潰瘍性大腸炎の経過中に脳虚血症状を呈した 大動脈炎症候群の1手術例

有 泉 憲 史 坂 晶 橋 本 良 一 多 田 祐 輔*

潰瘍性大腸炎と大動脈炎症候群の合併例, いわゆる **overlapping syndrome** の1例を経験した。28歳, 女性。潰瘍性大腸炎にて通院中に頸部血管痛を主訴に当科を受診した。精査にて大動脈炎症候群と診断し, ただちにステロイド投与を開始した。炎症反応は鎮静化したが, 左総頸動脈狭窄が徐々に進行し, 発症後約1年で左顔面のしびれ, 意識障害, 記憶力の低下が生じた。右鎖骨下動脈-左総頸動脈非解剖学的交叉バイパスによる血行再建を行い, 症状の改善を得た。HLA typing では両疾患の合併例で高頻度にみられる BW52 が検出された。日心外会誌 28 巻 5 号: 339-342 (1999)

Keywords: 大動脈炎症候群, 潰瘍性大腸炎, **overlapping syndrome**, 脳虚血, 頸動脈血行再建術

Carotid Reconstruction for Cerebral Ischemia in Aortitis Syndrome Combined with Ulcerative Colitis

Kenji Ariizumi, Akira Saka, Ryoichi Hashimoto and Yusuke Tada* (The Department of Cardiovascular Surgery, Yamanashi Kosei Hospital, Yamanashi, Japan and The Second Department of Surgery, Yamanashi Medical University*, Yamanashi, Japan)

We report a case of an overlapping ulcerative colitis and aortitis syndrome. A 28-year-old woman with ulcerative colitis in the region from the rectum to the sigmoid colon developed left anterior cervical pain. A cervical contrast-enhanced computed tomography and an arch aortography showed diffuse narrowing of the left common carotid artery and segmental stenosis of the left subclavian artery involving the orifice of the vertebral artery, which defined the diagnosis as aortitis syndrome. HLA was positive for BW 52, which is frequently found in patient with this type of overlapping syndrome. Treatment with prednisolone was begun at an initial dose of 20 mg/day, with gradual tapering to 5 mg/day at 11 months later, when her symptoms had subsided and laboratory findings of inflammation had disappeared. One year later, she became apathetic in mental activity, and had a poor memory. She also complained of numbness on the left side of her face. Angiography confirmed the progression of the left common carotid narrowing causing the deterioration of her cerebral ischemic symptom. A saphenous vein bypass graft was placed between the right subclavian artery and the left common carotid artery. The postoperative course was uneventful and she had complete symptomatic relief and recovered active ordinary life. Postoperative angiography revealed the well functioning bypass graft. Jpn. J. Cardiovasc. Surg. 28: 339-342 (1999)

潰瘍性大腸炎と大動脈炎症候群とを合併した overlapping syndrome による脳虚血症状に対する頸動脈再建術の1例を経験したので報告する。

症 例

症例: 28歳, 女性。

主訴: 意識障害, 記憶力低下, 左顔面しびれ

感。

既往歴: 1996年9月に直腸からS状結腸にかけての潰瘍性大腸炎を指摘された。メサラジンを内服し, ときどきステロイド注腸を行っていた。

家族歴: 特記事項なし。

現病歴: 1997年3月左頸部血管痛にて当科初診(白血球数 $6,100/\mu\text{l}$, 赤沈 66 mm/時間 , CRP 2.3 mg/dl 。左頸部に血管雑音を聴取したため血管造影を行い, 左総頸動脈と左鎖骨下動脈に狭窄を確認した。また炎症反応が陽性であったこ

1998年11月25日受付, 1999年3月19日採用
山梨厚生病院心臓血管外科 〒405-0033 山梨市落合860
*山梨医科大学第2外科

とから大動脈炎症候群 I 型¹⁾と診断し、ただちにステロイド 20 mg/日を開始した。炎症所見が鎮静化(白血球数 7,000 / μ l, 赤沈 12 mm/時間, CRP 0.1 mg/dl)したため, ステロイドを 5 mg/日まで徐々に減量中の 1998 年 3 月上記主訴が出現, 精査目的で緊急入院となった。

入院時現症: 体格中等度。右上肢血圧 116/80 mmHg, 左上肢血圧 96/70 mmHg, 両側足関節動脈圧 120 mmHg。心肺腹部に血管雑音を聴取しなかったが, 外来で当初聞こえていた左頸部血管雑音が, 今回の入院時には聴取不能であった。眼底には異常所見なく, 潰瘍性大腸炎は大腸内視鏡所見からほぼ寛解の状態であった。運動神経障害は認められず, 視野狭窄なし。意識状態は JCS I-1 で, 数分前の出来事に関する健忘, 空腹感・満腹感の消失, 1 日中ぼんやりした感じで現実感がなく暗闇の中にいるようだと訴え, 左側顔

