

未手術の大動脈縮窄に対する経皮的バルーン血管形成術

(平成11年9月7日受付)

(平成11年12月13日受理)

北海道立小児総合保健センター循環器科, 札幌医科大学医学部小児科*

高室 基樹 富田 英* 東館 義仁
津田 哲哉 布施 茂登* 畠山 欣也*
黒岩 由紀* 日下 卓右* 千葉 峻三*

key words : 大動脈縮窄, 未手術, バルーン血管形成術, 乳児

要 旨

乳児4例(生後10日~1カ月, 体重1.5kg~4.3kg)と年長児4例(5歳~14歳, 体重18kg~46kg)の未手術の大動脈縮窄(discrete型7例, long segment型1例)に経皮的バルーン血管形成術(以下BA)を施行した。バルーン径はdistal transverse arch径を基準とし, 原則として横隔膜位の下行大動脈径以下とした。初回BAのみで圧較差が解消したのは乳児群で2例, 年長群で3例であった。乳児群の2例では再狭窄を起こしたが二度目のBAが有効であった。そのうち弁性大動脈狭窄を有した1例は, 左室流出路狭窄が進展し, 軽度の残存狭窄をも解除するため外科治療となった。BAが無効であった年長群の1例はlong segment型CoAで外科治療となった。初回BAで狭窄が解除できた年長群3例, 乳児群2例の追跡期間は2~48カ月で再狭窄はない。二度目のBAで狭窄が解除できた乳児1例は12カ月の追跡で再々狭窄はない。BAに大きな合併症はなかった。乳児群3例の1~5カ月後の造影と血管内エコーで異常所見はなかった。未手術のdiscrete型大動脈縮窄に対してBAは年長児では適応と考えられ, 乳児早期でも手術のリスクが高い例には有効であると考えられた。

はじめに

大動脈縮窄(以下CoA)の外科治療後再狭窄に対する経皮的バルーン血管形成術(以下BA)は定着した感があるが, 未手術のCoAに対して本邦では外科治療を第一選択とする施設が多い¹⁾。1997年の日本Pediatric Interventional Cardiology研究会の調査結果でも未手術CoAに対するBAは国外に比較し, 適応が厳しい傾向となっている^{1,2)}。その理由として比較的高頻度の残存狭窄と再狭窄, 動脈瘤などの合併症, 長期予後などが懸念されていると考えられる。近年, 未手術CoAに対してもBAの有用性が報告されており, 殊に年長児では外科治療に代わりうる治療法と評価されている³⁾⁻⁵⁾。しかし乳児については残存狭窄, 再狭窄の頻度が高く第一選択の治療法としては一般的ではない。

今回我々は乳児4例, 年長児4例の未手術のCoAにBAを施行したのでその結果を報告する。

対 象 (表)

対象は未手術のCoAの8例で, 4例の乳児群(生後10日~1カ月, 体重1.5kg~4.3kg)と4例の年長群(5歳~14歳, 体重18kg~46kg)に分けた。CoAは症例5のみlong segment型で, 残る7例はdiscrete型であった。合併病変は表に示したが, 症例1は血小板減少(2万/mm³)を伴った極低出生体重児の大動脈縮窄複合(心室中隔欠損, 動脈管開存)で, 外科治療のリスクが高いと判断した。症例2はVATER連合で, 先天性食道閉鎖(Gross C型)の手術を早期に行うには, 同じ縦隔内での操作を伴うCoAに対する外科治療は不利であると考えられた。症例3は大動脈二尖弁で, 筋性部心室中隔欠損, 動脈管開存とも短絡は極少量であった。症例4は右第5大動脈弓遺残, 肺分画症を合併しており, BAと同時に肺分画症の栄養血管に対し

