ステントグラフト内挿術により嚥下障害・嗄声・喘息様症状が改善した胸部大動脈瘤の1例

松 永 裕 樹* 三 島 秀 樹* 石 川 進* 大 島 哲* 六 角 丘**

症例は69歳、女性。嚥下障害、嗄声、咳嗽・喘鳴などの喘息様症状を主訴に近医を受診した。吸入ステロイド薬・長時間作用型 β_2 刺激薬投与で改善が得られなかった。上部消化管内視鏡検査で食道内壁の外部からの圧排像があり、CT像で胸部下行大動脈瘤がみられたため、当院に紹介となった。胸部大動脈瘤の食道・左気管支への圧排による嚥下障害・呼吸器症状と診断し、早期に胸部大動脈ステントグラフト内挿術を行った。術後経過は良好で、手術後1カ月の時点で嗄声と喘息様発作の著明な改善が得られた。ステントグラフト内挿術により、食道および気管支狭窄症状の両方の改善が得られた症例は本邦ではいまだなく、稀と考えられたので報告する。日心外会誌 46 巻 1 号 : 49-53 (2017)

キーワード：嚥下障害；喘息様発作；胸部大動脈瘤；TEVAR

A Case of Thoracic Aortic Aneurysm Associated with Dysphagia, Hoarseness and Asthma-like Attack

Hiroki Matsunaga*, Hideki Mishima*, Susumu Ishikawa*, Akira Oshima* and Kyu Rokkaku** (Department of Thoracic Cardiovascular Surgery, Tokyo Metropolitan Bokutoh Hospital*, Tokyo, Japan and **Dr. Rokkaku passed away on February, 2016.)

A 69-year-old woman had dysphagia, hoarseness, and asthma-like symptoms such as cough and wheeze. Inhaled corticosteroids and long-acting β_2 stimulants was not effective. Gastrointestinal endoscopy showed compression of the esophagus wall from outside. Enhanced computed tomography (CT) showed thoracic descending aortic aneurysm compressing esophagus and left lower lobe bronchus. Immediately thoracic endovascular aortic repair (TEVAR) was performed. After surgery, significant improvement of hoarseness and asthma-like attack was obtained at the time of 1 month after surgery. This is the first reported case of TEVAR which improved compression symptoms of both esophagus and bronchus due to thoracic aortic aneurysm in Japan. Jpn. J. Cardiovasc. Surg. 46: 49-53 (2017)

Keywords : dysphagia ; asthma-like attack ; thoracic aortic aneurysm ; TEVAR

胸部大動脈瘤は通常は無症状で、単純X線像や胸部CT像で偶然に発見されることが多い。胸部大動脈瘤による嚥下障害、咳・喘息様症状の報告は散見されるが、ステントグラフト内挿術により、これらの症状が改善した症例の報告は稀である。今回、ステントグラフト内挿術により食道および左気管支狭窄が改善した1例を経験したので報告する。

症 例

症例：69歳、女性。

主訴：嚥下障害、咳、喘鳴、嗄声。

既往歴：高血圧（近医通院中）。

現病歴：以前より嚥下障害、のどのつかえ感があった。2カ月前より咳・喘鳴などの喘息様発作があり、近医にて吸入ステロイド薬・長時間作用型 β_2 刺激薬で治療を行ったが、効果が乏しく嗄声も出現した。上部消化管内視鏡検査で食道内壁の外部からの圧排像があり、CT像で胸部大動脈瘤がみられたため、当院に紹介となった。

入院時身体所見：身長143cm、体重40kg。血圧は120/80mmHg、脈は58/分整であった。聴診では心音は正常で、軽度の喘鳴がみられた。経皮的動脈血酸素飽和度は98%（大気下）であった。

術前検査所見：血液生化学検査では、WBC 7,200/ μ l、Hb 11.6g/dl、plt 27.9×10^4 / μ l、TP 7.3g/dl、UN 12mg/dl、Cre 0.7mg/dl、F-T₃ 2.21pg/ml、F-T₄ 0.99ng/dl、

2016年5月16日受付、2016年9月28日採用
Corresponding author : Hiroki Matsunaga
Department of Thoracic Cardiovascular Surgery, Tokyo Metropolitan Bokutoh Hospital, Tokyo, Japan
E-mail : hihhi_heart@yahoo.co.jp

* 東京都立墨東病院胸部心臓血管外科

〒130-8575 東京都墨田区江東橋 4-23-15

** 六角 丘先生は2016年2月に逝去されました。

本研究において一切の利益相反や研究資金の提供はない。
None of the authors of this manuscript has any financial or personal relationship with other people or organizations that could inappropriately influence their work.

Fig. 1

Preoperative chest X-ray. Thoracic descending aortic aneurysm projecting forward is observed.

