高安動脈炎における脳血行再建術後合併症についての検討

吉田 和道, 宮本 享, 野崎 和彦
永田 泉*, 菊池 晴彦*, 橋本 信夫

Retrospective Analysis of Postoperative Complications after Cerebrovascular Reconstruction in Takayasu Arteritis

Kazumichi YOSHIDA, M.D., Susumu MIYAMOTO, M.D., Kazuhiko NOZAKI, M.D.,
Izumi NAGATA, M.D.,* Haruhiko KIKUCHI, M.D.,* and Nobuo HASHIMOTO, M.D.

Department of Neurosurgery, Kyoto University Graduate School of Medicine, Kyoto, and
*National Cardiovascular Center, Osaka, Japan

Summary: As Takayasu arteritis is a systemic disease with considerable operative risks, strict surgical indication and adequate measures against possible postoperative complications are mandatory. Seventeen patients with Takayasu arteritis (3 males and 14 females aged between 13 and 62) were treated since 1984 in our institute. Sixteen bypass surgeries with saphenous vein grafts were performed in 12 patients, 3 bypass surgeries with synthetic grafts were performed in 2 patients and PTA was carried out in 5 patients.

Postoperative hyperperfusion syndrome was observed in 2 patients whose preoperative angiograms had shown the occlusions of the 4 aortic arch branches, and cerebral blood flow (CBF) analysis had revealed diffuse hypoperfusion. Surgical revascularization should be indicated for those patients who have a significant risk of hyperperfusion syndrome.

Sudden cardiac arrest occurred in 2 patients after reconstructive surgery though preoperative examination in cardiac function could not detect any abnormalities.

CBF study is very useful in the treatment of Takayasu arteritis to determine the likelihood of postoperative complications such as hyperperfusion syndrome. In the postoperative period of surgical revascularization, the incidence of unexpected cardiac complications should be kept in mind.

Key words:

- Takayasu arteritis
- cerebrovascular reconstruction
- CBF study
- hyperperfusion syndrome
- cardiac failure

Surg Cereb Stroke
(Jpn) 29: 1-8, 2001

はじめに

高安動脈炎は非特異的炎症により大動脈およびその主要分枝に閉塞性病変を生じる疾患であり、脳虚血症状を伴う症例に対する種々の血行再建術がこれまでに報告されている^{14) 15)}。

本疾患が多臓器病変を伴いうる全身性疾患であることを

考慮すると人念な合併症対策が必要とされる。本疾患の脳血行再建術後に起こりうる合併症として、急激な脳血流増加による hyperperfusion syndrome のほかに、全身合併症のなかでは迅速かつ適切な対応が予後を大きく左右するものとして心合併症がある。

今回、1) 術後 hyperperfusion 出現の予測とその対処法、2) 血行再建術後に生じた心合併症に関してその原因と対

Table 1 Summary of the clinical manifestations

Case	Age	Sex	Symptoms and signs
1	33	f	visual disturbance
2	30	f	syncope/ visual disturbance
3	32	f	rt. hemiparesis/ aphasia (TIA)
4	13	f	syncope/ visual disturbance
5	62	f	dizziness/ ataxia (VBI)
6	34	f	syncope/ seizure
7	38	f	rt. hemiparesis/ aphasia (stroke)
8	40	m	syncope/ visual disturbance
9	48	f	lt. hemiparesis (stroke)
10	24	f	free
11	26	f	FUO
12	46	m	dysarthria/ shoulder pain
13	30	f	rt. hemiparesis/ aphasia (TIA)
14	18	f	free
15	50	f	syncope/ visual disturbance (TIA)
16	40	f	FUO/ visual disturbance/ shoulder pain
17	53	m	shoulder pain

Table 2 Classification on angiographical findings and CBF evaluation

Group	Angiogram	CBF
Group 1	4 vessels occluded	diffuse hypoperfusion
Group 2	Some vessels remain patent with insufficient intracranial collaterals	hemispheric hypoperfusion
Group 3	Some vessels remain patent with sufficient intracranial collaterals	no CBF compromise

