症例報告

術中動脈塞栓術を施行した腹腔動脈起始部狭窄をともなう 脾動脈起始部近傍動脈瘤・脾過誤腫の1例

多代 充¹⁾ 藤井 努¹⁾ 山田 豪¹⁾ 鈴木耕次郎²⁾
森本 大士¹⁾ 田中 伸孟¹⁾ 高見 秀樹¹⁾ 林 真路¹⁾
杉本 博行¹⁾ 小寺 泰弘¹⁾

¹⁾名古屋大学大学院医学系研究科消化器外科学

²⁾名古屋大学大学院医学系研究科量子介入治療学

症例は35歳の男性で、検診異常で近医を受診し、精査の結果脾腫瘍および脾動脈瘤と診断された。脾動脈瘤を interventional radiology でコイル塞栓した後に腹腔鏡下脾臓摘出術を施行する方針としたが、血管造影で正中弓状韧带压迫による腹腔動脈の狭窄を認めコイル塞栓を行えなかった。開腹手術を施行し、正中弓状韧带を切開し腹腔動脈起始部の狭窄を解除後、術中に脾動脈瘤をコイル塞栓し、また脾臓を摘出した。今回、ハイブリッド手術室で手術を施行したことで、術中に脾動脈瘤の塞栓を安全に施行することができた。また、脾臓摘出術を行った際に脾動脈塞栓術を併施したが、太く発達した背側脾動脈を温存できたことで脾体尾部の虚血を認めなかった。本症例は複雑な病態に対して安全に治療しえた症例であり、今後の臨床において非常に有意義と考える。

キーワード：脾動脈瘤、正中弓状韧带压迫、ハイブリッド手術室

はじめに

脾動脈瘤は比較的なまな疾患ではあるが、腹部内臓動脈瘤全体の約40～60%を占め、最も頻度が高い¹⁾。腹部内臓動脈瘤は、破裂後の死亡率が高いが、破裂の予測は困難であり、必ずしも瘤径と相関しないとされる²⁾。治療方法として外科的治療や interventional radiology（以下、IVR と略記）治療があり、近年は後者が急速に発達普及している³⁾。

今回、脾腫瘍に加え正中弓状韧带压迫による腹腔動脈起始部狭窄を伴い、術前に IVR が困難であったため、開腹下に正中弓状韧带を切開し術中動脈塞栓を施行したことで安全に治療しえた症例を経験したので報告する。

症 例

症例：35歳、男性

主訴：検診異常

既往歴：特記すべきことなし。

家族歴：特記すべきことなし。

現病歴：検診の腹部超音波検査で脾腫瘍・脾動脈瘤を指摘され前医を受診した。精査の結果、脾多血性腫瘍・脾動脈瘤と診断され、当院に紹介受診となった。

Fig. 1 Enhanced abdominal CT (a: axial, b: coronal) shows a splenic aneurysm 19 mm in diameter adjacent to the proximal portion of the splenic artery (arrow) and splenic tumor 57 mm in diameter (arrowheads). 3D-angiography (c) shows a dilated dorsal pancreatic artery. DPA: dorsal pancreatic artery, IPDA: inferior pancreaticoduodenal artery.

入院時現症：身長 165.9 cm，体重 67.6 kg，血圧 127/73 mmHg，脈拍 73 回/分。腹部は平坦・軟で圧痛を認めなかった。

入院時検査所見：末梢血液検査では異常を認めず，生化学検査では AST 30 IU/L，ALT 44 IU/L，T-bil 0.6 mg/dl と軽度の肝逸脱酵素値の上昇を認めた。腫瘍マーカーは CEA 1.4 ng/ml，CA19-9 7 U/ml と正常範囲であった。

前医腹部 CT 所見：脾臓に径 52 mm の腫瘍と脾動脈起始部に動脈瘤を認めた。

腹部 CT 所見（前医 CT から 3 か月経過）：脾腫瘍は径 57 mm と軽度の増大傾向を認めた。腫瘍は辺縁平滑で類円形の形状を呈していた。単純 CT では脾実質よりも軽度低吸収で，ダイナミック造影では動脈相で不均一に濃染され，平衡相では均一に軽度高吸収を示した（Fig. 1a, b）。腫瘍内部に石灰化や嚢胞を認めなかった。脾動脈起始部の動脈瘤は径 19 mm（宿主動脈は 6 mm）で増大傾向を認めなかった（Fig. 1c）。CT 上，太く発達した背側脾動脈が脾動脈起始部近くから分岐し，脾十二指腸動脈アーケードと交通していた（Fig. 1c）。

