●症例報告●

高度腎機能低下に対し手術が奏功した腹部大動脈瘤-下大静脈瘻の1例

真栄城 亮¹, 近藤 智昭², 井上健太郎³, 天白 宏典⁴, 鈴木 仁之², 新保 秀人¹

要 旨：75歳男性。食欲不振を主訴に受診。採血にて肝腎機能低下，単純CTにて腹部大動脈瘤を認めた。入院後透析施行するも腎機能の改善は不良であった。造影CTにて下大静脈との瘻を認めたため手術目的に当科紹介。瘻孔閉鎖+Yグラフト置換術を施行し，術後速やかに腎機能は改善した。腹部大動脈瘤に合併する右心不全症状や急性の肝腎機能低下を認めた場合は腹部大動脈瘤-下大静脈瘻も鑑別診断に入れる必要がある。(J Jpn Coll Angiol 2017; 57: 169-173)

Key words: aortocaval fistula, acute renal failure

受付：2017年8月24日 受理：2017年9月26日 公開：2017年11月10日

序 言

腹部大動脈瘤に右心不全症状や肝・腎機能低下を認めた場合，稀ではあるが腹部大動脈瘤-下大静脈瘻の可能性もある。今回われわれは急速に肝・腎不全に陥ったが手術により速やかに腎機能が改善した腹部大動脈瘤-下大静脈瘻を経験したため，経過も含めて報告する。

症 例

症 例：75歳，男性

主 訴：食欲不振，全身倦怠感，嘔吐

既往歴：高血圧症，脂質異常症

家族歴：特記事項なし

現病歴：X年1月初め頃より食欲不振あり，全身倦怠感・嘔吐も認めるようになったため，1月11日当院救急外来を受診。受診時BUN 45.6, Cr 1.26, GOT 59, GPT 61と肝・腎機能の軽度低下，さらにSpO₂（経皮的酸素飽和度）92%と低下を認めたが，体温 36.7℃，血圧 130/68，脈拍 113と全身状態は比較的安定していたため，経過観察となった。翌日倦怠感が前日より強くなったため，当院再受診。BUN 66.4, Cr 3.55, GOT 204, GPT 170と肝・腎

機能の急激な悪化を認め，腹部単純CTにて最大径8 cmの腹部大動脈瘤を認めたが，腎機能の改善を待って手術する方針となり，まず内科入院となった。しかし入院後腎機能はさらに増悪して透析導入となり，経過中施行した造影CTにて腹部大動脈瘤と下大静脈との間に瘻を認めたため，それに伴う急性腎不全，右心不全，肝うっ血と判断し，手術目的に当科紹介となった。

入院時現症：身長 161.0 cm，体重 61.0 kg，血圧 96/42 mmHg，脈拍 103/分，頸静脈怒張なし，不整脈を認めたが心雑音はなし，腹部に拍動性腫瘤を触知，両下肢浮腫あり。なお，入院時には腹部の聴取はされておらず，入院後に腹部の連続性雑音が聴取された。

透析開始前血液検査所見：WBC 6,000/ μ L, Hb 9.4 g/dL, Plt 18.4×10^4 / μ L, GOT 165 IU/L, GPT 322 IU/L, LDH 19 IU/L, ALP 423 IU/L, γ -GTP 140 IU/L, BUN 85.5 mg/dL, Cr 4.36 mg/dL, CRP 1.27 mg/dL, PT 68%, APTT 29秒, Fib 272 mg/dL, D-dimer 25.6 μ g/mLと肝・腎機能障害は入院時よりも進行。

胸部単純X線：CTRは56.3%で肺うっ血を認めた。

腹部造影CT：両側腎動脈分岐部直下から両側総腸骨動脈分岐部までに最大径82 mmの腹部大動脈瘤を認め，動脈相で大動脈と同じ濃度で造影される拡張した下大静脈を認める（Fig. 1A）。腹部大動脈瘤と下大静脈との交通を認めた（Fig. 1B）ため，aortocaval fistulaと診断した。

