症例報告

一次性大動脈十二指腸瘻に対してステントグラフト挿入後に
十二指腸部分切除を施行した1例

高原 善博¹⁾ 林 永規¹⁾ 岡本 佳昭¹⁾ 鈴木 謙介¹⁾
林田 直樹²⁾ 浅野 宗一²⁾

¹⁾千葉県循環器病センター外科

²⁾千葉県循環器病センター心臓血管外科

大動脈十二指腸瘻は未治療の場合高率に死にいたる予後不良の病態であり、大動脈が十二指腸と直接交通を来す一次性と人工血管移植後に発生する二次性とに分類される。今回、我々は一次性大動脈十二指腸瘻に対するステントグラフト挿入による止血後に十二指腸部分切除を施行した1例を経験したのでここに報告する。症例は87歳の男性で、吐血にて救急搬送された。当院心臓血管外科にて緊急ステントグラフト挿入術施行後に当科にて十二指腸部分切除術を施行した。初診時より5か月後に心筋梗塞を発症し死亡した。大動脈十二指腸瘻に対する治療は血行再建が原則であるが、近年はステントグラフトによる止血例も多く報告されている。ステントグラフトには感染のリスクがあり、本症例では消化管再建をすることで感染予防をはかった。ステントグラフト感染の長期成績に関しては不明であり、本来であれば嚴重な経過観察が必要と考えられた。

キーワード：一次性大動脈十二指腸瘻，ステントグラフト治療，十二指腸部分切除

はじめに

大動脈十二指腸瘻（aortoduodenal fistula；以下、ADFと略記）はその頻度はまれであるが、未治療の場合高率に死にいたる予後不良の病態であり¹⁾、迅速な診断および治療が必要とされている。近年では低侵襲なステントグラフトによる止血の報告も認められている¹⁾²⁾が、その後の追加治療および感染コントロールに関しては一定のコンセンサスが得られていない。今回、我々は一次性ADFに対してステントグラフト挿入後に十二指腸部分切除を施行した1例を経験したので若干の文献的考察を含め報告する。

症 例

患者：87歳，男性

主訴：吐血

現病歴：2013年3月吐血によるショック状態のため前医受診し、CTにて大動脈消化管瘻疑いの診断となり当院へ救急搬送された。当院での造影CT結果にて大動脈十二指腸瘻の診断となり緊急ステントグラフト挿入術を施行した。なお緊急ステントグラフト挿入前に消化管内視鏡検査は施行されていなかった。ステントグラフト挿入後は感染予防に絶食管理とし、全身状態が改善した後に十二指腸部分切除目的に当科転科となった。ステントグラフト挿入後32日目に手術を行った。

Fig. 1 Contrast enhanced CT scan shows a 39-mm infrarenal abdominal aneurysm (black arrows) protruding (white arrow) into the duodenum.

既往歴：高血圧症，脳梗塞（後遺症なし）

初診時血液検査所見：Hb 11.7 g/dl（前医にて RCC4 単位投与後）と軽度の貧血を認め，WBC 8,760/ μ l，CRP 1.37 mg/dl と軽度の炎症反応を認めた。

初診時造影 CT 所見：腎動脈下流に最大径 39 mm の腹部大動脈瘤を認めた。動脈瘤近位側の一部で瘻孔と思われる造影剤の突起を認め，その腹側に十二指腸が接していた（Fig. 1）。十二指腸内への明らかな造影剤の漏出は認めなかった。

ステントグラフト挿入時所見：両側大腿動脈よりシース挿入し施行した。十二指腸内含む血管外への造影剤流出は認めなかった。腎動脈から右内腸骨動脈の間にステントグラフト（エクスクルーダー®Y 字型ステントグラフトシステム 28.5 mm×14.5 mm×14 cm）を留置し，左総腸骨動脈にステントグラフト（エクスクルーダー®Y 字型ステントグラフトシステム 16.0 mm×11.5 cm）を留置。両側腎動脈および内腸骨動脈への造影剤の流出を確認し終了となった。

