

<症 例>

## 異型大動脈縮窄に対する経皮的血管内ステント留置

(平成11年8月19日受付)

(平成12年7月31日受理)

国立循環器病センター小児科, 同放射線診療部\*

澤田 博文 越後 茂之 小野 安生 木村 晃二\*  
大内 秀雄 塚野 真也 神谷 哲郎

**key words** : カテーテル治療, 大動脈縮窄, 大動脈炎, ステント留置術, 心不全

### 要 旨

心不全症状を伴った, 異型大動脈縮窄に対して経皮的ステント留置術を行った. 症例は6歳, 女児. 易疲労性, 腹痛を主訴に近医を受診. 当初拡張型心筋症と診断され当センターを紹介された. 症状は持続し, 著明な左室拡大と収縮低下を認めた. 血管造影などにより大動脈炎による大動脈縮窄と診断したが, 心機能が高度に低下していたため外科手術は危険性が高いと判断し, 経皮的ステント留置を行った. 最狭部径は1.8 mm, 横隔膜レベルの大動脈径は8.8 mm, 圧較差は28 mmHgであった. ステント留置の際, ロングシース挿入による血流遮断を避けるために, まずバルーン拡大術を行った. 最狭部は3.3 mmとなり圧較差は8 mmHgへと減少したが, 高度の大動脈解離を生じた. 次いで同部にステント留置を行い最狭部は7.0 mmとなり圧較差は消失した. 術後, 症状の改善, 心機能の改善を認めた. 術後4カ月時の大動脈造影にてステント内再狭窄, および腹部大動脈に新たな狭窄病変が出現した. ステント内狭窄に対してバルーン再拡大術を施行した. 現在, 上肢の高血圧が認められるが自覚症状なく経過観察中である. 若年者に対する大動脈のステント留置は, 姑息的な治療手段に過ぎないが, 高度の心不全や, バルーン拡大後の血管解離などの特殊な状況下では, 重要な役割を果たし得る.

### はじめに

近年, 先天性心疾患など小児領域の治療においてもステント留置が行われ良好な結果が報告されている<sup>1)~3)</sup>. 大動脈に対するステント留置は大動脈縮窄(COA)や高安大動脈炎(TA)などで短期的経過の報告があるが長期予後は不明である. 小児に対しては成長に伴う相対的再狭窄などの問題もあり, その適応は制限され, 報告例は少ない.

症 例: 6歳 女児

主 訴: 易疲労性 腹痛

既往歴: 特記すべきことなし

家族歴: 特記すべきことなし

現病歴: 入院する3か月前から, 易疲労性, 腹痛,

時に嘔吐が認められた. 1か月前, 症状が続くため近医を受診し, 頻脈を指摘された. その後, 症状を訴える頻度が増え, 入院前日も同医を受診, 拡張型心筋症と診断されて当センターを紹介され緊急入院した.

身体所見: 身長109 cm, 体重16 kg, 体温36.8度, 心拍数120/分, 呼吸数28/分, 上肢血圧136/68 mmHg, 下肢血圧測定できず. 頸部静脈の拡張を認めた. 心音はIII音を聴取し奔馬調律であった. 心尖部でLevine 2度の汎収縮期雑音を聴取した. 肝を肋骨弓下に6 cm触知した. 大腿動脈の拍動は極めて微弱であった.

検査所見: 胸部レントゲンでは心陰影は拡大し, 心エコー検査では左室拡張末期径47 mm(正常期待値の133%), 駆出率0.25であり, 腹部大動脈は拍動性が乏しい血流パターンであった. 左室収縮末期壁応力(ESWS)は455 g/cm<sup>2</sup>と極めて高く, 心拍数補正平均

