手術により救命しえた弓部大動脈瘤-肺動脈瘻の1治験例

鈴木 一 弘 濱 野 公 一 花 田 明 香 林 雅 規
白 澤 文 吾 伊 東 博 史 美 甘 章 仁 宮 本 正 樹*

症例は72歳の女性で、7年前にDeBakey II型急性大動脈解離で上行大動脈置換術を受けている。急に夜間呼吸困難、咳嗽を生じ、近医を受診した。CT検査で弓部大動脈解離を疑われ、当院紹介となった。心エコー検査で弓部大動脈瘤から肺動脈に向かったのシャント血流が確認され、弓部大動脈瘤-肺動脈瘻と診断した。心臓カテーテル検査で、左-右シャントが54.3%、Qp/Qsが2.19であった。準緊急手術を行った。手術は低体温循環停止・選択的脳灌流を補助手段として行った。瘻孔部は瘤壁内より馬心膜パッチで閉鎖し、全弓部置換術を行った。術後43日目に軽快退院した。日心外会誌32巻3号：137-140（2003）

Keywords：弓部大動脈瘤-肺動脈瘻，全弓部置換術，瘻孔パッチ閉鎖術

Successful Surgical Management of an Aortic Arch Aneurysm with an Aorto-Pulmonary Artery Fistula

Kazuhiro Suzuki, Kimikazu Hamano, Sayaka Hanada, Masanori Hayashi, Bunngo Shirasawa, Hiroshi Itou, Akihito Mikamo and Masaki Miyamoto* (First Department of Surgery, Yamaguchi University School of Medicine, Ube, Japan and Miyamoto Clinic*, Kudamatsu, Japan)

A 72-year-old woman had undergone resection and graft replacement of the proximal ascending aorta for a DeBakey type II aortic dissection. She presented again 7 years later with progressive dyspnea and a cough. Computed tomography confirmed an aortic arch aneurysm and Doppler echocardiography demonstrated aortopulmonary shunting. Cardiac catheterization revealed a fistula between the aorta and pulmonary artery with a 54.3% left-to-right shunt and a Qp/Qs of 2.19. Operative repair was performed under profound hypothermic circulatory arrest with selective cerebral perfusion. The aortopulmonary artery fistula was closed from within the aneurysm using an equine pericardial patch and the transverse aortic arch was resected and replaced with a graft. The patient recovered uneventfully and was discharged on postoperative day 43. Jpn. J. Cardiovasc. Surg. 32: 137-140 (2003)

大動脈瘤-肺動脈瘻は瘤の穿破が肺動脈に起こるもので、急激な心不全症状を呈する重篤な疾患である。本邦における報告例はまれで、文献検索上これまでに3例のみであった。われわれは、大動脈解離術後遠隔期に弓部大動脈瘤-肺動脈瘻をきたし、心不全となった1例を経験し、手術により救命しえたので文献的考察を加え報告する。

症 例

症例は72歳の女性で、7年前にDeBakey II型急性大動脈解離で上行大動脈置換術を受けている。術後経過は良好で、元気に外来通院していた。平成11年9月3日より、夜間呼吸困難、咳嗽が出現し、9月6日に冷汗、気分不良を訴え、近医を受診した。CT検査で弓部大動脈解離を疑われ、当院紹介となった。

入院時所見：顔面蒼白、冷汗があったが、意識は清明で

あった。痛みの訴えはなかった。血圧は138/70 mmHg、左右、上下肢に圧差はなく、心拍数99回/分でやや頻脈であった。胸部聴診上胸骨左縁第3肋間に最強点を有する、Levine III/VIの連続性雑音を聴取した。Thrillは触知しなかった。Room airでの動脈血酸素分圧が53.1 mmHg、二酸化炭素分圧が35.1 mmHgと低酸素血症を呈していた。

検査所見：心電図では左房負荷所見がみられたが、それ以外とくに異常所見はなかった。胸部レントゲン写真（図1）では、肺血管陰影の増強を認めた。造影CT検査（図2）で、前回の吻合部末梢から弓部大動脈に最大径8 cmの瘤を認めたが、解離はなかった。経食道心エコー検査（図3）で弓部大動脈瘤から主肺動脈に向かったのシャント血流が確認され、弓部大動脈瘤-肺動脈瘻と診断した。大動脈造影（図4）では大動脈とともに肺動脈が造影された。心臓カテーテル検査で肺動脈圧46/26 mmHgと軽度の肺高血圧を認め、左-右シャントが54.3%、Qp/Qsが2.19であった。弓部大動脈瘤、大動脈-肺動脈瘻、それに伴う心不全と診断し準緊急手術を行った。

