2 次性大動脈十二指腸瘻の 3 症例

松浦 記大¹⁾ 藤谷 和正¹⁾ 中塚 梨絵¹⁾ 宮崎 進¹⁾
團野 克樹¹⁾ 小森 孝通¹⁾ 本告 正明¹⁾ 柏崎 正樹¹⁾
岩瀬 和裕¹⁾

¹⁾大阪府立急性期・総合医療センター消化器外科

2 次性大動脈十二指腸瘻 (secondary aortoduodenal fistula; 以下, sADF と略記) はまれな疾患ではあるが, 診断に難渋し致死的な転機をたどることも多い。今回, 我々は sADF の 3 症例を経験し, 診断・治療・術後成績の三つの観点から検討を行った。2 症例は吐・下血の原因としての sADF の診断に難渋し, 全症例で sADF に対する治療介入を行い一旦は救命できたもののうち 2 症例は術後感染症により致死的な転帰をたどった。人工血管置換術後の消化管出血を見た場合, sADF を鑑別疾患として挙げ, 感度・特異度とも高いとされている CT を早期に行うことが重要である。また, sADF が疑われた場合, 感染のコントロール, すなわち人工血管除去を念頭に遅滞のない手術を考慮することが重要である。

キーワード: 大動脈十二指腸瘻, 大動脈腸管瘻, 消化管出血

はじめに

2 次性大動脈十二指腸瘻 (secondary aortoduodenal fistula; 以下, sADF と略記) はまれな疾患ではあるが, 診断に難渋し致死的な転機をたどることも多い¹⁾。また, 1 次救命しえた症例の報告は散見されるが術後の長期成績は必ずしも明らかではない。今回, 我々が経験した sADF の 3 症例について術後長期の転機を含めた検討を行い, 文献的考察を加えて報告する。

症 例

症例 1: 64 歳, 男性

主訴: 吐血

既往歴: 冠動脈疾患, 高血圧

現病歴: 2010 年 1 月腹部大動脈瘤, 両側総大腿動脈瘤に対して人工血管置換術を施行した。2010 年 8 月頃から頻回に吐血を認め精査を行うも原因究明には至らなかった。12 月再度吐血を認め緊急入院となった。

経過: 入院後施行した上部消化管内視鏡 (Fig. 1) と CT (Fig. 2) で sADF が指摘され, 入院 2 日目に endovascular aneurysm repair (以下, EVAR と略記) による瘻孔閉鎖を行い, 経過良好で術後 30 日目に退院となった。2011 年 3 月, 3 日前から続く発熱を主訴に受診し, 人工血管感染が強く疑われ緊急入院となった。血圧 123/87 mmHg, 脈拍 85 回/分・整, 体温 37.5°C であった。腹部に特記すべき所見は認めなかった。Hb 11.8 g/dl, WBC 9,400/μl, CRP 14.87 mg/dl であった。入院 4 日目に十二指腸瘻孔単純縫合閉鎖+人

Fig. 1 Case 1, aortoduodenal fistula at the third portion of the duodenum.

Fig. 2 Case 1, the third portion of the duodenum close to the vascular graft.

工血管再置換術+大網充填を施行し、術後合併症なく術後 53 日目に退院となった。術後 5 年が経った現在、経口抗生剤の半永久内服を継続したまま人工血管感染の再燃はない。

症例 2：80 歳，男性

主訴：発熱

既往歴：冠動脈疾患，関節リウマチ，高血圧，高脂血症，糖尿病

現病歴：2008 年 11 月腹部大動脈瘤に対して人工血管置換術を施行した。2012 年 5 月と 10 月に黒色便を主訴に緊急入院となったが，上部消化管内視鏡，下部消化管内視鏡，カプセル内視鏡のいずれにおいても原因究明には至らず，黒色便が消失したために経過観察となった。2014 年 5 月敗血症性ショックで緊急入院となり，CT では人工血管周囲の炎症と sADF の可能性を指摘されたが，上部消化管内視鏡では十二指腸に瘻孔を認めず，人工血管感染疑いとして抗生剤加療を行い，入院 21 日目に大動脈周囲の観察を兼ね手術を行った。十二指腸授動術を行うも明らかな膿瘍形成は認めず，十分な洗浄と大網充填を行い手術を終了し，経口抗生剤内服を継続し退院となった。しかしながら，その後も繰り返す発熱のため，2014 年 8 月に緊急入院となった。

経過：緊急入院時，血圧 113/60 mmHg，脈拍 90 回/分・整，体温 38.3°C であった。腹部所見では上腹部

Fig. 3 Case 3, third portion of the duodenum close to the vascular graft lower edge.