ステントグラフト挿入後造影 CT 所見：大動脈内にステントグラフトが留置されており，瘻孔部位への造影剤の突出は消失している（Fig. 2）。

上部内視鏡検査：内視鏡を十二指腸第三部途中まで挿入するも，観察範囲内での粘膜所見は認めなかった。

手術所見：十二指腸第三部背側に瘻孔と思われる癒着を認めた。瘻孔部の十二指腸粘膜は残す形で十二指腸第三部～第四部にかけての部分切除を施行した。十二指腸と空腸を端側吻合にて再建し，十二指腸粘膜を残した瘻孔部位に大網被覆した（Fig. 3）。手術時間 2 時間 6 分，出血量 124 g であった。摘出標本は瘻孔部を取り除いた部位が欠損している以外に肉眼的異常所見は認めず，病理組織学的検査所見では瘻孔部周囲の粘膜表層のびらん性変化，肉芽組織様粘膜間質の変化を認めたのみであった（Fig. 4）。

術後経過：術後一時的に乳び腹水を呈するも絶食にて改善した。術後 12 日目に無症状心筋梗塞を発症したため循環器内科にて保存的加療を開始した。心機能が落ち着いてきたところで長期臥床に伴う ADL 低下に対するリハビリを施行し，ADL 改善認めた術後 47 日目に退院となった。退院後は発熱などの感染症状を認めていなかったが，初診時より 5 か月後に再度心筋梗塞を発症し死亡した。

Fig. 2 After endovascular repair of PADF, contrast-enhanced CT scan shows the aortic stent-graft with no endoleak.

Fig. 3 Schema of the surgical procedures.

Fig. 4 A defect in the duodenal wall (white arrow) is found in the surgically resected specimen.

考 察

大動脈腸管瘻には大動脈が腸管と直接交通を来す一次性大動脈腸管瘻と、人工血管移植後に発生する二次性大動脈腸管瘻とに分類される³⁾。一次性大動脈腸管瘻はまれであり全腹部大動脈腸管瘻中の一次性大動脈腸管瘻は0.1%~0.8%と報告されており⁴⁾、術前診断が困難であることから死亡率は87%と報告されている⁵⁾。大動脈腸管瘻の瘻孔部位は十二指腸が83%と圧倒的に多く、特に十二指腸第三部が57%と最多であり³⁾⁴⁾、直接的摩擦および感染や異物、びらんによる炎症性の損傷が一次性大動脈十二指腸瘻（primary aortoduodenal fistula；以下、PADFと略記）の形成に至るメカニズムと考えられている⁶⁾。また、Gad⁷⁾はPADFの73%が動脈硬化性動脈瘤に起因し、26%が外傷性もしくは感染性動脈瘤に起因するものであり、残り1%が放射線照射、膵悪性腫瘍、潰瘍、胆嚢結石、憩室炎および虫垂炎に起因するものと報告している。本症例ではCT上39 mmの動脈硬化性動脈瘤を認めていた。また、手術時に十二指腸粘膜を含む形で瘻孔部を残す形で摘出したため憩室や潰瘍形成の有無の正確な病理組織学的評価は不能であった。

診断に関しては、大動脈十二指腸瘻はその発生部位が十二指腸水平脚部以下に生じるために、通常の内視鏡検査での診断率は18%と低率とされており⁸⁾、近年では造影CTが診断に有用とする報告が多く、中尾ら³⁾は瘻孔への造影剤の突起と大動脈壁と腸管との大動脈脂肪層の欠損により容易に診断は可能としている。本症例でも造影CTにおいて瘻孔への造影剤突起を認めており確定診断となった。