前医 MRI 所見：T1 強調像で等信号，T2 強調像で軽度高信号を示した。拡散強調像では脾臓と同程度の信号を呈した。ダイナミック造影では，動脈相では脾臓よりも強く造影され，平衡相でも脾臓よりも軽度高信号を呈した。

上記より，脾腫瘍は過誤腫を強く疑った。

腹部血管造影検査所見：上腸間膜動脈造影で胃十二指腸動脈が逆行性に造影され，さらに太く発達した背側脾動脈から脾動脈・脾動脈瘤が造影され，背側脾動脈は横行脾動脈を分岐し，下脾十二指腸動脈とアーケードを形成していた（Fig. 2）。側面での腹部大動脈造影にて，呼吸時の腹腔動脈は V 字型の形状を示し頭側から圧排による高度狭窄と狭窄後拡張を認め，吸気時には狭窄は解除されていた（Fig. 3）。

Fig. 2 Angiogram of the SMA demonstrates that the flow of the splenic artery is supplied via the dilated dorsal pancreatic artery. The transverse pancreatic artery originates from the dorsal pancreatic artery. SPA: splenic artery, TPA: transverse pancreatic artery, GDA: gastroduodenal artery.

Fig. 3 Angiogram of the celiac artery shows stenotic celiac arterial root (arrow). CA: celiac artery, SMA: superior mesenteric artery.

当初の治療方針として脾動脈瘤塞栓後に腹腔鏡下脾臓摘出術を検討していたが、腹腔動脈起始部の高度狭窄を残存させておくよりは狭窄の解除も含めた術式の選択が必要と判断し、開腹手術を施行した。本症例は脾動脈瘤が脾動脈起始部近傍に存在しており、脾動脈塞栓と脾臓摘出術を併施した場合脾体尾部の血流不良が懸念された。このため、脾動脈瘤切除・脾動脈再建を行うことも考慮した。腹腔動脈狭窄の解除の確認に加えIVRを行う可能性を考慮し、ハイブリッド手術室での手術を施行した。

手術所見：L字切開で開腹した。正中弓状韌帯を切開してゆき、腹腔動脈頭側面を大動脈まで露出し、狭窄を解除した。脾動脈起始部の動脈瘤周囲を剥離・テーピングしたが、脾動脈分岐部からの距離が十分ではなく、さらには脾動脈分岐部から太く発達した背側脾動脈が分岐しており、脾動脈瘤切除・脾動脈再建は困難と判断し、脾動脈瘤を術中に塞栓することとした。今回の症例は脾体尾部の血流低下が懸念されたため、背側脾動脈は温存する方針とした。次いで、脾門部にて脾動脈を自動縫合器で処理し脾臓を摘出した。術中血管造影を施行し腹腔動脈の狭窄が解除されていることを確認した (Fig. 4a)。脾動脈瘤の末梢側を結紮した後、detachable coil®で瘤内塞栓を施行した (Fig. 4b)。コイル塞栓後の腹腔動脈造影で脾動脈瘤に明らかな血流の残存がないことを確認し、また背側脾動脈と、同部位からの横行脾動脈が温存され、脾体尾部に血流が保たれていることを確認し (Fig. 4c)、手術を終了した (手術時間 336 分、出血量 355 ml)。

摘出標本所見：脾臓に径 5 cm の腫瘍を認めた (Fig. 5)。

病理組織学的検査所見：脾索の増生した赤脾髄組織を認め、過誤腫の組織像であった (Fig. 6)。

術後 8 日目 CT 所見：太く発達した背側脾動脈と、同部位から分岐する横行脾動脈を認め、脾体尾部が良好に造影された (Fig. 7a, b)。

術後経過：問題なく経過し、術後 9 日目に退院となった。

考 察

腹部内臓動脈瘤は比較的まれな疾患で、全人口の 1% 程度とされているが⁴⁾、剖検例の 0.1~10% に認めたと報告もある³⁾。発生部位で最も多いのは脾動脈瘤で内臓動脈瘤の約 60%、次に肝動脈瘤で約 20%、上腸間動脈・腹腔動脈・脾十二指腸動脈・胃十二指腸動脈での発生は数% 程度とされる⁴⁾。内臓動脈瘤破裂の中では肝動脈瘤破裂が最も多い。脾動脈瘤破裂の頻度は約 2% とされ²⁾⁵⁾、腹腔内出血や消化管出血と

