

動脈管憩室動脈瘤の1成人例

Aneurysm of a diverticulum of the ductus arteriosus in an adult: A case report

北原陽之助
金澤 紀雄
佐々木豊志
荒木 隆一
小暮晴一郎
土屋 幸彦
竹内 秀夫
村田 和彦*
遠藤 真弘**
小柳 仁**

Yonosuke KITAHARA
Norio KANAZAWA
Toyoshi SASAKI
Ryuichi ARAKI
Seiichiro KOGURE
Yukihiko TSUCHIYA
Hideo TAKEUCHI
Kazuhiko MURATA*
Masahiro ENDO**
Hitoshi KOYANAGI**

Summary

An aneurysm of a diverticulum of the ductus arteriosus in a 33-year-old man was presented.

The chest radiography revealed a mass obscuring the aortic window above the hilus of the left lung. His blood pressure was 130/70 mmHg, and there was no difference in pressures between the upper and lower or between the right and left extremities. A CT scan of the chest showed 30×34 mm angioma adjacent to the descending aorta and pulmonary artery.

Aortography and contrast radiography of the right ventricle revealed a cystic pedunculated aneurysm at the superior portion of the descending aorta. The base of the left pulmonary artery was slightly displaced. There was no communication between the aorta and pulmonary artery, nor was any significant difference in pressure between the ascending and descending aorta. This case was diagnosed as an aneurysm of the diverticulum of the ductus arteriosus, and then it was resected. The abnormality was confirmed by the localization of the aneurysm and histopathologic findings, but the presence of the ligamentum arteriosum was not confirmed. This is the 23rd case of the aneurysm of the diverticulum of the ductus arteriosus in adults, and the first case in Japan in which the diagnosis was made in a living patient, followed by successful surgery.

国立高崎病院 内科

高崎市高松町 36 (〒370)

*群馬大学医学部 第二内科

前橋市昭和町 3-3-15 (〒371)

**東京女子医科大学日本心臓血圧研究所 外科

東京都新宿区市谷河田町 10 (〒162)

Department of Internal Medicine, National Takasaki Hospital, Takamatsu-cho 36, Takasaki 370, *The Second Department of Internal Medicine, Gunma University School of Medicine, Showamachi 3-39-15, Maebashi 371, **Department of Surgical Cardiology, The Heart Institute of Japan, Tokyo Women's Medical College, Kawadacho 10, Shinjuku-ku, Tokyo 162

Received for publication August 30, 1985; accepted September 11, 1985 (Ref. No. 30-9)

Key words

Aneurysm of a diverticulum of the ductus arteriosus

Aortography

Computed tomography

はじめに

成人における動脈管憩室動脈瘤は極めてまれであり、1890年に Thoma¹⁾が始めて発表してから、1983年の Mitchell^{ら¹⁷⁾}の報告に至るまで、22例¹⁾⁻¹⁷⁾を数えるにすぎず、本邦では足立らが剖検例を報告しているのみである。本疾患はしばしば破裂、血栓、あるいは感染等の合併症により致命的な経過をとり、死亡率も高い。我々はCTおよび大動脈造影により本症と診断し、根治手術に成功した1症例を経験したので報告する。

症 例

症例： 33歳，男性

主訴： 胸部異常陰影の精査

家族歴，既往歴： 特記すべきことなし

現病歴： 1983年，健康診断にて左肺門部の腫瘤陰影を指摘され，精査を目的として当院内科を受診した。特に自覚症状は無い。

入院時現症： 身長 176 cm，体重 69 kg。血圧は両上肢 130/70 mmHg，両下肢 126/— mmHg (触診)。脈拍は 76/分，整であった。胸部の聴診上，胸骨左縁第2肋間外側にて，2/6度の収縮期駆出性雑音を聴取した。肝脾は触知せず，浮腫なし。神経学的にも異常を認めなかった。