別刷請求先: (〒562 0031)大阪府箕面市小野原東3

表 対象と結果

症例	年齢	体重 (kg)	合併病変	大動脈径 (mm)		バルーン径 (mm)	圧較差 (mmHg)	結果	追跡
				distal transverse arch	横隔膜位下行大動脈				
乳児群									(全例再狭窄なし)
1	10日	1.5	VSD, PDA, 21トリソミー, 血小板減少	4	5	5 6	評価不能	1カ月後再狭窄, 二度目のBAが有効(圧較差40-6)	12カ月
2	1カ月	1.9	VATER 連合	3	4	3 3.5	67 40	2週間には改善し6カ月後圧較差が13mmHg	8カ月
3	1カ月	4	AS (15mmHg), VSD, PDA	5	5	5	50 30	2カ月後再狭窄, 二度目のBAが有効(圧較差70-15)	手術
4	1カ月	4.3	右第5大動脈弓, 肺分画症	7*	7	5 6	36 12	有効	11カ月
年長群									
5	5歳	21	右鎖骨下動脈狭窄	15	14	9	100 144	無効	手術
6	7歳	18	AS (25mmHg), AR, 術後PDA	10	10	8	20 0	有効	48カ月
7	13歳	46	ASD	13	14	5 10 14	62 0	有効	2カ月
8	14歳	46		11	16	8 12 16	35 6	有効	12カ月

略号: VSD 心室中隔欠損, PD 動脈管開存, AS 大動脈弁狭窄, AR 大動脈弁閉鎖不全, ASD 心房中隔欠損.

*乳児群の症例4では第5大動脈弓遺残のため distal transverse arch 径は計測できず, 大動脈弓の径を測定した.

てコイル塞栓術も施行した⁶⁾. 症例6の大動脈弁閉鎖不全は Sellers I 度で, 症例8の心房中隔欠損の短絡は少量であった.

方 法

症例1~3は気管内挿管全身麻酔下に, 残る5例は静脈麻酔で鎮静し, 自発呼吸下で施行した. 症例1は右大腿静脈を穿刺し, 右室から心室中隔欠損孔を介して大動脈にカテーテルを進め順行性にアプローチした(図1a). 残る7例は大腿動脈穿刺により逆行性にアプローチした. 大腿動脈穿刺例はいずれもヘパリン 100 U/kg を使用した. バルーン径は distal transverse arch (左大動脈弓の場合左総頸動脈起始部と左鎖骨下動脈起始部の間の大動脈) 径を基準とし, 無効の場合には更に太いバルーンを使用した(図1, 2, 3a, b). 原則として横隔膜位の下行大動脈径を越えないようにした. 第5大動脈弓遺残の症例では distal transverse arch 径は計測不能であったため, 大動脈弓径と下行大動脈径を参考にした.

術直後圧較差 20 mmHg 以上を残存狭窄, 術直後の圧較差から 10 mmHg 以上の増加もしくは造影上明らかな狭窄の出現を再狭窄とした. 残存狭窄, 再狭窄, 重篤な血管損傷のなかった BA を有効とした.

結 果 (表)

乳児群では BA 直後に圧較差が解消したのは症例4のみであった. 動脈管開存のため圧較差が評価不能であったが, 造影上狭窄の改善がみられた症例1と, 残存狭窄を認めた症例3は動脈管の閉鎖に伴い再狭窄をきたし, 二度目の BA を必要とした(図1b, c, d). 症例1では二度目の BA 後動脈管が再開通したが, 再開鎖後は再々狭窄なく, 術後4カ月のカテーテルでも圧較差はなかった(図1e). 症例3も二度目の BA が有効であったが, その後心エコーで左室流出路狭窄が進展し左室流出路での圧較差が 60 mmHg と推測されるに至った. 左室圧負荷の軽減が必要と考えられたため, 3カ月時, 縮窄部に残存した 15 mmHg の圧較差を解除するための大動脈弓再建術 (subclavian flap 術) を行った. 残存狭窄を認めた症例2の圧較差は徐々に減少し, 2週後の先天性食道閉鎖根治術時には上下肢血圧差 20 mmHg となり, 術後6カ月のカテーテルでは引抜き圧較差 13 mmHg であった(図2c).

