

気管腕頭動脈瘻に対し腕頭動脈離断術を施行した 1 例

影山 理恵 新城 宏治 高橋 皇基 丹治 雅博

要 旨：症例は 11 歳女児。出生時の低酸素性虚血性脳症による脳性麻痺および気管軟化症のため、7 歳時に喉頭全摘出術および気管切開術を施行され、以後長期呼吸管理中であった。自宅にて気管切開部より出血を認めたため来院した。診察時に、気管カニューレより大量の動脈性出血を認めたため、カフ拡張による圧迫にて一時的に止血した。気管腕頭動脈瘻と診断し、腕頭動脈離断術を施行した。腕頭動脈離断直後の末梢側動脈圧は 50 mmHg 以上あり、バイパス手術は施行しなかった。術後経過は良好であった。気管腕頭動脈瘻は致命的な疾患であるが、緊急時の迅速な対処および適切な手術により良好な結果が得られるものと考えられた。(日血外会誌 2016;25:185-188)

索引用語：気管切開、気管腕頭動脈瘻、腕頭動脈離断術

背 景

気管腕頭動脈瘻は、気管切開術後の長期気管カニューレ留置により発症する稀な合併症である。しかし、いったん発症すると大量出血や呼吸不全などにより致死性的となる。われわれは気管腕頭動脈瘻に対し、手術を施行し救命し得た 1 例を経験したので若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

患 者：11 歳、女児

主 訴：気管切開部からの出血

家族歴：特記すべきことなし

既往歴：出生時の低酸素性虚血性脳症による脳性麻痺および気管軟化症のため、7 歳時に喉頭全摘出術、気管切開術を施行された。当初は、気管カニューレによる呼吸管理は不要であったが、10 歳時より、中枢性無呼吸発作が頻発したこと、側弯症の進行による換気量の低下を認めたこと、さらには繰り返す誤嚥性肺炎などにより、気管カニューレによる常時の人工呼吸管理が必要と

なった。

現病歴：これまで気管カニューレ周囲からの出血は認めず自宅療養を続けていた。今回、母親が気管カニューレ挿入部の Y 字切込ガーゼの血液汚染に気が付き、当院の三次救急外来を受診した。診察のために気管カニューレを動かしたところ、気管切開部から動脈性の出血を認めた。

入院時現症：意識は Glasgow Coma Scale で E4VTM1。生後から低酸素性虚血性脳症による意識障害を認めていたが、日常と著変はなかった。収縮期血圧 116 mmHg、脈拍 120 回 / 分で正常洞調律、経皮的動脈酸素飽和度：SpO₂ 96% (room air)、体温 36.7 度であった。呼吸音は喘鳴が著明であった。

入院経過：出血は少量であったが、SpO₂ の低下を認めていた。バッグ換気を強化しつつ、気管支鏡にて出血部位の確認を試みた。気管カニューレを移動したところ、気管内腔は大量の血液と肉芽により狭窄していた (Fig. 1)。血液を吸引しつつ、さらに気管内腔を観察すると、気管前壁に潰瘍と肉芽および出血点を認めた。気管チューブを気管分岐部まで挿入し、カフを膨張させて潰瘍病変を圧迫止血した。換気は良好で SpO₂ は room air で 99% まで回復した。

術前 CT (Fig. 2A, B)：腕頭動脈前壁に小さな突出があり、気管腕頭動脈瘻の可能性が考えられた。腕頭動脈は左総頸動脈と共通幹になっていた。また、右鎖骨下動脈と右総頸動脈の分岐部近傍に瘻孔が疑われた。

以上より気管腕頭動脈瘻による気道内出血と診断し、緊急手術を考慮したが、生後から続く低酸素性虚血性脳症による意識障害および脳性麻痺がある中で、ご家族より手術に対する承諾が得られず、一時経過観察となった。その後は、カフによる圧迫が奏功し大出血は回避できたが、出血を完全には制御できず、2週間後の大出血を契機にご家族の承諾が得られ手術を施行した。