検査所見： 末梢血液，尿，生化学検査には異常は認めなかった。血沈 1時間値 8 mm，CRP，血清梅毒反応は陰性であった。

1) 胸部 X線像： 心胸郭比は 48%。左肺門上部に，大動脈窓を閉鎖し，大動脈弓下部および

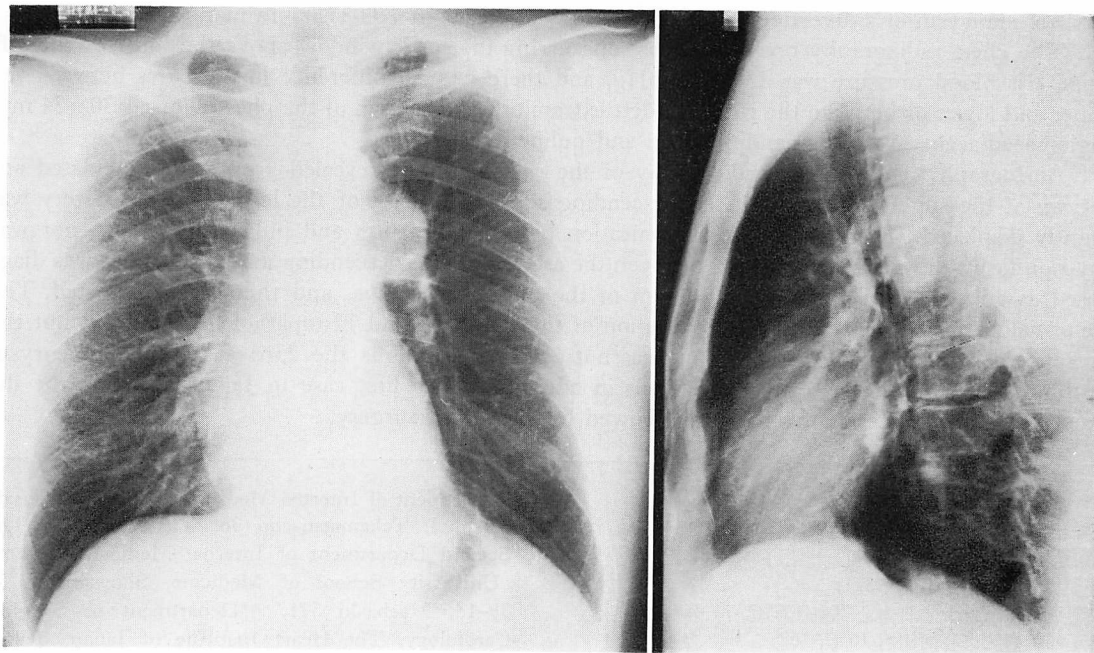


Fig. 1. Chest radiographs.

Posteroanterior and lateral views demonstrating a large, extra-pleural mass in the aorticopulmonary window.

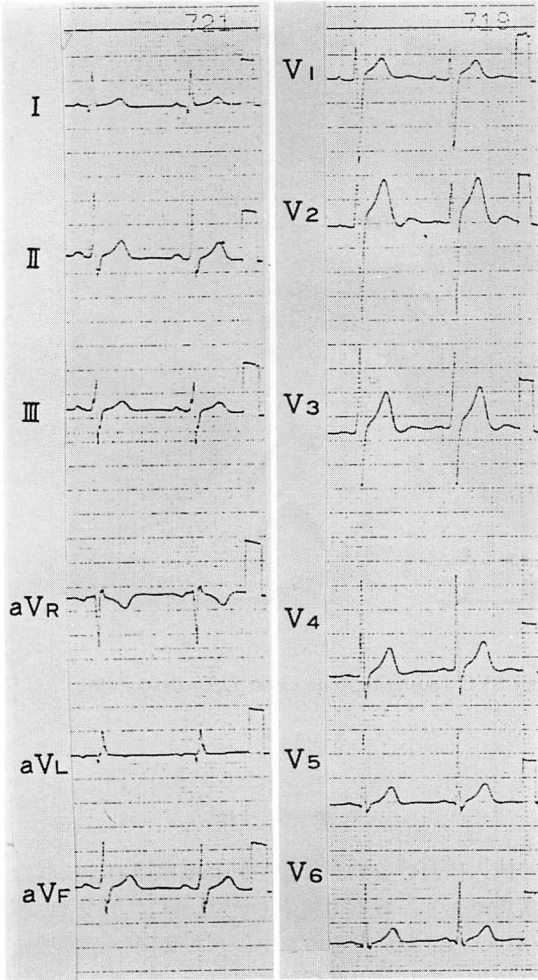


Fig. 2. Electrocardiogram.