腹部超音波検査：腹部大動脈瘤から下大静脈への血液の流入を認め（Fig. 1C），下大静脈は拡張し呼吸性変動を認めなかった。また肝静脈の拡張を認め（Fig. 1D），

¹三重大学大学院医学系研究科胸部心臓血管外科

²三重県立総合医療センター心臓血管外科

³松阪中央総合病院胸部外科

⁴安城更生病院心臓血管外科

doi: 10.7133/jca.17-00023

A | B
C | D

Figure 1 Preoperative imaging findings

A: Enhanced computed tomographic (CT) image showing a dilated and enhanced inferior vena cava (IVC) in the arterial phase. B: Enhanced CT image showing the IVC in contact with the Abdominal Aortic Aneurysm (AAA) without a border. C: Ultrasonogram (US) showing the blood flow to the IVC from the AAA. D: US showing a dilated hepatic vein.

肝機能障害はうっ血肝によるものが示唆された。

心臓超音波検査：右心系の拡大（右室拡張末期径：36 mm）と4度の三尖弁閉鎖不全症を認めたが、左室収縮能は保たれており、駆出率は71%であった。

手術所見：中枢は腎動脈下で、末梢は両側総腸骨動脈で血流遮断し、腹部大動脈瘤を切開。瘤末梢側の後壁やや右寄りに瘻孔から噴出する静脈血を認めた（Fig. 2A）。ガーゼボールの圧迫にて瘻孔からの出血をコントロールしつつ腰動脈を処理して無血野を確保し、瘻孔を観察。縦長楕円の約12 mmの瘻孔で、2本の鑷子で瘻孔をはさむことでも出血をコントロールできた。4-0ポリプロピレン糸のover and over 2重縫合にて直接縫合閉鎖した。その後Yグラフト置換術施行（Fig. 2B）。

術後経過：術後速やかに腎機能は改善し、透析は不要であった（Fig. 3）。また、術前の循環動態は入院時現症に記載の如く、血圧は90～100 mmHg台と低く、脈拍は100回/分前後と多かったが、術後には血圧は120 mmHg前後、脈拍は80回/分前後に落ち着いた。術後20日目に独歩退院された。

考 察

腹部大動脈瘤-下大静脈瘻は1831年にSymeらによって初めて報告された病態であり¹⁾、腹部大動脈瘤の自然破裂に伴う動静脈瘻の形成は破裂の頻度と比較して極めて少なく、報告では腹部大動脈瘤症例の0.3～3.6%²⁾、

A | B

Figure 2 Intraoperative photographs

A: Venous blood spouts out through the fistula (arrow). B: Placement of the Y graft after the resection of the AAA and closure of the fistula (arrow).

Figure 3 Changes in Cr and GPT levels

Cr: Creatinine, GPT: Glutamic Pyruvic Transaminase, OPE: Operation, HD: Hemodialysis.

破裂性動脈瘤の2～7%とされている³⁻⁶⁾。その多くは動脈硬化性の腹部大動脈瘤に合併すると言われているが、腹部外傷や椎間板手術の合併症として発症する⁷⁾ほか、稀ではあるがEhlers-Danlos症候群のような結合組織疾患^{8,9)}や神経線維腫症¹⁰⁾に合併することもある。

腹部大動脈瘤-下大静脈瘻の主な成因の1つは大動脈周囲の炎症性線維性組織の増生に伴い大動脈に伴走する下大静脈との間に強固な癒着が生じ、腹部大動脈瘤が破裂する際下大静脈に穿破するものと考えられる。瘻孔発生部は下大静脈に最も多く、腸骨静脈・腎静脈の順であると報告されている¹¹⁾。また瘻孔形成の部位としては大動脈分岐部直上の右側後壁が最も多いとされて²⁾おり、本症例においても穿孔部位は大動脈分岐部中枢の右側後壁であった。

瘻孔の大きさは3 mmから30 mmにおよび、15 mm前後のものが多い²⁾。Robertsonらは15 mm以上のものは急速に進行し致命的になる、と述べている¹²⁾が、ショックに陥っていない症例でも瘻孔径が5 mmと小さいものの¹³⁾から50×40 mmに及ぶもの¹⁴⁾までさまざまなことを考えると、循環動態を揺るがす最も大きな要因は瘻孔径の大きさではなく、瘻孔の拡大速度であろうと言われている^{2,15)}。瘻孔が15 mmを超える症例や術前に