手術所見 (Fig. 3A)：腕頭動脈離断術を施行した。手術時間は1時間52分、出血は少量であった。胸骨上縁に3cmの横切開を置き、右総頸動脈、右鎖骨下動脈および腕頭動脈を露出し遮断した。瘻孔部位では腕頭動脈後面は気管支前面と強固に癒着していたため剥離操作は行わず、その前後で腕頭動脈を切断し、6-0ポリプロピ

レン糸にて中枢および末梢断端を縫合閉鎖した。その後腕頭動脈前壁を切開し、後壁の瘻孔を確認した。瘻孔は針孔ほどの大きさであり、周囲に浸出液や膿瘍形成等の感染徴候は認められなかった。十分に洗浄後、瘻孔を胸骨舌骨筋群により被覆した。術中の動脈圧は右橈骨動脈で70 mmHg、左橈骨動脈で100 mmHgであり、バイパス手術は施行せず手術を終了した。

術後経過：ICU入室後、左上肢血圧は110 mmHgに対して右上肢血圧は70 mmHg以上が維持されていた。意識はGlasgow Coma ScaleでE4V1M1、新たな神経学的異常所見は認めなかった。術後7日目に気管支鏡検査にて、気管内肉芽の明らかな縮小と出血がないことを確認した。CT (Fig. 3B)を施行し、気管と腕頭動脈との確実な隔離と気管周囲に膿瘍形成等の感染所見がないことを確認した。術後2カ月で退院し、以後6カ月の経過ではあるが良好である。

考 察

本症例は、低酸素性虚血性脳症による進行性の呼吸障害のために長期気管カニューレ管理を要し、そのために気管腕頭動脈瘻の発症に至った。一般に、気管腕頭動脈瘻の原因として、本症例のように気管カニューレによる気管壁への慢性的な刺激に伴い、潰瘍が形成され壊死に陥ることが指摘されている^{1,2)}。発症率は1%以下とされているが、発症すると全体の生存率は25%程度であり致死率は非常に高いと報告されており、発症の危険性を事前に予測し予防に努めることが重要である¹⁾。具体策としては、気管切開は第二、三気管輪で行い、症例に

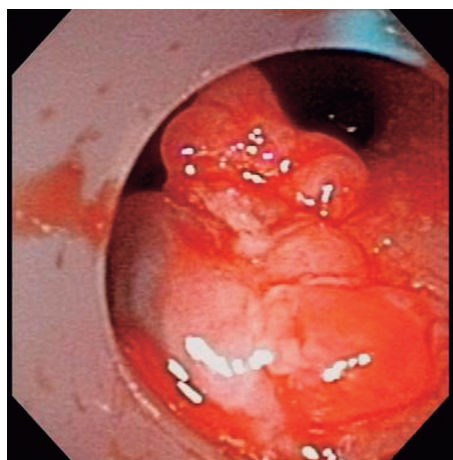


Fig. 1 Bronchoscopic findings showed the trachea lumen was constricted by large clots and granulation tissues.

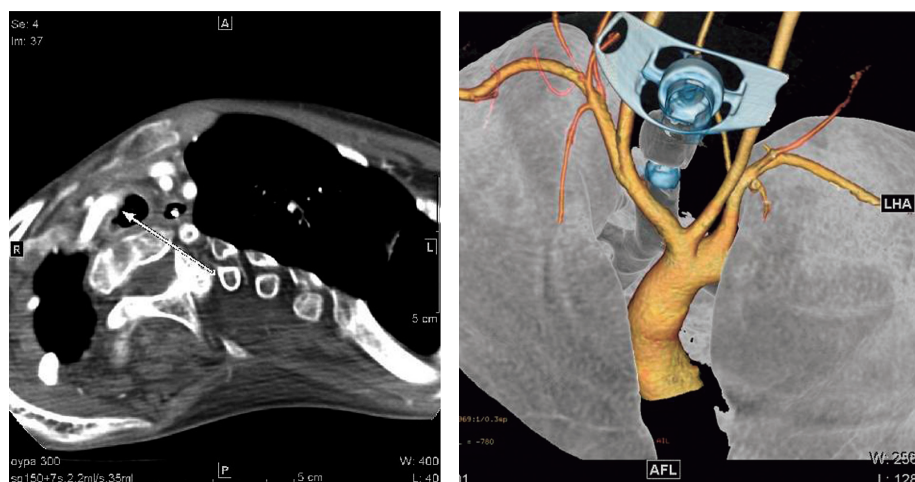


Fig. 2 A, B: Chest CT showed an anterior wall of a brachiocephalic artery had small prominence, and possibility of tracheo-innominate artery fistula was thought about.