面全体のしびれ感が出現していた。

検査所見: 白血球数 10,600/ μ l, 赤沈 8 mm/時間, CRP 0.2 mg/dl。血液生化学・血液凝固系・免疫グロブリン分画に異常値はなかった。抗核抗体, 抗 DNA 抗体, 抗リン脂質抗体, 抗カルジオリピン抗体, 抗好中球細胞質抗体 (pANCA) はすべて陰性で, 血清補体価は 38.7 CH 50 U/ml と基準値内であった。HLA typing は A-31, BW-52, BW-61, CW-3, CW-7, DR-15, DR-11, DQ-1, DQ-3 であった。脳波は後頭部優位の 9~11 Hz の α 波が基本となり, 5~8 Hz の θ 波が約 10% 重畳していた。突発波は各種賦活法によっても誘発されず, 軽度の意識障害の所見であった。頸部 CT スキャン (図 1) では経時的な左総頸動脈の狭窄進行が認められ, 今回の入院時にはその内腔は極端に狭小化していた。血管造影 (図 2) では左総頸動脈の広範囲狭窄が進行し, ある部位では限局的に 80% 以上の狭窄が認められた。また左鎖骨下動脈にも椎骨動脈起始部を巻き込んだ分節的な狭窄が認められた。以上より, 大動脈炎症候群による左総頸動脈狭窄の進行から虚血性の意識障害をきたした状態と診断し, 1998 年 3 月 30 日手術を施行した。

手術所見: スパイラルチューブ気管内挿管の上, 頸部に可動性をもたせた。右鎖骨上横切開により椎骨動脈分岐の末梢で鎖骨下動脈に到達, つづいて左胸鎖乳突筋の前縁に沿って皮切をおき,

図 1 左総頸動脈狭窄の CT での経時的变化
A: 1997 年 4 月 (初診時), B: 1997 年 11 月 (7 カ月経過), C: 1998 年 3 月 (約 1 年経過, 術直前)。

図 2 術前血管造影

左: 1997 年 8 月, 左総頸動脈と左鎖骨下動脈の狭窄を認める。右: 1998 年 3 月 (術直前), 左総頸動脈狭窄の進行を認める。

図3 術後血管造影（左：正面像，右：側面像）
右鎖骨下動脈よりグラフトを介して左内外頸動脈が良好に造影された。

左総頸・外頸・内頸動脈をそれぞれ確保した。各動脈の外膜面には周囲組織との癒着はなかった。前頸筋群下を鈍的に剝離し、この非解剖学的経路を通して左大腿部より採取した大伏在静脈を右鎖骨上から左胸鎖乳突筋前縁に誘導した。ややS字状になるように走行に十分余裕をもたせて、右鎖骨下動脈の椎骨動脈よりやや末梢に端側にて5-0 polypropylene糸で吻合し、左外頸・内頸動脈分岐直前の総頸動脈に端側吻合した。左総頸・外頸動脈遮断による左内頸動脈断端圧は、体動脈圧118 mmHgに対して70 mmHgであったため、近赤外分光による連続的脳内酸素飽和度モニター（TOS-96®）下に単純遮断で行った。吻合後の電磁血流計によるグラフト流量は145 ml/分であった。左総頸動脈遮断時間25分、遮断中、脳内酸素飽和度に有意左右差はなく、術後覚醒は良好であった。

術後経過：一過性にうつ状態となったが、術前認められた意識障害は消失し、患者は自覚症状の軽快を長いトンネルを抜け出したようだと表現した。術後血管造影（図3）では右鎖骨下動脈-左総頸動脈バイパスは良好に開存していた。ステロイドは術後中止し、現在外来通院中である。

考 察

本例は潰瘍性大腸炎の経過中に発症した大動脈炎症候群の合併例である。両者の因果関係は現在のところ不明であるが、近年では本症候群を自己免疫疾患の近縁疾患とする説が有力で、これに他の自己免疫疾患あるいは膠原病類似疾患を合併し

たいわゆる overlapping syndrome²⁾が多数報告されている。このうち潰瘍性大腸炎と大動脈炎症候群の合併例は文献的に検索した範囲では、欧米で6例³⁾、本邦で16例⁴⁻⁶⁾の報告があった。本邦の報告によると、初診時年齢は、11～39歳（平均19.8歳）、男女比2：13（不明1）、大動脈炎症候群の先行が4例、潰瘍性大腸炎の先行が10例、同時発症が1例（不明1例）で、発症時期のずれは7カ月～17年（平均6.4年）であった。比較的若年の女性に好発する傾向があったが、各疾患の重症度や病変の範囲などには特徴的な所見はなかった。一方、両疾患には何らかの遺伝学的素因が背景にある可能性も指摘されており、HLAとの相関性が検討されている⁴⁻⁷⁾。報告された7例のうち6例はHLA-BW52を有していたが本例もBW52を有していた。BW52は両疾患の特異的所見ではないが、今後遺伝要因が解明されることが望まれる。

