

血管内治療が奏功した Small Aorta Syndrome の 1 例

植村翼, 今釜逸美, 川井田啓介, 豊川建二, 寺園和哉, 牛島孝, 曾我欣治

血管内治療が奏功した Small Aorta Syndrome の 1 例

植村翼^{1*}, 今釜逸美¹⁾, 川井田啓介¹⁾, 豊川建二¹⁾, 寺園和哉¹⁾, 牛島孝²⁾, 曾我欣治¹⁾

鹿児島大学病院心臓血管外科¹⁾, 公益社団法人昭和会いまきいれ総合病院 血管外科²⁾

A case of Small Aorta Syndrome successfully treated with endovascular therapy

Tsubasa UEMURA^{1*}, Itsumi IMAGAMA¹⁾, Keisuke KAWAIDA¹⁾,
Kenji TOYOKAWA¹⁾, Kazuya TERAZONO¹⁾, Takashi USHIJIMA²⁾, Yoshiharu SOGA¹⁾

1) Department of Cardiovascular surgery, Kagoshima University Hospital

2) Department of Vascular Surgery, Imakiire Hospital

(Received 8 August 2024; Revised 16 December 2024; Accepted 15 January 2025)

* Address to correspondence

Tsubasa UEMURA

8-35-1 Sakuragaoka, Kagoshima, Japan, 890-8520

Phone: +81-99-275-5368

e-mail: uemura.tsubasa283@gmail.com

Abstract

Small aorta syndrome (SAS) is a general term for arterial dysplasia and associated obstructive lesions in the peripheral vessels to the common iliac artery region of the abdominal aorta. This case is a 57-year-old female who presented with intermittent claudication and numbness that started 3 years previously, bilateral common iliac artery stenosis and superficial femoral artery occlusion were observed, which led to the diagnosis of SAS. She underwent endovascular treatment of the right common iliac artery but was referred to our department for further treatment because of numbness and rest pain in the left lower limb due to stenosis of the left common iliac artery one month earlier. EVT was performed on the left common iliac artery by puncture under direct vision of the left femoral artery. The patient was discharged on the 11th postoperative day. There are few reports of endovascular treatment for SAS, and we report them with some considerations.

Key words: Small aorta syndrome, Revascularization, Endovascular therapy

抄録

Small Aorta Syndrome (SAS) は腹部大動脈末梢から総腸骨動脈領域における動脈形成異常とそれに伴う閉塞性病変の総称である。症例は57歳、女性。3年前より右間欠性跛行・右下肢の痺れが出現、両側の総腸骨動脈狭窄・浅大腿動脈閉塞を認め、SASと診断された。右総腸骨動脈に対し血管内治療が施行されたが、3ヶ月前からは左総腸骨動脈狭窄・閉塞による左下肢の痺れ・左下肢安静時痛・左第1趾潰瘍を認めたため、加療目的にて当科紹介となった。左大腿動脈直視下穿刺にて左総腸骨動脈の血管内治療を施行し、術後11日目に軽快退院となった。SASに対する血管内治療の報告は少なく、考察を加えて報告する。

背景

Small Aorta Syndrome (SAS) は腹部大動脈末梢から総腸骨動脈領域における動脈形成異常とそれに伴う閉塞性病変の総称であり¹⁾, 画像検査で 1)腎動脈直下の大動脈径が14mm未満あるいは大動脈分岐部直上で10.3mm未満, 2)大動脈分岐部が第3-4腰椎の高さで分岐の角度は20-30度, 3)腸骨動脈が直線的, 4)総腸骨動脈径が5mm未満のいずれかを満たす場合にSASと診断される²⁾. 治療は外科的血行再建と血管内治療がある³⁾. 両者の遠隔成績を比較した研究はないが, 血管内治療の報告は30例と少ないながら, 外科的血行再建よりも在院日数が有意に短い点で優れている³⁾. 外科的血行再建では, グラフトと自己血管との口径差によるpseudointimal hyperplasiaから, グラフト閉塞が問題となる⁴⁾. 血管内治療ではアクセス血管の選択が問題となるが, これに関する報告はない. 今回我々は経皮的穿刺による合併症が考慮されたSASに対して動脈直接穿刺による血管内治療を選択し奏功した1例を経験したので報告する.

症例

症例: 57歳, 女性.

主訴: 左下肢の痺れ, 安静時痛, 左第1趾潰瘍.

