

症例報告

早産極低出生体重児の肺静脈閉塞を伴う 下心臓型総肺静脈還流異常に対するカテーテル治療

佐藤 大二郎¹⁾, 金 成海¹⁾, 石垣 瑞彦¹⁾, 渋谷 茜¹⁾, 眞田 和哉¹⁾, 佐藤 慶介¹⁾,
芳本 潤¹⁾, 満下 紀恵¹⁾, 新居 正基¹⁾, 坂本 喜三郎²⁾, 田中 靖彦¹⁾

¹⁾静岡県立こども病院 循環器科

²⁾静岡県立こども病院 心臓血管外科

Catheter Intervention in a Very Low Birth Weight Pre-Term Infant with Obstructed Infradiaphragmatic Total Anomalous Pulmonary Venous Connection

Daijiro Sato¹⁾, Sung-Hae Kim¹⁾, Mizuhiko Ishigaki¹⁾, Akane Shibuya¹⁾, Kazuya Sanada¹⁾, Keisuke Sato¹⁾,
Jun Yoshimoto¹⁾, Norie Mitsushita¹⁾, Masaki Nii¹⁾, Kisaburo Sakamoto²⁾, and Yasuhiko Tanaka¹⁾

¹⁾Department of Cardiology, Shizuoka Children's Hospital, Shizuoka, Japan

²⁾Department of Cardiovascular Surgery, Shizuoka Children's Hospital, Shizuoka, Japan

Patients with total anomalous pulmonary venous connection accompanying pulmonary venous obstruction require early interventions soon after birth. We experienced the case of a preterm baby with infracardiac total anomalous pulmonary venous connection and an obstructive vertical vein who underwent preemptive stent implantation and repetitive stent dilatation followed by elective corrective surgery. The patient was delivered at 32 weeks and 5 days of gestation and birth weight 1,284g. Systemic oxygen saturation was 86%, and a chest X-ray showed pulmonary congestion. At the age of 4 days, a stent was placed at the obstructive ductus venosus, which required transcatheter stent dilatation due to in-stent stenosis at the age of 29 and 38 days. At last, intra-cardiac repair was performed with weight of 1,849g at the age of 57 days. Stent implantation for an obstructive vertical vein is feasible and effective even in preterm or low birth weight infants with total anomalous pulmonary venous connection and an obstructive vertical vein.

Keywords: congenital heart defect, cardiac catheterization, palliative treatment, total anomalous pulmonary venous return, stent implantation

肺静脈閉塞を合併した総肺静脈還流異常では出生後早期の治療介入が求められる。我々は、肺静脈閉塞を伴う総肺静脈還流異常の早産極低出生体重児に対して、ステント留置と再拡張を先行し、待機的な開心術により合併症なく救命された1例を経験した。症例は在胎32週5日、体重1,284gで出生し、肺静脈閉塞を伴う下心臓型総肺静脈還流異常と診断された。日齢4、狭窄部位である垂直静脈から静脈管にかけてステントを留置した。ステント内狭窄を生じたため、日齢29、日齢38にステント再拡張を行った。日齢57、1,849gでsutureless法による心内修復術を施行し、合併症なく自宅退院した。

2024年2月13日受付, 2024年6月10日受理

著者連絡先: 佐藤大二郎 (E-mail: dsato_tohoku@yahoo.co.jp)

〒420-0953 静岡県静岡市葵区漆山860 静岡県立こども病院 循環器科

doi: 10.9794/jspccs.40.204

背 景

早産児は正期産児と比較し先天性心疾患 (congenital heart defect: CHD) の合併が多い¹⁾。CHD において早産、低体重は早期死亡のリスク因子である²⁻⁴⁾。CHD を合併した早産児に対して早期手術介入と待機的介入のどちらが有効かは明らかにされていない⁵⁾。早期の血行動態是正が予後を改善するという意見がある。一方、早産児、低体重児において開心術は手技的に困難となるばかりでなく、頭蓋内出血等の全身合併症の危険性が高く、致命的となりやすい。