年長群では3例で BA 直後に圧較差が解消した(図3). Long segment 型の症例5は初回 BA が無効で大動脈弓再建術となった. BA 後に大動脈弓再建術となった2例とも手術手技に BA は影響を与えなかつ

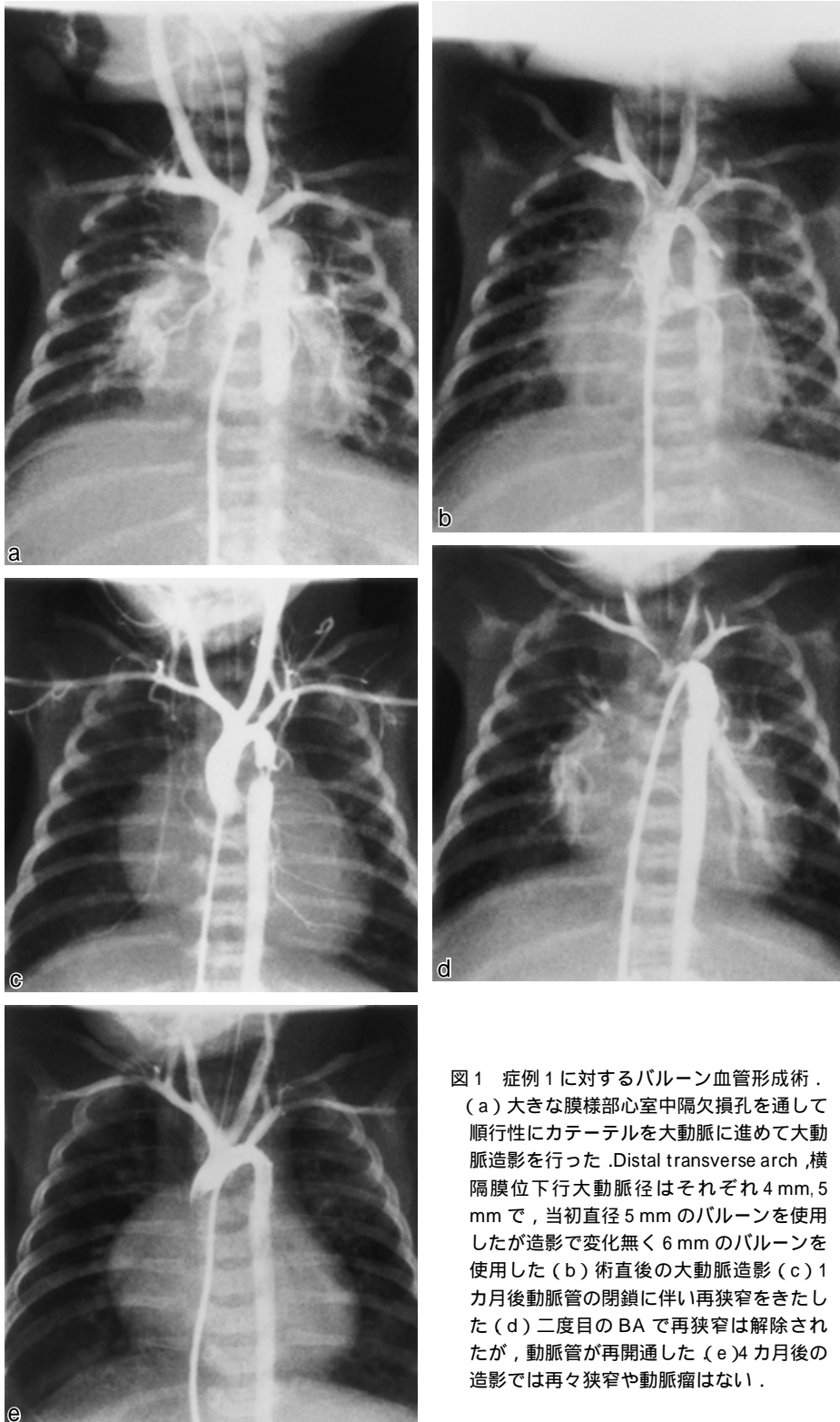


図1 症例1に対するバルーン血管形成術 .