左肺動脈とシルエットサインを呈する、辺縁平滑な腫瘤陰影を認めた。腫瘤に石灰化はみられず、肋骨侵蝕像もなかった (Fig. 1)。

2) 心電図：正常洞調律で、前額面 QRS 平均電気軸は +30 度。左室肥大を示唆する所見は認められなかった (Fig. 2)。

3) 胸部 CT：単純 CT では、腫瘤は水平断にて最大径 34×30 mm であり、上端は下行大動脈と分離しえず、1 cm 下の断面では下行大動脈に接して左前方に位置し、右前面は左肺動脈に接

Table 1. Cardiac catheterization data

	Pressure (mmHg)			Oxygen
	Syst.	Diast. (end-diast.)	Mean	Saturation (%)
RA			3	82.7
RV	20	(3)		78.6
m-PA	20	6	11	80.3
l-PA	20	6	11	81.0
LV	125	(6)		97.6
Asc. Ao	125	74	91	
Desc. Ao	120	74	90	96.5
LVG (area-length)				
	LVEDV	159 ml		
	LVESV	67 ml		
	SV	92 ml		
	EF	0.58		

していた。石灰化は認めなかった (Fig. 3)。Contrast enhanced CT では、腫瘤は大血管と同様に高濃度に造影され、大動脈瘤が疑われた。壁在血栓の所見は認められなかった (Fig. 4)。

4) 断層心エコー図：胸骨上窩第 2 斜位よりやや左前方の断面で、左鎖骨下動脈起始部より約 2.5 cm 下方に、大動脈より連続し、嚢状に懸下するエコーフリースペースを検出した。その下方に輪状のエコーを認め、肘静脈よりのコントラスト法にて、内部にコントラストエコーを検出し、左肺動脈と考えた (Fig. 5)。

5) 心臓カテーテル検査 (Table 1)：心内圧は正常範囲内であり、有意な短絡はなく、心機能も良好であった。上行大動脈より下行大動脈への引き抜き圧測定 (Fig. 6) では、大動脈峡部に一致して若干の圧低下を認めたが、峡部以下の下行大動脈では上行大動脈との間に有意な圧較差は無く、この圧低下は動脈瘤による乱流の影響と考えられた。

6) 心血管造影：Fig. 7 は大動脈造影 (A)、右室・肺動脈造影 (B) のそれぞれ正面、側面像を示す。左鎖骨下動脈起始部より約 2.5 cm 下方の下行大動脈上部に茎を有し、左外下方へ突出した