総肺静脈還流異常 (total anomalous pulmonary venous connection: TAPVC) の根治的治療は外科手術であり、肺静脈閉塞 (pulmonary venous obstruction: PVO) を合併した症例では出生後早期の治療介入が求められる。早産児において TAPVC を合併する頻度は 15% という報告がある¹⁾。我々は、重篤な PVO を合併した下心臓型 TAPVC の早産極低出生体重児例に対して、ステント留置・再拡張を先行し、待機的な開心術により合併症なく救命された 1 例を経験したので報告する。

症 例

病歴

症例は日齢 0 日の女児。児の母親は自然妊娠成立後、一絨毛膜三羊膜品胎 (MT 品胎) と診断され、前医で妊娠管理を行った。在胎 28 週の胎児心エコーで下心臓型 TAPVC を疑われた。切迫早産に対する緊急帝王切開により、児は在胎 32 週 5 日、身長 36.5 cm (-2.5SD, 0.7%tile)、体重 1,284 g (-2.0SD, 2.3%tile)、頭囲 28.7 cm (-0.6SD, 27.5%tile)、胸囲 23.7 cm、MT 品胎の第 2 子として出生した。Apgar スコアは出生 1 分後、5 分後ともに 7 点だった。出生後の心エコーで同診断とされ、加療目的に当院に緊急搬送された。

入院時、心拍数 156 回/分、血圧 66/23 mmHg、呼吸回数 46 回/分で経皮的酸素飽和度 86% (経鼻的持続陽圧呼吸療法 PEEP 5 mmHg, FiO₂ 0.21)、胸部聴診で肺雑音なし、心音整、心雑音は聴取しなかった。胸部 X 線で心胸郭比 57%、両側肺血管陰影の増強を認めた (Fig. 1)。血液検査で特記すべき異常なし。心臓超音波検査では右房、右室の拡大を認め、左室拡張末期径 10.3 mm (正常期待値の 76%)、左室駆出率 68%、心房中隔欠損 4.9 mm、圧較差なく右左短絡、左右肺静脈が合流して共通肺静脈腔を形成し、共通肺静脈腔から垂直静脈が左門脈へ還流していた。垂

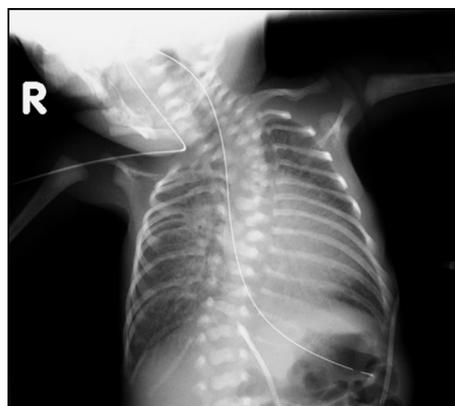


Fig. 1 Chest X-ray

Chest X-ray shows severe pulmonary congestion and scoliosis.

直静脈 (vertical vein: VV) は横隔膜を貫通する部位では狭窄なく、垂直静脈の左門脈合流部から静脈管 (ductus venosus: DV) にかけて U 字型に走行しており (Fig. 2a)、同部位で狭窄があり、PVO を認めた (Fig. 2b)。血流波形は連続性であり、最大流速 1.6 m/s、平均圧較差 7 mmHg であった。動脈管は両方向短絡だった。心外疾患として、椎体・右胸郭形成不全、右内反足・右膝拘縮、右腎低形成と診断された。遺伝染色体疾患の精査のため、術後に遺伝染色体科へのコンサルトを行い、染色体検査が行われたが正常核型であり、VACTERL 連合と診断された。

当院循環器科、心臓血管外科、新生児科、麻酔科で協議し、早産児期の開心術は合併症のリスクが高く、PVO に対してカテーテル治療を先行し、待機的に修復術を行う方針とした。VV へのステント留置は適応外使用であるが、垂直静脈を含めた肺静脈へのステント留置術として事前に当院の倫理委員会でも審査、承認を受けていた。ご両親へ治療方針を説明し同意を得た。

カテーテル治療① アプローチおよびバルーンによる前拡張

日齢 4 (修正 33 週 2 日、体重 1,109 g)、ミダゾラム、フェンタニル、ロクロニウムを用いた静脈麻酔薬による全身麻酔下で経皮的バルーン形成術、血管内ステント留置術を行った。肺出血の懸念があるためヘパリンは使用しなかった。臍静脈からアプローチした際、DV、IVC へカテーテルは挿入できるが、VV への挿入は困難と考え、頸部からアプローチすることにした。右内頸静脈に 6Fr Merit Prelude IDeal シース (Merit Medical, South Jordan, UT, USA) を留置し、4Fr マ

