

Cutting Balloon による経皮的 Gore-Tex Interatrial Baffle Fenestration

(平成9年4月15日受付)

(平成9年9月8日受理)

長野県立こども病院循環器科¹⁾, 心臓血管外科²⁾, 臨床工学科³⁾

安河内 聡¹⁾ 里見 元義¹⁾ 岩崎 康¹⁾

汲田 善宏¹⁾ 原田 順和²⁾ 竹内 敬昌²⁾

森嶋 克昌²⁾ 太田 敬三²⁾ 金子 克³⁾

key words: Cutting balloon, percutaneous baffle fenestration, Fontan operation, 左心低形成症候群, 蛋白漏出性胃腸症

要 旨

蛋白漏出性胃腸症を合併した Fontan 手術後の患児に対して経皮的または外科的に心房中隔に fenestration (開窓術) を行うことが有効であると報告されている。今回我々は左心低形成症候群に対し段階的 Fontan 手術を施行後、蛋白漏出性胃腸症と低心拍出症候群を呈した2歳男児に、バルーンカテーテルに blade を mount した Cutting Balloon (Goodman 社製) を用いて経皮的に Gore-Tex 心房中隔の開窓術を行い一時的な血行動態の改善を得た。しかし、術後30日 Gore-Tex Baffle の開窓部が自然閉鎖し患児は再度低心拍出量症候群を生じ多臓器不全のため患児を失った。Gore-Tex 心房間 Baffle に対して通常バルーンカテーテルのみでは十分な経皮的開窓術は困難であるが、blade を mount した cutting balloon を用いることによって容易に施行可能となり、臨床的には有用と思われる。ただし Gore-Tex Baffle に対する経皮的開窓効果は一時的なもので比較的早期に内膜増殖により自然閉鎖する危険性が高く、注意が必要である。

Fontan 手術後の低心拍出症候群や蛋白漏出性胃腸症は、比較的稀な合併症であるが、内科的管理に抵抗を示すことが多く死亡率が高い疾病である¹⁾²⁾。その発生機序としては肺血管抵抗が比較的高いなどのために中心静脈圧が上昇し、その高い圧のために腸管リンパの灌流が障害されるためと一般に考えられている。この高い中心静脈圧を心房中隔に孔を開けることにより低下させ、同部を通過する右←左短縮血流の増加により心拍出量を増加させることによって蛋白漏出性胃腸症が改善することが報告されている³⁾⁴⁾。心房中隔の開窓 (fenestration) の方法としては外科的に行う方法と Mertens らのように経皮的に行う方法がある。Mer-

tens らの症例は native な心房中隔を Brockenbrough 法で穿刺後バルーンカテーテルで拡大する方法であるが、長期的に良好な予後が得られたと報告されている⁵⁾。

今回われわれは、Gore-Tex 人工血管で心房中隔の Baffle を作成した staged Fontan 手術後、蛋白漏出性胃腸症を合併した左心低形成症候群に対して、metal blade を mount した cutting balloon を用いて経皮的に fenestration に成功した症例を経験したので報告する。

症例は2歳男児。生直後に左心低形成症候群 (僧帽弁狭窄/大動脈弁狭窄) と診断され生後22日に Norwood 第1期手術、生後6カ月に Hemi-Fontan 手術、1歳6カ月に Gore-Tex 人工血管 (直径10mm, 厚は0.64mm) を用いて心房中隔を作成した fenestrated Fontan 手術 (開窓部直径3.5mm) を施行した。fenes-

別刷請求先: (〒399-82) 長野県南安曇郡豊科町豊科 3100

長野県立こども病院循環器科

安河内 聡

trated Fontan 手術翌日には抜管。乳糜胸水のため術後7日右内胸動脈からの肺動脈への側副血行路に対してコイル塞栓術を施行した。その後の経過は比較的順調で低脂肪食で乳糜胸水は次第に消失し術後35日目に退院した。しかし、術後2カ月頃より両側の乳糜胸水が再度出現し、低蛋白血症および低心拍出量症状を反復し利尿剤やカテコラミンなどの内科的心不全治療に抵抗を示した。術後6カ月頃より持続性の下痢、低蛋白血症、再発性両側胸水、および低心拍出症候群を伴う蛋白漏出性胃腸症を合併したためステロイドを投与したが症状は改善しなかった。低心拍出症候群の原因は Gore-Tex Baffle の開窓部の閉塞で、経胸壁心エコーおよび右心系コントラストエコーにより確認された。低心拍出症候群の改善のため術後9カ月 Brockenbrough 法を併用した経皮的心房中隔開窓術を試みた。