に圧痛を認めた。Hb 12.3 g/dl, WBC 15,300/ μ l, CRP 6.09 mg/dl であった。CT で人工血管感染を指摘され、抗生剤加療による感染制御は困難と判断し、入院 14 日目に十二指腸水平脚切除+十二指腸下行脚空腸吻合+人工血管再置換術+大網充填を施行した。術中所見で、人工血管に接する十二指腸水平脚に親指頭大の壁の欠損を認め sADF と診断した。術後 6 日目に人工血管周囲の血腫に感染を合併したため開腹洗浄ドレナージを施行し、術後 92 日目に経口抗生剤内服を継続し退院となった。2014 年 12 月発熱と腹痛を主訴に受診し、CT で人工血管周囲の膿瘍形成と人工血管吻合部からの出血を認めた。積極的治療は希望されず、入院 3 日目に永眠された。

症例 3：70 歳，男性

主訴：失神

既往歴：胃癌，膀胱癌，冠動脈疾患，糖尿病

現病歴：2010 年 10 月左総腸骨動脈瘤に対し人工血管置換術を施行した。2011 年 7 月中枢側吻合部仮性動脈瘤に対して EVAR を施行した。2014 年 6 月から黒色便が出現し失神もあったことから、精査・加療目的に緊急入院となった。

経過：入院時、意識は清明、血圧 103/61 mmHg、脈拍 60 回/分・整、体温 36.9°C であった。腹部所見では胃部不快感を認めるのみであった。Hb 7.4 g/dl, WBC 6,000/ μ l, CRP 0.19 mg/dl であった。上部消化管内視鏡で有意な所見はなく、CT (Fig. 3) で人工血管と十二指腸水平脚の癒着を認め、sADF と判断した。入院 17 日目に EVAR を行い、術後合併症なく黒色便も消失したため術後 22 日目に退院となった。

退院翌日に発熱を主訴に受診し、CT で外側と内側のステントグラフトの間に炎症を、外側のステントグラフトと十二指腸の癒着を認め、ステントグラフト感染ならびに sADF の再燃と判断し緊急入院となった。入院 15 日目に十二指腸水平脚切除+十二指腸下行脚空腸吻合+大網充填を施行した。術後創部感染があったものの経口抗生剤を継続し、術後 76 日目に退院となった。退院 8 日後腰背部痛を主訴に受診し、人工血管周囲に膿瘍を認め人工血管感染再燃と診断し緊急入院となった。手術は希望されず抗生剤加療を継続し、入院 37 日目に自宅退院となった。2015 年 3 月黒色便を主訴に受診され、CT で人工血管感染の増悪と新たに大動脈小腸瘻も認め緊急入院となった。手術は希望されず入院 14 日目に永眠された。

考 察

大動脈腸管瘻は死亡率が 40~70%と致死的な転機をたどる疾患¹⁾であり、8 割が十二指腸と瘻孔を形成し、それを大動脈十二指腸瘻と呼ぶ。大動脈十二指腸瘻はさらに 1 次性と 2 次性に分けられ、1 次性は動脈瘤や感染・外傷・放射線照射などが原因で発症するもの、2 次性は人工血管置換後に発症するものと定義されており、2 次性は術後 0.4~4%程度に発症すると報告されている²⁾。大動脈腸管瘻の古典的三徴とし

て、消化管出血、疼痛、拍動性腫瘍が知られているが、これら3徴候が全てそろっているのはわずか11%に過ぎないと報告されている³⁾。一方で特徴的な前駆出血は“herald bleeding”と呼ばれ約2/3の症例で認め、致死的な大出血に先行することが知られている⁴⁾。“Herald bleeding”の機序としては、一時的な血圧低下と瘻孔部の局所的な血流低下の結果、血管攣縮と血栓形成が起こり一時的に瘻孔が塞がれ止血されるが、瘻孔の閉鎖による正常血圧への復帰により血栓が飛ばされ大出血に至ると考えられている³⁾。前駆出血から大出血に至るまでの時間は、50%が24時間以上、29%が1週間以上と比較的時間が経ってから大出血が起こる症例も少なくない⁵⁾。診断については、sADFは瘻孔形成部位の80%が十二指腸水平脚であること⁶⁾、前駆出血の時期には活動性出血が確認できない状況にあることから、上部消化管内視鏡のみで診断がつくのは13~38%と報告されている⁷⁾。また、胃潰瘍や出血性胃炎、マロリー・ワイス症候群など他の疾患を合併している場合に出血の原因を誤認するという可能性もある⁸⁾。一方、造影CTが有用とする報告は多く、人工血管の壁と連続する消化管内腔の血腫が認められればsADFの存在は明らかだが、人工血管周囲の感染・炎症を示唆する所見や人工血管周囲のair densityだけでもsADFを疑うべきだと報告されている⁸⁾⁹⁾。

