気管腕頭動脈瘻を来したサルベージグリロー手術症例に対する 血管内ステントグラフト留置

大 森 裕 文¹⁾ 若 崎 高 裕¹⁾ 西 憲 祐¹⁾
力 丸 文 秀¹⁾ 藤 賢 史¹⁾ 福 島 淳 一²⁾
檜 垣 雄 一 郎¹⁾ 益 田 宗 幸¹⁾

要旨：縦隔気管孔造設後に腕頭動脈出血を来し、血管内ステントグラフト留置にて止血を得られた症例を経験した。症例は61歳男性。頸部食道癌 cT4N2M0 に対し根治的 CRT を施行し、一旦は CR を得たが治療後5か月で原発巣再発 rT3N0M0 を来し、咽頭喉頭頸部食道全摘出術、両側頸部郭清術、遊離空腸再建術とあわせて縦隔気管孔を造設した。術後10日目に縦隔気管孔の気管断端壊死を契機として腕頭動脈の露出を認めたため、壊死した気管を切除し大胸筋皮弁を充填し直した。しかし再手術後15日目、縦隔気管孔の腕頭動脈が露出していた部位付近から腕頭動脈出血を来した。一時止血を得た後に腕頭動脈内に血管内ステントグラフトを挿入し、救命し得た症例を経験したため報告する。

キーワード：頸部食道癌、縦隔気管孔、気管腕頭動脈瘻、血管内ステントグラフト

Summary Tracheo-innominate artery fistula after mediastinal tracheostomy: A case report:

Hirofumi Omori¹⁾, Takahiro Wakasaki¹⁾, Kensuke Nishi¹⁾, Fumihide Rikimaru¹⁾, Satoshi Toh¹⁾, Junichi Fukushima²⁾, Yuichiro Higaki¹⁾ and Muneyuki Masuda¹⁾. ¹⁾ Department of Head and Neck Surgery, National Kyushu Cancer Center, ²⁾ Department of Otorhinolaryngology, Japanese Red Cross Fukuoka Hospital

A 61-year-old man visited our hospital with a chief complaint of pharyngeal pain. After extent-of-disease checkup examinations (endoscopy, CT, PET and MRI), a diagnosis of cervical esophageal cancer (cT4N2M0) was made. He was treated with 70.2 Gy of CRT with FP (5-FU 700mg/m² + CDDP 70mg/m²) and CR was achieved. However, his tumor recurred 5 months after CRT and salvage TPLE with the creation of a mediastinal tracheostoma was performed. Although we inserted a pectoralis major muscle flap around the trachea to protect the great vessels, massive bleeding from the brachiocephalic artery occurred 1 month after surgery. Emergency placement of an endovascular stent graft worked well and relatively long-term hemostasis was achieved.

Key words: cervical esophagus cancer, mediastinal tracheostomy, tracheo-innominate artery fistula, endovascular stent graft

[Received Feb. 15, 2016, Accepted Aug. 8, 2016]

はじめに

頸部食道は解剖学的に輪状軟骨下縁より下方、胸

骨上縁より上方に位置する食道と定義され、頸部食道癌は食道癌の4.0%と比較的頻度の少ない疾患である¹⁾。そのため食道癌診断・治療ガイドライン(2012年4月版)に頸部食道癌に対して明示された治療指針は記載されておらず、喉頭温存を目的としたCRTを行うことがある、との記載に留まる。一

¹⁾ 九州がんセンター頭頸科

²⁾ 福岡赤十字病院耳鼻咽喉科・頭頸部外科

[平成28年2月15日受付、平成28年8月8日受理]

図 1 再発時の画像検査所見
再発時の MRI 所見。胸骨上縁を超えて、腫瘍の下方進展を認めた。縦隔気管孔の造設が必要な状態であった。

図 2 サルベージ手術時の所見（腫瘍下端の確保）
右鎖骨～胸骨柄の右半分を切除し、腫瘍を摘出した。

方、米国 NCCN のガイドラインでは、頸部食道癌に対しては根治的な CRT が推奨されており、遺残・再燃に対して手術を考慮すべきとされている。当施設では NCCN ガイドラインと同様に根治的な CRT を基本とし、喉頭温存が困難と思われる進行癌症例でも、喉頭温存を希望する症例に対しては根治的な CRT を行う方針としている。