全身麻酔下、両側大腿静脈穿刺が困難だったため、内頸静脈を穿刺し7Fのシースを挿入。平均右房圧は21mmHgで、コントラストエコーおよび右心房造影では心房間短絡は認められなかった。経食道エコーガイド下に Brockenbrough 針を用いて Gore-Tex の心房中隔 Baffle を穿刺後、0.014" PTCA guide wire を左房内に進め径2.5mmの PTCA バルーンカテーテル (メディテック社) で前拡張し、さらに径4mmの Sub4 (メディテック社) で後拡張を試みた。しかし用手的に最大の高圧をかけても waist が消失せず穿刺孔の拡大は不可能で、経食道エコーでも穿刺孔を通過するわずかな短絡血流を認めるのみであった。手技後の SVC 平均圧は18mmHg、平均右房圧は17mmHg で大腿動脈酸素飽和度も前92%から後93%と変化は見られなかった。カテ後集中治療室に収容し翌日抜管した。低心拍出状態の改善はなく、外科的に fenestration を作成することも考慮したが全身状態不良のため人工心肺下の手術侵襲に耐えられないと判断し1週後再度経皮的に Gore-Tex 心房中隔 Baffle の fenestration を試みた。

cutting balloon は本来冠動脈拡張に開発された blade をバルーン部に mount した特殊なカテーテルである (図1)。前回の経験から Gore-Tex 人工血管の心房 Baffle の穿刺孔をバルーンカテーテルで拡大するためには何らかの方法で穿刺孔に切れ目を入れる必要があると考え、cutting balloon をその目的のために使用することにした。全身麻酔下、右内頸静脈より経食道エコーガイド下に Brockenbrough 針を用いて新たに baffle を穿刺し、0.014" PTCA guide wire を左房に進めた後、5F ロングシースをかぶせて左房に留置

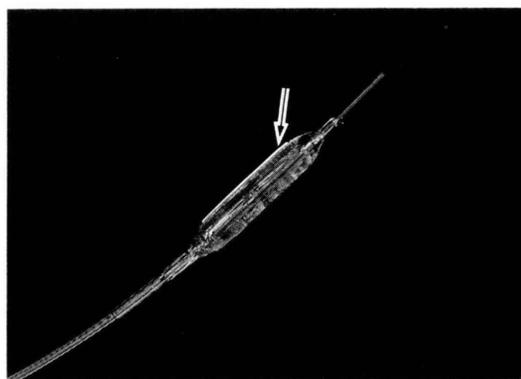


図1 cutting balloon の実際図。このモデルでは4枚の0.1~0.4mmの厚さの metal blade (矢印) がバルーン上に特殊な接着剤で装着されておりバルーンを inflate すると metal blade が飛び出し周囲組織を cut するようになっている。

した (図2A)。ロングシースを通して直径3mmの cutting balloon を左房まで進め、cutting balloon の中央に Gore-Tex 心房 Baffle が位置するようシースと一緒に引き戻して固定した。cutting balloon の位置が変わらないようにシースをさらに抜き cutting balloon を inflate した (図2B)。この際食道エコーにて cutting balloon が房室弁にかからないよう確認した。deflate 後5Fのロングシースの中に cutting balloon を収納し続いて径4mm (2cm) の Sub4 (メディテック社) および径8mm (2cm) の Ultrathin (メディテック社) で穿刺孔を後拡張したが、いずれも waist は容易に消失した (図2C, 2D)。拡大術後の経食道エコーでは、直径7mmの心房間交通孔が確認できた (図3A)。パルスドップラー上開窓部での右左短絡血流速度は1.3m/秒で連続流パターンを示し (図3B) 過度の拡大や不十分な拡大でないことが確認できた。平均中心静脈圧は拡大前23mmHg から拡大後17mmHg に低下し、大動脈酸素飽和度は84%から80%と下降し、収縮期血圧は50~60mmHg から60~70mmHg に上昇した。

