

膝窩動脈外膜嚢胞の 1 例 —組織学的・免疫組織化学的検討—

伊 禮 功, 物部 泰昌, 広川 満良, 真鍋 俊明, 福広 吉晃*,
勝村 達喜*

膝窩動脈外膜嚢胞の 1 例を報告した。症例は 53 歳男性で間歇性跛行を主訴に来院した。左下肢の大腿動脈造影にて、膝窩動脈に狭窄が認められたため膝窩動脈血行再建術が施行された。切除された膝窩動脈の外膜には粘稠な液を入れた多房性嚢胞が存在していた。組織学的には嚢胞壁は結合組織で構成され、内面には所々に扁平な細胞が存在していた。これらの扁平細胞は免疫学的にビメンチンに陽性で、第 8 因子関連抗原、QB-10、ケラチンに陰性であった。また、これらの細胞周囲にはラミニン陽性物質はみられなかった。我々は病因論的にガングリオン類似した外膜の粘液変性と考えた。(平成 5 年 11 月 10 日採用)

A Case of Adventitial Cystic Disease of the Popliteal Artery —A Histological and Immunohistochemical Study—

Isao Irei, Yasumasa Monobe, Mitsuyoshi Hirokawa, Toshiaki Manabe,
Yoshiaki Fukuhiro* and Tatsuki Katsumura*

A case of a 53-year-old man with adventitial cystic disease of the left popliteal artery is reported. He was admitted to our hospital because of intermittent claudication. An Angiogram revealed a stenosis of the popliteal artery and angioplasty were performed.

Gross examination of the resected popliteal artery showed multilocular cysts in its adventitia. Immunohistochemically flattened cells existing on the inner surface of the cysts were positive for Vimentin and negative for Factor VIII-related antigen QB-10 and Keratin. We suspect that the etiology of the disease may be cystic degeneration of the adventitiallike ganglion of soft tissue. (Accepted on November 10, 1993)

Kawasaki Igakkaishi 20 (1) : 53—57, 1994

Key Words ① Popliteal artery ② Adventitial cystic disease
③ Immunohistochemical study

川崎医科大学 病理学教室

〒701-01 倉敷市松島577

* 同 外科胸部心臓血管部門

Department of Pathology, Kawasaki Medical School :
577 Matsushima, Kurashiki, Okayama, 701-01 Japan
Division of Thoracic and Cardiovascular Surgery,
Department of Surgery

緒 言

膝窩動脈外膜嚢胞は膝窩動脈の外膜内に多房性の嚢胞が形成される比較的稀な疾患である。嚢胞が血管内腔を圧迫することにより、下肢の循環障害をきたし、臨床的に疼痛や間歇性跛行がみられるのが特徴である。その原因に関しては外傷説、滑膜細胞説、滑膜細胞化生説などが挙げられているものの定説を得るに至っていない。最近、我々は本症の1例を経験し、病変の成り立ちを解明する目的で免疫組織化学的検討を行った。我々の知る限り膝窩動脈外膜嚢胞の免疫組織化学的な報告例はないため、発生原因に関して若干の文献的考察を加えてここに報告する。

症 例

患 者：53歳、男性

主 訴：間歇性跛行

既往歴および家族歴：外傷の既往なく、他にも特記すべき事項なし

現病歴ならびに入院後経過：1カ月前より左下肢の間歇性跛行が出現し、近医を受診後、当院外科外来を紹介された。来院時、上肢の脈拍に異常は認めず、血圧は右114/80 mmHg、左146/86 mmHgであった。頸部、心、肺、腹部に異常はなく、筋萎縮も認めなかった。左膝窩動脈、左脛骨動脈は触知できなかった。血液、尿検査に異常はなかった。左大腿動脈造影では膝関節の高さで、膝窩動脈の狭小化を認めた(Fig. 1)。狭小部の内面は平滑で、血管外からの圧迫によると考えられた。側副血管の発達は乏しかった。病変部より末梢下肢の動脈には異常は認められなかった。また、反対側の動脈に変化はなかった。入院後2週間後に左膝窩動脈血行再建術が施行された。

手術時、膝窩動脈は約3 cmの長さにわたって膨隆し、多嚢胞状であった。周囲組織と強く癒着し剝離操作により、一部嚢胞が破裂し、粘調

で透明な液の流出が認められた。病変部と関節や滑膜との交通は明らかでなかった。膝窩動脈を切除し、自家大伏在静脈グラフトにて置換し、手術を終了した。術後経過良好にて退院し、その後再発はみられていない。

病 理 所 見

切除された4×1×1 cm大の血管の縦断面では動脈内腔は狭小化し、血栓の形成がみられた。動脈壁は肥厚し、外膜側には多房性の嚢胞が存在していた。嚢胞は粘稠度の高い透明な液体で満たされていた。組織学的には内膜は部分的に軽度肥厚し、内腔にみられた血栓は器質化していた。中膜には著変がなかった。肉眼的にみられた多房性の嚢胞は外弾性板の外側、つまり外膜に存在し(Fig. 2)、動脈内腔との交通は明らかでなかった。嚢胞壁には外弾性板の関与はなく、主に膠原線維性の結合織よりなり、軽度の炎症細胞浸潤や粘液腫様間質もみられた(Fig. 3)。



Fig. 1. Angiography reveals a shadow defect on the popliteal artery.