生活歴: 喫煙・飲酒歴なし.

既往歴: 右総大腿動脈血栓症, 右上腕動脈仮性動脈瘤.

現病歴: 3年前に右間欠性跛行や下肢の痺れが出現した. 2年前症状が増悪したため近医を受診, CT検査で両側総腸骨動脈(CIA)狭窄, 両側浅大腿動脈(SFA)閉塞を指摘され, 当院心臓血管内科で精査後, SASと診断された. 同科にて右CIAの血管内治療(EVT)施行, 1年後右CIAのステント内狭窄に対し再度EVTが施行された. また3ヶ月前, SAS以外の鑑別としてANCA関連血管炎も疑われ精査目的に当院血液内科受診し, MPO-ANCAとPR3-ANCAは陰性であり血管炎は否定的であったが, 抗リン脂質抗体症候群と診断された. 3ヶ月前より左下肢の痺れ・安静時痛を自覚し, 左第1趾潰瘍を認めたため, 加療目的に当科紹介となった.

現症: 身長148cm, 体重40kg, 脈拍76/分, 血圧120/49mmHg, 左膝窩・足背・後脛骨動脈の拍動は触知せず, 浸出液を伴う左第1趾潰瘍を認めたが色調不良はなかった.

血液生化学検査: Hb 13.9 g/dL, BUN 12.7mg/dL, Cre 0.57mg/dL, TG 110mg/dL, TC 198mg/dL, LDL-C 86mg/dL, HDL-C 84mg/dL, D-dimer 0.5 μ g/dL, CRP 0.03mg/dL

足関節上腕血圧比 (ABI): 両側測定不能.

皮膚灌流圧 (SPP): 右足背30/足底19mmHg, 左足背23/足底21mmHg 両側とも低下.

下肢動脈エコー: 左CIAは高度石灰化のため評価困難であったが, 左内腸骨動脈 (IIA) から左外腸骨動脈 (EIA) へ逆行性血流があり, EIA遠位部は狭窄後パターン (流

速0.3m/s)を示し, 左CIAの高度狭窄・閉塞が疑われた. 左SFA中間部から遠位部にかけて石灰化を伴うプラークがあり, 遠位側は一部閉塞を認めた.

CT: 腎動脈直下の大動脈径は11mmで (Fig. 1a), 左CIA/SFAは高度な石灰化を伴う狭窄・閉塞を認めた (Fig. 1b).

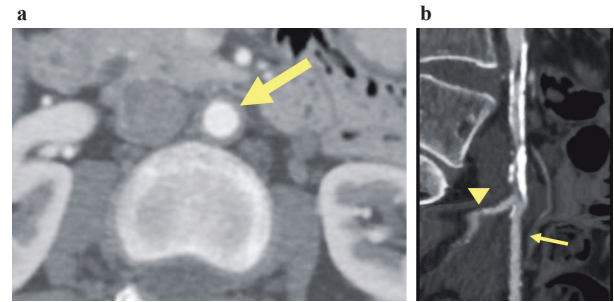


Figure 1

a) Computed tomography before the operation.

The aortic diameter just below the renal artery was approximately 11 mm (yellow arrow).

b) The left common iliac artery is stenotic due to severe calcification (yellow arrow: external iliac artery, yellow triangle: internal iliac artery).

治療方針: 本症例において, 有意な病変の総腸骨動脈閉塞は片側であること, またバイパスでの末梢吻合部となる外腸骨または総大腿動脈は細径で早期閉塞が危惧されることから, 開腹または後腹膜経路での人工血管でのバイパスではなくEVTを選択した. しかし, これまでに経皮的穿刺によるEVTで合併症の既往 (圧迫による右CFA血栓・右上腕動脈仮性瘤)があったため, 穿刺部圧迫を回避する目的で鼠径部を開創し, 直視下穿刺でEVTを行う方針とした.

手術所見: 左鼠径部に縦切開を加え総大腿動脈 (CFA), SFA, 大腿深動脈 (DFA) を露出した. CFAは径3mm程度と細く, 血流量は73mL/min, PIは1.4であった.