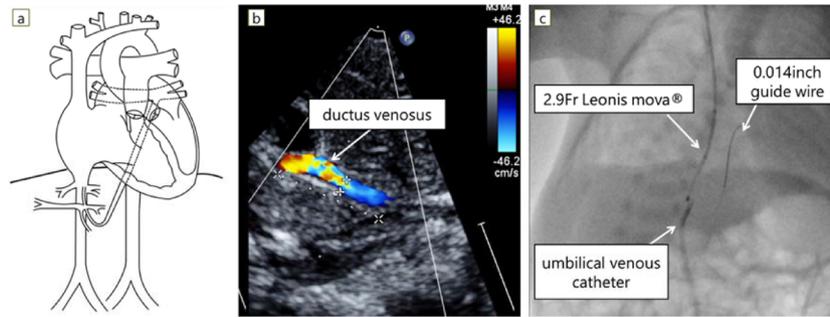


Fig. 2 Schematic diagram, echocardiogram, and fluoroscopic image

a) Schematic diagram of the patient's anatomy. The four pulmonary veins join a confluence that drains the vertical vein to the left portal vein, ductus venosus and IVC to RA. Vertical vein, left portal vein and ductus venosus form U-shaped curve. b) Echocardiography. White arrow shows ductus venosus measuring 1.1 mm at its short axis and 9.4 mm at its long axis diameter. c) Using the umbilical vein catheter as a landmark, we inserted a 0.014-inch guidewire into the vertical vein.

ルチパーパスカテーテル (フォルテ グロウ メディカル株式会社, 栃木, 日本), 先端転向型マイクロカテーテルである, 2.9Fr レオニスムーバ® (SB カワスミ株式会社, 神奈川, 日本) を用いて, 臍静脈カテーテルを目印にすることで 0.014 インチ GT ワイヤ® アンクル (テルモ株式会社, 東京, 日本) を VV へ挿入できた (Fig. 2c). ガイドワイヤーの挿入が困難な場合は臍静脈カテーテルから血管造影し, 臍静脈からスネアを挿入し内頸静脈から挿入したガイドワイヤーを把持して静脈管を通過させる予定であった. 2.9Fr レオニスムーバ® は VV と DV が U 字型に吻合している部位を通過しなかったため, 1.9Fr Carnelian® MARVEL (東海メディカルプロダクツ株式会社, 愛知, 日本) を使用することで, 2.9Fr レオニスムーバを挿入できた. PVO 解除前のカテーテル挿入, 血管造影は PVO 悪化による肺出血の懸念があったため, 圧測定と血管造影は行わず直ちに経皮的バルーン形成術を行った. 0.014 インチ Balance® ガイドワイヤー (Abbott, Plymouth, MN, USA) を左肺静脈へ挿入後, 血管拡張用バルーン Trek® (Abbott, Plymouth, MN, USA) 3 mm×15 mm, 4 mm×15 mm で VV, VV と DV の吻合部, DV の 3 か所をいずれも 16 気圧で前拡張した. 血管拡張用バルーン Sterling® (Boston Scientific, Marlborough, MA, USA) 5 mm×20 mm を用い, 10 気圧で拡張した (Fig. 3a). VV で造影し, 最狭窄部径 4.7 mm と狭窄が残存していたため, スtent留置術の方針とした (Fig. 3b).