Fig. 4 Intraoperative angiogram. a) Angiogram of the celiac artery after division of the median arcuate ligament. The celiac artery is released from the stenosis. b) Angiogram of the celiac artery before and after coil embolization of the splenic aneurysm. c) Angiogram of the SMA demonstrates that the flow of the pancreatic body and tail is supplied via the dilated dorsal pancreatic artery and transverse pancreatic artery.

Fig. 5 Macroscopic specimen. The tumor is 5 cm in diameter (arrowheads).

して出血性ショックを伴うことが多く、その死亡率は約 25%と高率である^{6)~8)}。

脾動脈瘤の発生部位としては脾動脈起始部 5%、主枝 35%、脾門部 40.8%、分岐部 16.7%との報告がある⁹⁾。本症例は脾動脈起始部近傍の動脈瘤であったため、術後の脾体尾部の血流不良を考慮した治療方針

Fig. 6 HE staining of the tumor (a: HE ×100, b: HE ×200). a: The tumor consists of splenic red pulp. b: Higher magnification of the lesion reveals no cytologic atypia or mitosis.

Fig. 7 Enhanced CT (a: axial, b: coronal) of postoperative day 8 demonstrates that the flow of the pancreatic body and tail is supplied (arrow) via the dilated dorsal pancreatic artery and transverse pancreatic artery.

の決定が必要になった。

脾動脈瘤の発生要因として、Stanley ら¹⁰⁾は、I 型：動脈の形成不全によるもの、II 型：脾腫を伴う門脈圧亢進症で血流増加のために動脈瘤となるもの、III 型：限局性炎症で脾炎や消化管穿孔、外傷などの周囲炎の結果、血管壁の脆弱性を来し動脈瘤となるもの、IV 型：経産婦に多い内分泌や血行動態の変化に起因するもの、V 型：男性に多く、高血圧や動脈硬化症に伴うもの、の 5 型に分類している。本症例では、脾過誤腫による著明な血管増生に伴い脾臓への血流の増加を来し、脾動脈に二次的に動脈瘤を形成した可能性や、腹腔動脈狭窄による血行動態の変化が関与していた可能性が考えられる。

内臓動脈瘤の治療適応は、一定の見解が得られていないのが現状であるが、動脈瘤径が 1.5～3 cm 以上という報告、宿主動脈より 3 倍以上の瘤径を治療適応とする報告が多い⁵⁾¹¹⁾¹²⁾。しかしながら、瘤の破裂は瘤径にかかわらず発生しうるため、動脈瘤の径のみで治療適応を判断するのではなく、動脈瘤の原因・位置をはじめとした臨床的因子を考慮して治療の適応を判断すべきという意見もある¹²⁾。

脾動脈瘤の治療法としては外科的治療と IVR 治療とがあり、併存疾患や危険因子、患者の状態や瘤の占居部位により決定すべきとされる²⁾³⁾。破裂症例では IVR が治療の第一選択になることが多い¹²⁾。IVR の止血成功率は 75～100%と高く、診断から治療へ速やかに移行できること、侵襲が少ないことから有用であり⁵⁾、動脈瘤の性状、形態、大きさ、成因、母血管の部位・径・流速、側副路発達の程度などを総合して、

