

【症例報告】

動脈硬化性変化を伴う右膝窩動脈外膜囊腫の一例

織井 恒安¹ 田中 圭¹ 木ノ内 勝士¹ 橋本 和弘²

¹富士市立中央病院心臓血管外科

²東京慈恵会医科大学心臓外科学講座

(受付 平成 30 年 2 月 5 日)

A CASE OF ADVENTITIAL CYSTIC DISEASE OF THE RIGHT POPLITEAL ARTERY ACCOMPANIED BY ARTERIOSCLEROTIC FINDINGS

Koan ORII¹, Kei TANAKA¹, Katsushi KINOUCHI¹, and Kazuhiro HASHIMOTO²

¹*Division of Cardiovascular Surgery, Fuji City General Hospital*

²*Cardiovascular Surgery, The Jikei University School of Medicine*

We experienced a rare case of adventitial cystic disease of the right popliteal artery. A 45-year-old man complained of intermittent claudication in the right leg for two months. The brachial pressure index (ABI) at the right ankle was 0.43. Preoperative computed tomography demonstrated calcification between abdominal aorta and both side of iliac arteries, segmental occlusion of the right popliteal artery and collateral vessels to the peripheral arteries. Percutaneous transluminal angioplasty (PTA) was selected first, because we diagnosed that arteriosclerosis obliterans (ASO) was the main cause of the occlusion. However, plain old balloon angioplasty (POBA) was unsuccessful due to acute elastic recoil. Surgical reconstruction using the saphenous vein graft was performed. Intra-operative and post-operative pathological findings revealed that adventitial cyst was the main cause of the occlusion. Postoperative ABI improved to normal range and the patient's symptom resolved. The patient is doing well with no recurrence one year after the operation. Conclusion: An adventitial cystic disease should be suspected before performing plain old balloon angioplasty especially in comparatively younger patient with or without accompanying atherosclerotic finding. Noninvasive imaging including us and CT scan should be performed routinely prior to performing interventional therapy for PAD to rule out non-atherosclerotic diseases including adventitial cystic disease.

(Tokyo Jikeikai Medical Journal 2018;133:77-80)

Key words : adventitial cystic disease of the right popliteal artery, arteriosclerosis obliterans, plain old balloon angioplasty, saphenous vein graft

I. 緒 言

外膜囊腫は動脈外膜に発生する多房性囊胞の圧迫により血管内腔が狭窄または閉塞するまれな疾患である。診断には動脈壁の形状も抽出できる超音波検査，3D-CT検査，MRI，動脈造影検査が有効であるが，頻度の少ない疾患だけに医師や検査技師が外膜囊腫の所見を念頭に置いて検査を行わ

ないと特徴的な所見を見落としてしまう危険がある。今回我々は若年者の腸骨動脈領域のみに動脈硬化性石灰化を伴う右膝窩動脈閉塞に対して、術前画像検査によって外膜囊腫を鑑別することができずにカテーテル治療を試みた後に外科的治療に方針を切り替え、伏在静脈による動脈置換術を施行した症例を経験したので考察を加えて報告する。

II. 症 例

患者：45歳 男性

主訴：間歇性跛行

既往歴および家族歴：特記すべき事項なし

現病歴：2016年10月下旬より200 m歩行で右ふくらはぎの痛みを自覚するようになり、富士市立中央病院（以下、当院）循環器内科を受診した。入院時現象：身長169 cm，体重84.9 kg，BMI 29.7，血圧136/82 mmHg，脈拍88回/分 整，体温36.4度，右膝窩動脈以下末梢の脈拍は触診で確認できずドプラーで足背動脈，後脛骨動脈の血流が確認できた。Ankle Brachial Pressure（以下ABI）は右0.43/左1.06であった。下腿浮腫やチアノーゼは認めなかった。血液検査ではγ-GTP 73，中性脂肪270が異常値として認められた。

下肢血管エコー検査：膝裏で膝窩動脈は約25 mm長で完全閉塞し、外膜嚢腫を疑う所見を認めなかった。

下肢動脈CT検査：両側総腸骨動脈から腸骨動脈にかけて散在性に石灰化を認めた。大腿動脈以下末梢には石灰化を認めなかったが右膝窩動脈は膝関節部上方で限局的に完全閉塞していた（Fig. 1-1）。以上より循環器内科にて、動脈硬化性閉塞を疑い Percutaneous Transluminal Angioplasty（以下PTA）の方針とした。

カテーテル検査所見：左大腿動脈からアプローチ下肢造影を行うと膝上で膝窩動脈は完全閉塞しており側副血行により末梢が造影された（Fig. 2）。関節部でありステント留置適応外のため Plain Old Balloon Angioplasty（POBA）による拡張を試みたところ、