(a) 大きな膜様部心室中隔欠損孔を通して順行性にカテーテルを大動脈に進めて大動脈造影を行った .Distal transverse arch,横隔膜位下行大動脈径はそれぞれ4 mm, 5 mmで,当初直径5 mmのバルーンを使用した(b)術直後の大動脈造影 (c)1カ月後動脈管の閉鎖に伴い再狭窄をきたした (d)二度目のBAで再狭窄は解除されたが,動脈管が再開通した (e)4カ月後の造影では再々狭窄や動脈瘤はない .

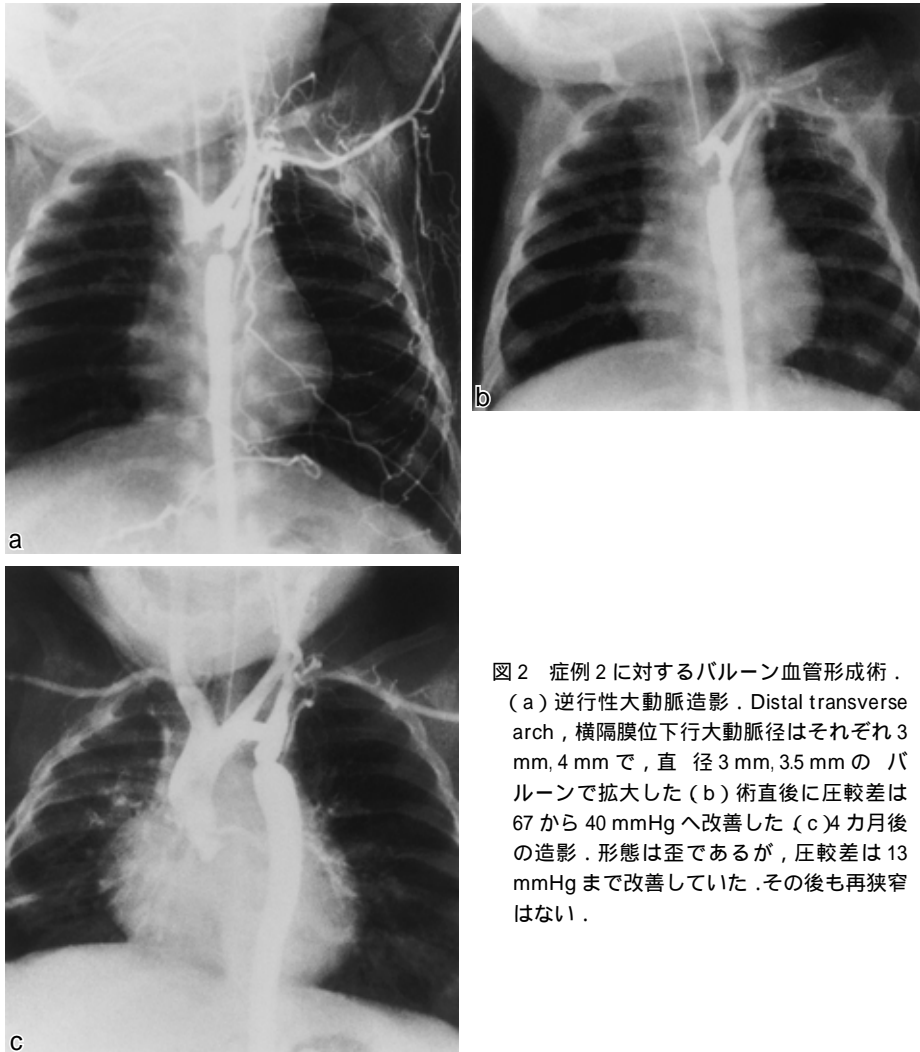


図2 症例2に対するバルーン血管形成術。
 (a) 逆行性大動脈造影。Distal transverse arch, 横隔膜位下行大動脈径はそれぞれ3 mm, 4 mmで, 直径3 mm, 3.5 mmのバルーンで拡大した(b)術直後に圧較差は67から40 mmHgへ改善した(c)4カ月後の造影。形態は歪であるが, 圧較差は13 mmHgまで改善していた。その後も再狭窄はない。

