

胸肋鎖骨肥厚症により内胸動脈剥離が困難であった1例

宮内忠雅 島袋勝也 村上栄司 梅田幸生
福本行臣 石田成吏洋 竹村博文

症例は78歳男性。胸部痛で当院を受診し、急性心筋梗塞にてPOBAを施行された後手術目的で紹介された。術前CTにて胸骨鎖骨の肥大と胸鎖関節の癒合を認めていた。術中、胸骨は厚く切断は非常に困難であった。胸膜も著明に肥厚し周囲組織と強固に癒着しており、LITAは検索したが不明であった。RITAも同様であったが中枢側5cm程の剥離が可能であった。RITAはSVGとI-composit graftを作製し、Ao-SVG-#8, RITA-SVG-#4PD-#14 sequential bypassを行った。術後4日頃より両上肢のしびれ、脱力感があった。術後にはじめて、CT所見より胸肋鎖骨肥厚症と診断された。また術後造影CTにて、LITAは結合織に囲まれているものの通常通りの走行をしていた。術後CAGでグラフトは3枝とも開存していた。上肢症状は軽快し後術32病日に退院した。術後3年目に施行した冠動脈造影CTでもグラフトは良好に開存しており、現在骨肥厚症の症状悪化もなく外来通院している。日心外会誌38巻1号:60-63(2009)

Keywords: 胸肋鎖骨肥厚症, SAPHO症候群, 冠状動脈バイパス術, 内胸動脈, グラフト採取

Unsuccessful LITA Harvest due to Sternocostoclavicular Hyperostosis

Tadamasa Miyauchi, Katsuya Shimabukuro, Eiji Murakami, Yukio Umeda, Yukiomi Fukumoto, Narihiro Ishida and Hirofumi Takemura (General and Cardiothoracic Surgery Graduate School of Medicine, Gifu University, Gifu, Japan)

A 78-year-old man presented at the emergency department with anterior chest pain. Coronary angiography (CAG) revealed three-vessel disease and percutaneous transluminal coronary angioplasty (PTCA) was performed on the right coronary artery. A preoperative plain chest computed tomography (CT) scan revealed hyperostosis of the sternum and clavicle. The patient underwent elective coronary artery bypass surgery 49 days later. During surgery, the thickness of the sternum caused difficulties with implementing median sternotomy. The pleura was also thicker than usual and even pulsation of the left internal thoracic artery (LITA) could not be determined due to severe adhesion. We harvested the right internal thoracic artery (RITA) instead of the LITA. The RITA was in a similar condition, but a 5 cm proximal portion could be prepared. The saphenous vein graft was anastomosed to the left anterior descending coronary artery after proximal anastomosis to the ascending aorta with the heartstring device because of the calcified aorta. The RITA-saphenous vein composite graft was anastomosed sequentially to the distal right coronary and circumflex artery. The patient's postoperative course was uneventful but he complained of numbness and lassitude of both upper extremities for one month. A postoperative contrast-enhanced CT scan revealed a patent LITA surrounded by thick tissue, indicating inflammatory disorders. The CT findings indicated a diagnosis of sternocostoclavicular hyperostosis. The postoperative CAG findings indicated that all bypass grafts were patent and the patient was discharged 32 days after surgery. Sternocostoclavicular hyperostosis is an inflammatory disease that might require surgeons to carefully reconsider graft selection. Jpn. J. Cardiovasc. Surg. 38:60-63 (2009)

冠動脈バイパス術において、内胸動脈(ITA)の使用は標準になっている¹⁾。しかしながら術中のITA損傷や狭小であったなどの予期しない状況により術式を変更せざるを得ない場合がある。我々は、胸肋鎖骨肥厚症が原因と思われる胸膜肥厚と内胸動脈の強固な癒着のためにITAの採取が不能で、術中にグラフト選択を変更せざるを得なかつた1例を経験したので報告する。