Table 3 Summary of therapeutic procedures and results

Case	Group	Treatments	Postop. course	Outcome
1	N	double SVBG (Ao-rt. MCA & Ao-lt. VA)	death (aspiration pneumonia)	worsen
2	G3	SVBG (Ao-lt. CCA)	uneventful	improved
3	N	SVBG (lt. SA-lt. CCA)	uneventful	improved
4	G1	double SVBG (Ao-Inno. & Ao-lt. CCA) →delayed occlusion SVBG (SVBG-rt. VA)	hyperperfusion syndrome	improved
5	G3	SVBG (Ao-rt. SA)	uneventful	improved
6	G3	SVBG (Ao-rt. ICA)	uneventful	improved
7	G2	SVBG (Ao-lt. ICA)→early graft failure PTA (lt. SA)	uneventful	unchanged
8	G1	SVBG (Ao-rt. CCA)→delayed occlusion SVBG (Ao-rt. CCA)→delayed occlusion SBG (Ao-bil. CCA)	hyperperfusion syndrome hyperperfusion syndrome & cardiac failure	improved improved worsen
9	G2	SVBG (Ao-rt. CCA) PTA (lt. SA & lt. VA)	cardiac failure	improved
10	G3	PTA (lt. VA)	uneventful	unchanged
11	G2	conservative		unchanged
12	G3	conservative		unchanged
13	G2	SBG (Ao-rt. SA & lt. CCA: Y graft)	uneventful	improved
14	G3	conservative		unchanged
15	G2	SBG (rt. SA-rt. CCA) PTA (rt. VA)	uneventful	improved
16	G1	SBG (rt. SA-rt. CCA) SBG (rt. ECA-lt. CCA)	uneventful uneventful	improved improved
17	G3	PTA (lt. CCA & bil. SA)	uneventful	improved

N: CBF was not evaluated, SBG: synthetic bypass graft, SVBG: saphenous vein bypass graft, Ao: ascending aorta, Inno.: innominate artery, SA: subclavian artery, MCA: middle cerebral artery, CCA: common carotid artery, VA: vertebral artery

Fig. 1 Aortography and CBF study of group 1 patient (Case 8).
A, B: All of the main branches from ascending aorta were almost occluded.
C: CBF images before bypass surgery.
 PET images show diffuse hypoperfusion.

策，以上の2点について，われわれの経験した症例の治療経過を retrospective に検討した。

方 法

〈症 例〉

1984年以降当科および関連施設において診断治療した高安動脈炎の患者17例を対象とした。症例は13-62歳(平均36歳)，男性3例(平均46.3歳)，女性14例(平均34.1歳)であった。その一覧を **Table 1** に示した。これらの症例を CBF 検査の結果と血管撮影の所見に基づいて三つの group に分類した (**Table 2**)。

Group 1: 大動脈吻側枝の4本(4 vessels)がすべて閉塞しており，頭蓋内へはわずかな側副血行を介して血流が供給されるのみで CBF 検査上 diffuse hypoperfusion となっ

ている症例。

Group 2: 4 vessels のうちの1部は patency が保たれているものの CBF 検査上は hemispheric hypoperfusion を呈する症例。

Group 3: 4 vessels のうちの1部は patency が保たれており，CBF 検査上は明らかな異常が認められない症例。

CBF 検査の種類は，施行された時期により Xe-CT，SPECT，PET とさまざまである。Case 1 と 3 に対しては CBF 検査は施行されなかった。

〈外科的治療〉

全症例に対する治療法を **Table 3** にまとめた。12例に対して閉塞血管に対する血行再建術が施行され，そのうち3例については合併する狭窄性病変に対し percutaneous

Fig. 2 Aortography and CBF study of group 2 patient (Case 9).

A, B: Aortogram shows occlusion of innominate artery and severe stenosis of left subclavian artery. Collateral blood flow through circle of Willis is insufficient.

C: 99m Tc-HM PAO SPECT images reveal a reduction of right hemispheric blood flow.

transluminal angioplasty (PTA)が追加された。他の2例に対してはPTAのみが施行された。神経症状が軽度であるか、まったく認められなかった3例については保存的治療が行われた。

血行再建術としては9例においてsaphenous veinを用いた胸骨正中切開による上行大動脈-総頸動脈あるいは上行大動脈-椎骨動脈間バイパス術が行われた。人工血管を使用した血行再建は再手術例の1例を含めて計4例に施行された。