しかし、頸部食道癌全体での CRT 寛解率は 44%～54%に留まり^{2,3)}、CRT failure 症例および CR 症例の中でも再燃した症例にはサルベージ手術を考慮することとなるが、サルベージ手術の合併症率は手術単独症例や術前化学放射線療法（放射線量 50Gy 未満）と比べて有意に高いとされている¹⁾。特に、気管壊死・穿孔などの組織虚脱による重篤な合併症の頻度が高いことが問題とされている¹⁾。これに加えて、喉頭合併切除例では縦隔気管孔の造設が必要な、いわゆるグリロー手術が必要となる場合がある。グリロー手術に関しても、致死的な合併症の頻度が高い手術であり、サルベージ症例に対する本術式の適応はさらなるリスク因子となる。

今回、われわれは、根治的放射線化学療法後の再発頸部食道癌に対してサルベージ手術を行い、その際に造設した縦隔気管孔部位より腕頭動脈出血を来したものの、血管内ステントグラフト留置にて長期に渡る止血を得られた一例を経験したため、報告する。

症 例

症例：61 歳、男性。

主訴：嚥下時痛。

生活歴：喫煙 20 本/日・30 年間、飲酒 ビール 1 本/日を毎日。

既往歴：特記すべき事項なし。

現病歴：2014 年 7 月より嚥下時痛を自覚した。同年 9 月近医内科受診し、上部消化管内視鏡にて頸部食道に腫瘍性病変を指摘されたため当院紹介受診となり、精査の結果、頸部食道癌 cT4N2M0 の診断となった。気管膜様部方向へ浸潤を認め、気管は変形していた。これに対し、同年 10 月から 12 月に FP 併用 CRT70.2Gy を行った。一旦は CR 判定を得たものの、治療終了後 5 か月で原発巣再発を来し、根治的放射線化学療法後の頸部食道癌 rT3N0M0 に対し、サルベージ手術を行う方針となった。

入院時所見：元々の原発巣があった部位に腫瘍の再形成を認めた。明らかなリンパ節転移および気管膜様部への浸潤は認めなかった。以上より、頸部食道癌 rT3N0M0 と診断した。腫瘍下端は胸骨上縁を超えて下方へ進展しており、根治切除を行う場合には縦隔気管孔の造設を必要とする状態であった（図 1）。

経過：2015 年 6 月に咽頭喉頭頸部食道全摘出術、両側頸部郭清術、遊離空腸再建術とあわせて縦隔気管孔形成術を行った（図 2）。当科では縦隔気切孔の作成に際し、残存気管をできる限り剥離しない、移動（腕頭動静脈間などに）させない、無理に引き出さないことを基本としている。また、大胸筋の筋体を気管と大血管の間に充填し、胸骨鎖骨の切断面を完全に被覆する形で手術を行うことにしている。本症例もこの方針で縦隔気管孔の造設を行った（図 3）。それに関わらず、術翌日より縦隔気管孔

図 3 初回手術時に、縦隔気管孔周囲に大胸筋皮弁を充填している際の手術所見

- A：大胸筋皮弁の皮膚切開デザイン。
B：挙上した大胸筋皮弁。
C：気管断端と腕頭動脈の間に大胸筋を充填し、大胸筋の皮膚と気管をマットレス縫合で固定した。

図 4 腕頭動脈露出時の手術所見

- A：術前 CT 画像。気道への腕頭動脈壁の露出を認めた。初回手術時に十分量に充填した筈の大胸筋の筋体が確認できなかった。
B：6 時から 10 時方向で気管と皮膚の離開を認めた。
C：開創し、壊死した気管を摘出した後の状態。気管断端は壊死しており、血流良好であることを確認出来るまで 1 気管輪程度デブリードマンを行った。その後、大胸筋皮弁を再度腕頭動脈と気管の間に敷きこみ、縫合固定した。この際、無理に気管と大胸筋皮膚の間に縫合せず、可能な限り血流が良い部位を気管-腕頭動脈間に置いた（一部筋体を raw surface とし、気管と縫合後に植皮した）。

の気管断端に血流不全所見を認めた。しかしその時点では気管壊死等は無く、創離開も無かったため経過観察とした。

術後 10 日目、気管断端の 6 時から 10 時方向で気管壊死を認め、それを契機として創部が離開し、腕頭動脈の露出を認めた。局所処置を行いつつ、その 3 日後に再手術を行った。大胸筋皮弁を外し、壊死した気管を血流が十分に確認出来るまで 1 気管輪程度除去した。大胸筋皮弁は血流良好であることを確認出来たため、再度気管と腕頭動脈間に充填する形で閉創した（図 4）。