2008年5月22日受付、2008年8月17日採用
岐阜大学大学院高度先進外科学
〒501-1194 岐阜市柳戸1-1

症例

症例: 78歳、男性。

主訴: 胸痛。

既往歴: 扁桃腺炎なし、ほかに特記すべきことなし。

現病歴: 2004年12月に安静時の胸痛を自覚し、当院救急外来を受診した。入院時検査ではWBC 9,620/ μ l, CRP 2.75 mg/dl, CPK 1,038 IU/lと上昇を認めた。心電図はII, III, aVF誘導でST上昇し、V₂~V₆でST低下を認めた。急性心筋梗塞(AMI)の診断で緊急冠状動脈造影検査

宮内忠雅ほか：胸肋鎖骨肥厚症による内胸動脈剥離困難症例

61



図1 術前の胸部X-ray
鎖骨、胸骨の肥厚を認める。



図2 術前の胸部CT
鎖骨、胸骨の肥厚と胸鎖関節、胸肋関節の骨化を認める。

(CAG) が施行された。その結果 #1-2 : 75%, #3 : 90%, #6 : 75%, #7-8 : 90%, #11 : 75%, #13 : 90% と診断され、#3 に対して経皮的冠動脈形成術 (POBA) を施行された。全身状態が軽快した後、手術目的にて当科に紹介された。

当科紹介時の理学所見：身長 158 cm, 体重 48.8 kg. 心音：雜音なし。呼吸音：清。血圧：上肢 124/63 mmHg. 皮膚所見：特記すべきことなし。

検査所見：血液、生化学、凝固能検査では、CRP 2.5 mg/dl と高値の他、特に異常は認めなかった。当科に紹介時の胸部X線所見では心胸郭比は45%で、肺うっ血像は認めなかった（図1）。また鎖骨、胸骨の肥厚も認めるが、胸肋鎖骨肥厚症の診断はされてなかった。入院時の胸部単純CTでは上行大動脈の石灰化を認めた。また鎖骨、胸骨の肥厚と胸鎖関節、胸肋関節の骨化および骨髄腔の狭小化を認めていたが、心臓手術には影響ないと思われていた（図2）。CAGの結果より、手術デザインとしてオフポンプ冠状動脈バイパス術（OPCAB）でLITA-LAD, Ao-SVG-#4PD-PLの3枝バイパスを予定された。

手術所見：AMIから第49病日に手術となった。胸骨正中切開を開始したが胸骨は硬く、胸骨鋸で通常通りの切断が不可能であった。当院では通常胸骨上縁から切り下ろしているが、硬くて切断できなかつたため下縁から少し

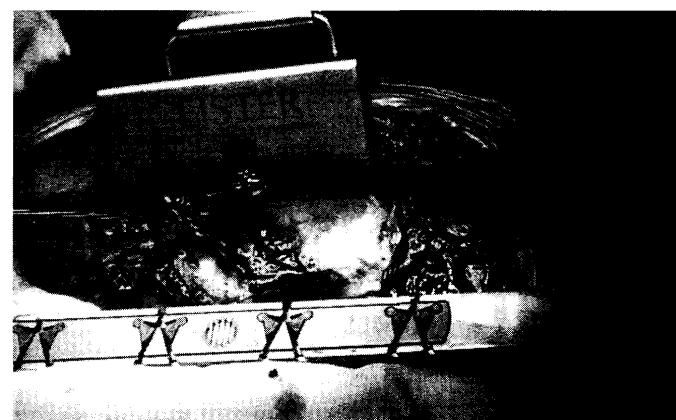


図3 術中写真
胸骨の骨髓腔がほとんど見られない。胸膜も肥厚しており剥離困難であった。

ずつ切り上げていった。

胸骨を切斷し断面を観察すると、厚さは通常の2倍近くあった。開胸器をかけて開く際にも強い抵抗があった（図3）。LITAを採取するために壁側胸膜の剥離を開始したが、白色の粘稠な組織により全面にわたり癒着しており、さらに易出血性であり剥離が困難であった。また胸膜自体も肥厚しており、開胸して胸腔内よりLITAを検索したが厚い胸膜のためかLITAの拍動も触知できず、その存在も不明