閉塞部はインフレーションに合わせて容易に血管内腔は拡張するもののバルーン虚脱に合わせて動脈内腔は直ちに再閉塞する状態であった。

この時点で外膜嚢腫などの非動脈硬化性閉塞の可能性を疑いカテーテル治療を断念し、当院心臓血管外科に手術依頼となり、外科的血行再建に方針を切り替えた。

手術：全身麻酔下に仰臥位で左大腿部より大伏在静脈を採取した。続いて腹臥位に体位変換して後方到達法により膝窩動脈を露出した。ゼリー状物質を内包する嚢腫は数珠状に膨隆し長径約25 mmの範囲でほぼ全周性に膝窩動脈を取り巻いていた（Fig. 3-1）。嚢腫を膝窩動脈ごと一塊で切除し、先に採取した静脈グラフトで置換した（Fig. 3-2）。病理所見：肉眼的には切除した外膜嚢腫の大きさは10×10×25 mmで、内部は黄色いゼリー状物質で満たされていた。ゼリー状物質を除去すると血管内腔は容易に開通した。組織学的には外膜から起始する繊維性嚢胞で、外弾性版を超える血管内腔側への交通は認められなかった。

術後経過：術直後より足背動脈・後脛骨動脈ともに触知良好であり、ABIは右0.97/左1.06まで改



Fig.1-1. Preoperative computed tomography. Occlusion of right popliteal artery without arteriosclerotic calcification even though there were few calcifications at both side of iliac arteries (arrow). Fig. 1-2. Postoperative Computed tomography. A saphenous Vein graft (arrow).



Fig.2. Angiography. Right popliteal artery was occluded above knee (arrow).

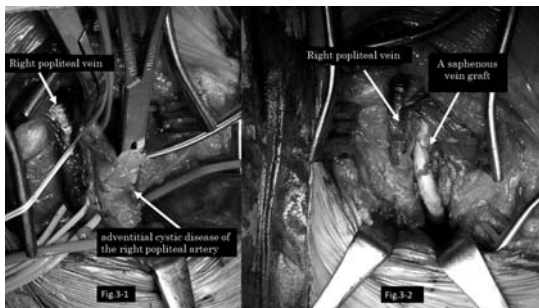


Fig.3-1. Right popliteal vein. Adventitial cystic disease of the right popliteal artery.

Fig.3-2. Right popliteal vein. A saphenous vein graft.

善した。術後の下肢動脈3D-CTでグラフトは良好に開存していた (Fig.1-2)。

術直後よりアスピリンとワーファリンの内服を開始し、3ヵ月後にはワーファリンは終了とした。術後約1年6ヵ月が経過しているが、現在もABIの低下および間欠性跛行等の症状を認めず良好に経過している。

III. 考 察

動脈外膜囊腫は末梢動脈の外膜と中膜の間に発生したゼリー状物質を内包する囊腫によって患部の動脈内腔が狭窄または閉塞する非動脈硬化性の疾患である。1947年にAtkinsらによって左外腸骨動脈に生じた粘液腫瘍として初めて報告されたが¹⁾、膝窩動脈外膜囊腫としての初報告は1954年Ejrupらによる²⁾。動脈外膜囊腫は大腿動脈、橈骨動脈、尺骨動脈など様々な場所に発生するが膝窩動脈が85%を占める³⁾。原因として①反復外傷説⁴⁾、②滑膜組織の動脈壁内迷入説⁵⁾、③滑膜細胞化生説⁶⁾、④全身性粘膜炎説⁷⁾、⑤先天性形成異常説⁸⁾などが挙げられるが複数因子関与の可能性もあり定説には至っていない。

大澤らの集計では発生頻度は間欠性跛行を呈する患者1,200人に1人程度で、男性に多く(87.1%)、好発年齢は平均50歳(17-78歳)で動脈硬化性疾患に比べて若年に発生する傾向があった⁹⁾。

臨床経過は動脈硬化性閉塞に比べて比較的急激な経過をたどることが多いが、一方で自然消失の報告もある¹⁰⁾¹¹⁾。

診断には超音波検査、血管造影検査、造影CT検査、MRI検査など画像診断が有効であるが、本症例は超音波検査で明らかな囊腫による膝窩動脈の圧排所見を同定できなかったこと、CT検査上腹部大動脈から総腸骨動脈にかけて石灰化が認められたこと、そして閉塞部以下の末梢動脈が側副血行により造影されたこと、さらにはBMI高値や脂質異常を伴っていたこと、などから安易に動脈硬化性閉塞を疑い、動脈硬化を合併した膝窩動脈外膜囊腫である可能性について考慮できなかった。

今回は知識と経験不足により確定診断が遅れたことは否めないが、動脈硬化に起因する下肢動脈

閉塞性疾患が圧倒的に多い中で動脈硬化性または非動脈硬化性の二者択一ではなく動脈硬化性変化を合併した外膜囊腫が存在することも念頭に入れて術前検査を進めることの重要性があらためて示唆された。

術後適宜的に術前検査をみかえしたところ、CTのaxial imageは閉塞部に一致してLow densityな物質を内包する被膜に包まれた領域があり外膜囊腫を疑うべき所見であると認識した (Fig. 4)。

治療法については高橋らによる本邦における報告116例の検討で囊腫壁切除のみ41例、囊腫壁切除後に自家静脈パッチをあてたもの3例、人工血管パッチをあてたもの3例、自家静脈によるバイパス6例、血管切除および49例(自家静脈置換39例、自家静脈バイパス3例、人工血管置換5例、直接吻合2例)、囊腫切開3例、経皮的血管形成1例、自然退縮2例など多彩であった¹²⁾。