まずは左CIA-EIAにかけてのEVTを行った. 左CFAから逆行性に5Fr.シース (TERUMO, 東京都) を挿入し, ラジフォーカス®ガイドワイヤー M (TERUMO, 東京都) およびピグテールカテーテル (MERITMEDICAL, US) を大動脈まで進めて動脈造影を行った. 閉塞部の通過は容易であった. 左CIA起始部からEIA近位部まで約6cmにわたり高度狭窄, 閉塞を認めた (Fig. 2a). ガイドワイヤーをJupiter™ FC (Boston Scientific, Massachusetts, US) に交換しIVUSで観察すると, CIA近位部およびiliac bifurcation直上で最も狭窄が高度であった. EIA狭窄部位末梢での径は3.8mmであった. CHOCOLATE™ (Medtronic, Dublin, IRL) 4mm 40mm長で前拡張を行い, EverFlex™ (Medtronic, Dublin, IRL) 6mm 80mm長をCIA-EIAに留置した.

ULTRAVERSA RX™ (メディコン, 大阪府) 5mm 40mm

長で、後拡張を行った。

動脈造影を施行し残存狭窄ないことを確認した (Fig. 2b)。

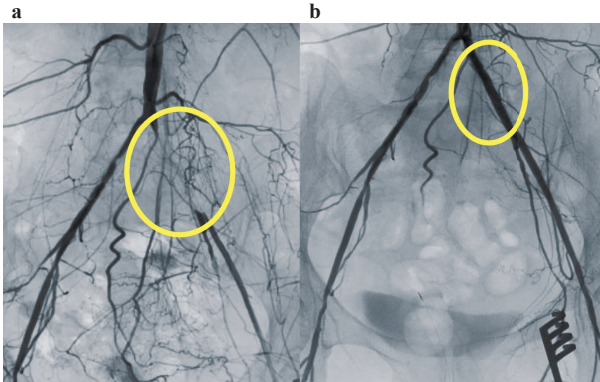


Figure 2 Intraoperative angiography showed that (a) there was total occlusion of the left common iliac artery (yellow circle). (b) Completion angiography showed the antegrade iliac artery flow by stenting.

引き続き左SFAへのEVT操作へ移行した。下肢動脈造影を施行し、左SFAは中間部から末梢にかけて石灰化狭窄、閉塞を認めた。逆行性に挿入されていた5Fr.シースを順行性に入れ替え先端をSFA内に進めた。CROSSERシステム (メディコン, 大阪府) を閉塞部位を通過させようと病変部まで進めた後の造影にて血管外漏出像を認めた。ステントグラフト挿入も検討したが、SFAは血管径が細く、また重要な側副血行をつぶしてしまう可能性が高く挿入しなかった。左大腿部の腫脹や血腫を認めず、膝窩以遠の血流が手技前後で変化のないことを確認し、左SFAへのEVTは行わずに手術終了とした。CFAの血流量は148mL (PI 1.7) となった。

術後経過: 術後2日目の下肢動脈エコーで左IIAは順行性血流となり、左EIAの流速は0.3m/sから1.5m/sとなった。術後3日目の造影CT検査でも、左CIA-EIAは開存し、左SFAは明らかな仮性動脈瘤形成や血管外漏出像はなく、足部までの血流は問題なかった (Fig. 4)。術後は合併症なく経過し、間欠性跛行症状は改善し、潰瘍は治癒した。ABIは0.46, SPPは左足背/足底;42/19mmHgとなった。本症例は右CIAのEVT後、穿刺部圧迫によって右CFAに血栓を生じた。同時期には抗リン脂質抗体症候群の診断がついておらず、術前はクロピドグレルとアピキサバンを内服していた。その後抗リン脂質抗体症候群の診断となり、必要な抗凝固療法はDOACではなくワーファリンが推奨されており、変更した。抗血小板薬に関して、ガイドライン上バイアスピリンが推奨されているが、本症例は右下肢動脈にも狭窄病変があり、内服変更することで症状が再燃する可能性があったこと、またステント留置後であり抗血栓療法を強化する目的でこれまでのクロピドグレル内服を継続することとした。