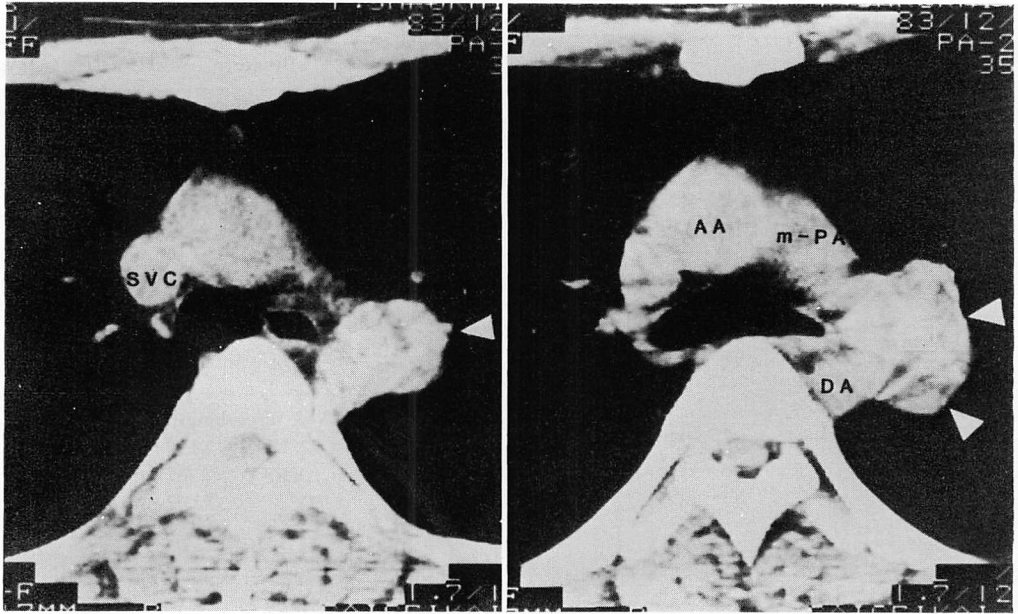


Fig. 3. Plain computed tomogram.

An aneurysm is indicated by white arrowheads.

AA=ascending aorta; m-PA=main pulmonary artery; SVC=superior vena cava; DA=descending aorta.

左肺動脈を前下方に圧排する動脈瘤を認めた。有意な狭窄や、大動脈と肺動脈との交通は認められなかった。

7) 手術所見：動脈瘤の存在部位、形状などより動脈管憩室動脈瘤と診断し、切除術を行った。Fig. 8は術中写真である。下行大動脈と左肺動脈の間に割り込むように、下行大動脈上部に茎を有する50×30×35mmの囊状動脈瘤を認めた。動脈管靭帯は確認されなかった。動脈瘤を切除し、下行大動脈側壁を縫合して、手術は成功した。

8) 病理組織所見：動脈瘤は非薄化した壁を有し、組織学的には囊状中膜壊死に陥り、エラスチカ染色性の減じた中膜を一部に認め、他は線維組織に置き代っていた。内膜は脂肪化に陥り、一部に血栓の付着した粥腫の形成が認められた。真性動脈瘤であるが、大動脈壁とは明らかに異なり、動脈管憩室動脈瘤と診断された (Fig. 9)。

考 按

成人における動脈管憩室動脈瘤は極めてまれな疾患であり、我々の検索しえたかぎりでは22例¹⁻¹⁷⁾の報告があるのみで、うち9例^{1-6,10,13,16)}は剖検例、7例^{7-9,11,14,15)}は手術的に切除できずに終わっている。したがって生前に正確に診断され、手術されたものは6例^{12,17)}にすぎない。本例は本邦での唯一の手術例と思われる。

本症の成因は不明であるが、出生直後の動脈管の閉鎖において、肺動脈端の閉鎖に続く大動脈端の閉鎖の遅延のため、同部が憩室として残り、次第に発育すると考えられている^{10,15)}。また、大動脈縮窄症の存在を重視する報告もある^{13,18)}。臨床症状としては、動脈瘤の周囲臓器への圧迫による嘔声、呼吸困難、咳嗽、血痰、胸痛、嚥下障害等があるが、本症例のごとく無症状で経過し、偶然に発見される例もある。本症の予後に関して、