ICU に帰室後一時的に利尿が見られたが次第に乏尿となり、腹膜透析を開始、さらに血圧の低下とともに経皮的酸素飽和度も50~60%と低下したためカテコラミンの投与が必要であった。経食道エコーで上大静脈と Gore-Tex 心房 Baffle 上部間に血栓形成がみられ Baffle の開窓部を狭小化していたため、血栓溶解療法を施行。血栓はやや縮小したが開窓部の心房間交通は依然制限されていたため、cutting balloon で開けた

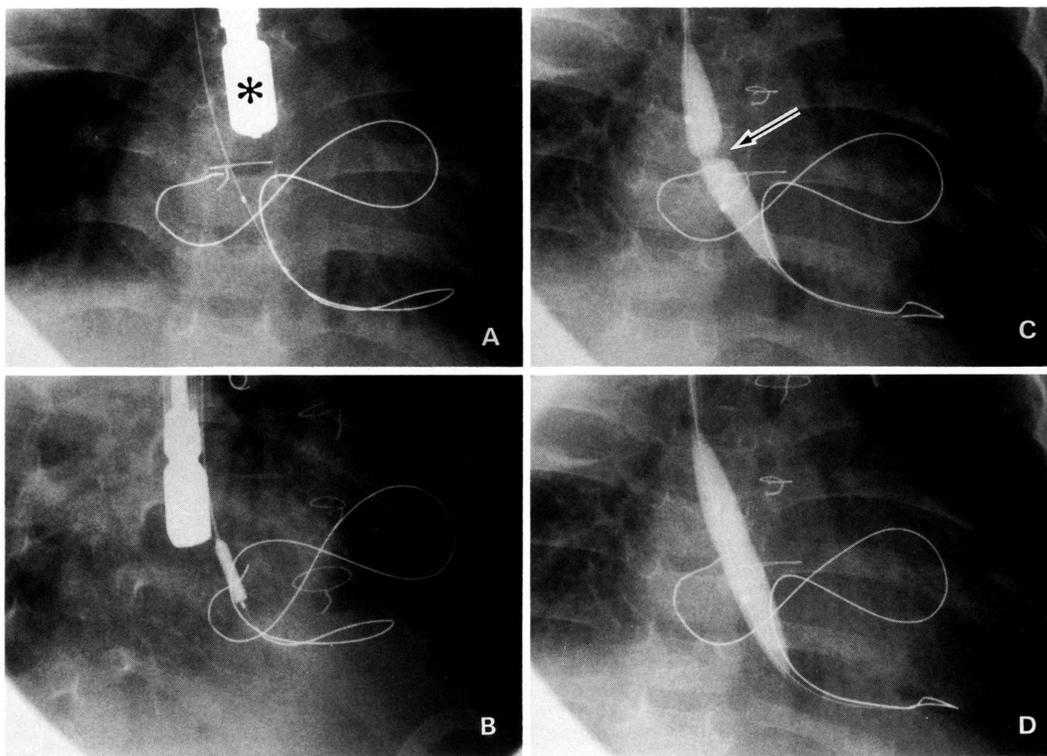


図2 経食道エコーガイドで Brockenbrough 法で Gore-Tex baffle を穿刺し、0.014” ガイドワイヤーを左房まで通し (A)、直径3mm の cutting balloon の位置を合わせて inflate した (B)、その後、直径8mm のバルーンで穿刺孔を拡大すると (C)、waist が消失した (D)。
*印は経食道エコープローブで、矢印は Gore-Tex Baffle の穿刺孔の位置である。