た。

初回 BA で圧較差を解消できた乳児群 2 例と年長群 3 例の追跡期間は 2~48 カ月で再狭窄や高血圧をきたした例はない。二度目の BA で圧較差を解消できた乳児群 2 例のうち 1 例は 12 カ月間の追跡で再々狭窄は認めない。残る 1 例はその後の手術のため BA の遠隔期予後は不明であった。

BA に際して大腿動脈閉塞等の合併症は起こらなかった。また輸血例もなかった。乳児群の 3 例に BA 後 1~5 カ月で行った血管造影と血管内エコーでは flap, tear や動脈瘤などの異常は認めなかった。

考 察

近年 未手術 CoA に対しても BA の有用性が報告さ

れ, 年長児の discrete 型 CoA に対しては外科治療に代わりうると評価されている^{3)-5) 8)}。しかし乳児, 殊に生後 7 カ月未満の未手術 CoA については残存狭窄, 再狭窄の観点から BA は第一選択とはなっていない⁸⁾。

BA 後急性期の残存狭窄は全年齢層で 9~22% と報告されている^{3) 8)}。我々の症例では年長群で discrete 型 CoA の 3 例いずれも急性期効果が認められたが, 乳児群で 4 例中 2 例に残存狭窄がみられた。急性期効果は使用したバルーン径にも左右されると思われるが, 残存狭窄を認めなかった 5 例と認めた 2 例でバルーン径/下行大動脈径は変わらなかった。年長児ではバルーン径は下行大動脈径まで必要かつ十分と思われる。

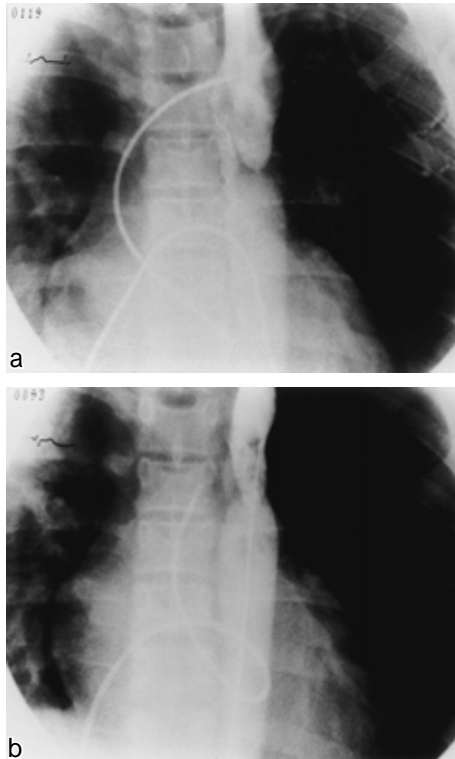


図3 症例7に対するバルーン血管形成術 (a)術前造影 .Distal transverse arch, 横隔膜位下行大動脈径はそれぞれ 13 mm, 14 mm で, 使用したバルーンは 5 mm, 10 mm, 14 mm と段階的に拡張した (b)術後造影 .

乳児の場合, 更に太いバルーンの使用で残存狭窄の減少を目指すも合併症の増加が懸念される. より優れた成績が期待できるか否かは慎重な検討が必要である. 現時点では乳児の未手術 CoA に対する BA では 10~15 mmHg 程度の圧較差の残存を考慮に入れて適応を決定すべきと考えられる.

再狭窄は年長児で 6.8~8%, 1歳未満の乳児で 39~60%, 3カ月未満の乳児で 50%, 新生児で 83% と報告されている⁹⁾⁻¹³⁾. 今回の症例でも生後2カ月未満の BA で4例中2例に再狭窄を認めたと, 年長児では再狭窄はなかった. 一方, 外科治療後の再狭窄は全年齢層で 14%, 1歳未満で 16.4% と報告されており¹²⁾¹⁴⁾, 乳児では明らかに BA の再狭窄の頻度が高い.