2002年3月22日受付，2002年11月5日採用
山口大学器官制御医科学講座（第一外科）〒755-8505 宇部市南小串1-1-1

* 宮本クリニック

図1 術前胸部レントゲン写真

左第2弓および第4弓の突出と肺血管陰影の増強を認める。胸水の貯留を認める。

手術所見：手術は上行大動脈（前回手術の人工血管部）送血，右房より2 stage 脱血管を挿入し，人工心肺を開始して，冷却を行った。右室から肺動脈に，右上肺静脈から左房にベントチューブを挿入し，両方向からベンディングを行った。20℃まで冷却したのち，循環停止・選択的脳灌流を補助手段として行った。弓部大動脈は8 cm に拡大（図5上）していた。前回の吻合部の前壁部を横切開し，瘤を縦切開すると瘤内に約5 mm の瘻孔（図5下）を認めた。肺動脈と接していない部の瘤壁は通常の真性瘤と同様であった。瘻孔は前回吻合部より約2 cm 末梢で右腕頭動脈より中枢側の瘤内に存在し，主肺動脈につながっていた。肺動脈と接する部位の瘤壁は肺動脈と強固に癒着，また菲薄化していた。動脈瘤内は内膜で覆われていたが，瘤壁と肺動脈壁は区別できなかった。瘻孔周囲は非常にもろく，直接縫合による閉鎖は困難と判断し，瘻孔部は瘤壁内より馬心膜パッチで閉鎖し，fibrin glue を塗布した。弓部大動脈瘤は切開し，4 分枝付き Hemashield® graft (φ26 mm) を用い，中枢側は前回手術時の人工血管に縫着し，全弓部置換術を行った。

術後経過：心房細動，呼吸不全のため，術後管理にやや難渋したが，術後5日目に呼吸器から離脱することができた。以後はとくに問題なく経過し，術後43日目に軽快退院した。術前CTでは大動脈と肺動脈は近接し，境界が不明瞭で周囲に肥厚を認め，肺動脈に拡大がみられた（図2下）。術後のCT（図6）では置換した大動脈と肺動脈は分離し，肺動脈の拡大もみられない。現在手術後2年を経過した

図2 造影CT検査

上：弓部に外径8 cm の大動脈瘤を認め，両側胸水貯留も認められる。下：上行大動脈と主肺動脈の境界が不明瞭となり，肺動脈の拡大がみられる。

が，元気に外来通院している。

考 察

1924年 Boyd の4,000例の胸部大動脈瘤症例の剖検例では，1,197例の破裂症例があり，うち，大動脈-肺動脈瘻をきたしていた症例は3.7%と報告されている¹⁾。また解剖学的位置関係からか，肺動脈瘻をきたす瘤のほとんどが上行瘤であり，弓部瘤は10%程度と報告されている¹⁾。本邦における大動脈瘤による大動脈-肺動脈瘻の手術報告は少なく，文献上3例²⁻⁴⁾の報告があるのみであった。

後天性の大動脈-肺動脈瘻は動脈硬化性の大動脈瘤³⁻⁶⁾以外にも，大動脈炎⁷⁾，梅毒^{2,8)}，感染性心内膜炎⁹⁾，大動脈弁置換術後の感染性心内膜炎¹⁰⁻¹²⁾，慢性，急性大動脈解離¹³⁻¹⁷⁾，Marfan に伴う上行瘤^{18,19)}などに合併することがある。心嚢内破裂，縦隔内破裂でなく大動脈と肺動脈との間に瘻を形成するには，両者の接した部位における壁の

図3 経食道心エコー検査
大動脈瘤から左肺動脈に向かうシャントフローが確認された。

図4 大動脈造影検査
大動脈造影で肺動脈も造影される。

破壊が必要で、組織になんらかの炎症があるか、もしくは肺動脈を圧迫する瘤の形態に問題があると思われる。われわれの症例においては、7年前に DeBakey II 型急性大動脈解離で上行大動脈置換術を受けており、その後の癒着、炎症、弓部大動脈の瘤化による肺動脈への圧排などが原因で大動脈-肺動脈瘻が発症したと考えられる。手術時の所見において、大動脈瘤壁と肺動脈壁は癒着し、一体化して両者の区別はできなかった。組織学的検索はできていないが、瘤の形状、癒着していない他の瘤壁の性状より、まず上行から弓部にかけての大動脈が真性動脈瘤化し、肺動脈への圧迫、癒着などにより壁の破壊、瘻孔の形成が起こったものと考えている。大動脈-肺動脈瘻は、急激な左-右

図5 手術所見
上：上行大動脈から弓部大動脈小弯側に存在する 8 cm に拡大した真性大動脈瘤を認める。下：上行大動脈に径 5 mm の瘻孔を認める。

シャントにより、心不全、呼吸不全が進行し、早期に死にいたる症例もあり^{7,18)}、早期診断、治療が必要である。

手術としては、大動脈の人工血管置換と大動脈瘤内からの瘻孔閉鎖が行われる。瘻孔の閉鎖方法は、連続縫合による直接閉鎖、プレジエツ付きのマットレス縫合、心膜パッチによるパッチ閉鎖が行われている。いずれの方法でも再開通したという報告はなく、瘻孔周囲の壁性状により選択されるものであろう。手術成績は決してよくはなく、Pessotto ら⁹⁾の集計では 14 例中 5 例が手術死亡している。正確な術前診断と、早期診断、手術が重要と考えられる。

