症 例

分娩を契機に発症した先天性下肢動静脈瘻の1例

東海大学大磯病院外科

千 野 修 水 谷 郷 一 徳 田 裕
向 井 正 哉 花 上 仁

同 内 科

三 神 美 和

東海大学東京病院外科

杉 原 隆 佐々木 哲 二

東海大学外科II教室

田 島 知 郎 三 富 利 夫

われわれは分娩を契機に発症した先天性下肢動静脈瘻の1例を経験したので報告する。症例は55歳女性、左膝部拍動性腫瘍および熱感を主訴に来院した。31歳時第1児出産を無痛分娩にて行っているが、下肢への外傷の既往はない。血管造影の結果、左深大腿動脈、浅大腿動脈および膝窩動脈に多発性動静脈瘻を認め、左膝関節上部には血管腫を認めた。治療は交通血管に対しては手術的に結紮切除術を、血管腫に対しては経動脈的コイル塞栓術を施行した。術後、症状は消失し血管腫は縮小した。第38病日に軽快退院し現在も再発の徴候はない。

索引用語：先天性下肢動静脈瘻，経動脈的塞栓術

はじめに

先天性四肢動静脈瘻は末梢血管疾患のうちでは比較的少なく、その占める割合は5.7%と言われる⁵⁾。病態が複雑で治療が困難なことがあり再発することも稀ではない。

われわれは分娩を契機に発症した先天性下肢動静脈瘻の1例を経験した。術前診断では血管造影にて左大腿動脈、膝窩動脈に多発性動静脈瘻と左膝関節上部の血管腫を認めた。治療はまず主交通血管を手術的に結紮切離し、残存した動静脈瘻に対しては血管造影下にコイル塞栓術を施行した。

術前の病態と治療方針につき文献的考察を加えて報告する。

症 例

患者：55歳、女性。

主訴：左膝部拍動性腫瘍、熱感。

既往歴、家族歴：特記すべきことなし。

現病歴：1963年31歳時第1児出産を無痛分娩にて

行っている。明らかな左下肢への外傷の既往はない。この分娩後に左膝部内側に拍動性腫瘍および熱感が徐々に出現したが潰瘍形成や間歇性跛行は認めなかった。1988年10月より症状増強のため精査加療目的に当院入院となる。

入院時現症：身長157cm、体重47.0kg、体温37.3℃、脈拍84/分、血圧120/72mmHg、体格中等度、栄養状態良好。貧血はなく表在リンパ節は触知しなかった。左膝部内側に成人手拳大の拍動性腫瘍を触知したが圧痛は認めない。左鼠径部から大腿部および膝部にかけて聴診上連続性雑音を聴取した。右下肢に比べ左下肢は明らかに太いが脚長に左右差はなく、また皮膚に母斑は認めなかった。

入院時検査所見：血液生化学上、明らかな異常は認めず炎症反応も陰性であった(表1)。術前左右大腿静脈血の血液ガス分析では、右側の PO_2 34.3mmHg、 O_2 sat 64.6%に対して左側では PO_2 75.8mmHg、 O_2 sat 95.5%と異常高値を示した(表2)。心電図上では左室肥大を呈した。

単純X線写真：胸部X線上、心肥大は明らかなでは

表 1 入院時一般検査所見

WBC	4900 /mm ³	Na	139 mEq/l
RBC	389 × 10 ⁴ /mm ³	K	3.7 mEq/l
Hb	11.9 g/dl	Cl	105 mEq/l
Ht	35.7 %	BUN	20.0 mg/dl
Plt	50.0 × 10 ⁴ /mm ³	Cr	0.7 mg/dl
TP	6.8 g/dl		
Alb	4.1 g/dl	PT	10.2 秒
T.bil	0.6 mg/dl	PTT	26.9 秒
GOT	19 U/l	検尿 蛋白	(-)
GPT	19 U/l	糖	(-)
LDH	317 U/l	潜血	(-)
ALP	224 U/l		
Ch-E	4515 U/l		
CRP	0.0 mg/dl		
血沈			
1 時間	8 mm		
1 時間	22 mm		

表 2 大腿静脈血液ガス検査成績

		術前	術後
左大腿静脈	PO ₂ (mmHg)	75.8	51.2
	O ₂ sat (%)	95.5	86.4
右大腿静脈	PO ₂ (mmHg)	34.3	39.1
	O ₂ sat (%)	64.6	72.4