治療法と塞栓物質が決定されている¹²⁾。IVRの治療法として、動脈瘤の存在する脾動脈の中枢側と末梢側を同時に塞栓する isolation 法と、動脈瘤内にコイルを充填する packing 法とがある。Isolation 法は血流を遮断する方法としては確実で、特に破裂例などの急速な止血を要する症例において有効とされる。Packing 法は脾門部に近い動脈瘤に対して有効とされ、母血管の血流を温存できれば脾梗塞や脾膿瘍の形成を防止することができる¹²⁾。本症例では動脈瘤基部が広く、packing 法ではコイル逸脱のリスクがあったため isolation 法にて行う必要があったが、脾動脈分岐部に近接し、脾動脈分岐部から背側脾動脈が分岐していたため、瘤の近位部塞栓が中枢側の親動脈を閉塞させる可能性や背側脾動脈の血流、さらには横行脾動脈の血流を遮断し脾体尾部の血流不良を来す可能性がある¹³⁾と判断された。そのため末梢側のみ結紮し、中枢側は脾動脈瘤のみコイル塞栓した。背側脾動脈を塞栓しても胃・脾頭部からの血流で脾体尾部の血流が保たれる可能性も考慮したが、血流不良を来す可能性を否定しきれなかったため、安全性を重視し背側脾動脈・横行脾動脈の血流を温存する方針とした。

また、本症例は脾十二指腸アーケードが発達しており、脾十二指腸アーケード・背側脾動脈を介して脾動脈瘤までカテーテルを進めて術前にコイル塞栓を行うことも考えられるが、上腸間膜動脈・脾十二指腸アーケード・背側脾動脈を介すると距離が長くなり、その結果カテーテルの保持力が弱くコイル塞栓を行うには安定性に欠けることが考えられたため、弓状靱帯を解放し腹腔動脈からアプローチすることを選択した。

外科的治療としては、動脈結紮術、瘤切除術、血行再建術、瘤縫縮術などがあり、近年では腹腔鏡下手術の報告も散見される²⁾。2 cm 以上のものを手術適応とし、動脈瘤切除と血行再建術を行うことが一般的とする報告がある¹³⁾。血行再建により臓器血流温存が可能となるが、手術侵襲は大きく、耐術能を含めた術前の全身状態を考慮する必要がある。

脾過誤腫は正常組織が発生過程で量・構造上の異常を伴って増殖する組織学的奇形と定義され¹⁴⁾、基本的には良性腫瘍であり悪性化した報告はなく、確定診断が得られ無症状の場合は手術を行わず経過観察で良いとされるが、腹痛・腹部膨満感・腫瘍触知・発熱などの自覚症状を認める場合は脾臓摘出術により症状の改善を認めることが多く、また腫瘍が大きい場合、貧血や血小板減少¹⁵⁾・自然破裂¹⁴⁾などを来した症例が報告されており、そのような症例には積極的に手術を行うべきとされる。

本症例では、若年であること、脾動脈瘤が宿主血管径の3倍以上の径であったこと、増大傾向を認める脾腫瘍を伴っていたことなどを考慮し治療適応があると判断した。正中弓状靱帯の圧迫による腹腔動脈狭窄に関しては、本症例は側副路として脾十二指腸動脈・背側脾動脈が発達しており、Sugae ら¹⁶⁾の分類では Type B にあたり、脾動脈瘤形成に関わっている可能性や、今後側副路の血管に動脈瘤を形成する可能性が考えられたため、腹腔動脈の狭窄を解除する必要があると考えた。造影 CT では吸気時に撮影するため腹腔動脈狭窄所見は認められなかったが、血管造影検査の呼吸相により診断された。近年、腹腔動脈起始部狭窄に対する腹腔鏡手術の報告¹⁷⁾を認めるが、同方法の合併症として血管損傷による出血が挙げられる。これに対して、後腹膜経路で腹腔鏡を行うことによって弓状靱帯周囲の複雑な解剖の視野が改善されるとする報告¹⁸⁾もあるが、特に本症例は脾動脈起始部近傍に動脈瘤を認めており、より動脈損傷のリスクが高いと判断し、開腹手術を選択した。

また、今回腹腔動脈起始部狭窄解除後の腹腔動脈造影では背側脾動脈の根部が造影されるのみであったが、上腸間膜動脈造影では脾十二指腸動脈・背側脾動脈・横行脾動脈が逆行性に造影された。本症例は脾十二指腸アーケードが非常に発達しており、腹腔動脈起始部狭窄の解除直後は側副路を介する血流の方が豊富で、時間とともに血流動態が改善することが予想された。