まれではあるが大動脈瘤に大動脈-肺動脈瘻が合併することがあり、突然の呼吸困難、新たな心雑音の発生は、瘻を念頭において精査をする必要がある。診断がつきしだい手術を考慮すべきであるとする。

図6 手術後造影CT検査

大動脈と肺動脈は分離し、肺動脈の拡大はみられない。

結 語

われわれは弓部大動脈瘤の大動脈瘤-肺動脈瘻を経験し、手術により救命しえたので文献的考察を加え報告した。

文 献

- 1) Boyd, L. J.: A study of four thousand reported cases of aneurysm of the thoracic aorta. *Am. J. Med. Sci.* **168**: 654-663, 1924.
- 2) 坂下 勲, 横沢忠夫, 鈴木 力ほか: 肺動脈に穿孔した上行大動脈瘤の1治験例. *日胸外会誌* **23**: 110-115, 1975.
- 3) 岡 良積, 藤田 毅, 中島伸之ほか: 肺動脈に破裂した胸部大動脈瘤の1手術例. *日胸外会誌* **23**: 147-154, 1980.
- 4) 垣尾匡史, 小西 孝, 丸山晋吾ほか: 弓部大動脈瘤の破裂による大動脈-肺動脈瘻の1治験例. *呼と循* **40**: 603-607, 1992.
- 5) Taşdemir, O., Vural, K., Sarıtaş, A. et al.: Aortopulmonary artery fistula: an unusual complication of ascending aortic aneurysm. *Ann. Thorac. Surg.* **53**: 1104-1106, 1992.
- 6) Lahey, S. J.: Successful surgical management of an aortic arch aneurysm with acute-pulmonary fistula. *Ann. Thorac. Surg.* **55**: 995-997, 1993.
- 7) Keenan, D. J. M., Kieso, H. A., Johnson, A. M. et al.: Acquired aorto-pulmonary fistula—Case report. *Thorac. Cardiovasc. Surg.* **32**: 190-192, 1984.
- 8) Pessotto, R., Santini, F., Bertolini, P. et al.: Surgical treatment of an aortopulmonary artery fistula complicating a syphilitic aortic aneurysm. *Cardiovasc. Surg.* **3**: 707-710, 1995.
- 9) Endara, S. A., Corkeron, M. A., Diqer, A. M. et al.: Pneumococcal aortic valve endocarditis causing aortopulmonary artery fistula. *Ann. Thorac. Surg.* **72**: 1737-1738, 2001.
- 10) Aragam, J. R., Keroack, M. A. and Kemper, A. J.: Doppler echocardiographic diagnosis of aortopulmonary fistula following aortic valve replacement for endocarditis. *Am. Heart J.* **117**: 1392-1394, 1989.
- 11) Thomas, T. V. and Heilbrunn, A.: Prosthetic aortic valve replacement complicated by diphtheroid endocarditis and aortopulmonary fistula. *Chest* **59**: 679-682, 1971.
- 12) Vieweg, W. V. R., Oury, J. H., Tretheway, D. G. et al.: Aortopulmonary septal defect due to staphylococcal endocarditis. *Chest* **65**: 101-103, 1974.
- 13) Coselli, J. S., LeMaire, S. A. and Van Cleve, G. D.: Rupture of a dissecting thoracic aortic aneurysm into the pulmonary artery: successful surgical repair. *Cardiovasc. Surg.* **3**: 697-701, 1995.
- 14) Veerbeek, A. G., van Wieken, L. R., Schuilenburg, R. M. et al.: Acquired aorto-pulmonary fistula in acute dissection. *Eur. Heart J.* **13**: 713-715, 1992.
- 15) Massetti, M., Babatasi, G., Saloux, E. et al.: Aortopulmonary fistula: a rare event in the evolution of a dissecting aneurysm of the thoracic aorta. *Eur. J. Cardiothorac. Surg.* **11**: 994-996, 1997.
- 16) Piciche, M., De Paulis, R. and Chiariello, L.: A review of aortopulmonary fistulas in aortic dissection. *Ann. Thorac. Surg.* **68**: 1833-1836, 1999.
- 17) Thistlethwaite, P. A., Kriett, J. M., Madani, M. M. et al.: Acquired aortopulmonary fistula in acute dissection. *J. Thorac. Cardiovasc. Surg.* **121**: 1213-1215, 2001.
- 18) Massetti, M., Babatasi, G., Rassi, A. et al.: Aortopulmonary fistula: An uncommon complication in dystrophic aortic aneurysm. *Ann. Thorac. Surg.* **59**: 1563-1564, 1995.
- 19) Large, S. R. and English, T. A. H.: Aorto-pulmonary fistula: A rare acquired lesion. *J. Cardiovasc. Surg.* **29**: 403-405, 1988.