血管内ステント留置術

まずはじめに, U 字型に屈曲した血管経路に対応するため, 柔軟性の高い自己拡張型ステント Wallstent®

(Boston Scientific, Marlborough, MA, USA) 6 mm×24 mm を選択した. しかし, 狭窄部をデリバリーカテーテルが通過しなかったため, バルーン拡張型ステントの中でも比較的柔軟で細径である Express SD® (Boston Scientific, Marlborough, MA, USA) 5 mm×19 mm へ変更した. 6Fr Bright-tip® ガイディングカテーテル (Cordis, Miami Lakes, FL, USA) を用い, 狭窄部の通過を試みたが困難であった, そのため, NC Emerge® (Boston Scientific, Marlborough, MA, USA) 5.0×15 mm を先進させ, 狭窄部位を拡張しつつ, 減圧と同時に同ガイディングカテーテルを追従させて狭窄部位を通過させて通過に成功した. Express SD® の遠位端が VV 内, かつ U 字型の狭窄部分をカバーするように留置した. 同規格の Express SD® 5 mm×19 mm を先に留置したステントと 4 mm オーバーラップする形でタンデムに留置した (Fig. 3c). 近位側は DV 全体を覆う必要があり, 右房内へ突出する形態となった (Fig. 3d). 2.9Fr レオニスムーバ® を用いて計測した VV 内の平均圧は 15 mmHg であった. 手技を終了し, NICU へ挿管のまま帰室した. 手技に伴う頭蓋内出血, 気道出血はなかった. 術後の心臓超音波検査ではステント内の血流は連続性血流だが, 最大流速 1.2 m/s, 平均圧較差 3 mmHg へ改善していた.

カテーテル治療②

PDA が左右短絡となったため, 日齢 7 にイブプロフェンを投与し閉鎖. 日齢 11 に抜管した. 日齢 25, 心臓超音波検査でステント内血流が連続性パターン, 平均圧較差が 11 mmHg へ増大した. 胸部 X 線で両肺野の透過性低下があり, ステント内狭窄に対して再介

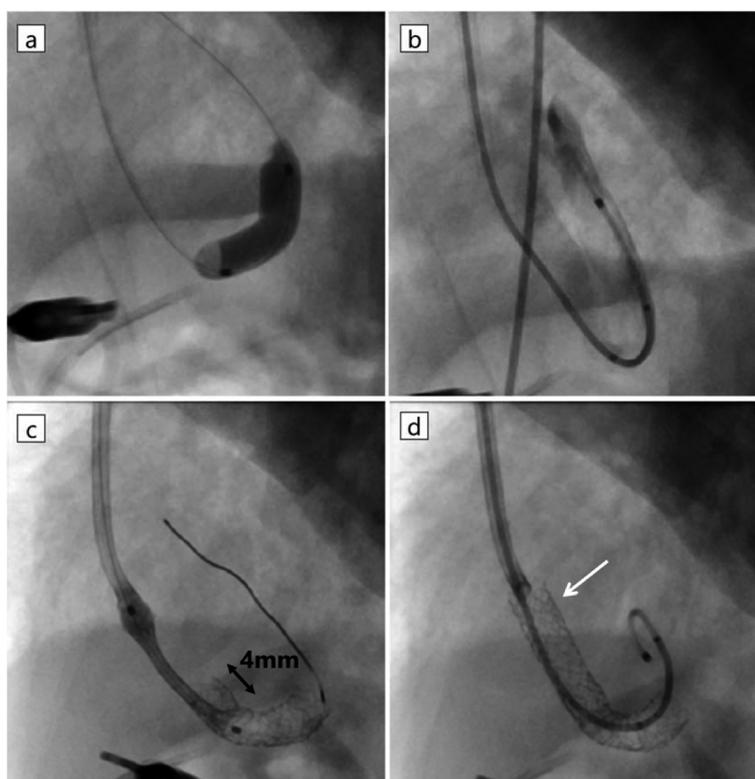


Fig. 3 Balloon dilatation and stenting for ductus venosus and vertical vein

a) Dilated by Sterling 5 mm×20 mm in the vertical vein. b) Angiogram before the procedure shows ductus venosus and vertical vein are taking a hairpin turn. c) Distal and proximal stent overlap by 4 mm. d) After the procedure. White arrow shows proximal stent protrudes into right atrium.