Contrast-enhanced CT

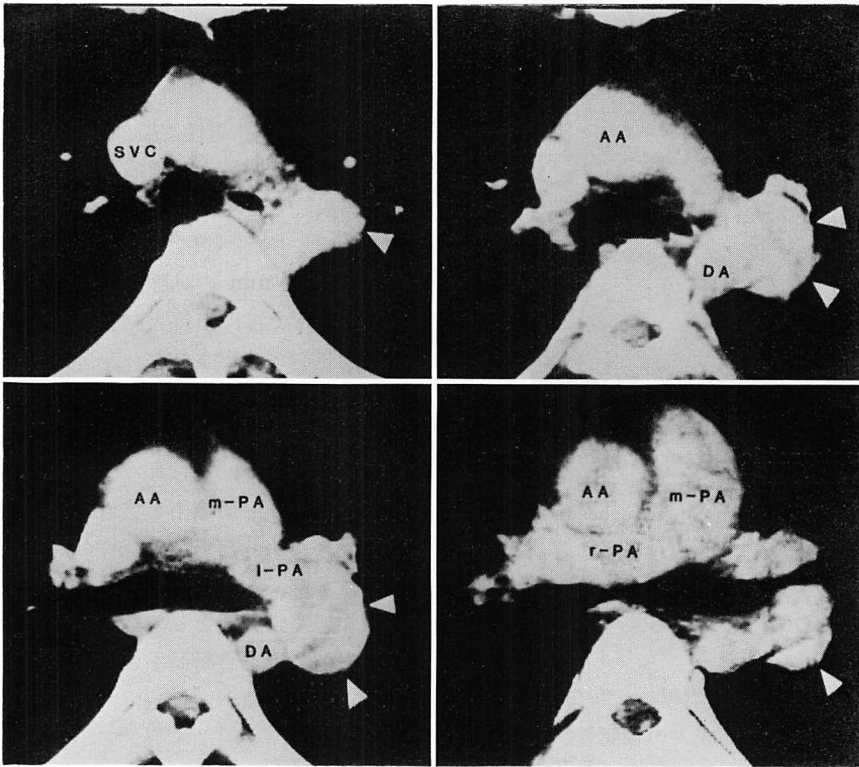


Fig. 4. Contrast-enhanced computed tomograms demonstrating a vascular mass contiguous with the descending aorta (indicated by arrowheads).

AA=ascending aorta; DA=descending aorta; m-PA=main pulmonary artery; l-PA=left pulmonary artery; SVC=superior vena cava; r-PA=right pulmonary artery.

Mitchell ら¹⁷⁾は21例のうち8例が合併症、主に破裂にて死亡していると述べ、最大径3 cm以上のもの、症状や動脈瘤の拡大が明らかなものに対しては、早急の手術を勧めている。

本症は、前述のようにまれな疾患であり、臨床検査が十分なされている症例は極めて少なく、その診断法が重要である。Cruickshank と Marquis¹⁰⁾は剖検例と手術例の検討より、以下の診断基準をあげている。すなわち、(1)動脈瘤が動脈管の部位より発生し、大動脈側に狭い茎を有し、肺動脈端が閉鎖していること、(2)動脈瘤は嚢状で、著しい動脈硬化の無いこと、(3)動脈管靭帯の付着していること、(4)外傷や大動脈解離の

既往の無いことである。本症例では、胸部CT像で、動脈瘤の診断、さらに動脈瘤と大動脈、肺動脈との位置関係が明らかになった。断層エコー図では、CT像の所見を参考に検索を行い、大動脈との連続性や左肺動脈との関連を知ることはできたが、全体像を把握することは容易ではなかった。最終的には、大動脈造影と右室肺動脈造影により、動脈瘤の形状、大血管との関連を確認し、本症と診断した。手術時、動脈管靭帯の付着は確認できなかったが、Mitchell ら¹⁷⁾の検討でも、この靭帯が確認されたものは33%にすぎないという。切除した動脈瘤は病理組織学的に真性動脈瘤と診断された。したがって、本症例は動脈管憩室

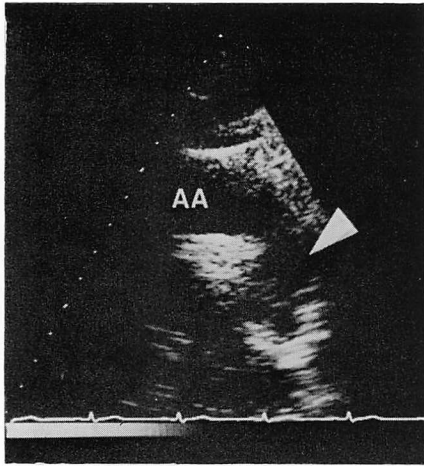


Fig. 5. Ssuprasternal left anterior oblique view of the two-dimensional echogram.

An aneurysm is indicated by an arrowhead.
AA=aortic arch.

動脈瘤と診断し得るものと考える.