早期の開存率についてTsolakisらは、囊腫内容吸引や囊腫切開/切除などの非動脈切除群が89%であったのに対して、自家静脈や人工血管置換などの動脈切除群が94%と若干ではあるが動脈切除群の成績が良好であったと述べている¹³⁾。

多房性外膜囊腫の吸引が不十分な際には再発の可能性があり、外膜切除や切開による動脈壁の脆弱化が懸念されることなどから、我々は動脈切除と置換術を選択した。病巣が膝関節の可動部に一致することから自家静脈による置換を選択したが、長期開存に関して置換術が最善であるか否か、さらには自家静脈か人工血管のどちらが優れているかについても明らかとなっていない。

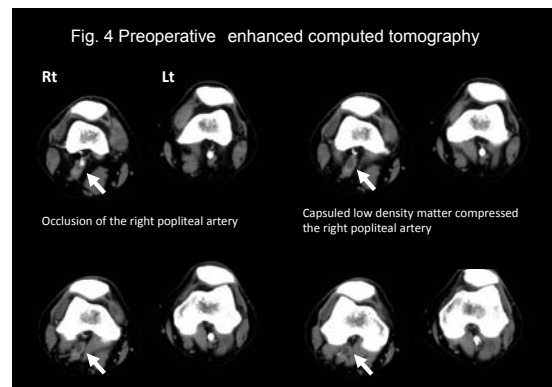


Fig. 4. Preoperative Computed tomography. Capsuled low density matter compressed the right popliteal artery was confirmed in retrospective consideration.

IV. 結 語

今回、若年であり中枢側に軽度の動脈硬化性病変と伴ってはいたが外腸骨動脈以下末梢は動脈硬化性変化を伴っていないことからより早期に外膜嚢腫の可能性を考慮すべきであった症例を経験した。膝窩動脈外膜嚢腫は稀な疾患ではあるが心臓外科、循環器内科、放射線科にとって経験の有無にかかわらず確定診断と適切な治療選択のために、常に念頭に置くべき重要な疾患であることを再認識した。まだ確立された治療法はないものの自家静脈グラフトによる置換術は再発率や早期開存率からみて有効な手段であると考えられた。

著者の利益相反 (conflict of interest : COI) 開示 :

本論文の研究内容に関連して特に申告なし

文 献

- 1) Atkins HJ, Key JA. A case of myxomatous tumor arising in the adventitia of the left external iliac artery; case report. *Br J Surg.* 1947;34:426-7.
- 2) Ejrup B, Hiertonn T. Intermittent claudication; three cases treated by free vein graft. *Acta Chir Scand.* 1954;108:217-30.
- 3) Tsilimparis N, Hanack U, Yousefi S, Alevizakos P, Ruckert RI. Cystic adventitial disease of popliteal artery: an argument for the developmental theory. *J Vasc Surg.* 2007;45:1249-52.
- 4) Ward AS, Reidy JF. Adventitial cystic disease of the popliteal artery. *Clin Radiol.* 1987;38:649-51.
- 5) Jay GD, Ross FL, Mason RA, Giron F. Clinical and chemical characterization of an adventitial popliteal cyst. *J Vasc Surg.* 1989;9:448-51.
- 6) Lassonde J, Laurendeau F. Cystic adventitial disease of the popliteal artery. Clinical aspects and etiology. *Am Surg.* 1982;48:341-343.
- 7) Flanigan DP, Burnham SJ, Goodreau JJ, Bergan JJ. Summary of cases of adventitial cystic disease of the popliteal artery. *Ann Surg.* 1979;189:165-75.
- 8) Nicolau H, Calen S, Gourul JC, Stoiber HP, Cesarini M, Videau J. Adventitial cysts of the popliteal artery. *Ann Vasc Surg.* 1988;2:196-8.
- 9) 大澤晋, 入江博之, 森田照正. 膝窩動脈外膜嚢腫の1治験例. *日心臓血管外会誌.* 2003;32:256-9.
- 10) Vos LD, Tielbeek AV, Vroegindeweij D, van den Bosch HC, Buth J. Cystic adventitial disease of the popliteal artery demonstrated with intravascular US. *J Vasc Interv Radiol.* 1996;7:583-6.
- 11) Owen ER, Speechly-Dick EM, Kour NW, Wilkins RA, Lewis JD. Cystic adventitial disease of the popliteal artery: a case of spontaneous resolution. *Eur J Vasc Surg.* 1990;4:319-21.
- 12) 高橋秀樹, 西岡成知, 筋隆. 間欠性跛行にて発症した膝窩動脈外膜嚢腫に対する1手術例: 本邦における116例の検討も含めて. *日心臓血管外会誌.* 2010;39:220-5.
- 13) Tsolakis IA, Walvatre CS, Caldwell MD. Cystic adventitial disease of the popliteal artery: diagnosis and treatment. *Eur J Vasc Endovasc Surg.* 1998;15: 188-94.