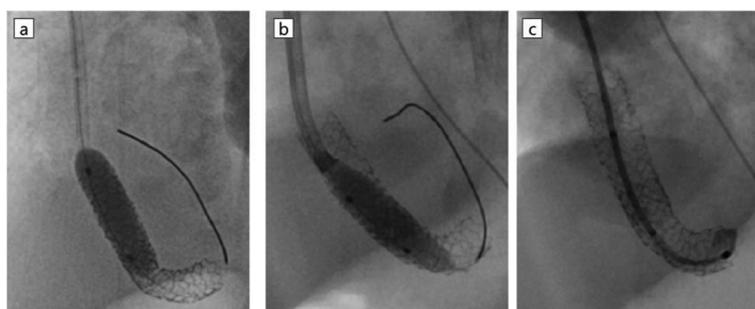


Fig. 4 Balloon dilatation for in-stent stenosis

a) Dilated by Sterling 6 mm×20 mm. Because Sterling didn't pass through the overlap area, the stents were dilated by the distal shoulder. b) Dilated by NC Emerge® 6 mm×12 mm. We used 6 Fr Bright-tip guiding catheter to deliver NC Emerge® into the stent. c) Post dilation.

入する方針とした。

日齢 29 (修正 36 週 6 日, 体重 1,393 g), 静脈麻酔薬による全身麻酔下でステント内再拡張を行った。右内頸静脈に 5 Fr Merit Prelude IDEal シースを留置し, 2.9 Fr レオニスムーバ®, 0.016 インチ GT ワイヤ® アンクルを用いて 2.9 Fr レオニスムーバ® を VV 内へ挿入した。計測した VV 内の平均圧は 30 mmHg であった。0.014 インチ Flexi wire (Abbott, Plymouth,

MN, USA) を挿入し, Sterling® 6 mm×20 mm で狭窄部位を 10 気圧で拡張した (Fig. 4a)。VV 内の平均圧は 18 mmHg へ低下した。手技を終了し, NICU へ挿管のまま帰室した。手技に伴う頭蓋内出血, 気道出血はなかった。術後の心臓超音波検査でステント内血流は連続性, 最大流速 1.4 m/s, 平均圧較差 6 mmHg であった。

カテーテル治療③

治療②ではステント全体への高圧拡張が行えず、術後計測した VV 圧が高いためステント内狭窄が残存していると考え、予定的に 2 度目の再拡張を施行し、狭窄が十分に解除できなければ心内修復術を行う方針とした。

日齢 38 (修正 38 週 1 日, 体重 1,514g), 右内頸静脈に 6Fr Prelude ideal シースを留置し, 6Fr Bright-tip® ガイディングカテーテルで狭窄部位を通過させ, NC Emerge® 6mm×12mm を用いて 20 気圧で拡張した (Fig. 4b, c). VV 内の平均圧は 16 から 10mmHg へ低下した。十分な拡張が得られたと判断し手技を終了した。手技に伴う頭蓋内出血, 気道出血はなかった。術後の心臓超音波検査でステント内血流は最大流速 1.8m/s, 平均圧較差 10mmHg であった。

TAPVC 修復術

日齢 57 (修正 40 週 6 日, 体重 1,849g), TAPVC 修復術を行った。開胸直後に肺高血圧発作を起こしたため一酸化窒素による吸入療法を行った。心停止下で右房切開し, 右房内に突出したステントを肝静脈と静脈管の合流部まで除去, VV を同定し結紮した。左房と切開した共通肺静脈腔周囲の背側心膜と左心房壁を 7-0 polypropylene 糸で連続縫合した。心房中隔欠損孔, 右房を閉鎖後, 人工心肺から離脱。胸骨閉鎖し手術を終了した。人工心肺使用時間は 177 分, 大動脈遮断時間は 79 分であった。

術後経過

肺高血圧発作の回避のため, 筋弛緩薬を用いて深鎖静で管理した。術後 2 日目に筋弛緩薬を中止した。術後 5 日目に一時的な乳び胸を認めしたが, 術後 8 日目に人工呼吸器から離脱した。術後 15 日目に酸素投与を終了, 自律哺乳で体重増加が得られ, 術後 46 日目 (日齢 103, 修正 47 週 3 日, 体重 2,505g) に自宅退院した。心エコーでは術直後から退院 1 か月後の再診時まで, 共通肺静脈腔から左心房への十分な吻合口があり, 分枝の狭窄や肺高血圧所見なく経過している。

考 察

早産児に対する開心術のリスク

早産児は正期産児と比較し CHD の合併が多く, 正期産児では 1,000 出生あたり 5.1 人だが, 早産児では 12.5 人で CHD を合併する¹⁾。手術時体重が 2.5kg 未満の群は 2.5kg 以上の群と比較し, 早期死亡率が高かった (10.9% vs 4.8%)。さらに, 多変量解析の結果, 早産が早期死亡のリスク因子であった²⁾。また, 手術時体重が 2.5kg 以下では一期的根治術と姑息術のいずれでも死亡率が増加した³⁾。