再狭窄の機序として動脈管組織の収縮と内膜増生の関与が報告されているが¹⁵⁾, 今回の結果でも動脈管の閉鎖に伴って2例に再狭窄が起こった. 動脈管組織が

再狭窄に関与するのはいつ頃までなのかは明確ではないが, 概ね生後7カ月以降は再狭窄のリスクは低くなるものとされている⁸⁾.

再狭窄の治療としては二度目の BA が有効で再々狭窄率も低いと報告されている⁵⁾¹³⁾. 再狭窄の2例とも二度目の BA で急性期効果が得られた. 生後1ないし3カ月における二度目の BA でも効果は期待できると考えられた. しかし二度目の BA までどれ位期間を空ければ安全かについては未知で, 今後の検討が必要である. われわれは外科治療後の BA については1カ月後以降に行うことを原則とし¹⁶⁾, 今回は1カ月後と2カ月後に行っている. その後の大動脈造影や血管内エコーでも異常は認められず, バルーン径を下行大動脈径以内に収めれば, 初回 BA から1カ月後の BA も安全に施行できると考えられた. また年長児の再狭窄にはステント移植が良好な結果を収めたとの報告もあり, 再 BA が不安な時期には選択の一つになると思われる¹⁷⁾. BA 後の外科治療も問題ないと報告されており⁴⁾⁵⁾¹³⁾, 今回の症例3も二度目の BA 後1週間で手術したが, 手技に影響はなかった. 再狭窄の治療は外科治療後と大きく変わるものではないと考えられる.

BA の合併症は 13.6~20.6% と報告されているが, その大半は一過性の大動脈脈拍減弱であり, 遺残障害となるような重篤な合併症の頻度は少ない¹⁾³⁾⁴⁾⁹⁾. 乳児の場合とくに大動脈閉塞が懸念されるが, できる限りの細いシースの使用と短時間の手技で予防可能であると考えられる. また我々は血栓による中枢神経障害や大動脈閉塞を予防するためヘパリンを十分に投与すべきと考えている. 更に我々は止血時の体動による再出血と過度の圧迫に伴う大動脈閉塞を防ぐため, 乳児群の3例には全身麻酔下のままで止血し, 止血を確認してから覚醒させた. その結果体重 1.5 kg の児においても大動脈閉塞を回避できた. また BA 後の大動脈瘤についてはその定義があいまいで, 一概に比較はできないが, 年長児の BA 後の長期観察の結果で 3.4~7% と報告されている⁹⁾⁻¹¹⁾. また外科治療群の方が BA 群より動脈瘤の発生が多いとする報告もあり¹⁾, 動脈瘤は BA に特有の合併症ではないと考えられる. 今回の症例でも, 年長群, 乳児群ともに大きな合併症はなく安全に BA が施行できた. 合併症を理由に BA の適応が制限されることはないと考えられた.

遠隔期予後についても年長児については良好で, 乳児でも再狭窄が解除された例は良好な結果が得られると報告されている³⁾⁹⁾¹¹⁾. 今回の結果では2~48カ月の

追跡期間で、乳児群、年長群ともに4例中3例ずつで良好な結果が得られた。

症例2の如き残存狭窄のBA後数週をかけたの改善は報告が少なくBA直後には予測が不可能である以上、術後遠隔期での残存狭窄の自然解消を期待すべきではないと考えられる。しかし状態が許す程度の残存狭窄ならば、十分に経過観察してから、次の方針を決定する方がよいものと考えられた。

以上から未手術CoAに対するBAはdiscrete型の年長児については適応と考えてよいと思われた。再狭窄のリスクが高い新生児や乳児早期については、症例1の如く合併病変によって手術の危険性が高い場合にはBAが極めて有効な手段になると考えられた。しかし症例3の如く、15 mmHg程度の圧較差も許容できないと思われる乳児には外科治療が有利であると思われた¹⁸⁾。