別刷請求先: (〒514 1101) 三重県久居市明神町  
2158 5

国立三重中央病院小児科 澤田博文

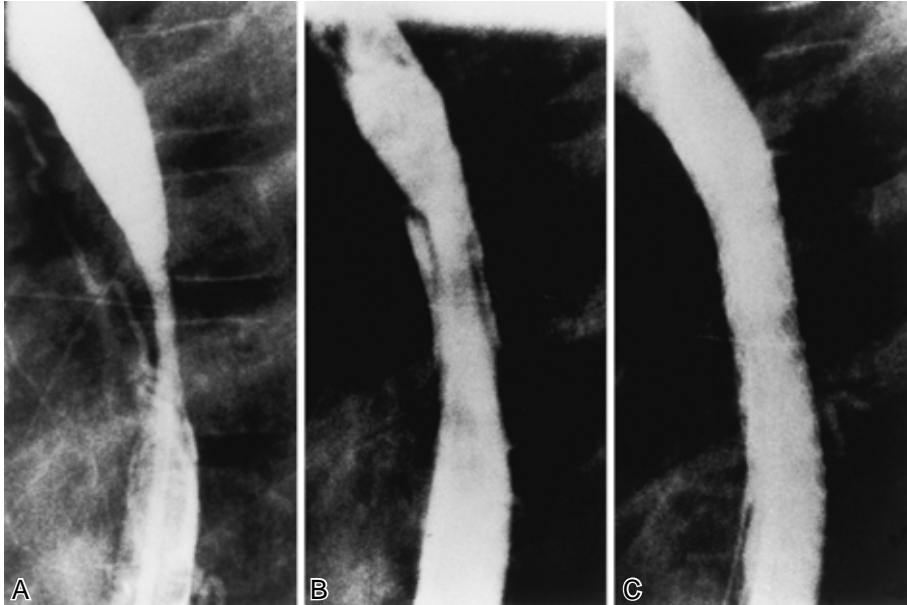


図1 血管内ステント留置時の大動脈造影(側面)

- A.バルーン拡大前,最狭窄部径は1.8 mm .B.バルーン拡大後,大動脈解離を認める.  
C.ステント留置後,径は7.0 mm となった.

周囲短縮速度(mVCFc)は0.18 circ/sと著明に低下していた。心筋血流シンチでは心尖部に軽度の灌流低下を認めた。血液検査では炎症反応は陰性であったが、抗核抗体が陽性であった。ANP, BNPはそれぞれ420 pg/ml, 1820 pg/mlと異常高値を示した。

心臓カテーテル検査:大動脈造影にて胸部大動脈に長い管状狭窄を認めた。左室造影では拡張末期容積は100 ml(正常期待値の214%), 駆出率0.24であった。収縮期心臓内圧は,それぞれ,左室131 mmHg, 上行大動脈130 mmHg, 下行大動脈(横隔膜レベル)97 mmHgであった。右室心内膜心筋生検では,軽度の線維化と心筋の肥大が認められた。

血管内ステント留置術:著明な心機能低下のため手術の危険は高く,カテーテル治療の適応と考えた。また,縮窄部が長い管状であり,狭窄部の血管壁が厚いことから血管内留置ステントを用いた拡大術を行うことにした。

カテーテルインターベンションは気管内挿管と全身麻酔下に行った。ヘパリン(100単位/kg)を投与した。まず,ロングシース挿入による血流遮断を避けるために,バルーン拡大術(BD)を行った。バルーンカテーテル(径6 mm×長さ2 cm, PowerFlex, Cordis社製),

続いてバルーンカテーテル(径7 mm×長さ4 cm, PowerFlex, Cordis社製)を用い,いずれも12気圧にてBDを施行した。その後圧測定及び造影を行った。術前大動脈造影では,大動脈径最狭部は1.8 mm,横隔膜レベル径は8.8 mmであった(図1-A)。血管内超音波検査(IVUS)では中膜が肥厚していた(図2-A)。BD前の上行大動脈は収縮期圧94 mmHg,横隔膜レベルでの下行大動脈圧は66 mmHgで28 mmHgの圧較差を認めた。BD後の大動脈造影にて最狭部径は3.3 mmとなったが,血管内膜フラップが認められ(図1-B), IVUSでもフラップが確認された(図2-B)。圧測定は造影後,引き抜きにて行い上行大動脈は収縮期圧105 mmHg,横隔膜レベルでの下行大動脈圧は97 mmHgで圧較差は8 mmHgとなった。ステント留置に際し,シースをロングシース(7.5 Fr長さ45 cm Medikit社製)に交換した。この際,先ず,pigtailカテーテル(5 Fr)を縮窄部上部まで挿入し,次いでガイドワイヤーに交換,ガイドワイヤー誘導にてロングシースを挿入した。PALMAZステント(径2.1 mm×長さ39 mm)をバルーンカテーテル(径8 mm×長さ4 cm, PowerFlex, Cordis社製)にマウントしガイドワイヤー(径0.035長さ145 cm, Hanaco製)誘導下に縮窄