ショック状態を呈した症例では手術を行ってもその救命率は50%程度で不良とされている^{16,17)}。本例では瘻孔は約12 mmであり、ショック状態は呈していなかったものの、術前血圧は90~100 mmHg台と低く、脈拍も100回/分前後と多かったが、術後は血圧が120 mmHg前後、脈拍も80回/分前後に落ち着いた。また術前の右心不全や血圧低下が原因で起こった腎不全が術後遷延し、一時的な透析を行う必要が生じることも少なくない¹⁸⁾。本疾患に伴う臓器障害として静脈圧上昇によるうっ血、血液灌流量低下による肝・腎機能障害はいずれも血行動態が正常化すれば比較的早期に改善すると言われて¹¹⁾おり、今回の症例でも術前は透析を必要としたが、術後速やかな腎機能の改善を認めたため透析は不要となった。

本疾患を診断するには、何よりもまずそれを疑うことであるが、McAuleyら¹⁹⁾が示した ①突然に発症する高拍出性心不全 ②Thrillを伴う腹部拍動性腫瘍 ③下肢の虚血・浮腫 の3兆候が実際に揃うことは少ない⁴⁾。症状発現の頻度としては心拍出量増大・脈圧増大などの高心拍症候群が50~60%、下腿浮腫56%、心不全37%、血尿17%、直腸出血5%と報告されている^{4,20)}。急性腎不全の併発頻度はわれわれの調べる限りでは認めなかった。下肢の浮腫や静脈圧の上昇などが最も本疾患を予測する所見と考えられている⁷⁾。腹痛・背部痛・拍動性腹部腫瘍といった動脈瘤破裂でみられる症状以外に高心拍出性心不全・呼吸困難・肝腫大・下肢のチアノーゼ・静脈拡張などの病態が考えられるときにはまず腹部を聴診し、連続性の血管雑音を聴取したら動静脈瘻の存在を念頭において超音波検査を行うことが早期診断・早期治療につながるとされている³⁾が、実際に術前に動静脈瘻の有無が診断される割合は約50%で、多くても70%程度にすぎないと報告されている^{3,4)}。本例においては入院時に腹部の聴診がされておらず、入院後に連続性雑音を聴取されていたため、入院時に聴取されていれば、診断は早くなったと考えられる。

本病態は放置すればその生命予後は不良と考えられており、治療の原則は手術である。術式は瘻孔閉鎖および人工血管置換であるが、とくに問題となるのは瘻孔からの出血の制御方法である¹¹⁾。静脈からの出血を制御する方法としては手動的圧迫、sponge-stick圧迫法、経皮的バルーン挿入による静脈遮断などの方法が報告されている^{21,22)}。また動静脈瘻のため静脈圧は非常に高くなっており、瘤周囲の剝離操作により静脈を損傷すると止血に難渋する可能性があるため、動脈遮断前の不必要な剝離は最小限に抑えるべきである¹¹⁾。今回動脈側は

通常のAAA手術と同様に中枢・末梢側をクランプ鉗子で血流遮断し、静脈側はガーゼボールによる圧迫や瘻孔の鑷子による把持にてコントロールすることができた。

動静脈瘻の手術死亡率は21~55%（欧米25~50%、本邦14%^{4,11)}）と高率でとくに術前ショックを呈する症例の死亡率が高いとされ、また診断の遅れから適切な時期に治療を行えず、術後に多臓器不全に陥る症例が多いことも手術成績を悪くしている要因だと報告されている⁴⁾。今回診断の遅れにより初診から手術まで約2週間を要してしまったが、より迅速に診断・手術を施行していれば、肝・腎機能の悪化をより抑えられた可能性が示唆される。