なく肺鬱血像も認めなかった。また左下肢 X 線上では骨に肥厚、肥大、過成長および破壊像は認めなかった。

サーモグラフィー：鏡面像であるが左下肢の腫脹部と連続性雑音聴取部位に一致して右下肢に比べ著明な皮膚温の上昇域を認めた（図 1）。

血管造影：左総大腿動脈よりの造影では左の深大腿動脈、浅大腿動脈および膝窩動脈の 3 カ所を中心とした多発性動静脈瘻を形成し左膝関節上部付近に広範な血管腫を認め、早期よりの静脈系の造影があった（図 2）。なお深部静脈造影では血流速度の増加のため描出が困難であった。

以上より分娩を契機に発生した先天性左下肢多発動静脈瘻の診断で 1988 年 12 月 5 日に手術を施行した。

手術所見：左鼠径部から膝部内側におよぶ皮膚切開にて手術を開始した。術中所見では流入動脈および流出静脈の著しい拡張を認めた。左深大腿動脈より起始する直径 4mm の交通血管を 1 本、浅大腿動脈に直径 2

25.0
[°C] 37.5
[°C]

左下肢

右下肢

図 1 サーモグラフィー：左大腿から膝部に著明な高温相を認める。

図 2 血管造影：左深大腿動脈、浅大腿動脈、膝窩動脈を中心とした多発性動静脈瘻と膝関節上部の血管腫を認める（矢印）。

mm のものを 2 本、さらに膝窩動脈に 1 本の交通血管を認めてこれを結紮切離した。また静脈瘤様に屈曲、蛇行、拡張した一部の静脈を切除し、左大伏在静脈も結紮切離した（図 3）。

術後血管造影：術後 12 日目に再度左下肢動脈造影を施行すると深大腿動脈の末梢に早期の静脈相描出を認め動静脈瘻の残存が示唆された。また左膝部にも細かい血管腫の残存を認めた（図 4）。これらに対して左深大腿動脈の経動脈的コイル塞栓術を施行した。その結

図3 術中所見：左深大腿動脈を中心とした交通血管。

図4 術後血管造影：左深大腿動脈の末梢に残存した動静脈瘻をまた膝部には血管腫の残存を認める。

果、導出静脈は一部残るものの残存血管腫の縮小軽減を認めた(図5)。

術後に左右大腿静脈血を分析すると患側での値は PO_2 51.2mmHg, O_2 sat 86.4%と右側の PO_2 39.1mmHg, O_2 sat 72.4%よりやや高値であるが術前に比較して改善を認めた(表2)。

図5 経動脈的コイル塞栓術：深大腿動脈のコイル塞栓により残存血管腫の縮小を認めた。

術後経過：術後8日目の左下肢静脈造影で大腿静脈に深部静脈血栓を疑わせる所見がありウロキナーゼおよびヘパリンを4日間投与したところその後の造影で消失を認めた。術後自覚症状は消失、血管腫も著明に縮小したので術後38病日に軽快退院した。術後4年3ヵ月、現在のところ経過良好で再発の徴候は認めていない。

考 察

動静脈瘻の定義は“動脈と静脈の間に毛細管を経ないで病的な直接の短絡を生ずる”であるが、先天性動静脈瘻は胎生初期に原始血管網が再形成されるさい、動静脈が機能的に分離されず幼弱な形で残存したものであると言われている¹⁾²⁾。このなかで最初潜在的であったものが外傷、妊娠、肉体労働ならびに感性亢進などの因子によって活動的になり症状を発現するものがあり³⁾先天性と後天性との間で中間型とも呼ばれている⁴⁾。好発部位は四肢が多く末梢血管疾患のうえて先天性四肢動静脈瘻の占める割合は比較的少なく5.7%であるが⁵⁾、その病態や解剖学的な複雑さから根治手術は困難で治療に難渋し再発するものも稀ではない。また手術により治癒せずにかえって増悪するものもある。症例により病態が異なることから、個々の症例に応じた治療方針をたてることが大切であると考えられる。