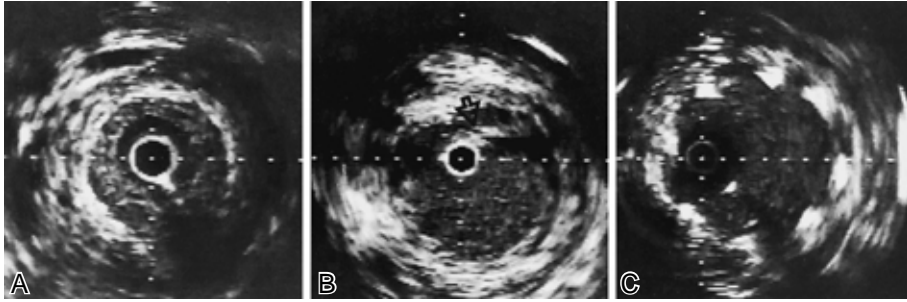


図2 血管内ステント留置時のIVUS所見

A. バルーン拡大前, 内膜中膜肥厚を認める. B. バルーン拡大後, フラップを認める(矢印). C. ステント留置後, ステントは血管壁に隙間なく留置されている.

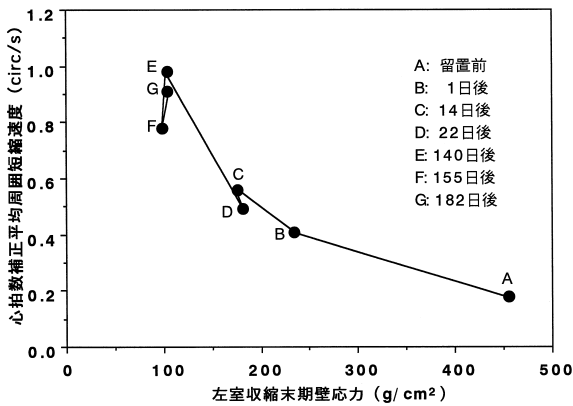


図3 左室壁応力, 心拍数補正平均周囲短縮速度の変化

部まで先進させた。ロングシースを引いて、ステントをシースから排出し、再度位置の微調整を行った。10気圧にて waist が消失するまで拡張し留置した。留置後、圧測定および造影を行った。ステント留置後は最狭部 7.0 mm となり(図 1-C), 上行大動脈と横隔膜レベルでの下行大動脈圧はそれぞれ 107 mmHg と 110 mmHg であった。IVUS ではステントは血管壁との間に隙なく留置されていた(図 2-C)。

術後経過

腹痛、嘔吐等の症状は消失し、レントゲン上心陰影の縮小、心エコー上心収縮の改善を認めた。ANP、BNP は次第に低下した。ESWS の低下、mVCFc の上昇を認め、次第に正常域内に回復した(図 3)。留置術後アスピリン 81 mg/日の投与を開始し、術後 1 カ月で退院した。外来経過観察中は、自覚症状は認めなかったが、上下肢間に 20 mmHg の血圧差が認められた。

ステント再拡大術：ステント留置から 4 カ月後にカテーテル検査を施行した。左心室造影では駆出率が 0.63 と大きく改善していた。大動脈造影ではステント内に再狭窄が認められた(図 4-A)。また、腹部大動脈造影では腹腔動脈起始部の近位に初回検査時には認めなかった狭窄病変が認められた(図 5)。収縮期血圧は上行大動脈 136 mmHg、横隔膜レベルでの下行大動脈 116 mmHg、腎動脈起始レベルでの腹部大動脈 92 mmHg であった。ステント留置後 5 カ月時にステント内再狭窄に対して、全身麻酔下に BD を行った。バルーンカテーテル(径 8 mm × 長さ 4 cm, PowerFlex, Cordis 社製), 続いて同(径 9 mm × 長さ 4 cm)を用い最大 15 気圧で行った。最狭部径は 4.3 mm から 6.3 mm となった。造影および IVUS で血管壁解離の所見は認められなかった(図 4-B, 6-B)。収縮期血圧はそれぞれ上行大動脈では術前 139 mmHg、術後 131 mmHg、横隔膜レベルでの下行大動脈では術前 98 mmHg、術後 119 mmHg、腎動脈起始レベルでの腹部大動脈では術前 83 mmHg、術後 98 mmHg であった。ステント内狭窄前後の圧較差は 41 mmHg から 12 mmHg へ減少したが、腹部の狭窄部前後の圧較差は 15 mmHg から 21 mmHg と増加した。腹部の狭窄病変は放置し経過観察中である。自覚症状はないが、上肢の血圧が 128/70 mmHg と軽い高血圧が認められている。