結 語

発生頻度の非常にまれな成人の動脈管憩室動脈

瘤の診断に, CT および 大動脈造影が有用であったので報告した.

要 約

症例は 33 歳, 男性. 胸部 X 線上, 左肺門上部に大動脈窓を閉鎖する腫瘤陰影を指摘され, 検査のため入院した. 血圧 130/70 mmHg, 左右上下肢差無く, 胸部 CT で下行大動脈と肺動脈に接する 30×34 mm の動脈瘤を認めた. 大動脈造影と右室造影では, 下行大動脈上部に茎を有する囊状の動脈瘤が造影された. 左肺動脈基部がやや圧排されていた. 大動脈と肺動脈の交通は無く, 上行大動脈から下行大動脈への引き抜き圧測定にも有意な圧較差はみられなかった. 動脈管憩室動脈瘤と診断し, 切除術を施行した. 動脈管靭帯は確認できなかったが, 動脈瘤の局在, 病理組織学的所見より, 本症と確認された. 本症例は成人の動脈管憩室動脈瘤としては世界で 23 例目, 本邦では生前に確定診断し手術し得た初めての症例であると思われる.

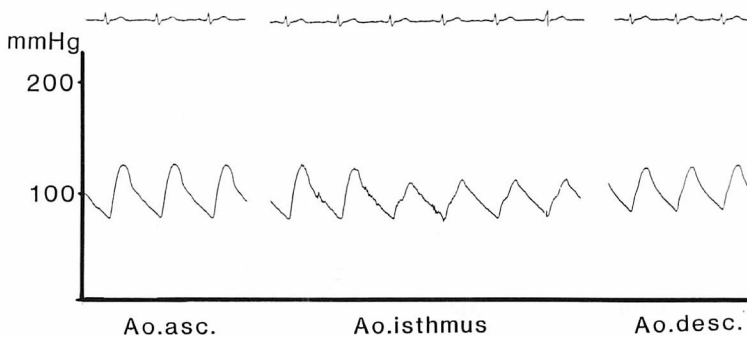


Fig. 6. Pressure curve of the aorta.

Ao. asc. =ascending aorta; isthmus=aortic isthmus; Ao. desc. =descending aorta.