われわれは分娩を契機に発症した先天性下肢動静脈

瘻の1例を経験した。術前診断では血管造影にて左深大腿動脈、浅大腿動脈および膝窩動脈の3カ所を中心とした多発性動静脈瘻を形成し左膝関節上部に広範な血管腫を認めた。術前に上記3カ所の交通血管が比較的太くはっきりしていることから、治療方針としてまず手術的に血管造影で認められた主交通血管を結紮切離して、続いて術後に血管造影を施行し残存動静脈瘻および血管腫を確認し、これに対して経動脈的塞栓術を計画した。

術中所見では深大腿動脈に直径4mm 1本、浅大腿動脈に直径2mm 2本、膝窩動脈に1本のはっきりとした主交通血管を認めてこれを結紮切離した。術後血管造影で認められた深大腿動脈末梢の残存動静脈瘻と膝部の血管腫に対して、深大腿動脈の経動脈的コイル塞栓術を施行し、残存血管腫の縮小軽減を認めた。

治療の効果判定については第1に自覚症状の改善が大事であるが、それ以外に客観的判定法として患肢末梢静脈血 PO_2 値および O_2 飽和度が有用と考えられ、本症例でも左大腿静脈血 PO_2 値と O_2 飽和度の改善を認めている。

先天性四肢動静脈瘻の治療方針について Olcott ら⁶⁾ は、1) 限局して外科的に切除可能なもの、2) 広範で手術は困難であるが術前に経カテーテル塞栓術を行うことにより切除しうるもの、3) 外科的切除が全く不可能なものの3つに分けて考えている。

本症例の場合では術前の血管造影で数本の太い交通血管 (feeding artery) がはっきりしていることから、まず手術的にその交通血管を処理したのみ術後血管造

影で残存動静脈瘻および血管腫を確認し経動脈的塞栓術を治療方針とした。術後合併症として深部静脈血栓を疑わせたが肺塞栓症や組織壊死、発熱は認めなかった。現在のところ明らかな再発は認めず経過良好である。

結 論

55歳女性で分娩を契機に発症した先天性下肢多発動静脈瘻に対して手術的主交通血管結紮切離と経動脈的コイル塞栓術を施行し軽快した1例を文献の考察を加えて報告した。

文 献

- 1) Malan E, Puglionisi A: Congenital angiodysplasias of the extremities (note 1). J Cardiovas Surg 5: 87—130, 1964
- 2) Allen EV: Arteriovenous fistulas. In Peripheral vascular disease. WB Saunders Co, Philadelphia, 1966, p457—494
- 3) Puglionisi A: Congenital arteriovenous fistulae of the limbs Classification and anatomoclinical forms. J Cardiovas Surg (suppl): 231—236, 1965
- 4) 村上国男: 動静脈瘻. 外科診療 8: 1429—1440, 1966
- 5) 阪口周吉: 動静脈瘻. Medicina 13: 20—21, 1976
- 6) Olcott C IV, Newton TH, Stoney RJ: Intraarterial embolization in the management of arteriovenous malformations. Surgery 79: 3, 1976

A CASE OF CONGENITAL ARTERIOVENOUS FISTULA OF THE LOWER EXTREMITY CAUSED BY DELIVERY

Osamu CHINO, Kyouichi MIZUTANI, Yutaka TOKUDA, Masaya MUKAI,
Hitoshi HANAUE and Yoshikazu MIKAMI*

Department of Surgery and Internal Medicine*, Oiso Hospital, School of Medicine, Tokai University
Takashi SUGIHARA and Tetsuji SASAKI

Department of Surgery, Tokyo Hospital, School of Medicine, Tokai University
Tomoo TAJIMA and Toshio MITOMI

Second Department of Surgery, School of Medicine, Tokai University

This paper describes a case of congenital arteriovenous fistula of the lower extremity caused by delivery.

A 55-year-old woman was seen at the hospital because of a pulsatile tumor in the region of the knee and hot sensation. She had the first child by painless labour at the age of 31 when she did not receive any injury to the extremities. Angiography revealed multiple arteriovenous fistulae in the left deep femoral artery, superficial femoral artery, and popliteal artery, and an angioma in the upper region of the left knee joint. Treatment included surgical ligation and excision for the communicating vessels and intraarterial coil embolization for the angioma. After the operation, symptoms disappeared and the angioma decreased in size. On the 38th hospital day the patient was discharged from the hospital. There has no sign of recurrence so far.