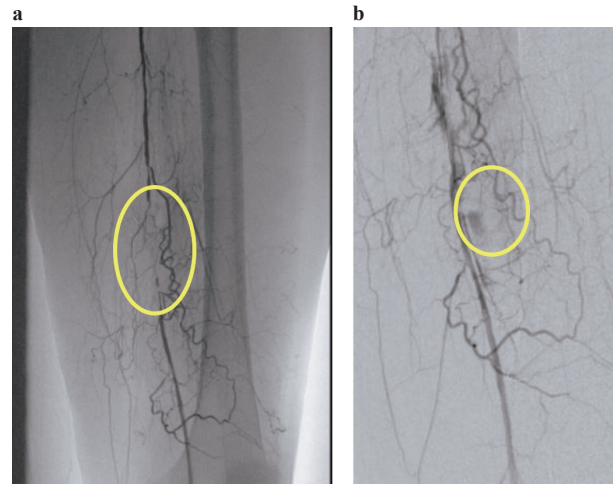


Figure 3 Intraoperative angiography showed that (a) there was total occlusion of the left superficial femoral artery (yellow circle). (b) Extravascular leakage image is seen in the left superficial femoral artery, but peripheral blood flow is unaffected.



Figure 4 Postoperative Computed Tomography shows no extravascular leakage image of superficial femoral artery and good blood flow to the foot (yellow arrow).

考察

1847年Quainらは、腹部大動脈末梢から総腸骨動脈領域における動脈形成異常とそれに伴う閉塞性病変の総称としてSASを初めて提唱した¹⁾。動脈形成異常の原因は未だ不明であるが、有症状患者は50歳前後の比較的年若年の女性で、喫煙歴、高血圧症・脂質異常症・糖尿病の既往歴や、経口避妊薬の使用歴があったと報告されている^{5,6)}。本症例は、9年前より脂質異常症を認めロスバスタチンを服用していた。

本症例の要点は、①SASの治療は外科的血管再建とEVTがあり、細径の動脈に対して外科的血管再建では早期閉塞が懸念されており、SASのEVT報告が少ないため両者の比較成績はないが、低侵襲のEVTを選択した点、②内科と当科で行ったEVTの内容に大きな差異はないが、外科サイドで鼠径部を開創し動脈を直接穿刺しEVT

を行ったことで、穿刺部の確実な止血が確認でき、これまで生じた穿刺部に関する合併症（総大腿動脈血栓・上腕動脈仮性動脈瘤）を回避できた点、③抗リン脂質抗体症候群が発覚したことでガイドライン通りに抗凝固薬をワーファリンへ変更したことで、観察期間は3年であるが、症状再燃なく経過している点、である。

術後狭窄・閉塞/追加治療の発生率は、外科的血行再建では19ヶ月-7年で16-33%/5%-33%、EVTでは31ヶ月で28.6%/3%と報告されており³⁾、両者の遠隔成績を比較した研究はないが、血管内治療は在院日数が有意に短い(1.3±0.8日 vs 3-5日)³⁾。外科的血行再建では、グラフトと自己血管との口径差があるとpseudointimal hyperplasiaが起こり、グラフト閉塞の危険性が高まる⁴⁾。Pseudointimal hyperplasiaが起こる機序として、術後24時間で吻合部に血小板・赤血球・白血球の集積とフィブリンの析出を認め、術後3日目に内皮細胞が出現し、術後70日目に仮性内膜が完成したと動物実験で報告されている⁷⁾。中枢側吻合部位は一般的に腎動脈下大動脈であるが、高度の石灰化がある場合に吻合困難となるため、腋窩動脈も選択されうる^{2,4)}。末梢側吻合部位は病変部を避け、また吻合を確実にを行うため石灰化のない部位を選択するなどの工夫が必要である。EVTでは、アクセスする動脈の選択が問題となるが、これに関して論じた報告はない。EVTは上腕動脈や総大腿動脈といったアクセスから経皮的動脈穿刺で行われることが多い。本症例は左CFA径が3.0mmと細く、外科的血行再建では術後早期の閉塞が考えられたためEVTの方針としたが、これまで経皮的穿刺での合併症があったため、開創・動脈露出の上で直視下穿刺でのEVTを選択した。経皮的穿刺に伴う合併症のリスクは0.05-2.0%と頻度は少ないながらも生じる⁸⁾。今回のように開創・動脈露出させることで、合併症の原因となりうるような不十分な止血や誤穿刺⁹⁾を回避できたことで、これまでのような穿刺部に関する合併症が生じなかったと考えられる。