考 察

本例は、胸部大動脈の狭窄性病変による後負荷増大を代償できず心不全症状を呈したと考えられた 6 歳の女児である。症状出現以前は、後負荷増大を代償していたとすれば、心筋壁の肥厚あるいは心筋重量の増加が見られるはずである。また高度な狭窄であるにもかかわらず側副血管が認められない。これらから病因と

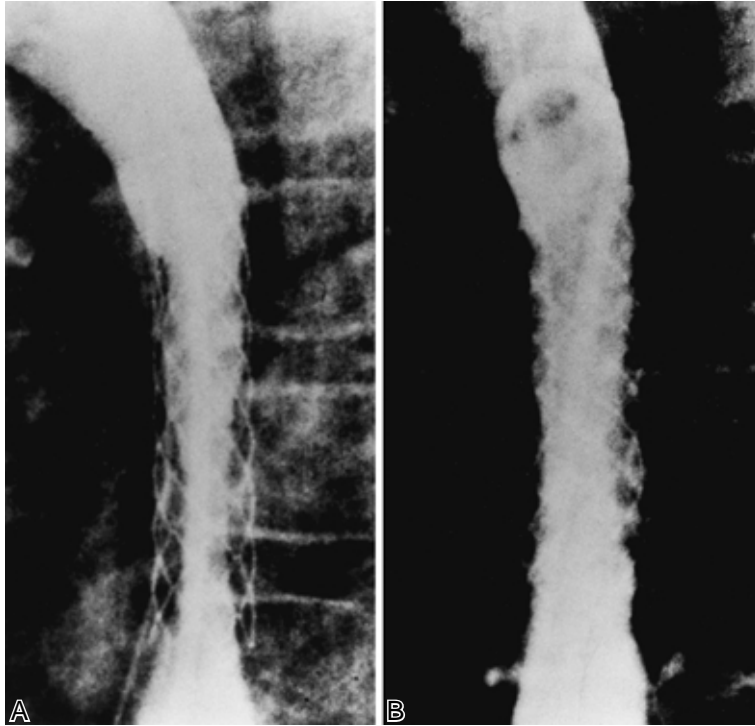


図4 再拡大時大動脈造影(側面)

A. 再拡大前, 最狭部は4.3 mm. B. 再拡大後, 径は6.4 mm となった.

して先天性大動脈縮窄(COA)は否定的であり後天的な機序によると推定される. 腹部大動脈の新しい狭窄性病変が短期間で出現したこともそれを支持する経過である. また, 高安大動脈炎(TA)の診断基準(American College of Rheumatologists)を満たしており, IVUS所見の内膜中膜肥厚もTAの所見と合致する<sup>5)</sup>. 以上のことから本例はTAによる異型大動脈縮窄の可能性が高いと考えている.

大動脈に対する血管内ステント留置は, COA, TA, 神経線維腫症, 繊維筋異形成, 粥状硬化性病変などの症例で報告がある. 小児ではCOA例が比較的多く, TA例でも報告されている.

小児における大動脈へのステント留置の報告はO'Laughlinらのものが最初で, 彼らはCOA例に対するBD後の大動脈解離に対して緊急的に使用した<sup>1)</sup>. その後Lezoら<sup>9)</sup>は10例(1カ月~43歳), Bulbulら<sup>7)</sup>は6例(13~34歳)のCOAに対しステントを使用し, 短期の成績は良好であったという. しかし, 合併症として大動脈の断裂, シース挿入部の動脈損傷あるいは拍動の減弱をあげている. 中期的経過に関してはEbeid

ら<sup>8)</sup>, Lezoら<sup>9)</sup>のCOA例の報告がある. Ebeidらは9例(14歳~63歳)の平均18カ月の経過中, 合併症や再狭窄は認めなかったとしているが, Lezoらは48例(1カ月~45歳)の平均25カ月の経過の中で, 血管造影を行った30例中, 8例に内膜増殖が認められたと述べている. 3例は再狭窄を来し, いずれも乳幼児期にステント留置を行ったものであった. 経過観察時の残存圧較差は体表面積の増加およびステント長と正の相関を示した. また, 遠隔期の合併症として2例に動脈瘤形成を認め, コイル塞栓術を施行した. 動脈瘤形成についてはFletcherらも指摘している<sup>10)</sup>.