脾臓摘出術に加え脾動脈を塞栓した症例の報告は過去に認めず、脾尾部の血流低下を懸念したため、脾動脈瘤切除・動脈再建も想定していた。しかし、脾動脈瘤中枢側には発達した背側脾動脈が流入しており、さらには脾動脈分岐部からの距離が十分に取れなかったため脾動脈瘤切除・動脈再建は困難と判断し脾動

脈瘤を術中に塞栓した。今回の症例は、太く発達した背側脾動脈と、同部位から分岐する横行脾動脈を確認・温存できたことで脾体尾部への血流が温存され、術後の脾尾部虚血所見は幸い認められなかった。正中弓状靱帯の圧迫による腹腔動脈起始部狭窄の解除を血管造影で確認するためにハイブリッド手術室で手術を施行したが、引き続き術中動脈瘤塞栓が可能になり、侵襲の軽減につながり安全に手術を施行することができたと考える。PubMedで「splenic」,「aneurysm」,「hamartoma」をキーワードに1950年から2016年までの期間で、医学中央雑誌で「脾動脈瘤」,「脾過誤腫」をキーワードに1977年から2016年までの期間で検索したところ、脾動脈瘤と脾過誤腫を合併した症例は1例のみ認めたが、今回の症例のように正中弓状靱帯の圧迫による腹腔動脈狭窄は合併していなかった¹⁹⁾。今回、脾動脈瘤・脾腫瘍に加え、腹腔動脈起始部狭窄を認めた症例を経験した。過去に例のない病態であったため治療適応・方法の決定は十分に議論する必要があるが、ハイブリッド手術室で開腹手術を行うことにより、安全かつ確実に治療を行うことが可能であった。

利益相反：なし

文献

- 1) Sakakibara K, Shindo S, Matsumoto M, Yoshida Y, Kimura M, Honda Y, et al. Splenic artery aneurysm of the hepatosplenomesenteric trunk. *Ann Vasc Dis*. 2013;6(4):730-3.
- 2) 藤井 啄, 尾原 秀明, 田中 克典, 関本 康人, 大田原 正幸, 北川 雄光. 当施設における腹部内臓動脈瘤 (外傷性瘤・腎動脈瘤を除く) に対する治療戦略と成績. *日本血管外科学会雑誌*. 2013;22(6):876-80.
- 3) 和多田 晋, 松本 賢治, 小野 滋司, 服部 俊明, 松原 健太郎, 尾原 秀明, ほか. 腹部内臓動脈瘤の治療経験. *日本腹部救急医学会雑誌*. 2006;26(7):821-4.
- 4) 石黒 深幸, 石橋 雄次, 伊藤 豊, 真崎 純一, 大森 敬太, 若林 和彦. 最大径 19 cm の脾動脈瘤の 1 例. *日本臨床外科学会雑誌*. 2012;73(12):3282-6.
- 5) Tannoury J, Honein K, Abboud B. Splenic artery aneurysm presenting as a submucosal gastric lesion: a case report. *World J Gastrointest Endosc*. 2016;8(14):496-500.
- 6) Shanley CJ, Shah NL, Messina LM. Common splanchnic artery aneurysms: splenic, hepatic, and celiac. *Ann Vasc Surg*. 1996;10(3):315-22.
- 7) 諸角 強英, 宮崎 洋史, 古川 秋生, 仲丸 誠, 伊東 英輔, 河島 俊文, ほか. Hemosuccus pancreaticus と胃穿孔を合併した脾假性嚢胞内出血の 1 例. *日本消化器外科学会雑誌*. 2001;34(11):1625-9.
- 8) Transtek VF, Pairolero PC, Joyce JW, Hollier LH, Bernatz PE. Splenic artery aneurysms. *Surgery*. 1982;91(6):694-9.
- 9) 森 匡, 竹中 博昭, 小川 法次, 竹内 幸康, 水谷 伸, 宗田 滋夫. 脾動脈瘤の 1 治験例—本邦 159 例の集計—. *日本臨床外科医学会雑誌*. 1989;50(11):2463-7.
- 10) Stanley JC, Fry WJ. Pathogenesis and clinical significance of splenic artery aneurysms. *Surgery*. 1974 Dec;76(6):898-909.
- 11) Abbas MS, Stone WM, Fowl RJ, Gloviczki P, Olenberg WA, Pairolero PC, et al. Splenic artery aneurysms: two decades experience at Mayo Clinic. *Ann Vasc Surg*. 2002;16(4):442-9.
- 12) 片岡 淳, 新田 敏勝, 藤井 研介, 山口 敏史, 平田 好正, 川上 研, ほか. 巨大脾動脈瘤破裂の 1 治験例. *日本消化器病学会雑誌*. 2015;112(1):101-7.
- 13) 佐藤 雄哉, 地引 政利, 工藤 敏文, 菅野 範英, 井上 芳徳. 腹腔動脈瘤が併存した巨大脾動脈瘤に対し、瘤切除術、血行再建術を施行した 1 例. *日本血管外科学会雑誌*. 2011;20(5):777-82.
- 14) 横井 繁周, 飯田 敦, 本多 桂, 五井 孝憲, 片山 寛次, 山口 明夫. 切迫破裂を来した脾過誤腫の 1 例. *日本臨床外科学会雑誌*. 2010;71(8):2139-44.
- 15) 岡田 憲幸, 小倉 靖弘, 小林 裕之, 寺嶋 宏明, 和田 道彦, 正井 良和, ほか. 血小板減少を呈した巨大脾過誤腫の 1 例. *日本消化器外科学会雑誌*. 2006;39(10):1598-603.
- 16) Sugae T, Fujii T, Kadera Y, Kanzaki A, Yamamura K, Yamada S, et al. Classification of the celiac axis stenosis owing to median arcuate ligament compression, based on severity of the stenosis with subsequent proposals for management during pancreatoduodenectomy. *Surgery*. 2012;151(4):543-9.
- 17) Jimenez JC, Harlander-Locke M, Dutson EP. Open and laparoscopic treatment of median arcuate ligament syndrome. *J Vasc Surg*. 2012;56(3):869-73.
- 18) van Petersen AS, Vriens BH, Huisman AB, Kolkman JJ, Geelkerken RH. Retroperitoneal endoscopic release in the management of celiac artery compression syndrome. *J Vasc Surg*. 2009;50(1):140-7.
- 19) 木下 貴之, 窪地 淳, 松井 英男, 大石 崇, 磯部 陽, 奥田 誠, ほか. 脾動脈瘤を合併した多発性脾過誤腫の 1 例. *日本消化器外科学会雑誌*. 1996;29(7):1683-7.