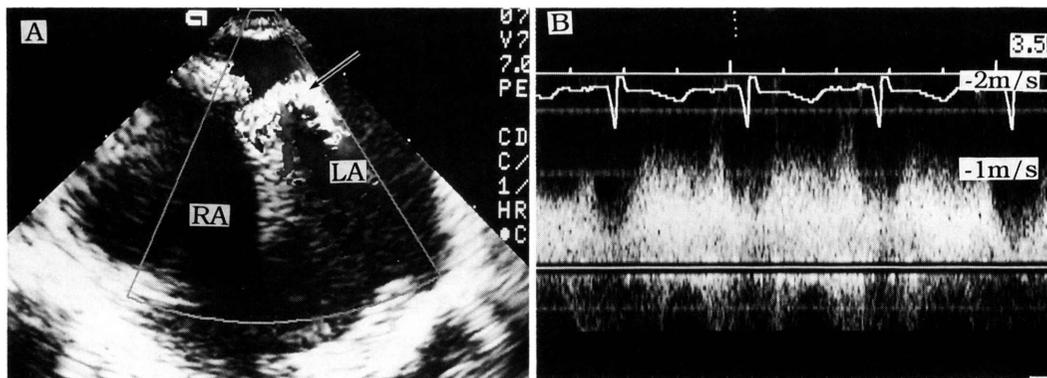


図3 経皮的開窓術後の心房間 Gore-Tex baffle 部の経食道エコー図 (A) で矢印は開窓部を通る血流を示す。同部の経胸壁心エコーでのパルスドップラー所見で流速1.6m/秒の右→左方向の連続性血流が計測された。
RA：体静脈側右房，LA：左房

交通孔の後拡張が十分であると判断し、翌日大腿静脈アプローチで開窓部の拡大を施行した。0.035”テルモ

ガイドワイヤーを Gore-Tex 心房 Baffle 開窓部を通して左房に進め6F のロングシースに入れ替え留置。ロ

ングシース内を6F Blalock-Park blade カテーテルを通して Gore-Tex 心房 Baffle を切開した後、径10mmの New Blue max (メディテック社) で拡大した。waist は消失し、拡大後平均中心静脈は20mmHg から17mmHg に低下し収縮期体血圧は50~60mmHg から90~95mmHg に上昇、動脈酸素飽程度は84%から81%に低下し、利尿が得られた。右房内血栓は残存したままであった。

術後血行動態は安定し3日目には呼吸器および腹膜透析から離脱し、9日目にICUを退室し廊下を歩行できるまで回復した。しかし、術後30日目から再度胸水貯留の増悪と低心拍出症候群を生じ血圧低下、呼吸困難となり呼吸管理を必要とした。cutting balloon による開窓術後アスピリン、チクロピジンなどの抗血小板療法を施行していたが、経胸壁心エコーでいったん消失していた右房側にボール状の血栓が認められ Gore-Tex 心房 Baffle の開窓部は閉鎖しており低心拍出の原因はこのためと思われた。再度の経皮的開窓は困難と判断し35日目に人工心肺下 Gore-Tex 心房 Baffle および血栓を除去し Bidirectional Glenn に take down したが血行動態の改善無く多臓器不全のため39日目に失った。術中所見では Gore-Tex 心房 Baffle の開窓部は厚い内膜で覆われ完全に閉塞していた(図4)。

考 案

低心拍出量症候群や蛋白漏出性胃腸症を合併した Fontan 手術後患児に対して、心房中隔に開窓 (fenestration) を行う臨床的な意義は、開窓による右一左短絡で動脈血酸素飽度が低下することよりも中心静脈圧の低下と駆出心室に対する前負荷を増やすことによって得られる低心拍出量状態の改善の方が患児の生活の質を向上させることを目的として企てられる⁴⁾。

Fontan 手術における心房間隔壁には、native な心房中隔を使用した場合と、Gore-Tex などの人工物を使用した場合とがあり、それらに対する開窓の方法としては人工心肺下に外科的に行う場合と経皮的バルーンカテーテルを用いて行う場合とがある。外科的な方法は、確実に開窓できる利点がある反面人工心肺を使用するため術前状態が悪い症例では、手術自体の risk が高くなるという欠点を有する。経皮的開窓法は手技自体の侵襲は少ないが確実性の面で外科的方法に劣る。

Mertens らは三尖弁閉鎖の Fontan 手術後、native な心房中隔に対して経皮的心房中隔開窓術が可能で有

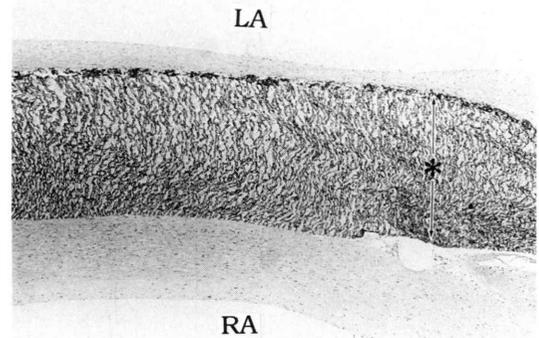


図4 手術時取り出した Gore-Tex 心房間 Baffle の一部の断面組織像。(HE染色, ×40)

