

遺残坐骨動脈瘤に対し Excluder 脚を用い 血管内治療を行った 1 例

下石光一郎, 荒田憲一, 福元祥浩, 松葉智之, 緒方裕樹, 植村翼, 四元剛一

遺残坐骨動脈瘤に対し Excluder 脚を用い 血管内治療を行った 1 例

下石光一郎, 荒田憲一, 福元祥浩, 松葉智之, 緒方裕樹, 植村翼, 四元剛一

鹿児島市立病院心臓血管外科

A case of endovascular treatment of a persistent sciatic artery aneurysm using the Excluder leg

Koichiro SHIMOISHI, Kenichi ARATA, Yoshihiro FUKUMOTO, Tomoyuki MATSUBA,
Yuki OGATA, Tsubasa UEMURA, Goichi YOTSUMOTO.

Department of Cardiovascular Surgery, Kagoshima-city Hospital
(Received 13 June 2023; Revised 24 August 2023; Accepted 22 September 2023)

* Address to correspondence

Koichiro SHIMOISHI
Department of Cardiovascular Surgery,
Kagoshima-city Hospital
37-1 Uearata, Kagoshima, Japan, 890-0055
Phone: +81-99-230-7000
e-mail: shimoishi3@gmail.com

Abstract

A persistent sciatic artery (PSA) is a very rare with an estimated incidence of 0.01-0.06%. PSAs can have associated aneurysm formation 15% to 44% of the time, which can result in thromboembolism, rupture, or pain secondary to permanent paraly due to sciatic nerve compression. There are no guidelines for the treatment of persistent sciatic artery aneurysms, and treatment procedures have not yet been established. In Europe and the United States, the treatment is the aneurysm resection and replacement or the embolization of the aneurysm with bypass surgery, and endovascular treatment of aneurysms with stent grafts. Japan has many challenges to solve for treatment of persistent sciatic artery aneurysm (PSAA), and there is not a single stent graft device that is reimbursed by insurance in Japan. Therefore, there have been very few case reports on the use of endovascular stent-grafts for PSAAs. In this report, we describe a case of endovascular treatment of a PSAA and discuss the literature review.

Key words: persistent sciatic artery aneurysm, endovascular surgery, vascular prosthesis

抄録

遺残坐骨動脈は稀な疾患でありその有病率は0.01-0.06%程度と報告されている。また15%～44%の確率で動脈瘤形成を伴うとされ、血栓塞栓症、破裂、坐骨神経圧迫による不可逆的な麻痺や疼痛の原因となるとも報告されている。遺残坐骨動脈瘤に対する治療のガイドラインは本邦を含め欧米でもまだ示されておらず、治療法も確立されていない。欧米では遺残坐骨動脈瘤の治療法として動脈瘤切除人工血管置換術や動脈瘤の塞栓術にバイパス術を併施する手術、ステントグラフトを用いた血管内治療が行われている。本邦は遺残坐骨動脈瘤の診療に対して解決すべき課題は多く、本邦には保険償還が認められているステントグラフトデバイスもない。そのためステントグラフト内挿術を選択した症例報告は本邦では非常に少ない。今回、当院で行った遺残坐骨動脈瘤の1症例の治療経験に文献的考察を合わせて報告する。

背景

遺残坐骨動脈は稀な疾患でありその有病率は0.01-0.06%程度と報告されている¹⁻⁵⁾。また15%～44%の確率で動脈瘤形成を伴うとされ、血栓塞栓症、破裂、坐骨神経圧迫による二次的な疼痛の原因となるとも報告されている⁴⁾。欧米でも未だガイドラインが策定されておらず、本邦の末梢血管疾患のガイドライン内では治療法として動脈バイパス術や血管内治療で良好な短期成績が得られているとの報告がある程度の記述がされているだけである⁶⁾。本邦では遺残坐骨動脈瘤の治療にステントグラフト内挿術を選択した症例報告は少ないのが現状である。

症例

症例：74歳女性。

病歴：4年前に肺癌の外科手術を受け1年毎のCT画像での経過フォローを続けている。その際に右の遺残坐骨動脈の瘤化(最大短径20mm)が観察された。その後の4年間のフォローCTの観察経過で増大し続け最大短径が41mmまで増大した時点で当科外来に紹介となった。