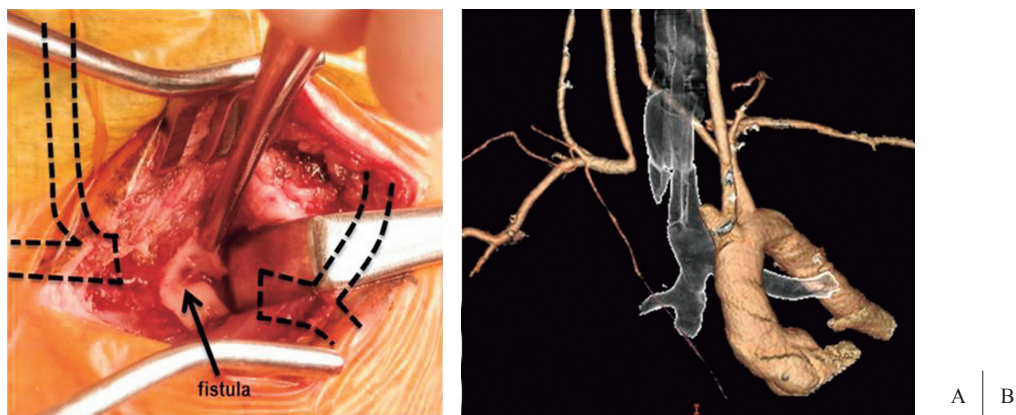


Fig. 3 A, B: There was the fistula to a tracho-innominate artery rear wall.

よっては気切孔の位置変更を考慮することや、定期的にかニューレの位置を確認すること、過剰なカフ膨張を避け、カフ圧のモニタリング(カフ圧 20 mmHg 以下)を行うことなどが予防策として報告されている³⁻⁵⁾。

気管腕頭動脈瘻は大出血する前に少量の出血(予告出血)が 30~50%の症例に認められるため、本疾患を疑って早急に気管支鏡を用いて気道粘膜の潰瘍や壊死を確認し、可能ならば CT や血管造影を行い、外科的処置を考慮すべきである^{1,5,6)}。

大出血が起きた場合の一時的止血は、気管カニューレのカフを過膨張させる方法が最もよいとされている^{1,7)}。その他にも用手圧迫法¹⁾や腕頭動脈 coil 塞栓術⁸⁾が有用とされているが、いずれも根治させるには人工血管置換術や腕頭動脈離断術などの外科的手術が必須である。人工血管置換術は脳血流が維持できるが、術野汚染による感染のリスクがあるため、解剖学的再建は推奨されていない。一方、腕頭動脈離断術は脳血流の低下により片麻痺などの脳障害を来すと報告されているが⁹⁾、右総頸動脈の断端圧が 50 mmHg 以上あれば、血行再建の必要はないとされており^{10,11)}、再出血や死亡率は低いといわれている。術前に頭部 CT や MRI にて Willis 動脈輪および脳底動脈の走行異常や狭窄の有無を評価し、腕頭動脈離断により脳血管障害や右上肢虚血が懸念される場合は、バイパス手術を施行する必要がある¹²⁾。評価が困難な場合、血管造影検査を施行し、側副血行路を介して腕頭動脈を評価することも考慮すべきである。本症例は再出血による緊急手術であったため、頭蓋内血管評価は行わなかった。手術成績に関する報告では、術後 2 カ月以上の生存率は腕頭動脈保持群(人工血管バイパス)が 15.8%であったのに対し、腕頭動脈離断群は 71.2%であった¹³⁾。

われわれの症例では、腕頭動脈の瘻孔が非常に小さ

く、汚染の程度が軽かったため胸骨舌骨筋群での被覆による感染制御が可能であったと考えられる。また、腕頭動脈離断後も右上肢血圧が 70 mmHg 以上を維持できたため、血行再建を回避しながらも脳障害を来すことなく、良好な経過につながったと考えられる。