Fig. 2

Preoperative enhanced CT. Thoracic aortic aneurysm with a maximum diameter of 47 mm compressing esophagus (arrow) and left bronchus (triangle) is observed.

TSH 1.97 μ U/ml, CRP 0.03 mg/dl, HbA1c 5.9% と特に異常所見はなかった。胸部単純 X 線像では心臓胸郭比 45% と心臓拡大はなかったが、左 1 弓の突出がみられた。側面像では胸部下行大動脈中央部に前方に突出する腫瘤影があった。肺野に異常陰影はなかった (Fig. 1)。心電図検査では脈拍 58/分、整で ST 変化はなかった。心臓超音波検査では、左室収縮能は駆出率 75% と正常で、壁運動異常や弁膜症はなかった。肺機能検査では %VC は 96.8%, 1 秒率は 61.6% と軽度の閉塞性呼吸障害がみられた。造影 CT 像では、横断面で最大短径 47 mm, 矢状断で最大短径 53

mm の胸部下行大動脈瘤がみられた。大動脈瘤は大動脈自体の屈曲と相まって前方に突出して、食道、左肺下葉気管支を圧排していた (Fig. 2)。以上より、胸部大動脈瘤の食道および左気管支への圧排による嚥下障害、呼吸器症状と診断した。肺気腫・ADL など全身状態を考慮し、開胸手術はリスクが高いと考えられた。大動脈瘤による圧迫の急速な解除には、人工血管置換術が妥当と思われたが、本症例は前方に突出するように蛇行した大動脈の屈曲を軽減することで、症状の改善を期待し得たので、早期のステントグラフト治療を第一選択とした。

Fig. 3

Intraoperative angiography. Aneurysm was sealed without endoleak and curved thoracic aorta was linearized after the treatment with stent grafts.

Fig. 4

Enhanced CT at one year after the treatment. Reduction of thoracic aortic aneurysm is obtained, and the obstruction of esophagus and left bronchus has been improved.

手術所見：右大腿動脈径は6 mm とやや細く、径7 mm の右外腸骨動脈大動脈穿刺の方針とした。全身麻酔下に右下腹部を小切開し、後腹膜アプローチで右外腸骨動脈を確保した。造影では胸部下行大動脈より前方に突出する瘤がみられた (Fig. 3, left)。ステントグラフトはZenithTX2 (Cook 社製) を用いた。胸部下行大動脈瘤の中枢側に1個目のステントグラフト (径32 mm, 長さ140 mm) を挿入留置した。その遠位に2個目のステントグラフト (径38 mm, 長さ152 mm) を挿入留置した。留置後の大動脈造影ではエンドリークはなく、前方に突出するように蛇行

していた大動脈の屈曲が軽減した (Fig. 3, right)。手術時間は3時間7分、出血量は200 mlであった。

術後経過：平均動脈圧90 mmHg以上を目標に血圧管理を行い、脊髄麻痺はなく、経過は良好であった。術後4病日の造影CT像ではエンドリークはなく、腹部実質臓器や末梢動脈の血流も良好であった。術後第6病日に退院し、外来経過観察となった。手術後1カ月の時点で、嗄声と喘息様発作の著明な改善が得られた。1年後の胸部造影CT像では胸部大動脈瘤の縮小、左気管支、食道の良好な開存が確認できた (Fig. 4)。嚥下障害、喘息様症状はなくな

Table 1 Reported cases of bronchus and/or esophagus obstruction due to thoracic aortic aneurysm

Author	Year (reported)	Age (year)	Sex	Aneurysm position	Size (mm)	Chief complaints	Operation	Outcome
Bronchus obstruction								
1 Oda, K.	1990	43	M	Arch (traumatic)	40	cough	Descending aorta replacement	Improved
2 Kikuchi, S.	1991	74	F	AAE	100	dyspnea, wheeze	AVR, ascending aorta replacement	Improved
3 Onoguchi, K.	2001	57	F	Arch	ND	cough	Total arch replacement	Improved
4 Yusa, H.	2005	70	F	Arch	106	dyspnea, cough	Total arch replacement	Improved
5 Taguchi, S.	2007	74	M	Arch	60	dyspnea, hoarseness	Total arch replacement	Operative death
6 Ando, Y.	2013	81	F	Arch (distal)	53	dyspnea, cough	Total arch replacement	Improved
Esophagus obstruction								
7 Takeuchi, E.	1990	68	M	Thoraco-abdominal	100	dysphagia, chest pain	Thoraco-abdominal aorta replacement	Improved
8 Harada, H.	1991	57	M	Thoraco-abdominal	100	dysphagia	Thoraco-abdominal aorta replacement	Improved
9 Furukawa, H.	1999	76	F	Descending	50	dysphagia, back pain, chest pain	Descending aorta replacement	Improved
10 Hori, D.	2012	68	F	Descending	ND	dysphagia, back pain	Stent grafting	Improved
Bronchus and Esophagus obstruction								
11 Aoki, Y.	1989	79	F	Arch	100	dyspnea	None	Preoperative death (Autopsy)
12 Our case	2015	69	F	Descending	47	dysphagia, hoarseness, cough, wheeze	Stent grafting	Improved

AAE, annulo-aortic ectasia ; AVR, aortic valve replacement ; ND, not detected.