早産児において, 人工心肺を使用した開心術は頭蓋内出血をはじめとする合併症の可能性があるため, 当院では修正 35 週以降を適応としている。当院で修正 37 週未満に人工心肺を使用した開心術を行った症例を示す (Table 1)。14 例中 9 例が死亡し, 術後 30 日以内の早期死亡は 6 例であった。手術時修正週数が

Table 1 Clinical course of premature neonates with the use of cardiopulmonary bypass

Case	Sex	Diagnosis	Operation	Gestational age	Birth weight (g)	Age at operation (day)	Corrected age at operation	IVH	Neurological disease	Others	Prognosis
1	F	TGA	Norwood	31w4d	1566	5	32w2d	+	epilepsy	Hydrocephalus	Survival
2	M	PA/IVS	Valvectomy	34w1d	2193	1	34w2d	-	-	Autism	Survival
3	F	HLHS	bPAB	33w0d	1351	11	34w4d	+	-	-	Death POD13
4	F	HLHS	Norwood	34w2d	1400	2	34w4d	-	-	-	Death POD7
5	F	CoA	EAA	35w1d	1332	2	35w3d	-	-	-	Death POD47
6	M	TAPVC	ICR	33w0d	1176	18	35w4d	-	Infantile spasm	Hypoxic encephalopathy	Survival
7	F	AR	AVP	35w4d	2448	1	35w5d	-	-	-	Death POD10
8	M	Ebstein	Starnes	35w4d	1666	4	36w1d	-	PVL	-	Death POD3
9	M	AS	bPAB	36w2d	2172	0	36w2d	-	-	Tracheostomy	Death 2y2m
10	F	HLHS	bPAB	36w3d	2142	0	36w3d	-	-	-	Death POD1
11	F	HLHS	bPAB	36w4d	2411	0	36w4d	-	-	-	Death POD5
12	F	HLHS	bPAB	36w5d	2254	0	36w5d	-	-	Tracheostomy	Death 1y0m
13	F	TAPVC	ICR	36w3d	2288	2	36w5d	-	-	-	Survival
14	F	TAC	ICR	36w0d	2502	6	36w6d	-	-	-	Survival

AR, Aortic valve regurgitation; AS, aortic valve stenosis; AVP, Aortic valvuloplasty; bPAB, Bilateral pulmonary artery banding; CoA, Coarctation of Aorta; EAA, end-to-end aortic arch anastomosis; HLHS, Hypoplastic left heart syndrome; ICR, intra cardiac repair; IVH, Intraventricular hemorrhage; POD, post operative day; PVL, periventricular leukomalacia; TAC, truncus arteriosus; TAPVC, Total anomalous pulmonary venous connection; TGA, Transposition of Great Arteries

Table 2 Summary of previous reports of stenting for infracardiac total anomalous pulmonary venous connection

Case	Diagnosis	Gestational age	Birth weight (g)	Age at 1st intervention	Body weight at 1st intervention	Method of 1st intervention	
1 ⁶⁾	4 (1a+3)	32w	1700	d2	—	Stenting to DV 4*20mm coronary stent	
2 ⁶⁾	3	30w	1500	d13	—	Stenting to DV 3.5*13mm coronary stent	
3 ⁶⁾	3	—	3200	d2	—	Stenting to DV 4*24mm coronary stent	
4 ⁷⁾	3	38w	1270	d16	—	Stenting to DV 4.5*9mm coronary stent	
5 ⁸⁾	3	31w	—	3w	1775g	Stenting to DV 4*16mm renal artery stent	
Case	Age at 2nd intervention	Method of 2nd intervention	Age at 3rd intervention	Method of 3rd intervention	Age at operation	Body weight at operation	Prognosis
1 ⁶⁾	d16	intravenous urokinase	—	—	3w	—	Death 2m
2 ⁶⁾	—	—	—	—	5w	—	Survival
3 ⁶⁾	—	—	—	—	d4	—	Survival
4 ⁷⁾	2m	Redilation 5mm balloon	—	—	3m	2kg	Survival
5 ⁸⁾	5w	Redilation 6mm balloon	7w	re-stenting 6×12mm renal artery stent	—	—	Death

*Diagnosis is based on Darling's classification.
DV, ductus venosus.