現症：右臀部に座位時に拍動を自覚していた。疼痛の自覚はなかった。

CT画像：右内腸骨動脈は上臀動脈と分岐した2.5cm足側以降末梢側に向かって拡張し、大臀筋の裏面に接して動脈瘤を形成していた。動脈瘤の全長は7cm程で、以降足側には瘤化はなく膝窩動脈へ連続し、下腿3分枝へ血流を供給していた。通常存在する浅大腿動脈の退縮が認められる完全型の遺残坐骨動脈を呈していた。(Fig. 1)

治療法を決定する上で患者と患者の家族に対し、遺残坐骨動脈瘤に対する本邦と欧米諸国のガイドラインでは治療の適応の基準、治療法の選択基準は示されていないことを説明し、治療法についても外科的切除と血管内治療どちらも例示されている事、血管内治療の手技的成功率や短期成績は良好だが長期成績は不明であると記載されており明示された基準はないことを説明した。類似疾患として膝窩動脈瘤があり、その手術適応瘤径は20mm以上である事⁷⁾も説明し、遺残坐骨動脈瘤の瘤径には明確

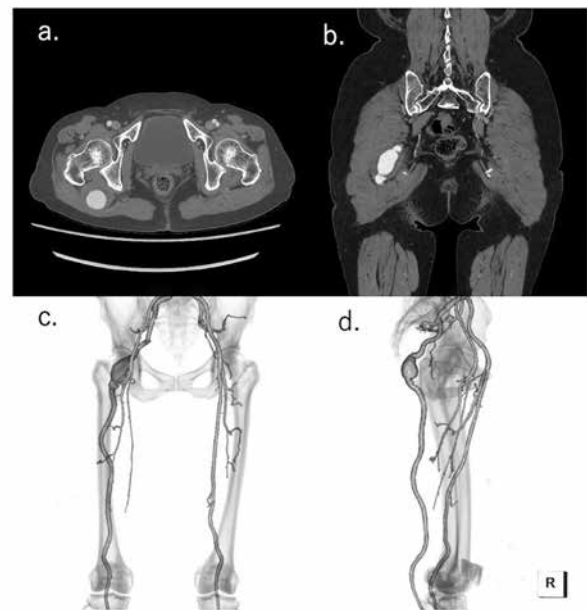


Figure 1 The pre-operative enhanced CT images (Fig. 1a, 1b) and CT Angiography (Fig. 1c, 1d) images.

(B) Four patterns of histograms of the number of days from the last blood draw to death are shown. The number of days before death was shown in terms of median values (interquartile range) because all groups had non-normal distribution.

な治療適応基準はないが拡大傾向があり、内部に壁在血栓があるため、破裂と急性下肢動脈血栓閉塞の両方を回避する目的での手術を提案した。患者本人とご家族が熟考の上で血管内治療を希望された。

術前現症・検査：身長 147cm, 体重 48.1kg,

血圧 121/62mmHg, 脈拍 76/分。

胸部レントゲン写真：肺野に浸潤影なし、心拡大なし(CTR=46%)。

既往：甲状腺機能低下症(37歳), 右下葉肺腺癌(69歳 胸腔鏡下肺切除術)。

常用薬：レボチロキシンナトリウム 50 μ gを1日1回朝食後に内服。

心電図：心拍数79回/分, 洞調律, 虚血性変化なし。

経胸壁心エコー検査：EF=77%，明らかな心室の壁運動低下領域なし。

Ankle brachial index (ABI): 右 0.98, 左 1.01.

血液検査所見：白血球数 5000/ μ L, ヘモグロビン 12.0g/dL, ヘマトクリット 37.3%, 血小板数 21.2万/ μ L, Cre 0.51mg/dL, BUN 13.4mg/dL, CK 57U/L, CRP 0.10mg/dL, APTT 25.2秒, PT-INR 0.94, D-ダイマー 16.4 μ g/mL, HbA1c 5.6%.