(*)は Gore-Tex 人工血管部で上方が左房側(LA)の内膜部分、下方が体静脈側(RA)の内膜部分で体静脈側の内膜増殖が左房側に比べて著しい。

用であると報告した⁵⁾。彼らの方法は、まず Brockenbrough 針で心房中隔を穿刺後、経皮的酸素飽和度(85%以上)を目安に段階的にバルーン拡大術を行うもので、患児の心拍出量は24%増加し心不全症状も軽快しその効果は5カ月以上持続したとしている。しかし Gore-Tex を使用した心房間 Baffle については、この方法は困難であると考察している。

Gore-Tex 心房 Baffle に対する経皮的心房中隔開窓術が困難な理由としては、Gore-Tex の材質自体に起因すると考えられる。本症例に用いられた Gore-Tex baffle は、厚さ0.6mm 径10mm の人工血管を開いて使用したもので、Gore-Tex 線維が縦横に織り込まれたものである。このため、針で開けられた穴を単純にバルーンカテーテルを使用して拡大しようとしても困難である。我々の例も、最初の施行で穿刺には成功したが、PTCA バルーンで高圧を加えても穿刺孔の拡大は不可能であった。

実際われわれは本例に対する臨床応用に先立って本例に用いられたのと同じ Gore-Tex 血管に18G 針で穿刺後、4mm の高耐圧バルーンで拡大する実験を行ったが、十分な拡大は得られず waist は消失しなかった(図5A, 5B)。その結果、穿刺孔を拡大するためには何らかの方法で切れ目を入れることが必要と考えられた。従来心房 Baffle に切れ目を入れる方法としては、カテ先に blade を収納した Blalock-Park blade があるが、6F と先端が太いこと、操作性が悪いこと、切れ味が悪いこと、ガイドワイヤーでガイド出来ないことが問題