結 果

〈臨床症状(Table 1)〉

Group 1では全例が反復するsyncopal attackと著明な視力障害を認めた。syncopal attackは収縮期血圧が約

100 mmHgを下回ったさいに出現した。さらに、多くの例においてcarotid sinus hypersensitivityのため頸部伸展が困難であり、前彎姿勢でなければ歩行不能であった。これらの症状は日常生活に大きな支障となった。CBF検査は全般的に高度のhypoperfusionを呈していた(Fig. 1)。

Group 2では、Case 11を除く全例で閉塞血管と同側半球に脳梗塞を伴っており、CBF検査では一側半球の著明なhypoperfusionを示した。神経症状を認めなかったCase 11では、CBF検査上軽度の片側性hypoperfusionを示した(Fig. 2)。

Group 3では、神経症状を欠くものから、視力障害・痙攣・TIAなど多様な症状を示すものまでさまざまであった。Fig. 3は本groupに属するCase 2の血管撮影とCBF検査の結果を示しているが、このようにGroup 3では

Fig. 3 Aortography and CBF study of group 3 patient (Case 2).
A, B: Only bil. VA are patent and CBF is maintained by sufficient intracranial collaterals.
C: 99m Tc-HM PAO SPECT (quantitative images of resting state obtained by autoradiographic method) reveals normoperfusion.

CBF 検査上明らかな脳血流低下を認めなかった。

〈合併症と治療結果 (Table 3)〉

再手術例も含めのべ16血行再建手術例のうち、3手術例 (Case 4 and 8) において術後hyperperfusion syndrome が出現した。これらはいずれも Group 1 患者であった。

術後心機能不全は、2例 (Case 8: Group 1 and Case 9: Group 2) において認められた。Case 9 では、閉鎖中に cardiac arrest となったが intraaortic balloon pumping (IABP) と catecholamine の持続投与によって回復した。

術後合併症として hyperperfusion と cardiac arrest の両者を伴った Case 8 の治療経過を簡単に紹介する。

Case 8: **Fig. 1A, B** は、初回術前の血管撮影であるが 4

vessels は閉塞しておりわずかな側副血行を認めるのみであった。saphenous vein を用いた上行大動脈-右総頸動脈バイパスが施行された20日後の血管撮影では patency が確認された (**Fig. 4A**)。2カ月後急速な左側視力低下を伴ったため施行した血管撮影で graft の閉塞が確認され、再度 saphenous vein による上行大動脈-右総頸動脈バイパスが施行された。**Fig. 5** は再手術時の血圧および脳循環 monitoring として測定された頸静脈酸素飽和度 (SjO_2)・spinal CSF pressure の各経時変化である。血流再開による血圧と SjO_2 の変化に一致した spinal CSF pressure の上昇が観察された。再手術から5年後 syncope が頻発するようになったさいに施行した血管撮影では2度目のバイパスも閉塞していたため、人工血管を用いて体外循環下に上行動脈-

Fig. 4 Aortography of Case 8.

A: Aortography was carried out 20 days after the first operation. Ascending aorta to rt. common carotid artery bypass with saphenous vein graft was performed.

B: Delayed occlusion was confirmed 5 years after the second operation.

C, D: Aortography after the third operation. Ascending aorta to bil. common carotid artery bypass with synthetic graft was performed.

両側総頸動脈バイパスが実施された (Fig. 4C, D). 再手術および3度目の術後には数日持続する頭痛・意識障害が出現した. また3度目の術後心機能は正常化していたが2週目に突然 cardiac arrest が出現し1度は蘇生できたものの10日後に死亡した. 剖検の承諾は得られず, 心合併症の原因は確定できなかった.

その他の全身合併症として術後誤嚥性肺炎が1例 (Case 1) に認められた.

血行再建術の治療結果としては, 2例が術後に死亡しており mortality は12.5%であった. 死因は Case 1 における誤嚥性肺炎と Case 8 における心不全である. 臨床症状の改善は, 16手術例中13例で認められた.

考 察

高安動脈炎は非特異性炎症のために, 大動脈およびその主要分枝に閉塞性病変を生じる疾患で, 女性が89-97%とその大半を占め, 年齢では25歳を平均に比較的若年層にみられる^{2) 5) 6) 8) 9) 11) 16)}. 今回対象となった症例は, 脳神

Fig. 5 Intraoperative monitoring of the second operation in Case 8. Blood pressure, SjO_2 and spinal CSF pressure rose concurrently just after declamping.