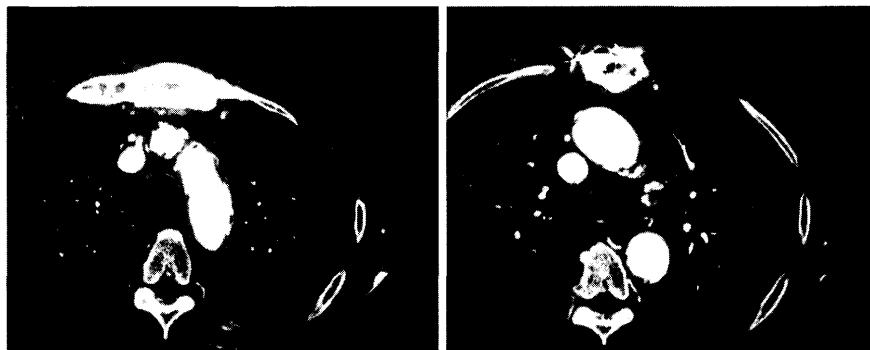


図4 術後造影CT

左内胸動脈は存在しているが、周囲は high density な結合織に囲まれている。

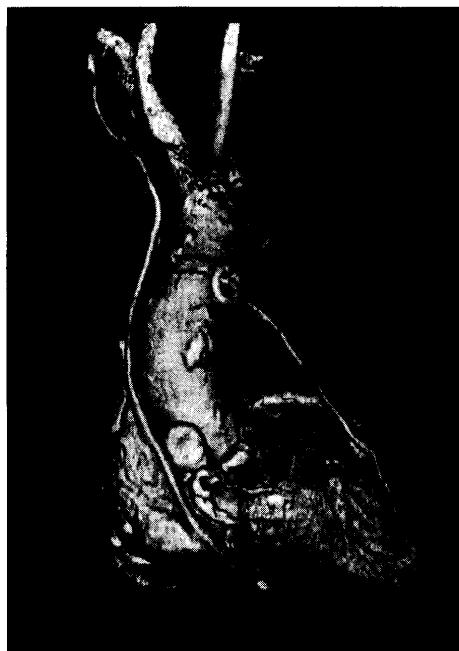


図5 術後胸部3D-CT

Graftは patent で RITA-SVG の狭窄も無い。

であったため採取を断念した。

LITA の代わりに RITA の使用を試み検索を行ったが、同様の所見であった。しかし中枢側 5 cm ほどのみ剥離が可能であった。末梢側の剥離は不能であったため中枢側部分で離断し、SVG と I-composit graft を作製した。また術中エコーにて上行大動脈の動脈硬化病変が高度であったため近位シールシステム (HEARTSTRING) を用いて上行大動脈に SVG の中枢側吻合を行った後、Ao-SVG-LAD の吻合を行った。続いて I-composit グラフトで RITA-SVG-#4PD-PL sequential bypass を行った。

術後経過は良好で同夜に抜管し、術後 2 日目より食事と歩行を開始した。しかし術後 4 日目頃より両上肢のしびれ・脱力感があり、リハビリテーションを行いながら経過観察した。手術所見から LITA の走行異常または狭小である可能性も考えていたが、術後 10 日目の冠動脈造影 CT で LITA は結合織に囲まれているものの通常どおりの走行をしていた (図 4)。冠動脈造影 CT および術後 CAG にて

グラフトは 3 枝とも開存しており、吻合部狭窄もなかった (図 5)。上肢の症状が軽快した後、術後 32 日目に退院した。

術後 3 年経過したが、骨肥厚症の悪化はなく上肢のしびれもない。3 年目に施行した冠動脈造影 CT でもグラフトは開存していた。狭心症の再発もなく現在も外来通院している。