気管腕頭動脈瘻は稀ではあるが一度発症すると致命的であるため、症例によっては予防的な手術も検討すべきであると考えられる。ただし、手術に際しては合併症の可能性や解剖学的な位置関係を十分に考慮し、症例ごとの検討が必要であり、その適応に関しては未だ統一した見解はないところである。

結 論

長期気管カニューレ管理の後、気管腕頭動脈瘻を発症した症例に対して腕頭動脈離断術は有効である。

利益相反

本論文に関して、共著者全員に利益相反はない。

文 献

- 1) Wood DE, Mathisen DJ. Late complications of tracheotomy. Clin Chest Med 1991;12:597-609.
- 2) Epstein SK. Late complications of tracheostomy. Respir Care 2005;50:542-549.
- 3) Allan JS, Wright CD. Tracheoinnominate fistula: diagnosis and management. Chest Surg Clin N Am 2003;13:331-341.
- 4) 松本睦子, 川上幸雄, 内藤博司, 他. 腕頭動脈気管瘻より出血を来した小児の 2 症例. 麻酔 1991;40:807-811.
- 5) 川島 隆, 伊敷聖子, 嘉手川康人, 他. 長期気管カニューレ留置患者における気管腕頭動脈瘻の 1 救命例. ICU と CCU 2001;35:419-422.
- 6) 石倉久嗣, 咸 行奎, 近藤和也, 他. 長期気管カニューレ

- レ装着患者に発生した気管腕頭動脈瘻の1例. 気管支学. 日本気管支研究雑誌 1998;**20**:619-622.
- 7) 久貝忠男. 気管腕頭動脈瘻4例の検討. 日血外会誌 2004;**13**:691-694.
- 8) 合志桂太郎, 森本和樹, 木谷公紀, 他. Coil 塞栓が奏功し救命し得た気管切開後気管腕頭動脈瘻の1例. 日血外会誌 2015;**24**:103-107.
- 9) Utley JR, Singer MM, Roe BB, et al. Definitive management of innominate artery hemorrhage complicating tracheostomy. JAMA 1972;**220**:577-579.
- 10) Ramesh M, Gazzaniga AB. Management of trachea-innominate artery fistula. J Thorac Cardiovasc Surg 1978;**75**:138-140.
- 11) 下地光好, 赤崎 満, 玉城 守, 他. 長期生存が得られた気管腕頭動脈瘻の1手術例. 日血外会誌 2005;**14**:39-43.
- 12) 古田晃久, 小出昌秋, 國井佳文, 他. 気管腕頭動脈瘻回避のための予防的腕頭動脈離断術の1例. 日血外会誌 2015;**24**:963-966.
- 13) Gelman JJ, Aro M, Weiss SM. Tracheo-innominate artery fistula. J Am Coll Surg 1944;**179**:626-634.

A Case with Tracheo-innominate Artery Fistula Performed the Brachiocephalic Artery Transection

Rie Kageyama, Hiroharu Shinjo, Koki Takahashi, and Masahiro Tanji

Department of Cardiovascular Surgery, Ota Nishinouchi Hospital

Key words: tracheotomy, tracheo-innominate artery fistula, brachiocephalic artery transection

A female patient who had cerebral palsied and tracheomalacia because of hypoxic-ischemic encephalopathy. She also had total laryngectomy and tracheotomy when she was 7 years old. She had bleeding from where she had the tracheotomy and came into emergency when she was 11 years old. We have observed massive bleeding by re-locating the trachea cannula however arrest of hemorrhage was succeeded by cuff expansion. After detailed examination which include bronchoscope and CT scan, we diagnosed tracheo-innominate artery fistula and performed the brachiocephalic artery transection. Bypass surgery wasn't provided since her blood pressure of the distal stump of innominate artery was more than 50 mmHg after tracheo-innominate artery fistula. Tracheo innominate artery is fatal disease however we believe that quick response and appropriate surgery led us to good results.

(Jpn J Vasc Surg 2016;**25**:185-188)