手術：腹臥位にて手術を開始。右膝裏の中央に1.5cm長の横切開を行い，皮下の筋膜下に膝窩動脈を同定し露出した。膝窩動脈を穿刺し6Fr.シースを刺入した。0.035-inch Radifocus Guide™ Wire M Standard Type (Terumo Corp., Tokyo, Japan)にて腹部大動脈までのルートを確認し0.035-inch EGOIST® Flex Interventional Guide Wire (Medicos Hirata Inc., Osaka, Japan)に入れ替えた後12Fr.のドライシールシーす(W.L. Gore and Associates Inc., Flagstaff, AZ, USA)を留置した。遺残坐骨動脈瘤のステントグラフト治療における末梢のシーリングゾーンの内径は8.6mmであったため10mm径のEPICステント(Boston Scientific Incorporated, Marlborough, Massachusetts)を動脈壁の過拡張予防に先行して抹消のシーリングゾーンの動脈に対し保護的に留置した。その後末梢径が12mmのExcluder(W.L. Gore and Associates Inc., Flagstaff, AZ, USA)の脚を積み上げて展開留置した。ついで動脈瘤のシーリングゾーンの留置予定位置を再度動脈造影で確認して，Excluderの脚デバイスと同じく補助部品であるGore Excluder iliac branch endoprosthesis; IBE(W.L. Gore and Associates, Inc. Flagstaff, AZ, USA)を用いて中枢径が10mmとなるようにデバイスを展開留置した。確認造影を行うとtype IIIのエンドリークを認めた。バルーンでタッチアップしてもエンドリークが消失しないため，末梢径が12mmのExcluderの脚をオーバーラップ部位に補強のため留置を追加で行った。これによりエンドリークが消失したため血管内治療を終了とした。(Fig. 2a, 2b)

手術時間は1時間4分，手術出血は5ccであった。

術後レントゲン：術後に椅子に座位を取らせレントゲン撮影を行い，Excluderの脚は座位による臀部への荷重時にも折れが生じていない事を確認した。(Fig 2c, 2d)

術後確認CT：Excluderの脚は動脈の曲がり追随し瘤内にエンドリークがないことが確認できた。(Fig. 2e, 2f)

術後ABI: 右 1.01, 左 1.04.

経過：術後3ヶ月目の外来経過観察で撮影したCT検査で遺残坐骨動脈瘤の最大短径は30mmまでの縮小を認めた。またレントゲン撮影でもステントグラフト骨格の変形や折れもなく手術直後の状態を維持していることを確認した。

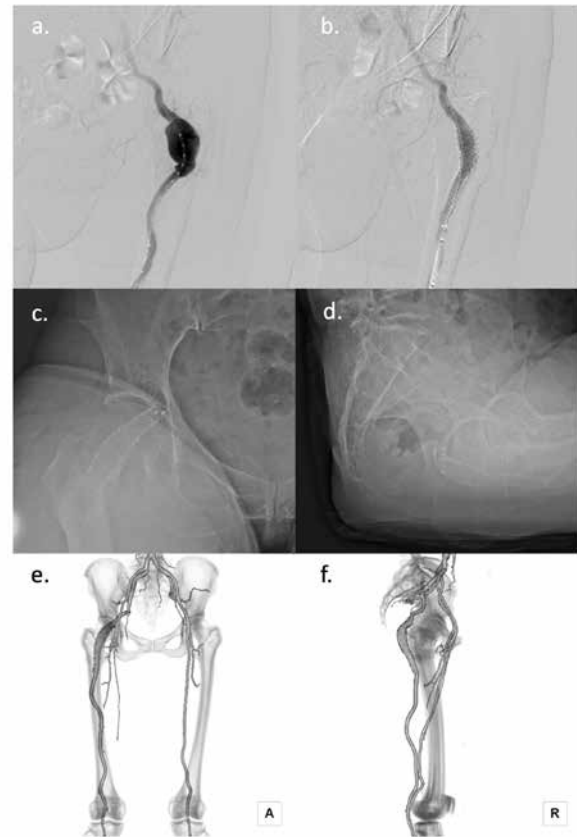


Figure 2

Intra-operative angiographies, post-operative X-ray and CT angiography images. The Post-operative X-ray and CT angiography images showed that the stent-grafts were not fractured and no kinking.