考 察

胸肋鎖骨肥厚症は 1967 年に Köhler らにより鎖骨、胸骨、肋軟骨周囲の骨化と前胸部痛を主訴とする疾患としてはじめて報告されている²⁾。これは肋鎖靭帯の付着部炎 (enthesopathy) が基礎に存在し、胸肋鎖関節に圧痛を伴う有痛性の腫脹をきたす疾患である。病変は肋骨や鎖骨の胸骨付着部に限局する場合が多く、30~40 歳代に好発する。本態は炎症疾患であり 60 歳代頃までに自然治癒の傾向が高いとされている³⁾。しかし骨の病変が進行すると鎖骨が太くなったり肋軟骨が骨化して胸肋鎖骨肥厚症と診断されている。

本症の一部は病巣感染が原因となり、慢性扁桃炎、齶歯などの病巣感染、掌蹠膿疱症 (pustulosis palmaris et plantaris) が高率に合併することが報告されている⁴⁾。特に掌蹠膿疱症は胸肋鎖骨肥厚症の約 60~80% に合併するとされている。検査では CRP 陽性、リウマトイド因子は陰性、HLA-B27 は陰性で、HLA-DR4 がしばしば陽性である。病巣感染を伴う時は ASO、ASK 高値がみられる。しかし原因ははっきりしておらず、慢性関節リウマチなどのように免疫異常やウイルス感染の関与が疑われている⁵⁾。

これらの感染性疾患と骨病変には関連性があるとされ、SAPHO 症候群とも呼ばれてもいる⁶⁾。本症の診断基準は、①重度の挫瘍に伴う骨関節病変、②骨肥厚症、③掌蹠囊胞症に伴う骨関節炎、④慢性反復性骨髓炎のうち、1 つを有するものとされており、皮膚病変を伴わなくても良いとされている⁷⁾。

本症例は過去に胸部痛や胸鎖関節の肥厚を自覚していた

ことは無かった。また四肢の掌蹠膿疱症や扁桃腺炎の既往歴も無かった。しかし胸骨鎖骨病変の状況から考えて胸鎖関節を含む胸部に慢性の炎症があったことは推察でき、この疾患に当てはまると考えられる。胸部単純X-Pでも骨肥厚像は診断可能であり、また最近では心臓手術前にもスクリーニング目的の胸部CTを行うことは一般的になってきており、本疾患が念頭にあれば診断は比較的容易であると考えられる。

治療としてはNSAIDsの経口投与で予後良好である場合が多く、反応しない症例にはビオチン、シクロスボリンが有効であったとの報告もある⁶⁾。

本症例の剖検例の報告によると、胸鎖関節、肋骨脊椎関節部および脊椎間は肥厚した結合組織により線維性癒合を認め、関節の可動性が消失していた⁸⁾。また病理組織所見では胸膜は約3mmに肥厚し、辺縁には炎症性細胞と思われる細胞浸潤も認められたと報告している。本症例も胸膜は白色に変化して非常に肥厚していた。本症例では病理組織標本は採取しなかったが、同じ所見であろうと推測される。この肥厚した胸膜の中に内胸動脈が埋もれているなら剥離採取は非常に困難であると考えられる。今回手術時は内胸動脈の拍動も不明であったため、LITAの走行異常または狭小である可能性があるとしてそれ以上の剥離操作は行わなかった。術前に本症を診断してITA採取が困難になることを予測していたなら、CAG施行時や造影CTにて内胸動脈の走行を確認することができたと思われる。また最近当院ではドプラエコーの血流速度計を導入したため、血流測定により血管の有無と走行を評価して、もう少し剥離を試みることができた可能性はあったと考えている。