35 週以下の 7 例中、2 例で頭蓋内出血を合併し、特に症例 1 では重篤な神経学的後遺症を残した。てんかん、乳児スパズムを発症した症例が 1 例ずつあった。修正 36 週台では頭蓋内出血を合併した症例はなく、1 例で PVL を合併した。早産児に対する開心術は死亡率高く、合併症のリスクも高いため、本症例のように可能な限り待機し患児の成熟を促すのが好ましいと考えられた。

シースの選択

3 回のカテーテル治療のいずれでも Merit Prelude IDEal シースを用いた。シースの厚みが薄いため、同規格のシースと比較し内径が大きく、外径が小さい。そのため、血管に対する侵襲を抑え、かつバルーンやステントの選択肢を広げることができる。早産、低出生体重児のカテーテル治療にあたってはより安全かつ有用と考えられる。

アプローチの選択

これまでに報告されている下心臓型 TAPVC に合併した PVO への先行カテーテル治療では、臍静脈⁶⁾、右内頸静脈⁷⁾、肝臓⁸⁾ が選択されていた。

経臍静脈を選択した症例は狭窄部が静脈管のみであり、本症例のように左門脈から静脈管にかけての狭窄ではなかった。さらに、出生後間もなく診断され、臍静脈が閉鎖してなかった。診断まで時間を要し、臍静脈が閉鎖していた症例では他部位のアプローチを選択

していた。狭窄が静脈管のみ、かつ臍静脈の確保が可能な症例では臍静脈アプローチは可能である。

右内頸静脈からのアプローチでは、静脈管への角度が直線的になるため、カテーテルを挿入しやすい。しかし、静脈管が高度に狭窄している場合はガイドワイヤーの挿入に難渋することが予想される。本症例では、入院後に臍静脈カテーテルを確保し、初回カテーテル治療時にメルクマールとした。ガイドワイヤーの挿入が困難な場合は臍静脈カテーテルから血管造影し、臍静脈からスネアを挿入し内頸静脈から挿入したガイドワイヤーを把持して静脈管を通過させる予定であった。

経肝臓アプローチは経臍静脈や経内頸静脈のいずれも難しい場合に選択された。

ステントの選択と拡張径の選択、再拡張のタイミング

本症例では左門脈から静脈管にかけて狭窄しており、血管は U 字型に走行していた。そのため、柔軟性を優先し自己拡張型ステントである Wallstent 6 mm × 24 mm の留置を試みたが、狭窄部を通過しなかったためバルーン拡張型ステントの Express SD 5 mm × 19 mm を留置した。冠動脈に関して、自己拡張型ステントはバルーン拡張型ステントに比べて再狭窄率が高い⁹⁾ とされるが、本症例のような屈曲した静脈に関しては不明である。冠動脈用薬剤溶出性ステントは内膜増生を抑制することでステント内狭窄を生じにくくする可能性がある。しかし、本症例では最大拡張

Table 3 Clinical course of premature neonates with total anomalous pulmonary venous connection in our institution

Case	Sex	Diagnosis	Gestational age	Birth weight (g)	Age at operation	Corrected age at operation	Body weight at operation (g)	IVH	Neurological disease	Others	Prognosis
1	M	3	33w0d	1176	d18	35w4d	1105	-	Infantile spasm	Hypoxic encephalopathy	Survival
2	F	1b	27w6d	1378	2m6d	36w5d	1340	-	-	-	Death 1y3m
3	F	1a	33w4d	1606	1m3d	38w0d	1700	-	-	-	Survival
4	F	3	36w3d	2288	d2	36w5d	2288	-	-	-	Survival
5	M	4 (1b+2b)	32w6d	1505	3m3d	45w2d	2780	-	-	-	Survival
6	M	3	36w6d	2744	1m6d	41w5d	3700	-	-	-	Survival

*No cases of catheterization before TAPVC repair. *Diagnosis is based on Darling's classification.