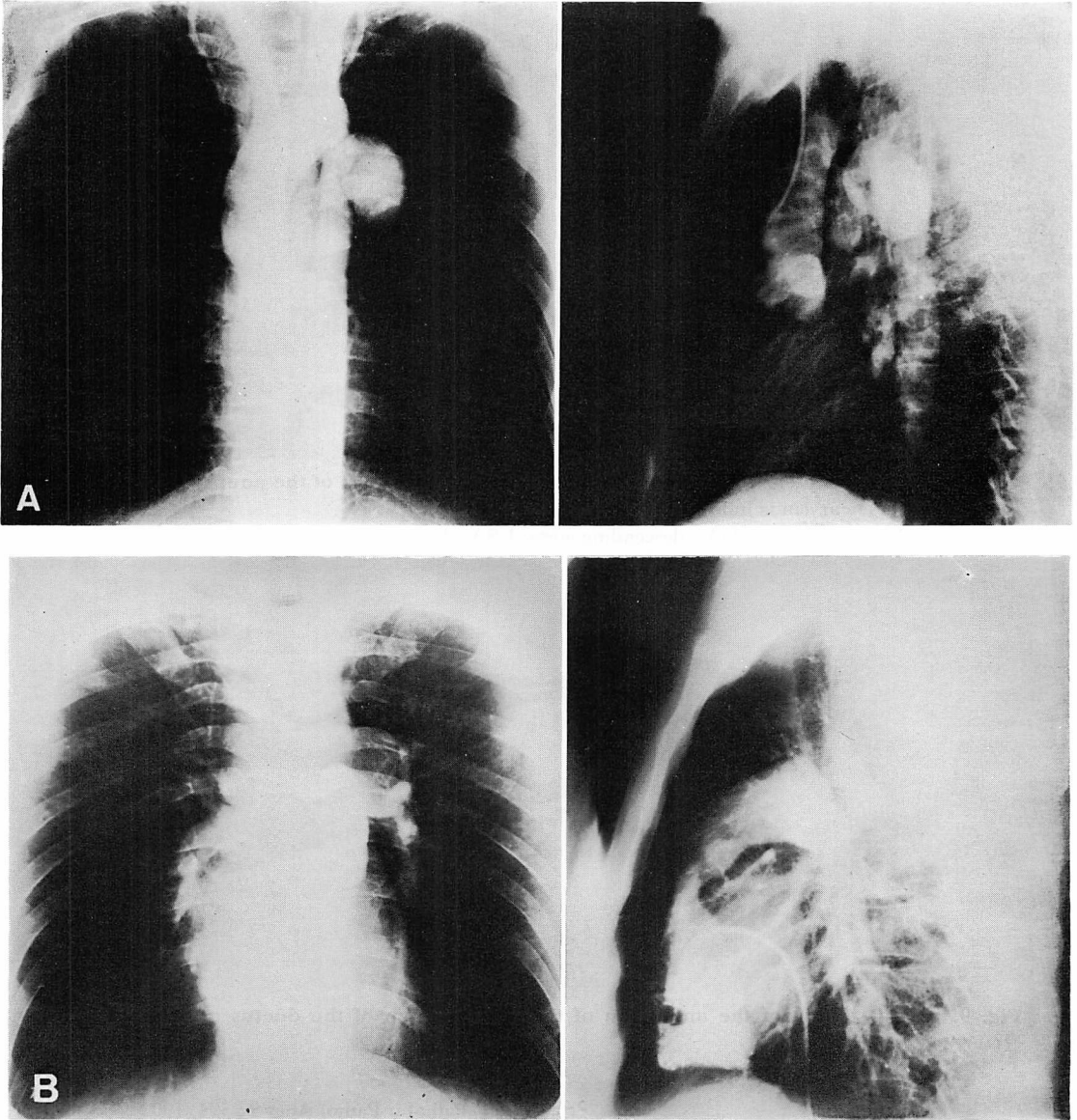


Fig. 7. Anteroposterior and lateral views of aortograms (A) and right ventriculograms and pulmonary angiograms (B).

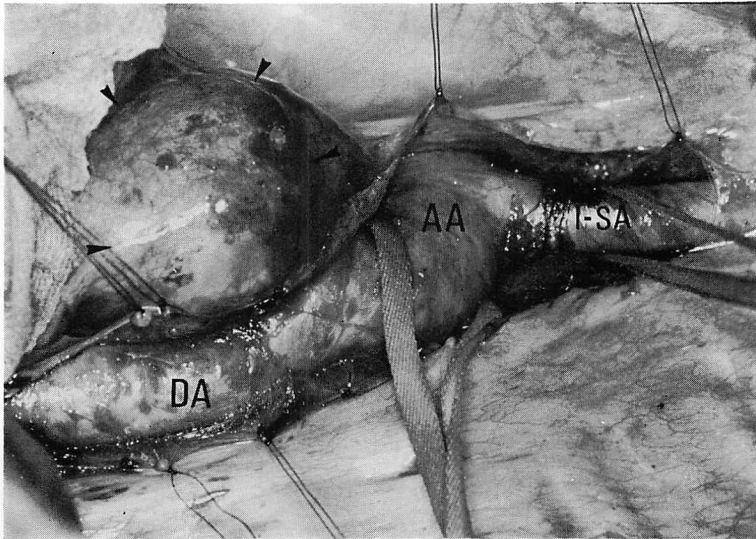


Fig. 8. Photograph showing the intraoperative situation of the aneurysm.
An aneurysm is indicated by arrowheads.
AA = aortic arch; DA = descending aorta; l-SA = left subclavian artery.