その後、気管や大胸筋皮弁の壊死所見なく、感染兆候も出現せず良好に経過していたものの、再手術後 15 日目の気管孔処置時に突如縦隔気管孔から大出血を来した。その時点で明らかな出血点を同定出来る状況では無かったが、噴出性の出血であったためおそらく前述の部位からの腕頭動脈出血と判断し、挿管チューブを挿入してそのカフを出血点と思

われる部位に留置し、最大カフ圧として更に用指的に圧迫した。計測不能な大出血に対しては HES 製剤を全開で投与しながら輸血をポンピングで行った。以上にて一時止血を得られ、呼吸動態および循環動態も落ち着いた状態となったため、他院心臓血管外科にコンサルト行い同日緊急搬送となった。搬送先にて根治的な対応を検討したが、複数回に渡り腕頭動脈を扱っており術中血管損傷リスクが相当に高いこと、腕頭動脈周囲で明らかな出血点がわからないこと（造影検査でも判明せず、微小な出血点であると予想されたこと）、腕頭動脈周囲に感染兆候を認めなかったこと、以上の 3 点から血管内ステントグラフト（以下、S-G）留置の良好な適応と判断し、図のように S-G を留置し、止血を得た（図 5）。その後、術後経過良好にて術後 2 日目に当院へ転院となった。入院管理にて暫く経過をみたものの再出血などなく、S-G 留置後 2 週間で自宅退院となった。

その後外来で経過をみていたが、S-G 留置後 95

図 5 腕頭動脈内ステントグラフト留置時の血管造影所見

A：血管造影を行っても、明らかな出血点を認めなかった。

B：ステントグラフトを留置した。

C：留置後のCTの3D再構築所見。腕頭動脈内ステントグラフトと気管が接していた。矢印部位からの出血であったと予想された。

図 6 気管孔狭窄時およびステント壁露出時のファイバー画像

痂皮を除去したところ、画像のように10mm程度のステント壁の露出を認めた。

日目、縦隔気管孔狭窄による呼吸困難感を主訴に受診された。縦隔気管孔は径7mm大に狭窄し、その深部で痂皮が大量に付着している所見を認めた。痂皮を除去したところ、腕頭動脈内に留置していたS-G壁の気管腔への露出を認めた(図6)。CTで確認したところ、挿入した長さ30mmS-Gの丁度中心の部位(出血点であったと思われる部位)に10mm大のS-G外壁の露出を認めた。その時点では出血やステント周囲への感染兆候など無かったため、まずは気道確保を再優先にコーケン吉田式カニューレを挿入し、症状の改善を得た。その後CTを再確認したところ、頸部食道癌の原発巣再々発を認めた。それ以上の腕頭動脈S-G壁露出に対する外科的治療(大胸筋弁や有茎大網での被覆)は周術期リスクも高く、担癌状態でもあり、なおかつ被覆することで却って更なる縦隔気管孔の狭窄=QOLの悪化につながりかねないことから、追加の外科的治療は行わ

ずにカニューレを挿入したままで経過をみる方針とした。S-G壁露出後3か月経過後、自宅にて気管孔から出血を認め、その後逝去された。気管孔出血が腕頭動脈からなのか、再発腫瘍の気管膜様部進展によるものかは不明であった。

考 察

本症例のように、縦隔気管孔造設例が必要な頸部食道癌においては、致死的な術後合併症の発生率がさらに増加することは十分に予想されることである。なかでも、感染、気管壊死、物理的な圧迫などを契機として起こる、腕頭動脈からの出血が最も致死率の高い合併用である。そのままでは容易に縦隔感染や腕頭動脈破綻を来すため、リスクを少しでも減らすべく縦隔気管孔周囲に大胸筋(皮)弁やDP皮弁、前腕皮弁、腸間膜大網フラップ等を敷きこむなど各種手技の報告がなされているが⁵⁻⁷⁾、こ