近年ではステントグラフトを経皮的、経動脈的に破裂部に挿入・拡張し、救命しえたとの報告がある²³⁾。Antonouら²⁴⁾によれば腹部大動脈瘤-下大静脈瘻に対するステントグラフト治療22例中成功例は96%で、手術死亡はなく合併症ではtype II endoleakが22%に認められたとのことであった⁵⁾。ステントグラフトの適応は比較的循環動態が安定している症例に限られる¹⁵⁾が、開腹の必要がなく低侵襲であること、大腿動脈からのアプローチであれば局所麻酔下でも施行することができ、同時に閉塞用バルーンで大動脈を遮断することができ迅速に血行動態の安定を図ることができること⁶⁾、さらに血液の重大な損失を避けることができる²³⁾点を考慮すると、適応は今後拡大される可能性が高いと考えられる。しかし、ステントグラフトでは瘻孔自体を直接閉鎖することができないため、type II endoleakの場合、腰動脈からの血流が圧の低い下大静脈に流入する可能性が考えられ、また、本例は循環動態が保たれており、全身麻酔下での開腹手術にも耐えられ、かつ根治が可能と判断できたため開腹手術を選択した。

結 語

急速に肝・腎不全に陥った腹部大動脈瘤-下大静脈瘻に対して瘻孔閉鎖術+Yグラフト置換術を施行し、速やかに腎機能が改善した症例を経験した。

腹部大動脈瘤に合併する右心不全症状や肝・腎機能低下を認めた場合、稀ではあるが腹部大動脈瘤-下大静脈瘻を念頭に置き診断を進める必要がある。内科的には治療が望めないため、診断と同時に外科的な対応を考慮しなければならない。