嚢胞内面には所々に扁平な細胞が認められ、HE染色では嚢胞内に少量の淡い好酸性無形状物質がみられた。これらはPAS反応やムチカルミン染色に陰性であったが、アルシアン青染色では陽性となり、ヒアロニダーゼに感受性を示した。免疫組織化学的検索では、嚢胞の内面にみられた扁平な細胞はビメンチン(DAKO)に

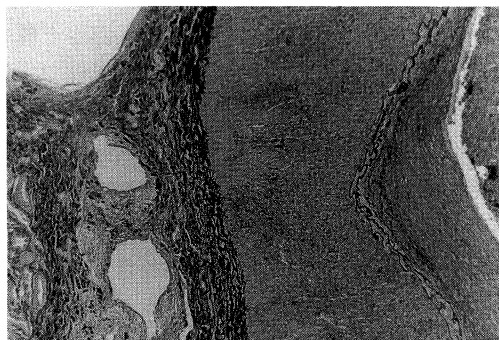


Fig. 2. Cysts composed of connective tissue are present in the adventitia.

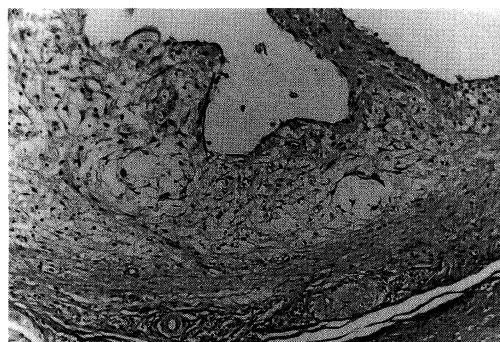


Fig. 3. Focal myxoid area of the stroma (H. E. stain $\times 60$)

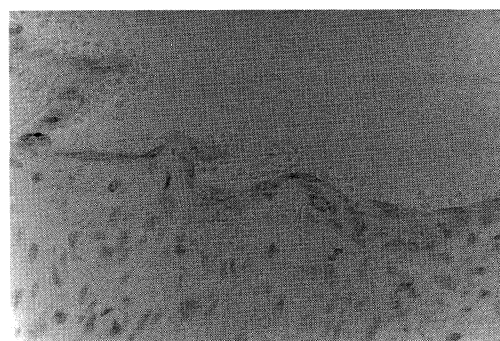


Fig. 4. Flattened cell lining inner surface of cysts, these are positive for vimentin (immuno stain for Vimentin, $\times 240$)

陽性で (Fig. 4), 第8因子関連抗原 (DAKO), QB-10 (NOVOCASTRA), ケラチン (DAKO) に陰性であった。また扁平な細胞の周囲にラミニニン (DAKO) 陽性物質はみられなかった。なお、切除された標本内には動脈硬化の所見はなかった。

考 察

膝窩動脈外膜嚢胞 adventitial cystic disease of the popliteal artery は膝窩動脈の外膜内に多房性嚢胞を形成する疾患であり、以前より, cystic adventitial degeneration of popliteal artery¹⁾, cystic mucoid degeneration²⁾, mucinous cystic dissecting intramural degeneration³⁾, subadventitial pseudocyst⁴⁾, popliteal Baker's cyst⁵⁾ など種々の病名で報告されてきた。

発生頻度は比較的稀で、1954年に Ejrup と Hierton¹⁾ が報告して以来現在まで、世界で230余例の報告をみるにすぎない。日本では1991年に八木ら⁸⁾ が本邦の38例を集計している。

それらの報告によると、本症の好発年齢は30～40歳で、一般に動脈硬化症の年齢よりも若い。我々の症例も男性であったように、男女比は4:1で、男性に多い。部位別では左右差はない。症状としては突然の間歇性跛行が特徴的で、疼痛や歩行困難をきたすが、潰瘍を形成することはない。診断には血管造影が重要で、砂時計様 (hour-glass)、全周性、半月様、三日月状 (shmiter sign) 等といわれる狭窄像がみられる。完全に動脈内腔を閉塞することもある。また、他の動脈に動脈硬化症がない点も診断上重要である。なお、膝窩動脈以外にも外膜嚢胞が発生することもあるが、Ishikawa ら⁶⁾ はその頻度について、膝窩動脈に発生した195例に対して、膝窩動脈以外では39症例と報告している⁶⁾。本症例の肉眼的特徴は動脈の外膜内に多房性の嚢胞が存在することである。病変の長さは1.5～7 cm の範囲までの報告があり、3～5 cm のものが多い。内腔には粘稠度の高いゼリー状の透明