これらの手技を行っても術後合併症のリスクは高く、腕頭動脈出血率は8-19%、周術期合併症死亡率は18.8%との報告もある^{5,7)}。これに対し当科では、残存気管の長さに余裕がある場合には気管をできる限り剥離しない、移動（腕頭動静脈間などに）させない、無理に引き出さないことを基本とし、大胸筋の筋体を気管と大血管の間に充填し、胸骨鎖骨の切断面を筋体で完全に被覆する形で手術を行うことにしている。本症例を含めてこの4年間に3例のサルベージグリロー手術をこの方法でおこなったが、以前の2例は重篤な合併症を来すことなく順調な経過が得られた。本症例とこの2例の最大の違いは、以前の2例が大胸筋弁を充填と被覆に使用し、これとは別に局所皮弁で気管切開孔を形成したのに対して、本症例は大胸筋皮弁を充填・被覆・気管孔形成に用いた点にある。術中に十分な量の筋体を気管と腕頭動脈間に充填したにもかかわらず、術後のCTでは筋体が確認できなかった（図4）。筋皮弁の自由度に制限があったため血流が最も良い部位を気管-腕頭動脈間に置くことが出来ず、更に皮膚に筋体が牽引され、筋皮弁がずれてしまった可能性が否定できず、これが気管腕頭動脈瘻の発生を予防出来なかったのではないかと推測している。この経験を反省材料として、今後は従来通り、充填材料と気管孔形成に使用する皮膚を別々に作成する方針とする予定である。

また、本症例においては初回手術後翌日に、縦隔気管孔の気管断端に血流不全所見を認めた。壊死を疑う所見および創離開は無かったものの、根治線量の放射線照射後であり、気管に血流不全を来した場合には保存的加療での周囲の創傷治癒はあまり期待出来ないことが多い。気管断端の血流不全所見を認めた時点での再手術検討も必要であったかもしれない。

再手術後は気管壊死などなく一見良好に経過していたものの、再手術後15日目に突如腕頭動脈出血を来した。この時点までの経過としては、明らかな感染兆候はなかったものの、壊死した気管断端を切除し、更に短くなった気管と腕頭動脈が物理的に近接し、その物理的刺激も出血の一要因になったと考えられる。

異なる要因ではあるものの、気管切開後の気管腕頭動脈瘻をまとめた報告によると、腕頭動脈出血を来した場合35.3%が手術室に到達せず死亡し、手術を施行出来た症例でもそのうち41.0%が死亡したとの報告がある⁸⁾。また、適切な管理を行っても総じて75%程度の死亡リスクがある非常に致死率の高い合併症である⁹⁾。

気管腕頭動脈瘻への対応としては、まず一時的にでもその場で止血を得て、手術室に到達することが必要である。カフ付き気管カニューレないしは挿管チューブを最大カフ圧で出血点付近に留置することで85%の症例で一時的に止血を得られたとの報告もある⁹⁾。一時止血を得られた症例においては、その後ようやく根治的な止血を検討する段階となるが、その方法としては大きく2つの考え方があり、腕頭動脈血流を保つ方法（出血部の直接修復や人工血管置換）と腕頭動脈の血流を遮断する方法（腕頭動脈の結紮術や切除術）が挙げられる。血流を保つ術式の場合には脳血流を保持できる利点があるものの、術後の再出血や感染リスクが高い¹⁰⁾。一方、遮断する術式では脳障害の可能性があり、20~30%に発生するとの報告がある¹¹⁾。それぞれ一長一短あるものの、根治性（生存率）としては遮断する術式の方が優れており、術後2か月以上の生存率は腕頭動脈血流保持群で15.8%であるのに対して、腕頭動脈遮断群では71.2%と優れていた¹⁰⁾。

近年血管内ステントグラフト（以下S-G）の進歩により、腕頭動脈内S-G留置も一つの解決策として挙げられる。S-Gとは、自己拡張型の金属の骨組みを人工血管で被覆したものである。シース内に格納した状態で大腿動脈から血管内に挿入し、目的部位で展開・留置する。外科的手術（人工血管置換術）を代替する治療として開発され、当初高齢者やハイリスク症例に対し用いられていたが、近年その有用性から適応範囲が拡大してきている。最も大きな利点としては、外科治療に比べて低侵襲であることが挙げられる。腕頭動脈出血に対する臨床報告は現在までに無いが、胸腹部大動脈瘤に対する一般的な治療成績を例に挙げると、外科的治療の周術期死亡リスクが4.8%であるのに対し、S-G留置は1.2-1.7%であるとの報告がある^{12,13)}。本症例のように複数回に渡り大血管周囲を扱っている症例においては周術期血管破綻リスクが更に高いと予測され、症例によってはより低侵襲で有用な解決策となりうる。このように低侵襲でありながら腕頭動脈血流を保ちつつ強力に止血を得られる利点がある反面、欠点としては以下の様な点が挙げられる。まず、新たな大動脈解離の形成を誘発する可能性があり、その場合には更なるS-G留置を必要とする可能性がある。また、何らかの原因で周囲組織に感染を伴う場合、S-Gを挿入するとその前後で高率に大血管が破裂する可能性がある。最後に、S-Gは異物であるため、留置後に内側から被覆している出血点が寧ろ拡大する可能性が挙げられる。本症例では留置後95日目にこれが見られた。その他、塞栓症のリスクや、拡