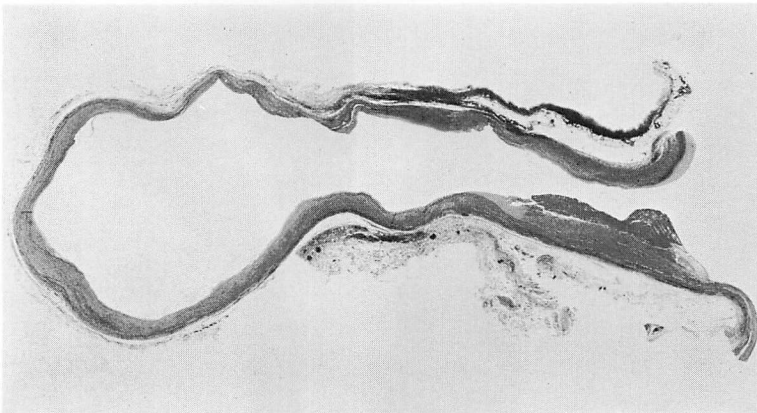


Fig. 9. Cross-section of the aneurysm of the diverticulum of the ductus arteriosus ($\times 10 \times 60\%$).

文 献

- 1) Thoma R: Ueber das Tractionsaneurysma der kindlichen Aorta. Virchows Arch Pathol Anat **122**: 535-551, 1890
- 2) Hebb RG: Aneurysm of ductus arteriosus and atheroma of pulmonary artery. Trans Pathol Soc Lon **44**: 45-47, 1892
- 3) Thorel C: Pathologie der Kreislauforgane. Ergebn

Pathol u Pathol Anat **9**: 594, 1903

- 4) Mönkeberg G: Einige Komplikationen bei Stenose des Isthmus aortae. Centrabl Pathol u Pathol Anat **18**: 816, 1907
- 5) Hammerschlag E: Ein Fall von wahrem Aneurysma des Ductus arteriosus Botalli. Virchows Arch Pathol Anat **258**: 1-8, 1925
- 6) Altschule M: Aneurysm of the arch of the aorta due to persistence of a portion of the ductus

- arteriosus in an adult. *Am Heart J* **14**: 113–115, 1937
- 7) Graham EA: Aneurysm of the ductus arteriosus with a consideration of its importance to the thoracic surgeon. *Arch Surg* **41**: 324–333, 1940
 - 8) Mackler S, Graham EA: Aneurysm of the ductus Botalli as a surgical problem. *J Thorac Surg* **12**: 719–727, 1942
 - 9) Dvorák L, Schmittova M: Aneurysma arteriove duceje. Klinico-anatomicka studie. *Cas Lek Cesk* **92**: 1171–1174, 1953
 - 10) Cruickshank B, Marquis RM: Spontaneous aneurysm of the ductus arteriosus. *Am J Med* **25**: 140–150, 1958
 - 11) Otto L: Todliche Ruptur eines Aneurysmas des Ductus arteriosus Botalli im Erwachsenenalter. *Thoraxchir Vas Chir* **12**: 340–344, 1964
 - 12) Hoffmann E: Zur klinischen Bedeutung der partiellen Persistenz des Ductus arteriosus. *Zentralbl Chir* **89**: 1343–1348, 1964
 - 13) Bosman C, Leoncini B: On the pathogenesis of a case of ductus arteriosus aneurysm. *Acta Cardiol* **22**: 279–288, 1967
 - 14) Cheng TO: Aneurysm of a nonpatent ductus arteriosus. An unusual case of mediastinal mass. *Chest* **55**: 497–500, 1969
 - 15) Boro KM, Hassel SJ, Sloss LJ: Fistulous aneurysm of ductus arteriosus. *Br Heart J* **45**: 467–470, 1981
 - 16) Adachi K, Tamimura A, Nakashima T, Koga Y, Tashima H: Aneurysm of the ductus arteriosus. *Angiologia* **29**: 33–39, 1978
 - 17) Mitchell RS, Seifert FC, Miller DC, Jamieson SW, Shumway NE: Aneurysm of the diverticulum of the ductus arteriosus. *J Thorac Cardiovasc Surg* **86**: 400–408, 1983
 - 18) Falcone MW, Perloff JK, Roberts WC: Aneurysm of the non-patent ductus arteriosus. *Am J Cardiol* **29**: 422–425, 1972