な液体が存在する。動脈の内腔はこれらの嚢胞によって圧迫され、狭窄や血栓形成を伴う。組織学的には、嚢胞の壁は弾性線維を含まない結合織よりなり、一般的に嚢胞内面には被覆細胞はみられない。時に扁平な細胞が存在するとの報告もあるが、上皮細胞である根拠はいまの所証明されていない。従って上皮細胞で覆われた真の嚢胞とは言い難く、仮性嚢胞の範中に入るべき疾患である。本症は臨床的にも、組織学的にも、今まで報告されてきた膝窩動脈外膜嚢胞に合致するものである。

本症の発生の原因として、古くより、外傷説^{6),9),10)}、滑膜細胞迷入説^{7),9)}、滑膜細胞化生説^{6),9),12)}、栄養血管やリンパ管由来説⁶⁾など多くの仮説が述べられてきたが、未だ明確にはされていない。外傷説は自覚しない程度の小さは外傷が持続的に、あるいは間歇的に血管壁に起こることにより、動脈外膜の結合織に粘液変性が起こり、嚢腫が形成されるという説で、軟部組織に発生するガングリオンに類似した病変と考えられる。滑膜細胞迷入説とは膝関節の内面を覆う滑膜細胞が動脈壁内に迷入し、嚢腫を形成するという説である。滑膜細胞化生説とは外膜の結合組織内に存在する幼若細胞が滑膜細胞に化生し、粘液を産生するという説である。栄養

血管やリンパ管由来説¹⁾では動脈壁内に存在する栄養血管の内皮細胞あるいはリンパ管の内皮細胞が嚢腫状の腔を形成したとする考え方である。本症例においては、嚢胞は血管腔や関節腔との関係がなく、内面を被覆する細胞は免疫組織学的にケラチン、第VIII因子関連抗原、QB-10などに陰性であったことより、滑膜細胞由来や内皮細胞由来とは言い難い。嚢胞内容物はヒアルロン酸を含む間質性粘液であること、内面を覆っている扁平な細胞はビメンチンのみ陽性であること、嚢胞周囲には粘液変性に陥りかけた間質がみられたことなどから結合織の粘液変性が高度となり、嚢胞を形成するようになったと推測される。今までこのような嚢胞形成は自覚しない程度の小さな外傷が原因といわれている。しかし多くの症例で、外傷に由来するという確証はなく、結合織の粘液変性を外傷説と決めつけるには疑問が残る。現時点ではむしろ原因不明の結合織の粘液変性による嚢胞としておくべきと思われる。

以上、我々は膝窩動脈外膜嚢胞の1例を免疫組織化学的結果を添えて報告した。今後の症例の集積と多角的な検索により、その成因が明らかになって行くことを期待する。

文 献

- 1) Hierton T, Lindberg K: Cystic adventitial degeneration of the popliteal artery. *Acta Chir Scand* 113: 72-77, 1957
- 2) Hart Hansen JP: Cystic mucoid degeneration of the popliteal artery. *Acta Chir Scand* 131: 171-177, 1966
- 3) Ejrup B, Hierton T: Intermittent claudication: 3 cases treated by free vein graft. *Acta Chir Scand* 108: 217-230, 1954
- 4) Schramek A, Hashmonai M: Subadventitial haematoma of the popliteal artery. *J Cardiovasc Surg* 38: 447-451, 1973
- 5) Olocott C: Popliteal artery stenosis caused by a Baker Cyst. *J Vasc Surg* 4: 403-405, 1986
- 6) Ishikawa K: Cystic adventitial disease of the popliteal artery and other stem vessel in the extremities. *Jpn J Surg* 17: 221-229, 1987
- 7) Schoe H, Van Opstal C: Baker Cyst connected to popliteal artery cyst. *Ann Vasc Surg* 2: 385-389, 1988
- 8) 八木 誠, 広瀬 光: 膝窩部嚢胞から発生したと考えられる膝窩動脈外膜嚢胞の一例. *日臨外医会誌* 52:

1638—1644, 1991

- 9) Gregory D, Jay BE : Clinical and Chemical characterization of an adventitialpopliteal cyst. J Surg 9 : 448—451, 1989
- 10) Ward AS, Reidy JF : Adventitial cystic Disease of the popliteal Artery. Radiology 38 : 649—651, 1987
- 11) Nicoau H, Calen S : Adventitial cyst of the popliteal artery. Ann Vasc Surg 2 : 196—198, 1988
- 12) Lassond J, Laurendeau F : Cystic Adventitial disease of the popliteal artery, Clinical aspect and etiology. Am Surg 48 : 341—343, 1982
- 13) Terry J, Schenken J : Cystic Adventitial Disease. Hum Pathol 12 : 639—643, 1981
- 14) Ikeda M, Fujimori Y : Compression of the popliteal vein and Artery caused by popliteal cyst. Angiology 27 : 245—251, 1984