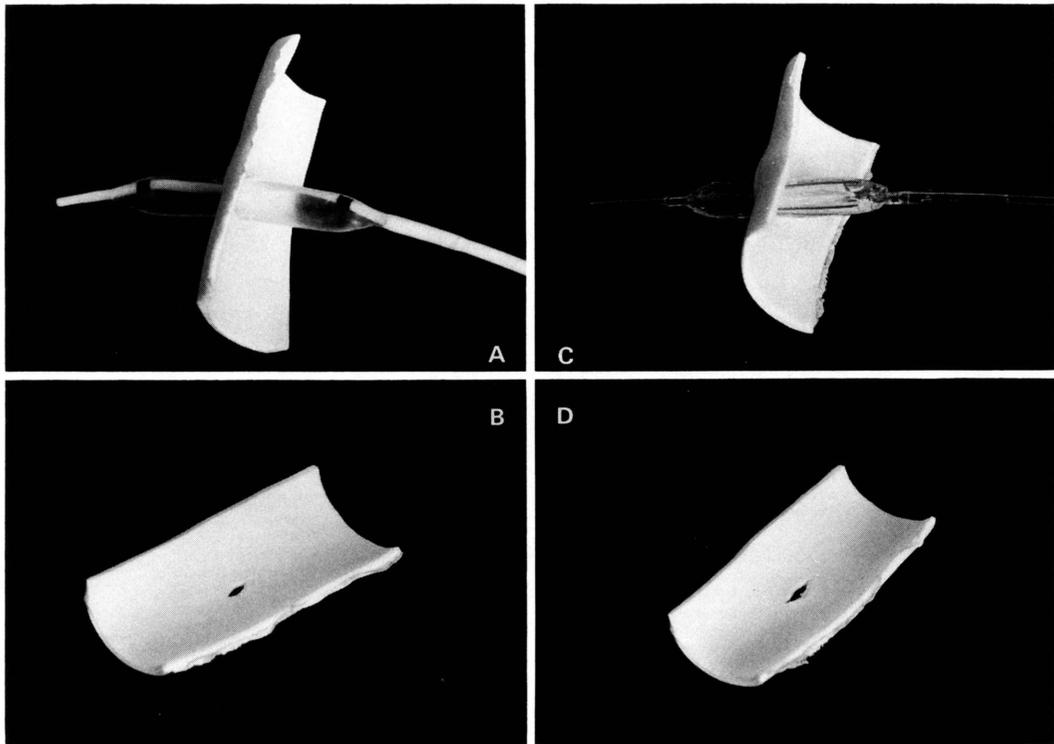


図5 厚は0.6mmのGore-Tex人工血管を18G針で穿刺後、直径4mmのSub4で拡大を試みたが(A)、waistは消失せず穿刺孔は拡大出来なかった(B)。しかし直径4mm(4枚のmetal blade付き)のcutting balloonで拡大すると(C)、穿刺孔に切れ目が入り(D)、その後より大きなサイズのバルーンカテーテルを用いると切れ目に沿って裂け目が拡がり容易に拡大できるようになった。

となり、本例での使用は困難と考えられた。

一方最近内科領域でbladeをmountしたcutting balloon (Goodman社製)が冠動脈狭窄拡張に使用されており、shaft sizeが細いこと(3.5Fr)、bladeの切れ味が鋭く、3～4枚バルーンを中心にmountされていること、ガイドワイヤーでガイドが出来ることの利点が報告されている⁶⁾⁷⁾。cutting balloonにmountされているmetal bladeは厚さ0.1～0.4mmで長さ10mmでバルーンのshaftに対して長軸方向にmountされており、拡大前はバルーンのfoldの中に収納されており拡大するとバルーンの外側に飛び出し周囲組織をcutする仕掛けとなっている。以上より本例に対する臨床応用に先立ち、cutting balloonでGore-Tex血管穿刺孔を拡大する実験を行った。bladeで小さな切れ目が入り、その後サイズの小さなバルーンで拡大すると容易に穿刺孔が拡大可能であることが分かった(図5C, 5D)。

実際の使用に際しては、cutting balloonのbladeが穿刺孔を通過するときに損傷される危険性があるため、Brockenbrough穿刺後5Fのlong sheathを進めこのシース内にcutting balloonを通して目的部位に進め拡大、収納した。その後の拡張は非常に容易であった。またこの方法は年長児のnativeではあるが分厚い心房中隔を有した症例のatrioseptostomyの際にも応用が可能であり、従来行われてきたBlalock-Hanlon法やBlalock-Parkカテーテルで裂開が困難な症例に対しても有効で臨床的に変わりうる方法であると思われる。

Fontan手術後の経皮的開窓術のend pointとしては、Mertensらは経皮的酸素飽和度が85%以上になるようバルーンサイズを10mmまでにしたと報告しているが⁵⁾、絶対的な基準ではない。(1)体静脈圧の低下(平均15mmHg以下)、(2)経皮的酸素飽和度80～85%以上、(3)心拍出量の増加(20%以上)などが一応の目

安になると思われるが症例ごとに検討してゆく必要がある⁸⁾。

cutting balloon による Gore-Tex Baffle の経皮的開窓術の中期および遠隔期の効果については、本例のように比較的早期に内膜増殖により自然狭小化または閉鎖を生じる危険性が高く⁹⁾¹⁰⁾、あくまでも一時的な血行動態の改善が得られる方法でしかないと思われる。また、われわれは低心拍出症候群を伴う Fontan 術後症例では静脈内血栓を生じやすいため、アスピリンやワーファリン等の抗血小板療法および抗凝固療法は全例に対して施行しており、経皮的開窓術を行わなければならないような低心拍出症例では当然必要となる。本例での早期の開窓部自然閉鎖の原因としても血栓によるものでなく内膜増殖によるものであったことを考えると少なくともその血栓予防効果はあったと考えられる。Gewelling らも Gore-Tex Baffle の開窓術に対しては同様の自然閉鎖例を経験しており stent で閉鎖を予防するような方法も述べているが¹⁰⁾、本例の経験からわれわれは本法により人工心肺下の手術に耐えられる程度に血行動態の改善が得られれば、ただちに外科的 Take-down を考慮するのがよいと考える。

結 語

Gore-Tex Baffle に対する経皮的心房中隔開窓術は、cutting balloon を用いることにより可能である。低心拍出症候群を呈した native な心房中隔を利用した Fontan 術後患者に対して経皮的開窓術は有効であるという報告があるが、本例のような Gore-Tex を使用した心房 baffle に対しては一時的な開窓効果しか期待できず、自然閉鎖が早期に生じやすいと思われるため経皮的開窓術後、速やかに外科的な take down を考慮すべきである。