結 論

乳児群4例、年長群4例の未手術のCoAに対してBAを施行し、7例に有効であった。うち2例では再狭窄に対して二度目のBAが効果的であった。最終的に手術をした2例のうち1例はlong segment型CoAでBAが無効のため手術を行い、残る1例は左室流出路狭窄が進展し15 mmHgの圧較差も解消する目的で手術となった。大きな合併症はなく、discrete型未手術CoAに対してBAは年長児については適応と考えられ、乳児でも10~15 mmHg程度の圧較差が許容される例では適応になると考えられた。特に合併病変によってはBAは極めて有効な手段であると考えられた。

この論文の要旨は第9回日本Pediatric Interventional Cardiology研究会(1998年1月、京都)で発表した。

文 献

- 1) Ino T, Nishimoto K, Kato H, Momma K, Ishizawa A, Kamiya T, Koike K : Balloon angioplasty for aortic coarctation Report of a questionnaire survey by the Japanese Pediatric Interventional Cardiology Committee . Jpn Circ J 1997 ; 61 : 375 383
- 2) 井埜利博, 西本 啓, 大久保又一, 秋元かつみ, 稀代雅彦, 高橋 健, 藪田敬次郎, McCrindle BW : 大動脈縮窄症におけるバルーン拡張術 JPIC アンケート調査と米国 VACA registry の成績との比較 . 日小循誌 1997 ; 13 : 529 533
- 3) Mendelson AM, Lloyd TR, Crowley DC, Sandhu SK, Kocis KC, Beekman RH : Late follow-up of balloon angioplasty in children with a native coarctation of the aorta. Am J Cardiol 1994 ; 74 :

696 700

- 4) Fletcher SE, Nihill MR, Grifka RG, O'Laughlin MP, Mullins CE : Balloon angioplasty of native coarctation of the aorta : midterm follow-up and prognostic factors. J Am Coll Cardiol 1995 ; 25 : 730 734
- 5) Rao PS, Galal O, Wilson AD : Feasibility and effectiveness of repeated balloon dilation of restenosed congenital obstructions after previous balloon valvuloplasty/angioplasty. Am Heart J 1996 ; 132 : 403 407
- 6) Tomita H, Fuse S, Chiba S : Coarctation of persistent right fifth aortic arch and pulmonary sequestration. Cardiol Young 1998 ; 8 : 504 511
- 7) Rao PS : Should balloon angioplasty be used instead of surgery for native aortic coarctation. Br Heart J 1995 ; 74 : 578 579
- 8) Allen HD, Beekman RH, Garson A, Hijazi ZM, Mullins C, O'Laughlin MP, Taubert KA : Pediatric Therapeutic Cardiac Catheterization : A statement for healthcare professionals from the council on cardiovascular disease in the young, American Heart Association. Circulation 1998 ; 97 : 609 625
- 9) Rao PS, Galal O, Smith PA, Wilson AD : Five- to nine-year follow-up results of balloon angioplasty of native aortic coarctation in infants and children. J Am Coll Cardiol 1996 ; 27 : 462 470
- 10) Fawzy ME, Sivanandam V, Galal O, Dunn B, Patel A, Rifai A, von Sinner W, Al Halees Z, Khan B : One- to ten-year follow-up results of balloon angioplasty of native coarctation of the aorta in adolescents and adults. J Am Coll Cardio I 1997 ; 30 : 1542 1546
- 11) Biswas PK, Mitra K, De S, Banerjee AK, Roy S, Das Biswas A, Biswas A, Chat terjee SS, Maity AK : Follow-up results of balloon angioplasty for native coarctation of aorta. Indian Heart Journal 1996 ; 48 : 673 676
- 12) Johnson MC, Canter CE, Strauss AW, Spray TL : Repair of coarctation of the aorta in infancy : comparison of surgical and balloon angioplasty. Am Heart J 1993 ; 125 : 464 468
- 13) Park Y, Lucas VW, Sklansky MS, Kashani IA, Rothman A : Balloon angioplasty of native aortic coarctation in infants 3 months of age and younger. Am Herat J 1997 ; 134 : 917 923
- 14) Zehr KJ, Gillinov AM, Redmond JM, Greene PS, Kan JS, Gardner TJ, Reitz BA, Cameron DE : Repair of coarctation of the aorta in neonates and infants : a thirty-year experience. Ann Thorac