一方, TAでは, 特に狭窄部の長い例で, BDを行った場合, 圧較差が残存することが多いことや, 大動脈解離の危険が高いことが指摘されている.<sup>11)~13)</sup> BDの無効例に対してSawadaらは2例<sup>14)</sup>, Baliらは4例<sup>15)</sup>にステント留置を行い, 有効であったとしている. BD後の大動脈解離による狭窄に対してはSharmaらの報告があり, 経過は良好である<sup>16)17)</sup>. 小児例の報告は少なく, Sharmaらの1例(6歳)<sup>7)</sup>, D'Souzaらの3例(6歳, 4歳, 4歳)<sup>8)</sup>が報告されているのみである.

Sharma らの例では、ステント留置後 11 カ月時で、ステント留置部の内膜増殖が認められた。

大動脈に対するステント留置は、COA においても TA においても短期的な有効性、安全性に関しては受け入れられるものとする。狭窄部の長い例では、BD 後の血管壁解離による閉塞が報告されており、BD を

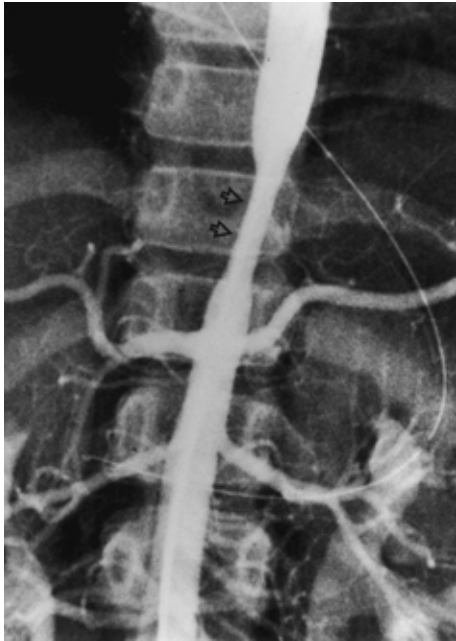


図5 腹部大動脈造影

腹腔動脈起始部の近位に狭窄を認める(矢印)。この病変は初回の大動脈造影時には認められなかった。

行う場合でも、ステントを準備しておく必要があると考えられる。本例のように、患者の状態によっては、ステント留置が第一選択の治療となる症例もあると思われる。しかし、ステント内再狭窄、動脈瘤の形成など長期経過については、今後明らかにすべき問題である。さらに、小児では、身体発育に伴い、ステント部がいわば相対的に狭窄する可能性も高い。Grifka らは正常大動脈の成長に伴う相対的狭窄に対して再拡大を行い安全に行い得たとしている<sup>19)</sup>。Morrow らはブタを用い外科的に作成した COA で検討し、血管壁損傷なく再拡大を施行し得た<sup>20)</sup>。Mendelsohn らは 7 頭のイヌに対して再拡大を施行し、2 頭が再拡大直後に、大動脈破裂から死亡した結果を報告した。危険因子として、再拡大時の狭窄部径に対するバルーン径の比が大きいことを挙げている<sup>21)</sup>。小児への適応を考えた場合、再拡大の有効性、安全性は重要な問題であり、今後、方法、危険因子の検討などが必要と考えられる。本例では、再狭窄により後負荷が増大し、心機能が再び低下することが懸念され、再拡大の適応と考えた。また、腹部大動脈の狭窄に対しても、将来血管内留置ステントの適応を考慮する必要がある。

大動脈の狭窄性病変の治療目標は、高血圧あるいは虚血による主要臓器の障害を予防することである。本例のステント留置は、高度の心不全に対する緊急施行例である。症状、心機能の改善が認められ、ステント留置を行った意義は非常に大きいと考えた。