一般的にPADFの治療は、デブリドメント、瘻孔修復、原因除去を同時に行える手術のみとされており、大動脈瘤に関しては人工血管置換術では感染のリスクがあるために非解剖学的血行再建バイパスが行われていることが多い。また、近年ではステントグラフト挿入術が破裂および未破裂の大動脈瘤に対して行われている⁹⁾¹⁰⁾。また、根治手術として行われる血行再建としては、遠隔成績は非解剖学的血行再建に比べ解剖学的血行再建のほうがよいと報告されている¹¹⁾。一方で大動脈腸管瘻は大動脈瘤破裂の一形態であるために、外科手術に対して死亡率が有意に低い¹²⁾とされているステントグラフト挿入術が治療法として選択されることが近年では増えてきている。しかし、大動脈腸管瘻に対するステントグラフト治療は止血による救命率を向上させることはできるが、後日の感染リスクが伴うと考えられており、仮に臨床的に感染徴候を認めなかったとしても、感染している場所にステントグラフトを留置することは危険である¹⁾とされている。ステントグラフト感染後の全死亡率は27.9%であり、保存的療法では38.8%、手術を行った場合で12.9%と報告されている¹³⁾。Chuterら¹⁴⁾は白血球数が正常な発熱を伴わない大動脈十二指腸瘻患者に対し、ステントグラフト挿入による治療を行うも、再感染のために術後8か月でステント抜去となったと報告している。また、Eskandariら¹⁾は消化管との完全分離後および感染源の除去後のみにステントグラフトは留置されるべきであると強調している。したがって、PADFのステント挿入後の追加治療としては、ステントグラフトの抜去および瘻孔切除を伴う血行再建が最も有効と考えられる。本症例でも感染リスクを伴うステントグラフトを除去し血行再建を行うべきであるが、患者が高齢であることと血行再建時の手術侵襲の大きさおよび合併症のリスクを考慮して十二指腸を部分切除し消化管再建のみをすることで、大動脈瘤と消化管との接点をなくし感染予防をはかった。また、ステントグラフト挿入後は、食事による機械的刺激により十二指腸から瘻孔を介した腸内細菌によるステントグラフト感染のリスクを考え絶食としていた。また、局所の炎症反応が落ち着いてからの十二指腸切除が適当と考えられたので、1か月のインターバルをおいてから十二指腸切除を施行することとした。

ADFに対しステントグラフト挿入後、十二指腸部分切除のみを施行した報告例は、1950年から2013年8月までのPubMedで「aortoduodenal fistula」、「duodenal resection」をキーワードに検索した結果、認めなかった。本報告は現在までに報告されているPADFに対する治療方法の中では侵襲が低い治療法と考えられるが、ステントグラフト感染のリスクがある。十二指腸閉鎖および人工血管置換術を施行した報告¹⁵⁾では、人工血管に感染を来し再手術となった報告も認めており、ステントグラフト含めた人工異物挿入に伴う感染リスクについては抗生剤の投与期間などを含めていまだ議論の多いところである。残念ながら本症