経外科において治療された患者であり、すべて brachiocephalic arteries の狭窄あるいは閉塞を伴っていた。そのような高安動脈炎患者に対してこれまでさまざまな血行再建術が報告されているが¹⁴⁾¹⁵⁾、その治療方針は主に臨床症状と血管撮影所見を基に決定されている。

今回われわれは治療経過を検討するにあたり、血管撮影に加え CBF 検査も考慮したうえで高安動脈炎患者を 3 グループに分類した (Table 2)。

CBF 検査の結果では Group 3 に含まれる患者は extracranial arteries が一部閉塞しているにもかかわらず、明らかな異常が認められなかった。これらの患者で CBF 低下をきたさなかったのは Willis 輪を介した頭蓋内側副血行が十分に発達していたためと考えられる。今回の retrospective study より Group 3 患者は、retinal hypoperfusion に起因する視力障害を合併する場合⁷⁾¹⁶⁾などを除き、CBF 増加を目的とした血行再建術の適応外であると思われる。

Group 2 患者の多くは、一側半球の脳虚血症状を呈していた。これらの患者では extracranial arteries の一部は patent であるにもかかわらず、CBF 検査の結果は脳虚血症状に一致した hemispheric hypoperfusion を示した。これらの事実より Group 2 患者は脳血流を維持しうるに足りる Willis 輪を介した頭蓋内側副血行を備えていないものと考えられた。

Group 1 患者の脳虚血症状はその重症度において他の group と大きく異なっていた。Group 1 患者は健常人では問題とならない程度の血圧低下でも syncopal attack をきたしたが、それは長期に及ぶ広範な脳血流低下のために脳血流自動調節機能が障害されていたためと考えられる。術後 hyperperfusion syndrome によると思われる高度の頭痛・意識障害といった症状が Group 1 患者 4 例中 2 例に出現した。術前に hypoperfusion のため最大限に拡張した脳血管では調節機構は障害されており¹⁾¹³⁾、その条件下での血行再建による急激な血流増加が CBF 調節の破綻を招き、hyperperfusion syndrome をきたしたのと考えられる。

hyperperfusion syndrome は、たとえば CEA 術後の 12% 程度に発生するという報告もあり¹²⁾、血行再建術の周術期管理において、その monitoring と管理をいかに行うかは重要な課題の一つである。Group 1 患者のように術前の CBF 低下が高度であるほど術後 hyperperfusion を招く危険性は高くなるといえる。最近の 3 手術例において従来より脳循環 monitoring として利用されている transcranial doppler (TCD) や頸静脈酸素飽和度 (SjO₂)¹⁷⁾に加えて spinal CSF pressure の経時的 monitoring が行われた (Fig. 5)。血流再開後 TCD や SjO₂ と同期して spinal CSF pressure の値も上昇しており、これらの結果は、血行再建に

よる脳血流と代謝の変化を鋭敏に反映しているものと思われる。spinal CSF pressure の測定は手技も簡便であり hyperperfusion を予測するための monitoring として有用であると思われる。実際に Case 4 と 8 においては術後頭痛や軽度の意識障害など hyperperfusion syndrome によると思われる症状が出現したが頭蓋内出血などの重篤な合併症には至らなかった。術前の CBF 検査や術中の monitoring による hyperperfusion 出現の予測と、術後早期からの induced hypotension・barbiturate therapy といった処置が功を奏したのと考えられた。術後の hyperperfusion 出現をいかに予測するかという点で、CBF 検査とそれに基づく分類は非常に有効な手段と考えられ、特に Group 1 症例は、high risk group であるといえる。

術後早期の全身合併症として 2 例において (Case 8 and 9) 心機能不全を経験した。高安動脈炎に合併する心疾患の原因として文献上いくつかの報告があり²⁾⁸⁾¹¹⁾、腎血管性高血圧に由来する高血圧性心不全⁵⁾・大動脈弁閉鎖不全 (AR)⁵⁾¹⁰⁾・冠動脈も炎症に巻き込まれた場合の虚血性心疾患¹⁰⁾などは診療に当たって常に念頭におく必要がある。われわれの 2 例の場合、術前の負荷心電図・心エコー・TI シンチグラフィーのいずれの心機能検査でも異常が認められなかった。したがって、心不全の原因としては潜在した高血圧性心不全が術後急激に悪化したことである可能性が高いと思われる。今後の対策として術後の厳重な血圧管理があげられる。一方で、病理学的に炎症は中膜から始まり進行すると内膜・外膜へと広範に波及しうる³⁾ことから、心不全の原因の一つとして、術後一時的に炎症が進行し血管周囲の神経も巻き込まれた結果としての自律神経の極端な異常も考えられる。対策としては術後頻回の検査による炎症状態の把握と十分な抗炎症療法が重要と思われる⁴⁾。高安動脈炎患者の外科治療においては、予測困難な心合併症の可能性も念頭におくべきである。