結 語

高度の心不全症状を伴った、大動脈炎による異型大動脈縮窄に対し経皮的ステント留置を行い良好な経過

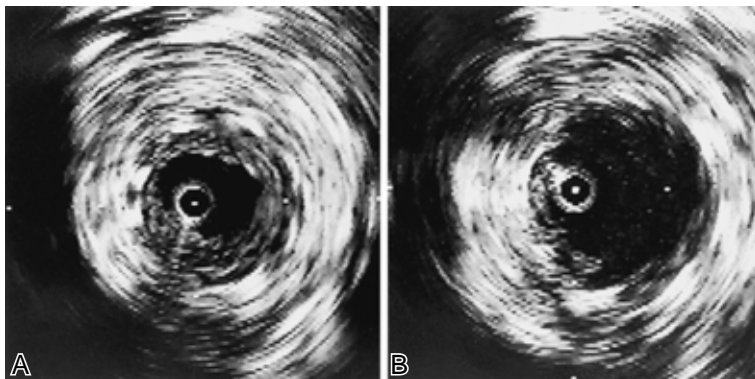


図6 ステント再拡大時の IVUS 所見

A.バルーン拡大前,ステント内の内膜肥厚を認める .B.バルーン拡大後,内膜フラップは認められない。

を得た。また、術後4カ月にステント内再狭窄に対してバルーン再拡大術を施行し軽快した。若年者の大動脈に対するステント留置は、成長に伴う相対的再狭窄などの問題から適応は制限すべきであるが、心機能、病変部の形態などのため、ステント留置が有用な症例もある。

### 文 献

- 1) O'Laughlin MP, Perry SB, Lock JE, Mullins CE : Use of endvascular stents in congenital heart disease. *Circulation* 1991 ; 83 : 1923 1939
- 2) O'Laughlin MP, Slack MC, Grifka RG, Perry SB, Lock JE, Mullins CE : Implantation and intermediate-term follow-up of stents in congenital heart disease. *Circulation* 1993 ; 88 : 605 614
- 3) Rendington AN, Weil J, Somerville J : Self expanding stents in congenital heart disease. *Br Heart J* 1994 ; 72 : 378 383
- 4) Colan SD, Borow KM, Neumann A : Left ventricular end-systolic wall stress - velocity of fiber shortening relation ; A load-independent index of myocardial contractility. *J Am Coll Cardiol* 1984 ; 4 : 715 724
- 5) Sharma S, Sharma S, Taneja K, Bahl VK, Rajani M : Morphological mural changes in the aorta in non-specific aortoarteritis ( Takayasu 's arteritis ) : Assessment by intravascular ultrasound imaging. *Clinical Radiology* 1998 ; 53 : 37 43
- 6) Suarez de Lezo J, Pan M, Romero M, Medina A, Segura J, Pavlovic D, Martinez C, Tejero I, Navero JP, Torres F, Lafuente M, Hernandez E, Melian F, and Concha M : Balloon-expandable stent repair of severe coarctation of aorta. *Am Heart J* 1995 ; 129 : 1002 1008
- 7) Bulbul ZR, Bruckheimer E, Love JC, Fahey JT, and Hellenbrand WE : Implantation of balloon-expandable stents for coarctation of the aorta : Implantation data and short-term results. *Cathet. Cardiovasc. Diag* 1996 ; 39 : 36 42
- 8) 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
- 9) Suarez de Lezo J, Pan M, Romero M, Medina A, Segura J, Lafuente M, Pavlovic D, Hernandez E, Melian F, Espada J : Immediate and follow-up findings after stent treatment for severe coarctation of aorta. *Am J Cardiol* 1999 ; 83 : 400 406
- 10) Fletcher SE, Cheatham JP, Froeming S : Aortic aneurysm following primary balloon angioplasty and secondary endovascular stent placement in the treatment of native coarctation of the aorta. *Cathet. Cardiovasc. Diag* 1998 ; 44 : 40 44
- 11) Tyagi S, Kaul UA, Nair M, Sethi KK, Arora R, Khalilullah M : Balloon angioplasty of the aorta in Takayasu 's arteritis : initial and long-term results. *Am Heart J* 1992 ; 124 : 876 882
- 12) Rao SA, Mandalam KR, Rao VR, Gupta AK, Joseph S, Unni MN, Subramanian R, Neelakandhan KS : Takayasu arteritis : initial and long-term follow-up in 16 patients after percutaneous transluminal angioplasty of the descending thoracic and abdominal aorta. *Radiology* 1993 ; 189 : 173 179
- 13) Sharma S, Shrivastava S, Kothari SS, Kaul U, Rajani M : Influence of angiographic morphology on the acute and long-term outcome of percutaneous transluminal angioplasty in patients with aortic stenosis due to nonspecific aortitis. *Cardiovasc Intervent Radiol* 1994 ; 17 : 147 151
- 14) Sawada S, Tanigawa N, Kobayashi M, Morioka N, Kotani K, Senda T, Okuda Y, Ohta Y : Treatment of Takayasu 's aortitis with self-expandable metallic stents ( Gianturco stents ) in two patients. *Cardiovasc Intervent Radiol* 1994 ; 17 : 102 105
- 15) Bali HK, Jain S, Jain A, Sharma BK : Stent supported angioplasty in Takayasu arteritis. *Int J Cardiol* 1998 ; 66 ( suppl 1 ) : S 213-S 217
- 16) Sharma S, Sharma S, Bahl VK, Rajani M : Stent treatment of obstructing dissection after percutaneous transluminal angioplasty of aortic stenosis caused by nonspecific aortitis. *Cardiovasc Intervent Radiol* 1997 ; 20 : 377 379
- 17) Sharma S, Bahl VK, Saxena A, Kothari SS, Talwar KK, Rajani M : Stenosis in the aorta caused by non-specific aortitis : results of treatment by percutaneous stent placement. *Clinical Radiology* 1999 ; 54 : 46 50
- 18) D'Souza SJA, Tsai WS, Silver MM, Chait P, Benson LN, Silverman E, Hebert D, Balfe JW : Diagnosis and management of stenotic aortoarteriopathy in childhood. *J Pediatr* 1998 ; 132 : 1016 1022
- 19) Grifka RG, Vick GW III, O'Laughlin MP, Myers TJ, Morrow WR, Nihill MR, Kearney DL, and Mullins CE : Balloon expandable intravascular stents : aortic implantation and late further dilation in growing minipigs. *Am Heart J* 1993 ; 126 : 979 984
- 20) Morrow WR, Palmaz JC, Tio FO, Ehler WJ, Vandenellen AF, Mullins CE : Re-expansion of balloon-expandable stents after growth. *J Am Coll Cardiol*