倫理的配慮

本症例報告に際し，ご本人・ご家族へインフォームドコンセントを行い，治療方針・症例報告への同意を得ている。治療の妥当性と症例報告における検討を行い院内倫理委員会での承認も取得した。

考察

遺残坐骨動脈は前述のように非常に稀な動脈奇形であるが，その遺残形式によって7つのタイプに分類される⁴⁾。本症例は2a型に分類され，治療法については未だガイドラインが策定されておらず未だ確立されていない部分が多くあるが人工血管置換術や動脈バイパス術が従来から行われている術式である。しかし近年では遺残坐骨動脈瘤に対する治療として動脈塞栓術と動脈バイパス術とを同時施行したハイブリッド手術の治療例やExcluderやVIABAHN(W.L. Gore and Associates Inc., Flagstaff, AZ, USA)に代表されるステントグラフトを用いた血管内治療例が多数報告^{3), 4), 8-10)}され，欧米諸国をはじめ海外で

は遺残坐骨動脈瘤の治療戦略の16-19%が血管内治療であったとする報告^{3), 8)}もある。特にステントグラフトを用いる術式が海外で選択されている理由は、ヨーロッパではVIABAHNは冠動脈、頭頸部動脈をのぞく末梢動脈瘤に対して治療適応疾患としての認可があり、米国でもGORE社がVIABAHNを用いた膝窩動脈瘤への治療の有効性をホームページ上で紹介している。しかし本邦では遺残坐骨動脈瘤を含む末梢動脈の動脈瘤への適応を認可され保険償還が認められているステントグラフトがないため遺残坐骨動脈瘤に対してもステントグラフト内挿術で治療を行なった報告が少ない^{10), 11)}。海外においても末梢動脈瘤の治療にステントグラフトを用いて血管内治療を行なった症例の長期開存成績に関してはまだ遠隔期の統計学的なデータはなく血管内治療が優位であると断言することは出来ないため、我々の施設でも慎重に遠隔期成績の報告の動向を追っていかねばならないと考えている。ただし、もし仮に遺残坐骨動脈内に留置したステントグラフトが閉塞しても、急性下肢動脈虚血に対しては大腿膝窩動脈バイパス術がリカバリー法として緊急手術時にも施行し得るため、まずは低侵襲治療を選択することにはメリットが十分にあるものと我々は考え治療法としてステントグラフト内挿術も提案した。また、全く同じ条件ではないが参考とできる似た疾患として、本症例のように関節部の屈曲位置にできた四肢の末梢動脈瘤への治療という状況で類似する膝窩動脈瘤に対しての血管内治療の成績が参考となる。Antonello Mらは膝窩動脈瘤に対する血管内治療と人工血管置換術の治療後8年間の成績を比較検討し、開存性は同等であったと報告している¹²⁾。本症例のように瘤が股関節部近傍に位置し関節屈曲の影響を強く受ける状況は近く、血管内治療を選択する事を否定しない結果であると考えた。ただし膝窩動脈瘤の血管内治療と違う点として、瘤が臀部に位置するために座位をとると上半身の荷重がかかる事にも留意をしなければならないと考えられる。本症例のような大臀筋の真裏に位置する動脈瘤にステントグラフトを内挿した場合には、上半身の体重によるデバイスへの圧迫でステント骨格の破損や内腔が押し潰されることによるステント破損が起こり得る。そのためステントグラフトデバイスを複数枚重ねて留置する事で強度を上げる工夫もなされている⁹⁾が、それぞれのデバイスの種類毎でどれほどの圧力に耐えられるかは未知数である。我々も今回の症例で動脈瘤が大臀筋の裏に位置しており、座位時に強い屈曲と他の関節部よりも日常生活の中で荷重がかかると想定されるため、内腔の狭窄や骨格の破損が起きる可能性を危惧した。そのため我々は術前に使用するデバイスはVIABAHNとExcluderの脚のどちらがより適するか検討した。VIABAHNは0.1mm径のナイチノール合