- Surg 1995 ; 59 : 33 41
- 15) Ino T, Ohkubo M : Dilation mechanism, causes of restenosis and stenting in balloon coarctation angioplasty. *Acta Paediatrica* 1997 ; 86 : 367 371
- 16) 東館義仁, 本間真二郎, 高室基樹, 畠山欣也, 津田哲哉 : 術後 4 カ月以内に施行した血管狭窄病変に対する経皮的バルーン血管形成術 . *日小循誌* 1997 ; 13 : 51 59
- 17) Ebeid MR, Prieto LR, Latson LA : Use of balloon-expandable stents for coarctation of the aorta : initial results and intermediate-term follow-up. *J Am Coll Cardiol* 1997 ; 30 : 1847 1852
- 18) 中西敏雄, 朴 仁三, 山田美保, 富松宏文, 瀬口正史, 中沢 誠, 門間和夫, 星野 修一, 高梨吉則, 今井康晴 : 大動脈縮窄, 心室中隔欠損を合併した大動脈弁狭窄に対するカテーテル治療 . *日小循誌* 1996 ; 12 : 663 670

Balloon angioplasty for native aortic coarctation in infancy and childhood

Motoki Takamuro, Hideshi Tomita*, Yoshihito Higashidate, Tetsuya Tsuda,
Shigeto Fuse*, Kinya Hatakeyama*, Yuki Kuroiwa*,
Takuo Kusaka* and Shunzo Chiba*

Department of Pediatric Cardiology, Hokkaido Childrens' Hospital and Medical Center
Department of Pediatrics, Sapporo Medical University School of Medicine*

The indication of balloon angioplasty (BA) for native aortic coarctation, particularly in infants, is still controversial. Between October 1992 and August 1997, 8 cases with native aortic coarctation, each 4 infants and children, underwent BA in our hospitals. Age of the infants ranged from 10 days to 1 month, and body weight ranged from 1.5 to 4.3 kg. In the children, age ranged from 5 to 14 years, weight ranged from 18 to 46 kg. In 7 cases, coarctation was the discrete type, and the other one had the long segment type. The size of a balloon was selected regarding the diameter of the distal transverse arch or that of the descending aorta at the diaphragm as a reference. The pressure gradient in an infant and 3 children decreased below 15 mmHg immediately after the initial BA. In a girl of 1-month old, complicated with VATER association, the pressure gradient of 40 mmHg, which remained initially, decreased gradually to 15 mmHg at two weeks after the BA. Pressure study 6 months after the BA revealed the gradient of only 13 mmHg. The second BA was effective in 2 other infants, who had the pressure gradient of over 15 mmHg in the first BA, and complicated with restenosis. In a three-months-old boy complicated with mild valvular aortic stenosis, the second BA achieved the pressure gradient of only 15 mmHg, though the left ventricular outflow tract obstruction deteriorated to the point of serious left ventricular pressure load. We conducted the subclavian flap aortoplasty to relieve left ventricular pressure load making the pressure gradient of 15 mmHg at the residual CoA to zero. A 5-years-old boy underwent surgical aortoplasty as the BA did not work to his long segment coarctation. There was no restenosis during 2 48 months follow up period in 2 infants and 3 children with the successful initial BA. Another one of two infants with the successful second BA developed no restenosis after 12 month. No patients complicated with aneurysm, thromboembolism, or bleeding that needs blood transfusion. Two infants underwent intravascular ultrasonography and angiography 4 months after the BA, which revealed no dissection and late aneurysm. We concluded that BA should be indicated to the discrete type native aortic coarctation in children. Furthermore, even in infants, BA could be a treatment for the case who had risk factors such as very low body weight and complicated anomalies.