References

1) Rothman A, Snyder J: Protein-losing enteropathy following the Fontan operation; resolution with prednisolone therapy. *Am Heart J* 1991; 121: 618—619

2) Hill D, Feldt R, Potter C, Puga F, Danielson G, Perrault J: Protein-losing enteropathy after Fontan operation; a preliminary report. *Circulation* 1989; 89(Suppl II): 490

3) Bridges ND, Mayer HE, Lock JE, Jonas RA, Hanley FL, Kearne JF, et al: Effect of baffle fenestration on outcome of the modified Fontan operation. *Circulation* 1992; 86: 1762—1769

4) Mavroudis C, Zales VR, Backer CL, Muster AJ, Latson LA: Fenestrated Fontan with delayed catheter closure. Effects of volume loading and baffle fenestration on cardiac index and oxygen delivery. *Circulation* 1992; 86(Suppl 5): 85—92

5) Mertens L, Dumoulin M, Gewellig M: Effect of percutaneous fenestration of the arterial septum on protein-losing enteropathy after the Fontan operation. *Br Heart J* 1994; 72: 591—592

6) Barath P, Fishbein MC, Vari S, Forrester JS: Cutting balloon: A novel approach to percutaneous angioplasty. *Am J Cardiol* 1991; 68: 1249—1252

7) Unterberg C, Buchwald AB, Barath P, Schmidt T, Kreuzer H, Wiegand V: Cutting balloon coronary angioplasty-initial clinical experience. *Clin Cardiol* 1993; 16: 660—664

8) Bridges ND, Lock JE, Castaneda AR: Baffle fenestration with subsequent trans catheter closure, modification of the Fontan operation for patients at increased risk. *Circulation* 1990; 82: 1681—1689

9) Satomi G, Yasukochi S, Harada Y, Takeuchi T: Effect of percutaneous fenestration of the atrial septum on protein-losing enteropathy after the Fontan operation. (letters to the Editor) *Heart* 1996; 76: 90—91

10) Gewelling M, Mertens L, Stockx L: Percutaneous fenestration of the atrial septum with a stent. *Cor Europeam. Eur J Cardiac Interventions* 1995; 4: 122—125

Percutaneous Fenestration of the Interatrial Gore-Tex Baffle after the
Modified Fontan Operation by Cutting Balloon

Satoshi Yasukochi, Gengi Satomi, Yasushi Iwasaki, Yoshihiro Kumita,
Yorikazu Harada*, Takamasa Takeuchi*, Katsuya Morishima*,
Keizo Ohta* and Katsushi Kaneko**

Pediatric Cardiology, Cardiothoracic Surgery*, and Clinical Engineering**,
Nagano Children Hospital, Toyoshina, Nagano, Japan

Percutaneous or surgical fenestration of the native atrial septum improved the clinical outcome among the high risk patients who had a modified Fontan operation. We performed a percutaneous fenestration of the Gore-Tex interatrial baffle in a 2 year old boy with hypoplastic left heart syndrome 9 months after the staged modified Fontan operation using a cutting balloon, into which 3-4 longitudinally oriented metal blades are incorporated so as to incise the puncture hole. The patient suffered from a protein losing enteropathy after closing the fenestration of the modified Fontan procedure at the age of 18 months.

After the puncture of Gore-Tex interatrial baffle by Brockenbrough needle, a 3 mm cutting balloon catheter was introduced through 5F long sheath and inflated, following staged balloon dilation which was successful. Although the hemodynamics of the patient was once ameliorated, the patient was suddenly collapsed because of the spontaneous closure of the interatrial communication by endothelial proliferation 30 days after the procedure. The patient was died of multiple organ failure in spite of surgical take-down from Fontan Circulation 35 days after the procedure.

The percutaneous fenestration of Gore-Tex interatrial baffle after the modified Fontan operation was feasible by using the cutting balloon but not by the conventional balloon alone. Although this procedure improved the clinical outcome, its patency was relatively short-termed and had a high risk of spontaneous closure so as to necessitate the following surgical intervention.