できる径が4~5mm程度に限られるため同ステントは選択しなかった。

ステント径は、術前の心臓超音波検査でVVの最大径が6.1mmのため、5mm径を選択し、最終的に6mm径のバルーンで再拡張した。5mm未満のステントでは圧着が不十分になりmigrationする可能性があり、またステント内狭窄を生じやすくなる可能性があり、アプローチが許す限り大きい径を確保する方針とした。下心臓型TAPVCの早産低出生体重児へのカテーテル治療の既報をTable 2に示す。ステント内狭窄は必発であり、2~3週間ごとの再拡張を想定していた。また、内膜肥厚や屈曲による絶対的な狭小化だけでなく、適切にステントが留置されることにより肺血管抵抗は低下し、病変部における過大な血流量による相対的な狭窄や、高肺血流低心拍出性心不全の進行が予測される。ステント径を大きくすることで再介入までの期間を長くできる可能性があるが、本症例では3回目のカテーテル治療時に十分な拡張が得られており、追加のカテーテル治療は内科的管理の限界と考えた。当院で早産児に対してTAPVC修復術を行ったのは6例あり、2例が極低出生体重児であった(Table 3)。在胎27週、1,176gで出生した1例が遠隔期に死亡し、残り5例は生存している。本症例より低体重である1,700gで出生した症例が生存しているため修復術が可能であると判断した。

このような治療計画を遂行する上で、過去の報告、治療経験や、新生児科、麻酔科、心臓血管外科、小児循環器科、および多職種チームにおける十分な協議が重要と思われた。

結 語

総肺静脈還流異常を合併した極低出生体重児に対し

ステント留置術を行い、ステント内再狭窄時はカテーテルによる再拡張を反復した。児の成熟と体重増加をできるだけ促し、至適な時期に心臓外科手術を行い合併症なく救命することができた。

利益相反

本論文について、日本小児循環器学会の定める利益相反に関する開示事項はありません。

著者の貢献度

佐藤大二郎：論文の構想，データ収集や分析に関与し，論文を執筆した。

金成海：論文の構想，データ収集に関与し，論文執筆を指導した。

渋谷茜，眞田和哉，石垣瑞彦，佐藤慶介，芳本潤，満下紀恵，新居正基，坂本喜三郎，田中靖彦：批判的校閲に関与した。

引用文献

- 1) Tanner K, Sabrine N, Wren C: Cardiovascular malformations among preterm infants. *Pediatrics* 2005; **116**: e833-e838
- 2) Kalfa D, Krishnamurthy G, Duchon J, et al: Outcomes of cardiac surgery in patients weighing <2.5kg: Affect of patient-dependent and -independent variables. *J Thorac Cardiovasc Surg* 2014; **148**: 2499-2506
- 3) Alsoufi B, Manlhiot C, Mahle WT, et al: Low-weight infants are at increased mortality risk after palliative or corrective cardiac surgery. *J Thorac Cardiovasc Surg* 2014; **148**: 2508-2514
- 4) Anderson AW, Smith PB, Corey KM, et al: Clinical outcomes in very low birth weight infants with major congenital heart defects. *Early Hum Dev* 2014; **90**: 791-795
- 5) Axelrod DM, Chock VY, Reddy VM: Management of the preterm infant with congenital heart disease. *Clin Perinatol* 2016; **43**: 157-171
- 6) Rothman A, Galindo A, Evans WN: Temporary transum-

- bilical stenting of the ductus venosus in neonates with obstructed infradiaphragmatic total anomalous pulmonary venous return. *Pediatr Cardiol* 2011; **32**: 87–90
- 7) Burkhardt BE, Stiller B, Grohmann J: Stenting of the obstructed ductus venosus as emergency and bridging strategy in a very low birth weight infant with infradiaphragmatic total anomalous pulmonary venous connection. *Catheter Cardiovasc Interv* 2014; **84**: 820–823
- 8) George RS, Lozier JS, Bocks ML: Palliative stenting of the venous duct in a premature neonate with obstructed infradiaphragmatic total anomalous pulmonary venous connection. *Cardiol Young* 2023; **33**: 633–636
- 9) Escaned J, Goicolea J, Alfonso F, et al: Propensity and mechanisms of restenosis in different coronary stent designs: Complementary value of the analysis of the luminal gain-loss relationship. *J Am Coll Cardiol* 1999; **34**: 1490–1497