り、わずかな嗄声が残存しているのみである。

考 察

胸部大動脈瘤の 95% は無症候性で、5% の症候性胸部大動脈は、最初の症状が死亡に直結することが稀ではない。症状としては切迫破裂や解離発症によって生じる疼痛、分枝血流への灌流障害、増大した瘤による周囲への圧迫症状がある。圧迫症状は瘤の存在部位によって異なり、反回神経の圧迫で嗄声を、肺・気管支の圧迫で血痰・気道狭窄を、食道の圧迫で嚥下障害を来すことがある。本例でみられた、気管支への圧迫による咳嗽・喘鳴、食道への圧迫による嚥下障害はいずれも稀である¹⁾。

関村ら²⁾は、慢性咳嗽の原因として、胸部大動脈瘤の関与が示唆された 1 例を報告しており、3 カ月間の喘息治療にて改善がなく、CT 像で胸部大動脈瘤が発見されている。投薬による改善がない、あるいは効果不十分な慢性咳嗽・喘息様発作が継続する場合は、胸部大動脈瘤も念頭におく必要がある。

椿ら³⁾は胸部大動脈瘤手術後に嗄声が改善した 2 例を報告しており、症状発症早期や比較的小さな瘤では手術が改善に寄与すると述べている。胸部大動脈瘤による嗄声の予後は悪いとされているが、本症例も嗄声出現より比較的速度やかな治療で、反回神経の直接の圧迫、牽引が軽減されたものと考ええる。

大動脈瘤の食道圧迫による嚥下障害は、dysphagia aortica といわれている。大動脈の拡張・蛇行・瘤化によって食道が圧迫され、嚥下困難を生じる状態で、嚥下障害の原因としては稀である。その治療は、瘤切除を基本とし人工血管置換術、症状に応じて、カロリー制限や食形態制限などの食事療法、嚥下訓練、食道ステント、食道ブジーなどの内科的加療、耐術不能な例では胃瘻増設術などが報告される^{4,5)}。

大動脈瘤による気管、食道狭窄は、血管輪など、先天性異常がみられる場合の報告は散見されるが、真性瘤の報告は稀である。医学中央雑誌で、大動脈瘤と気管狭窄、食道狭窄を検索し、狭窄所見があるもので、破裂、解離、血管輪に関連するものを除くと、本邦では 11 例がすでに報告されている (Table 1)⁶⁻¹⁶⁾。気道狭窄症状をもつものが 6 例で、食道狭窄症状をもつものは 4 例で、気道・食道両方の狭窄症状があるものが 1 例のみであった。呼吸器症状がみられた症例は弓部大動脈瘤が多く、部位より気管もしくは主気管支の圧迫によるものと推察された。嚥下障害は下行大動脈瘤の関与が多い。本症例は、下行大動脈瘤であるが左肺下葉気管支の圧迫により、気道症状を呈していた。手術は 9 例で人工血管置換術が、1 例でステントグラフト内挿術が実施されている。気管・食道両方の狭窄症状を有した 1 例は手術待機中に破裂で死亡している。術後は人工血管置換術の 1 例が術直後に死亡したが、他 9 例では、症

状軽快が得られている。本例のように、気道狭窄症状と食道狭窄症状がともにステントグラフト内挿術で改善した報告例は本邦ではなかった。ステントグラフト挿入後は、閉塞した瘤が時間をかけて退縮するが、本症例でも同様にCT像で徐々に瘤が縮小した。海外ではSiddiquiら¹⁷⁾が、胸部大動脈瘤による嚥下障害がステントグラフト内挿術により改善した症例を報告しているが、嚥下障害が軽度になったのは9カ月後であった。しかしながら、本症例ではCT像に比較すると症状の改善は早く、術後1カ月で明らかな改善が得られた。半年後では症状はほぼ消失し、1年後には治癒していた。これは気管支および食道の物理的な圧迫に加え、大動脈圧からの解放が症状改善に寄与したためと考えられる。本症例では、腹側へ蛇行する大動脈からさらに突出するように瘤化しており、ステントグラフトを2つ重ねて留置することで、ステントの拡張力による蛇行大動脈の屈曲の軽減が除圧に効果的で、早期の症状改善をもたらしたものとする。本症例のように形態の大動脈瘤では、圧迫する瘤自体の切除は必ずしも必要ではなく、ステントグラフト内挿術による治癒が期待し得る。したがって、大動脈瘤の蛇行が圧迫に寄与している症例、全身状態不良例や、症状が軽微である症例等では、従来の開胸手術ではなく、ステントグラフト内挿術が第1選択となり得ることが示唆された。