利益相反

共著者全員の利益相反はない。

文 献

- 1) Syme J: Case of spontaneous varicose aneurysm. *Edin Med Surg J* 1831; **36**: 104-105
- 2) 佐藤 久, 吉戒 勝, 池田和幸, 他: 下大静脈に穿破した腹部大動脈瘤破裂の1例. *日血外会誌* 2011; **20**: 725-728
- 3) 本田賢太郎, 山本修司, 岡村吉隆, 他: 静脈穿破を来した破裂性腹部大動脈瘤の3症例. *日臨救医誌* 2004; **7**: 45-49
- 4) 大村典子, 谷村信宏: 心不全症状にて発症した腹部大動脈瘤-下大静脈瘻の1例. *日血外会誌* 2010; **19**: 707-710
- 5) 駒津和宣, 坂口昌幸, 三浦健太郎, 他: 術前ショックを呈した腹部大動脈瘤下大静脈穿破の1救命例. *日血外会誌* 2014; **23**: 796-799
- 6) 井上有方, 福田宏嗣, 松下 恭, 他: 腹部大動脈瘤-下大静脈穿破に対してEVAR施行した1例. *日血外会誌* 2014; **23**: 29-33
- 7) Mimasaka S: Fatal paradoxical pulmonary embolism caused by an aorto-caval fistula. *法医学の実際と研究* 2004; **47**: 185-187
- 8) 津田泰利, 秋山一也, 広田 潤, 他: 腹部大動脈瘤破裂に合併した大動脈-下大静脈瘻の2症例. *磐城共立病院医報* 2004; **25**: 45-50
- 9) Taniyasu N, Tokunaga H: Multiple aortocaval fistulas associate with a ruptured abdominal aneurysm in a patient with Ehlers-Danlos syndrome. *Jpn Circ J* 1999; **63**: 564-566
- 10) 井上彰雅, 阿部裕一, 橋本浩一, 他: 神経線維腫症に腹部大動脈-下大静脈瘻を合併しステントグラフト内挿術が有用であった1例. *心臓* 2005; **37**: 478-482
- 11) 出雲明彦, 内田孝之, 安藤廣美, 他: 下肢深部静脈血栓症, 急性腎不全を初発症状とした総腸骨動脈瘤の1例. *日血外会誌* 2010; **19**: 583-587
- 12) Robertson MG: Spontaneous rupture of an abdominal aortic aneurysm into the inferior vena cava: report of a case, with successful repair. *Am J Med* 1967; **42**: 1011-1016
- 13) 渡辺正純, 正岡秀郎, 印南隆一, 他: 血尿にて発見された腹部大動脈瘤・総腸骨動静脈瘻の1治験例. *日臨外医会誌* 1993; **54**: 1528-1531
- 14) 岩崎年宏, 東 輝仁, 赤木秀治, 他: 静脈エコーが診断の契機となった大動脈, 下大静脈瘻を形成した腹部大動脈瘤の1例. *静脈学* 2001; **12**: 83-87
- 15) 小島直樹, 佐々木庸郎, 石田順朗, 他: 心肺機能停止状態に陥った総腸骨動脈瘤下大静脈瘻の1救命例. *日救急医会誌* 2007; **18**: 291-296
- 16) 荻野 均, 三木成仁, 上田裕一, 他: ショックに陥った腹部大動脈-下大静脈瘻の1救命例. *日血管外会誌* 1997; **6**: 753-756
- 17) 黄 浩義, 堀越茂樹, 水野朝敏, 他: 術中急性右心不全から心停止を来したAortocaval fistulaの1例. *日外会誌* 2000; **101**: 373-376
- 18) Burke AM, Jamieson GG: Aortocaval fistula associated with ruptured aortic aneurysm. *Br J Surg* 1983; **70**: 431-433
- 19) McAuley CE, Peitzman AB, deVries EJ, et al: The syndrome of spontaneous iliac arteriovenous fistula: a distinct clinical and pathophysiologic entity. *Surgery* 1986; **99**: 373-377
- 20) 伊藤雄二郎, 中村喜次, 清家愛幹, 他: 消化器症状にて発症した腹部大動脈瘤左総腸骨静脈瘻に対し緊急人工血管置換術を施行した1治験例. *日血外会誌* 2010; **19**: 701-705
- 21) Gilling-Smith GL, Mansfield AO: Spontaneous abdominal arteriovenous fistulae: report of eight cases and review of the literature. *Br J Surg* 1991; **78**: 421-425
- 22) Brewster DC, Cambria RP, Moncure AC, et al: Aortocaval and iliac arteriovenous fistulas: recognition and treatment. *J Vasc Surg* 1991; **13**: 253-264; discussion, 264-265
- 23) Umscheid T, Stelter WJ: Endovascular treatment of an aortic aneurysm ruptured into the inferior vena cava. *J Endovasc Ther* 2000; **7**: 31-35
- 24) Antoniou GA, Koutsias S, Karathanos C, et al: Endovascular stent-graft repair of major abdominal arteriovenous fistula: a systematic review. *J Endovasc Ther* 2009; **16**: 514-523

A Case of Aortocaval Fistula Succeeded by Surgery for Extensive Renal Failure

Ryo Maeshiro¹, Chiaki Kondo², Kentaro Inoue³, Hironori Tenpaku⁴,
Hitoshi Suzuki², and Hideto Shimpo¹

¹Department of Thoracic and Cardiovascular Surgery, Mie University Graduate School of Medicine, Mie, Japan

²Department of Cardiovascular Surgery, Mie Prefectural General Medical Center, Mie, Japan

³Department of Thoracic Surgery, Matsusaka Central General Hospital, Mie, Japan

⁴Department of Thoracic and Cardiovascular Surgery, Anjo Kosei Hospital, Aichi, Japan

Key words: aortocaval fistula, acute renal failure

A 75-year-old man consulted our hospital because of anorexia. Liver and renal dysfunctions were found in a laboratory examination and plain CT revealed Abdominal Aortic Aneurysm. Although hemodialysis was done after admission, the improvement of renal function was poor. Because enhanced CT revealed aortocaval fistula, we were consulted for purpose of surgery immediately. We performed fistula closure and Y-graft replacement of the abdominal aorta. After the operation, the renal dysfunction was immediately improved. Aortocaval fistula is rare but should be considered if patients have symptoms of right heart failure or liver and renal dysfunctions complicated with Abdominal Aortic Aneurysm.

(J Jpn Coll Angiol 2017; 57: 169–173)

Online publication November 10, 2017