a distinct clinical and pathophysiologic entity. *Surgery* **99**: 373-377, 1986.
- 4) Ragalie, G. F., Varkey, B. and Choi, H.: Malignant pleural mesothelioma presenting as superior vena cava syndrome. *Can. Med. Assoc. J.* **128**: 689-691, 740, 1983.
- 5) Bambirra, E. A. and Miranda, D.: Spontaneous aortic rupture in a malignant schwannoma. *South. Med. J.* **73**: 1533-1535, 1980.
- 6) 渡辺俊一, 下川新二, 酒瀬川浩一ほか: 悪性胸膜中皮腫 8 手術例の検討. *胸部外科* **53**: 1101-1104, 2000.
- 7) Das Gupta, T. and Brasfield, R. D.: Tumors of peripheral nerve origin: Benign and malignant solitary schwannomas. *CA Cancer J. Clin.* **20**: 228-233, 1970.