本症例は、右腸骨動脈領域のEVTを行われ、1年後にステント狭窄をきたし再度EVTを行われているため、今回留置した左CIAのステント再狭窄が懸念された。ステントの再狭窄や拡張不全、留置部位の破裂が危惧される場合には、ベアステントではなくカバードステントの選択肢もある。血管径5-13mmを対象としたVIABAHN VBX (GORE, Delaware, US)の、9ヶ月間でのTarget Lesion Revascularization回避率は97.7%で、術後の抗血小板薬はバイアスピリン・クロピドグレルの2剤併用が推奨されている^{10,11)}。本症例においては、左腸骨動脈分岐部直上の狭窄病変に対してカバードステントを留置し、確実にステントを拡張させるためには左IIAを閉塞せざるを得ず、それに伴い左IIAから左下肢への側副血行が低下す

る可能性があった。また、手術施行時点でSASに対するVIABAHN VBXの本邦での報告はなく、長期間の成績は不明であったため今回は同デバイスを選択しなかった。退院後3年で左下肢に症状はなく、ABI低下なし、また下肢動脈エコーで左CIAステント内狭窄はない。

また本症例は、抗リン脂質抗体症候群の併存と血栓症の既往があった。同疾患患者では年間7%の血栓症再発が報告されている¹²⁾。ガイドライン上、同疾患の抗凝固療法はワーファリンが推奨されており、本症例もワーファリンを選択した^{13,14)}。我々の検索範囲内では報告がないが、退院後3年時点で症状なくステント内狭窄がみられないことから、抗リン脂質抗体症候群を併発したSASへのEVT後にワーファリンの投与は有効であったと考えられる。

利益相反の開示

共著者全員が利益相反はない。

文献

- 1) Quain R. Partial contraction of the abdominal aorta. *Trans Pathol Soc London* 1847; 1:244-246.
- 2) Masuda N, Uwabe K. Peripheral Arterial disease with small aorta syndrome; A case report. *Ann Vasc Dis* 2020; 13:202-204.
- 3) Walton BL, Dougherty K, Mortazavi A, et al. Percutaneous intervention for the treatment of hypoplastic aortoiliac syndrome. *Catheterization and Cardiovascular Interventions* 2003; 60:329-334.
- 4) 矢野浩己, 石丸新, 小櫃由樹生, ほか. Small aorta syndromeによる腹部大動脈閉塞の2例. *日血外会誌* 2002; 11:535-538.
- 5) Burke Jr PM, Herrmann JB, Cutler BS. Optimal grafting methods for the small abdominal aorta. *J Cardiovasc Surg* 1987; 28:420-6.
- 6) Renzi IP, Taurino M, Rizzo L. Hypoplasia of the abdominal aorta: epidemiology, analysis of risk factors and surgical treatment. *Medicina (Firenze)* 1989; 9:70-72.
- 7) 石丸新, Eva Berglin W-O, Hans-Arne Hansson, ほか. 人工血管吻合部における止血治療機構に与える脱線維素の影響. *血液と脈管* 1981; 12:628-631.
- 8) 宮内綾子, 神田順二, 早川直樹, ほか. 血管内超音波で観察し得た医原性仮性動脈瘤の臨床的検討. *心臓* 2022; 54:352-364.
- 9) 平野豊, 生田新一郎, 上原久和, ほか. 心臓カテーテル検査後の穿刺部合併症の診断. *J Cardiol* 2004; 43:259-265.
- 10) Panneton JM, Bismuth J, Gray BH, et al. Three-year follow-up of patients with iliac occlusive disease treated with the viabahn balloon-expandable endoprosthesis. *J Endovasc Ther* 2020; 27:728-736.

- 11) Linkins LA, Dans AL, Moores LK, et al. Treatment and prevention of heparin-induced thrombocytopenia: antithrombotic therapy and prevention of thrombosis, 9th ed. American College of Chest Physicians Evidence-Based Clinical Practice Guidelines. Chest 2012; 141:e495S-e530S.
- 12) Warkentin TE. Heparin-coated intravascular devices and heparin-induced thrombocytopenia. In: Warkentin TE, Greinacher A, eds. Heparin-Induced Thrombocytopenia. 5th ed. New York, NY: Informa Healthcare USA; 2012;(20):573-590.
- 13) 宮谷知彦, 栗田信浩, 小松正人, ほか. 抗リン脂質抗体症候群の臨床的特徴に関する検討. 日外科系連合誌 2013; 38; 759-764.
- 14) 針谷正祥. 抗リン脂質抗体症候群・好酸球性多発血管炎性肉芽腫症・結節性多発動脈炎・リウマトイド血管炎の治療の手引き 2020.