結 語

嚥下障害、咳・喘息様症状で発症した稀な胸部大動脈瘤を経験した。ステントグラフト内挿術により嚥下障害、嗄声、喘息様症状のすみやかな改善が得られた。

文 献

- 1) Elefteriades, J.A. and Farkas, E.A. : Thoracic aortic aneurysm clinically pertinent controversies and uncertainties. *J. Am. Coll. Cardiol.* **55** : 841-857, 2010.
- 2) Sekimura, K. and Yamauti, K. : Manseigaisou no genin tosite kyoubudaidoumyakuryuu no kannyogasisasareta ichirei. *Int. Rev. Asthma. COPD* **15** : 29-31, 2013.
- 3) Tsubaki, K., Ishii, K., Adachi, H. et al. : Examination of thoracic aortic aneurysm-related laryngeal paralysis. *Practica Otologica* **97** : 803-806, 2004.
- 4) Kim, J.H., Jang, S.W., Kim, D.B. et al. : A patient with dysphagia due to an aortic aneurysm. *Korean Circ. J.* **39** : 258-260, 2009.
- 5) Sakai, O., Murayama, Y., Numata, S. et al. : A case of esophageal stenosis with descending aortic elongation (dysphagia aortica). *Jpn. J. Cardiovasc. Surg.* **34** : 134-136, 2005.
- 6) Oda, K., Tanemoto, K., Ishine, N. et al. : A case of chronic traumatic aneurysm with compression of left main bronchus at the isthmus. *Nihon Kyobu Geka Gakkai Zasshi* **38** : 2436-2439, 1990.
- 7) Kikuchi, S., Itoh, T., Eduoka, M. et al. : Replacement of the aortic valve and ascending aorta for annuloaortic ectasia with severe tracheobronchial compression in an elderly patient. *Kyobu Geka* **44** : 500-502, 1991.
- 8) Onoguchi, K., Hachiya, T., Sasaki, T. et al. : Jaundice after surgery for an aortic arch aneurysm. *Jpn. J. Thorac. Cardiovasc. Surg.* **49** : 388-390, 2001.
- 9) Yusa, H., Nishiya, Y., Murata, A. et al. : Severe tracheal compression resulting from atherosclerotic aortic arch aneurysm; report of a case. *Kyobu Geka* **58** : 1077-1080, 2005.
- 10) Taguchi, S., Ko, Y. and Horikoshi, S. : A case of saccular aortic arch aneurysm dilating between trachea and esophagus. *Tokyo Jikeikai Med. J.* **122** : 137-141, 2007.
- 11) Ando, Y., Sakamoto, M., Yokozuka, M. et al. : Anesthetic management of thoracic aortic aneurysm with severe tracheal stenosis. *Cardiovasc. Anesth.* **17** : 139-144, 2007.
- 12) Takeuchi, E., Tanaka, M., Yasuura, K. et al. : LMT, LAD byouhenn niyoru kyousinsyou, syokudou appaku niyoru enge konnan wo gappei sita kyohukubu daidoumyakuryuu syuzyutu. *Jpn. J. Cardiovasc. Surg.* **19** : 1166-1668, 1990.
- 13) Harada, H., Ichimiya, Y. and Ueda, M. : Surgical treatment of the thoracoabdominal aortic aneurysm with dysphagia. *J. Jpn. Pract. Surg. Soc.* **52** : 2627-2631, 1991.
- 14) Furukawa, H., Tsuchiya, K. and Osawa, H. : Saccular descending thoracic aortic aneurysm with dysphagia. *Jpn. J. Thorac. Cardiovasc. Surg.* **47** : 277-280, 1999.
- 15) Hori, D., Yuri, K., Nomura, Y. et al. : Case report : successful endovascular treatment of saccular thoracic aneurysm with "shaggy aorta". *Ann. Thorac. Cardiovasc. Surg.* **18** : 536-539, 2012.
- 16) Aoki, Y., Kato, O., Nakanishi, Y. et al. : A case of tracheopathia osteochondroplastica accompanied with an aneurysm of the thoracic aorta. *J. Jpn. Soc. Bronchol.* **11** : 604-607, 1989.
- 17) Siddiqui, J. and Hughes, F. : Dysphagia due to thoracic aortic aneurysm, relieved by thoracic endovascular aneurysm repair : a case report and review of the literature. *BMJ Case Rep.*, 2011. doi : 10.1136/bcr.09.2011.4793