CASE REPORT

Splenic Aneurysm Near the Origin of Splenic Artery and Splenic Hamartoma with Stricture of the Celiac Artery Due to Median Arcuate Ligament Compression

Mitsuru Tashiro¹⁾, Tsutomu Fujii¹⁾, Suguru Yamada¹⁾, Kojiro Suzuki²⁾,
Daishi Morimoto¹⁾, Nobutake Tanaka¹⁾, Hideki Takami¹⁾, Masamichi Hayashi¹⁾,
Hiroyuki Sugimoto¹⁾ and Yasuhiro Kodera¹⁾

¹⁾Department of Gastroenterological Surgery, Nagoya University Graduate School of Medicine

²⁾Department of Radiology, Nagoya University Graduate School of Medicine

We report a rare case of splenic aneurysm and splenic hamartoma with stricture of the celiac artery by median arcuate ligament compression. A 35-year-old man was found to have a splenic tumor on a medical examination. We diagnosed a splenic tumor and splenic aneurysm after further examination. At first, we planned laparoscopic splenectomy after embolization of the splenic aneurysm by interventional radiology (IVR), but we could not achieve embolization because of the median arcuate ligament compression. We chose laparotomy for release of the median arcuate ligament, and we continuously embolized the aneurysm by intraoperative IVR. Our hybrid operating room contributed to this procedure. We embolized the splenic artery without ischemia of the pancreatic body and tail by preserving the developed dorsal pancreatic artery. We could safely treat this complicated case, and we believe this experience can be very useful for future cases.

Key Words: splenic aneurysm, median arcuate ligament compression, hybrid operating room

[Jpn J Gastroenterol Surg. 2017;50(9):728-735]

Reprint requests: Mitsuru Tashiro Department of Gastroenterological Surgery, Nagoya University Graduate School of Medicine
65 Tsurumai-cho, Showa-ku, Nagoya, 466-8550 JAPAN

Accepted: April 19, 2017