大動脈炎症候群の頸動脈病変は、発達した側副血行のため顕著な脳虚血症状をきたす頻度は高いこと⁸⁾、非手術例の長期経過で脳血管障害自体が死因となることが少ないこと⁹⁾、頸動脈再建後急激な眼脳圧上昇のため hyperperfusion syndrome をきたし、脳出血、脳浮腫などの重篤な合併症を起こすことがあること^{1,8,10)}などからその手術適応は慎重でなければならない。ただし手術のタイミングは眼底所見や臨床症状より決定されるべきで¹⁾、意識障害と同時に出現した左顔面のしびれは、それぞれ左内頸・外頸動脈の血流低下による虚血症状と推測されたため、不可逆性の脳虚血をきたす前に速やかに血行再建を行う必要があると判断した。

左総頸動脈再建は胸部大動脈からのバイパスの方法^{1,8,11)}もあったが、開胸操作が加わり手術侵襲が大きくなること、右鎖骨下動脈に病変がなく左総頸動脈のみの再建を要したことから、inflowを鎖骨上到達法¹²⁾による右鎖骨下動脈とし、自家静脈グラフトの走行経路や長さに十分注意して、左総頸動脈へ非解剖学的交叉バイパス術を施行した。術後グラフト血流は頸部の屈曲・伸展・回転に影響を受けずに良好に保たれ、前頸部の体表面からの圧迫も日常生活の範囲では問題になら

なかった。大動脈炎症候群に対する頸動脈再建術で分枝間バイパスの有効性は論じられてきた^{1,8,13)}が、本例のごとく応用的に交叉バイパスとする方法も有用であると考えられた。

大動脈炎症候群では病変中心部で癒痕化や線維化が起こっていても、境界部では活動性炎症がみられることもあることが病理学的に証明されている¹⁴⁾。左総頸動脈吻合部付近は境界部に相当し、グラフト開存性や遠隔期の吻合部瘤形成に関与するため、術後は他部位での再発も含めて炎症再燃を嚴重にチェックすることが肝要である。本例では潰瘍性大腸炎の合併により検査上で炎症所見の亢進がみられても、どちらの病変によるものか判定が困難な状況にあるが、臨床症状の推移もきめ細かく観察し慎重に経過を追っていきたいと考えている。

文 献

- 1) Tada, Y., Sato, O., Ohshima, A. et al.: Surgical treatment of Takayasu arteritis. *Heart Vessels Suppl.* **7**: 159-167, 1992.
- 2) 小出桂三: 膠原病近縁疾患ないし他の自己免疫疾患と膠原病の Overlap の問題—大動脈炎症候群—. *日本臨床* **34**: 1173-1177, 1976.
- 3) Acher, K. N. and Al-Nakib, B.: Takayasu's arteritis and ulcerative colitis. *Am. J. Gastroenterol.* **81**: 1215-1217, 1986.
- 4) Ishikawa, H., Kondo, Y., Yusa, Y. et al.: An autopsy case of ulcerative colitis associated with Takayasu's disease with a review of 13 Japanese cases. *Gastroenterologia Jpn.* **28**: 110-117, 1993.
- 5) Oyanagi, H., Ishihara, R., Ishikawa, H. et al.: Ulcerative colitis associated with Takayasu's disease. *Int. Med.* **33**: 127-129, 1994.
- 6) Sato, R., Sato, Y., Ishikawa, H. et al.: Takayasu's disease with ulcerative colitis. *Int. Med.* **33**: 759-763, 1994.
- 7) 辻 公美: HLA と罹患し易い疾病の関係. *Clinician* **403**: 769-773, 1991.
- 8) 数井暉久, 原田英之, 岡本史之ほか: 大動脈炎症候群に対する外科治療成績の検討. *日臨外会誌* **41**: 1025-1030, 1980.
- 9) 永田茂樹: わが国における高安動脈炎(大動脈炎症候群)の剖検例の現状. *脈管学* **11**: 1303-1308, 1990.
- 10) 川口昌彦, 山田真理, 古家 仁ほか: 頸動脈再建術後の Hyperperfusion syndrome — Transcranial doppler による検討—. *脳神経* **43**: 555-558, 1991.
- 11) 多田祐輔, 佐藤 紀, 高木淳彦ほか: 大動脈炎症候群に対する内頸動脈, 鎖骨下動脈血行再建術の新しい試み. *手術* **39**: 231-236, 1985.
- 12) 高木淳彦, 多田祐輔, 佐藤 紀ほか: 鎖骨下動脈閉塞症に対する鎖骨上到達法による血行再建手術—特に総頸動脈との直接吻合術式について—. *脈管学* **29**: 681-687, 1989.
- 13) Owens, L. V., Tinsley, Jr. E. A., Criado, E. et al.: Extrathoracic reconstruction of arterial occlusive disease involving the supraaortic trunks. *J. Vasc. Surg.* **22**: 217-222, 1995.
- 14) 永田茂樹, 阿部章彦, 発地雅夫: 高安動脈炎における境界部病変の組織学的検討. *脈管学* **30**: 1367-1370, 1990.