張力により新たな血管亀裂を作る可能性等も挙げられ、その適応は慎重に判断しなければならない。

本症例では最終的に、留置したステントグラフト壁の露出を認めた。腫瘍の再々発があったため、ステントグラフト壁露出に対しては積極的治療を行わなかったが、腫瘍再発が無い場合にはその根本的対策も考えなければならない。ステント露出時点でわれわれが考えた対策としては、対側の大胸筋弁で被覆すること、もしくは腕頭動脈遮断術である。しかしいずれも相当にハイリスクな再々手術であり、十分なインフォームドコンセントを行った上で、考慮すべき対策と考えられる。

本症例は最終的には原発巣の再々発を来し、S-G留置後6か月で死亡した。経過中にS-Gが一時的に気道側で露出するなど良好な経過であったとは言い難いものの、非常に死亡リスクの高い気管腕頭動脈瘻に対して長期に渡る止血を得られ、5か月に渡る自宅療養が可能であったことを考えると、低侵襲で有用な治療法であったと考えられる。症例を慎重に選択しなければならない治療法ではあるものの、縦隔気管孔造設後の気管腕頭動脈瘻に対して、一つの治療オプションとなりうると考えられる。

まとめ

根治的放射線化学療法後の頸部食道癌に対しサルベージ手術を行い、縦隔気管孔を造設した後に気管腕頭動脈瘻を生じた症例を経験した。腕頭動脈内への血管内ステントグラフト留置は、低侵襲な治療オプションとして有用であると考えられる。

本論文の執筆に関し、報告すべき利益相反関連事項はない。

文 献

- 1) 食道癌診断・治療ガイドライン, 2014年4月版.
- 2) NCCN Clinical Practice Guidelines in Oncology. Version 3, 2015.
- 3) 佐藤 弘, 新原正大, 坪佐恭宏: 進行頸部食道癌に対する根治手術と根治的化学放射線療法のアウトカム. 日気食, 62: 111-112, 2011.
- 4) 渡邊雅之, 吉田直矢, 馬場祥史, 他: 頸部食道癌に対する集学的治療戦略. 日気食, 65: 142-143, 2014.
- 5) 川端一嘉, 鎌田信悦, 高橋久昭, 他: 予後からみた上縦隔性範囲と手術手技上の問題点. 頭頸部腫瘍, 20: 410-415, 1994.
- 6) 横山一彦, 中溝宗永, 矢嶋裕徳, 他: 縦隔気管孔形成手術症例の検討. 頭頸部腫瘍, 27: 62-66, 2001.
- 7) 赤羽 誉, 吉野邦俊, 藤井 隆, 他: 当科における頸部食道癌の手術治療経験. 日気食, 57: 125-129, 2006.
- 8) 北川敦士, 三好新一郎, 藤原慶一, 他: 気管切開後の気管腕頭動脈瘻の一手術例. 日呼外会誌, 43: 521-526, 1995.
- 9) Wood DE, Mathisen DJ: Late complications of tracheotomy. Clin Chest Med 12: 597-606, 1991.
- 10) Gelman JJ, Aro M, Weiss SM: Tracheo-innominate artery fistula. J Am Coll Surg 179: 626-634, 1994.
- 11) Utley JR, Singer MM, Roe BB, et al: Definitive management of innominate artery hemorrhage complicating tracheostomy. JAMA 220: 577-579, 1972.
- 12) EVAR trial participants: Endovascular aneurysm repair versus open repair in patients with abdominal aortic aneurysm (EVAR trial 1): randomised controlled trial. Lancet 365: 2179-2186, 2005.
- 13) Prinssen M, Verhoeven EL, Buth J, et al: A randomized trial comparing conventional and endovascular repair of abdominal aortic aneurysms. N Engl J Med 351: 1607-1618, 2004.