金で構成されているのに対し、2倍の0.2mm径の太さをもつExcluderのレッグの方が遠隔期までにステント骨格の破損や座位による内腔の狭窄でデバイス内閉塞するリスクが低いのではないかと考えた。また、我々は解剖が正常であれば下臀動脈に相当する位置に発生した腸骨動脈瘤類似動脈瘤と考え腸骨動脈や臀動脈に留置できるデバイスとしてもExcluderの選択を行なった。術後3ヶ月後の外来で、実生活を送っている条件でのステントグラフトの追従性や内腔の拡張性を検証するために、座位にて荷重レントゲン撮影を行った状態でExcluder脚の骨格がどのように変化するか撮影した。その結果、座位による荷重があってもステント骨格が押し潰されることはなく、股関節の屈曲に対しても動脈に沿ったステントグラフトの良好な追従が得られていた事が確認できた。また単純CT画像でも1cmの遺残坐骨動脈瘤の径の縮小を確認できた。遺残坐骨動脈瘤の破裂に対しての治療は術後3ヶ月目の時点で動脈瘤径の縮小が確認できたため有効であったと評価した。遺残坐骨動脈瘤に対するステントグラフト内挿術の長期成績の評価のためには開存性の評価についても継続していかねばならないが、前述のように適切な観察期間について明示されたガイドラインも研究も未だないため、今後当院では術後から一年毎の画像的フォローとABIフォローを継続するように検討している。ただし、全ての症例において血管内治療での治療が良いと考えているのではなく、遺残坐骨動脈瘤の瘤径が約12cmと巨大であった症例では、主訴が座位時の臀部の疼痛であった事から、瘤を切除し、瘤自体による圧迫を解除すべきと考え瘤切除と人工血管での動脈再建術を選択した症例も経験した。今回の症例の様に瘤による神経や周囲組織の圧迫性の症状がない症例の場合にはその低侵襲性のメリットを生かした遺残坐骨動脈瘤に対する治療法としてステントグラフト内挿術が本邦でも十分な治療のオプションとなり得ると考えた。今後本邦からも多くの報告が出て有効性が認められるようになれば、欧米のように四肢動脈瘤の治療に対する治療器具としてステントグラフトが多種認められるようになり、症例の状況に応じた適切な治療の選択ができるようになるのではないかと期待し報告した。

結語

瘤の増大・圧迫による有痛性の症状がない遺残坐骨動脈瘤に対しての治療法としてステントグラフト内挿術が有用なオプションとなり得た1例を提示し報告した。

利益相反の開示

共著者全員が利益相反はない。

文献

- 1) Brantley SK, Rigdon EE, Raju S. Persistent sciatic artery: embryology, pathology and treatment. *J Vasc Surg* 1993; 18: 242-248.
- 2) Ikezawa T, Naiki K, Moriura S, et al. Aneurysm of bilateral persistent sciatic arteries with ischemic complications: Case report and review of the world literature. *J Vasc Surg* 1994; 20: 96-103.
- 3) Alexander G, Braian K, Cheong JL, et al. A hybrid approach for the treatment of persistent sciatic artery aneurysms. *J Vasc Surg Cases* 2016; 2: 174-177.
- 4) Maldini G, Teruya TH, Eklof B, et al. Combined percutaneous endovascular and open surgical approach in the treatment of a persistent sciatic artery aneurysm presenting with acute limb-threatening ischemia -a case report and review if the literature. *Vasc Endovasc Surg* 2002; 36: 403-408.
- 5) Fukuda H, Onitsuka S, Tanaka H, et al. Endovascular Stent-Graft Repair of a Persisten Sciatic Artery Aneurysm. *Ann Vasc Dis* 2017; 10: 246-249.
- 6) 日本循環器学会/日本血管外科学会合同ガイドライン. 末梢動脈疾患ガイドライン(2022年改訂版) 2022; 1-160.
- 7) Farber A, Angle N, Murad MH, et al. The Society for Vascular Surgery clinical practice guidelines on popliteal artery aneurysms. *J Vasc Surg* 2022; 75(1S):109S-120S.
- 8) Aneet M, Eva L, Faysal N. Persistent sciatic artery aneurysm presenting with acute limb ischemia: case report and review of the literature. *Annals of Vascular Surgery - Brief Reports* 2022; 2: 100062.
- 9) Ahn S, Min SK, Min SI, et al. Treatment strategy for persistent sciatic artery and novel classification reflecting anatomic status. *Eur J Vasc Endovasc Surg* 2016; 52: 360-369.
- 10) Hayashi T, Mine T, Kumita S, et al. Total endovascular repair for a persistent sciatic artery aneurysm with widespread limb-threatening arterial occlusion *J Vasc Surg Cases Innov Tech* 2021; 7: 128-132.
- 11) Wael A, Payman M, Jan SB, et al. Clinical outcome after surgical and endovascular treatment of symptomatic persistent sciatic artery with review of the literature and reporting of three cases. *Vascular* 2016; 24: 469-480.
- 12) Antonello M, Frigatti P, Grego F, et al. Endovascular treatment of asymptomatic popliteal aneurysms: 8-year concurrent comparison with open repair. *J Cardiovasc Surg* 2007; 48: 267-274.