例は術後5か月で心筋梗塞のため死亡となってしまったが、本来であれば嚴重な経過観察が必要だったと考えられる。

利益相反：なし

文献

- 1) Eskandari MK, Makaroun MS, Abu-Elmagd KM, Billiar TR. Endovascular repair of an aortoduodenal fistula. *J Endovasc Ther.* 2000;7:328-32.
- 2) 榊田 幹郎, 三岡 博, 新谷 恒弘, 中尾 佳永, 東 茂樹. ステントグラフト内挿入術を先行し救命しえた大動脈腸管瘻. *胸部外科.* 2010;63:791-3.
- 3) 中尾 守次, 前田 晃央, 衣笠 陽一, 應儀 成二. 大量下血で発見された一次性大動脈腸管瘻の1手術治験例. *日本血管外科学会雑誌.* 2010;19(3):505-8.
- 4) Sweeney MS, Gadacz TR. Primary aortoduodenal fistula: Manifestation, diagnosis, and treatment. *Surgery.* 1984;96:492-7.
- 5) Taheri SA, Kulaylat MN, Grippi J, Ricotta JJ, Kale J, Bernhard H. Surgical treatment of primary aortoduodenal fistula. *Ann Vasc Surg.* 1991;5:265-70.
- 6) Lozano FS, Munoz-Bellvis L, San Norberto E, Garcia-Plaza A, Gonzalez-Porras JR. Primary aortoduodenal fistula: new case reports and a review of the literature. *J Gastrointest Surg.* 2008;12:1561-5.
- 7) Gad A. Aortoduodenal fistula revisited. *Scand J Gastroenterol Suppl.* 1989;167:97-100.
- 8) 葛西 猛. 大動脈腸管瘻. *救急医学.* 2001;25:1721-4.
- 9) Brewster DC, Geller SC, Kaufman JA, Cambria RP, Gertler JP, LaMuraglia GM, et al. Initial experience with endovascular aneurysm repair: comparison of early results with outcome of conventional open repair. *J Vasc Surg.* 1998;27:992-1005.
- 10) Greenberg RK, Srivastava SD, Ouriel K, Waldman D, Ivancev K, Illig KA, et al. An endoluminal method of hemorrhage control and repair of ruptured abdominal aortic aneurysms. *J Endovasc Ther.* 2000;7:1-7.
- 11) 寒川 顕治, 青木 淳, 大舘 祐治. 動脈腸管瘻の3例. *脈管学.* 2009;49:423-9.
- 12) Greco G, Egorova N, Anderson PL, Gelijns A, Moskowitz A, Nowygrod R, et al. Outcomes of endovascular treatment of ruptured abdominal aortic aneurysms. *J Vasc Surg.* 2006;43:453-9.
- 13) Veraldi GF, Genco B, Minicozzi A, Zecchinelli MP, Segattini C, Momo RE, et al. Abdominal aortic endograft infection: Report of two cases and review of the literature. *Chir Ital.* 2009;61:61-6.
- 14) Chuter TA, Lukaszewicz GC, Reilly LM, Kerlan RK, Faruqi R, Sawhney R, et al. Endovascular repair of a presumed aortoenteric fistula: late failure due to recurrent infection. *J Endovasc Ther.* 2000;7:240-4.
- 15) 大恵 匡俊, 和田 譲二. 消化管出血をきたした一次性腹部大動脈十二指腸穿通の1例. *日本臨床外科学会雑誌.* 2011;72:2240-5.

CASE REPORT

A Partial Duodenal Resection for a Primary Aortoduodenal Fistula after Endovascular Aneurismal Repair

Yoshihiro Takahara¹⁾, Naganori Hayashi¹⁾, Yoshiaki Okamoto¹⁾, Kensuke Suzuki¹⁾,
Naoki Hayashida²⁾ and Soichi Asano²⁾

¹⁾Department of Surgery, Chiba Cardiovascular Center

²⁾Department of Cardiovascular Surgery, Chiba Cardiovascular Center

An aortoduodenal fistula is a rare, lethal cause of massive gastrointestinal tract bleedings. Primary aortoduodenal fistula (PADF) is an abdominal communication between the aorta and duodenum, whereas secondary aortoduodenal fistula is usually a result of previously implanted aortic prosthetic graft repairs. We report a patient who underwent partial duodenal resection for a PADF after stent-graft repair. An 87-year-old man was referred to our hospital because of hematemesis and pre-shock state. After diagnosis of PADF, the patient had undergone stent-graft repair. After stent-graft repair, we performed a partial resection of the duodenum for preservation of stent graft infection. He died of myocardial infarction after 5 months from stent-graft repair. Conventional treatment of PADF is based on debridement, repair of the duodenal fistula, and removal of inciting factors. Frequent extra-anatomic vascular bypass procedures are necessary. Recently, some studies have reported stent-grafting for aortoduodenal fistulas. However, since there was a risk of infection after stent-graft therapy, we performed a partial resection of the duodenum. We believe strict observation is necessary because the long-term prognosis of stent-graft infection is unclear.

Key Words: primary aortoduodenal fistula, stent graft, partial resection of duodenum

[Jpn J Gastroenterol Surg. 2014;47(9):484-489]

Reprint requests: Yoshihiro Takahara Department of Surgery, Funabashi Central Hospital
6-13-10 Kaijin, Funabashi, 273-8556 JAPAN

Accepted: March 19, 2014