グラフトデザインの変更として、今回はAo-SVG-LAD、RITA-SVG-#4PD-PL sequential bypassを行った。LADにはRITAのコンポジットグラフトを吻合することも考えたが、RITAも炎症性に変化していたためグラフト開存率としては不安があり、右冠動脈および回旋枝領域に使用した。また上行大動脈は動脈硬化病変のため1カ所しか中枢側吻合場所が確保できなかった。もし両側内胸動脈が使用不能であった場合、本症例では鎖骨下動脈の剥離も不能であると予測され、inflowとしては上行大動脈のグラフト1カ所分のみとなる。上行大動脈1カ所で3枝のバイパスを行うのは、将来の心事故に対するリスクが高く、RITAの中枢側が確保できたのは幸いであったと考えている。右胃大網動脈の使用も考慮したが、腹部CTにて腹部大動脈お

よび腹腔動脈起始部の著明な石灰化を認めており使用は考えなかった。もしこちらに問題がなければ、重要なinflowの一つとなったはずである。またRITAとのcomposit graftとしては橈骨動脈を用いている報告が多いが、本症例はRITAの中枢に近い場所で吻合したためSVGとの口径差もなく、3年後の造影CTでもグラフト狭窄などの問題は認めなかった。

本症例のように胸骨が炎症性に肥厚しておりITAの採取が不能であった症例は経験が無く、また症例報告も検索し得なかった。手術3年後の現在も胸肋鎖骨肥厚症の悪化もなく狭心症状の再発も認めていないが、今後も注意深い経過観察が必要であると考えている。

結 語

術中に内胸動脈の使用が困難でグラフト選択を変更せざるを得なかった1例を経験した。胸骨鎖骨の肥厚と炎症性の癒着により左内胸動脈の特定・採取が不能であったが、完全血行再建は可能であった。術前検査で鎖骨や胸骨が異常に肥厚している場合は胸肋鎖骨肥厚症の可能性を念頭におき、ITA剥離の工夫やグラフトデザイン変更の可能性を考慮しておく必要があると考えられた。

文 獻

- 1) 北村惣一朗：虚血性心疾患に対するバイパスグラフトと手術術式の選択ガイドライン Guidelines for the Clinical Application of Bypass Grafts and the Surgical Techniques (JCS 2006), 循環器病の診断と治療に関するガイドライン (2004-2005年度合同研究班報告). Circ. J. **70** Suppl. IV: 1477-1553, 2006.
- 2) Kohler, H., Uehlinger, E., Kutzner, J. et al.: Sterno-kostoklavikulare Hyperostose. ein bisher nicht beschriebenes Krankheitsbild. Med. Wochenschr. **100**: 1519-1523, 1975.
- 3) 千木良正機：強直性脊椎炎と類似疾患—最近の話題 胸肋鎖骨異常骨化症. 整・災害 **42**: 757-763, 1999.
- 4) 小島国利, 水谷一裕, 藤田誠一ほか：胸肋鎖骨異常骨化症の臨床と病態 胸肋鎖骨異常骨化症の臨床的検討. 整・災害 **29**: 1483-1490, 1986.
- 5) 宮武 慎, 寺前俊樹, 三上 浩：胸肋鎖骨異常骨化症の1例の治療経験. 中四整会誌 **12**: 125-130, 2000.
- 6) 大塚篤司, 谷崎英昭, 高垣謙二：抗生素の点滴投与で改善したSAPHO症候群の1例. 皮膚臨床 **4**: 1091-1093, 2005.
- 7) Chamot, A.M., Benhamou, C.L., Kahn, M.F. et al.: Acne-pustulosis-hyperostosis-osteitis syndrome. Results of a national survey. 85 cases. Rev. Rhum. Mal. Osteoartic. **54**: 187-196, 1987.
- 8) 月出康平, 矢澤康男, 末原義之ほか：Synovitis-acne-pustulosis hyperostosis-osteitis (SAPHO) syndromeで死亡した1例. 整形外科 **55**: 159-162, 2004.