1993 ; 22 : 2007 2013  
21 ) Mendelsohn AM, Dorostkar PC, Moorehead CP,  
Lupinetti FM, Reynolds PI, Ludomirsky A, Lloyd  
TR, Heidelberger K, and Beekman RH III : Stent

redilatation in canine models of congenital heart  
disease : pulmonary artery stenosis and coarcta-  
tion of the aorta. Cathet. Cardiovasc. Diag 1996 ;  
38 : 430 440

A Case Report : Intravascular Stent Implantation for Atypical Coarctation of the Aorta  
in a 6 year-old girl with Severe Ventricular Dysfunction and Re-dilatation for  
Re-stenosis Due to Intimal Hyperplasia.

Hirofumi Sawada, Shigeyuki Echigo, Yasuo Ono, Kouji Kimura\* ,  
Shinya Tsukano, Hideo Ohuchi and Tetsuro Kamiya

Department of Pediatrics, \*Department of Radiology National Cardiovascular Center, Osaka, Japan

A 6-year-old girl presented with abdominal pain and fatigue. She was initially diagnosed as dilated cardiomyopathy, and referred to our hospital. Cardiac catheterization and angiography showed severe ventricular dysfunction and a long-segment stenosis of the thoracic aorta. Intravascular stent implantation was performed electively, because there were poor surgical indication and unfavorable morphology for balloon dilation. Balloon pre-dilatation was first performed to avoid ischemia of the lower extremities during the stenting procedure. After pre-dilatation, angiography revealed an obstructing dissection of the thoracic aorta and the pressure gradient persisted. Then A PALMAZ stent ( 39 mm long with a 2.1 mm diameter ) was placed. The diameter of the aorta at the narrowest site increased from 1.8 mm to 7.0 mm and the pressure gradient was absolutely abolished. No complication was encountered and complete relief of symptom was achieved. The ventricular contraction improved gradually.

Four months after stent implantation, angiography revealed restenosis of the stented site and a new stenotic lesion in the abdominal aorta. Restenosis within the stent was treated with balloon redilatation. The diameter increased from 4.3 mm to 6.3 mm. No complication was encountered. There has been no recurrence of symptoms over an 1-year follow-up.

Though stent implantation is only palliative for young patients with coarctation of the aorta, it may play significant roles in the treatment for those with particular condition, such as heart failure and an obstructing dissection of the aorta after failed angioplasty.

---