結 論

高安動脈炎患者に対する血行再建術後の hyperperfusion syndrome を予測するうえで、術中の経時的脳循環 monitoring に加えて術前の CBF 検査は非常に有効である。血行再建術の必要性が高い患者ほど術後 hyperperfusion syndrome を招く危険性が高く術後早期からの適切な管理が必要である。術後管理において、予測困難な心合併症の可能性も念頭に置く必要がある。

文 献

- 1) Bernstein M, Fleming JFR, Deck JHN: Cerebral hyperperfusion after carotid endarterectomy: a cause of cerebral hemorrhage. *Neurosurgery* **15**: 50, 1984
- 2) Hashimoto Y, Oniki T, Aerbajinai W, *et al*: Aortic regur-

- gitation in patients with Takayasu arteritis: assessment by colour Doppler echocardiography. *Heart vessels Suppl* **7**: 111-115, 1992
- 3) Hotchi M: Pathological studies on Takayasu arteritis. *Heart vessels Suppl* **7**: 11-17, 1992
 - 4) Ishikawa K, Yonekawa Y: Regression of carotid stenosis after corticosteroid therapy in occlusive thromboangiopathy (Takayasu's disease). *Stroke* **18**: 677-679, 1987
 - 5) Kerr GS, Hallahan CW, Giordano J, *et al*: Takayasu arteritis. *Ann Intern Med* **120**: 919-929, 1994
 - 6) Koide K: Takayasu arteritis in Japan. *Heart vessels Suppl* **7**: 48-54, 1992
 - 7) Lewis JR, Glaser JS, Schatz NJ, *et al*: Pulseless (Takayasu) disease with ophthalmic manifestations. *J Clin Neuro-ophthalmol* **13**(4): 242-249, 1993
 - 8) Matsubara O, Kuwata T, Nemoto T, *et al*: Coronary artery lesions in Takayasu arteritis: pathological considerations. *Heart vessels Suppl* **7**: 26-31, 1992
 - 9) Matsubara O, Yoshimura N, Tamura A, *et al*: Pathological features of the pulmonary artery in Takayasu arteritis. *Heart vessels Suppl* **7**: 18-25, 1992
 - 10) Nagata S: Present state of autopsy cases of Takayasu's arteritis (aortitis syndrome) in Japan. *Myakkangaku* **30**: 1303-1308, 1990
 - 11) Nishimura T, Uehara T, Hayashida K, *et al*: Coronary arterial involvement in aortitis syndrome: assessment by exercise thallium scintigraphy. *Heart vessels Suppl* **7**: 106-110, 1992
 - 12) Piepgras DG, Morgan MK, Sundt TM, *et al*: Intracerebral hemorrhage after carotid endarterectomy. *J Neurosurg* **68**: 532, 1988
 - 13) Powers AD, Smith RR: Hyperperfusion syndrome after carotid endarterectomy: a transcranial doppler evaluation. *Neurosurgery* **26**: 56, 1990
 - 14) Tada Y, Sato O, Ohshima A, *et al*: Surgical treatment of Takayasu arteritis. *Heart vessels Suppl* **7**: 159-167, 1992
 - 15) Taguchi J, Yamada K, Miyamoto Y, *et al*: Bypass surgery for aortitis syndrome: aortocarotid bypass with saphenous vein graft. *Surg Neurol* **37**: 300-306, 1992
 - 16) Uyama M: A study on pathogenesis of fundic lesions in the pulseless disease. Report of the Research Committee on Aortitis Syndrome, 1973, pp43-46
 - 17) 山田真理, 川口昌彦, 古家 仁, ほか: 大動脈炎症候群に対する頸動脈再建手術時の脳循環モニター. *麻酔* **40**(10): 1546-1550, 1991