症例1では、前駆出血を認めながらも診断に苦慮しCTで診断に至った。症例2でも同様に診断に苦慮した。特異度の低い内視鏡に診断を委ねたこと、また後方視的に見ると初回手術時にsADFが成立していたかもしれないが、この時は人工血管感染の可能性を強く疑いsADFの十分な確認までは行わなかったことから、2回目の手術までsADFの診断をつけることができなかった。症例3では、前駆出血から大出血に至るまでが5日と早く、大出血後のCTでsADFと診断された。これらのことから、人工血管置換術後の消化管出血はその病歴から鑑別にsADFを挙げ迅速に造影CTを撮像すること、また前駆出血があった時点でさえもsADFを疑い迅速に造影CTを撮像することが重要と考えられる。

治療については、sADFを強く疑えば躊躇なく手術を行うことが肝要だという報告がある⁸⁾。しかしながら、術式についてはコンセンサスが得られていないのが現状であり¹⁰⁾、手術侵襲の大きさを考慮すると安易に手術に踏み切るのがためらわれるのも事実である。術式は大動脈と十二指腸に分けて考えることが原則である¹¹⁾。大動脈は、①人工血管再置換による解剖学的血行再建、②非解剖学的血行再再建、③EVAR後に二期的に①を行う“bridge therapy”¹²⁾などの術式がある。ただ非解剖学的血行再建は、人工血管閉塞や大動脈断端部からの出血などの術後合併症による術後早期の死亡率が23~44%と満足できる成績ではなく、近年では大動脈断端破綻が起こらずグラフト開存を見込める解剖学的血行再建を行う方が良いとする報告が多い⁴⁾⁵⁾⁸⁾¹³⁾。十二指腸は、①瘻孔単純縫合閉鎖、②瘻孔切除+縫合閉鎖、③十二指腸水平脚切除+消化管再建と三つの術式があるが、それぞれに一長一短がある¹⁴⁾。瘻孔単純閉鎖の場合、感染のあった位置での修復となることや術後狭窄を来す可能性はあるが、消化管吻合は行わないので縫合不全のリスクはなく、また必要以上の十二指腸の授動を行わなくて済む可能性もある。一方で十二指腸水平脚切除の場合、十二指腸の授動に加えて、消化管吻合部の縫合不全が起こると致死的な転機をたどることが知られている¹¹⁾。しかしながら、感染巣を除去できるというメリットもある。このことから十二指腸の術式は瘻孔の大きさ、腹腔内汚染の度合いを総合的に判断して術式を選択する必要がある。また、しばしば付加される大網充填については有効であると報告されている¹⁵⁾¹⁶⁾。我々の経験した3例は、大動脈は人工血管再置換による解剖学的血行再建が1例、bridge therapyが1例、EVARが1例に施行され、十二指腸は瘻孔単純縫合閉鎖が1例、十二指腸水平脚切除+消化管再建が2例に施行された。3例いずれにも大網充填が行われた。3例全てが一旦は救命されたが長期生存が得られたのは1例のみで、他2例は術後の人工血管感染により死亡した。これらの事実はsADFの術後成績は感染コントロールに依るところが大きいことを示している。sADFは消化管出血であると同時に異物感染でもある¹⁷⁾¹⁸⁾。感染制御のためには異物除去以外の治療では根治は困難であると認識し、感染期間を少しでも短くするために早期に診断をつけ、橋本ら⁸⁾が主張するように早期に人工血管再置換術に踏み切ることが重要であると考えられる。その観点からは、大動脈に対する治

Table 1 33 cases of sADF

No.	Author	Year	Age	Sex	Chief complaint	Surgery of AAA	Time to sADF onset after surgery of AAA	Diagnosis tool	Time to diagnosis from sADF onset	Operative method (aorta)	Operative method (Duodenum)	Omentum interposition	Rescue	Postoperative length of stay	Outcome	Follow-up
1	Handa ²³⁾	2000	72	M	Hematemesis, Melena	GR	21 years	CT	1 month	<i>In situ</i> grafting	Closure of the fistula	Yes	Yes	13 days	Alive	10 months
2	Ito ²⁴⁾	2001	60	M	Fever	GR	1 year and 9 months	CT	Unknown	Extra anatomic bypass	Resection and closure of the fistula	Unknown	Yes	Unknown	Alive	Unknown
3	Manabe ²⁵⁾	2001	61	F	Abdominal pain	GR	1 month	in operation	1 week	Extra anatomic bypass	Closure of the fistula	Unknown	Unknown	Unknown	Unknown	Unknown
4	Ohira ⁶⁾	2004	80	M	Hematemesis, Melena	GR	6 years	in operation	16 days	Resection and closure of the fistula	Resection and closure of the fistula	None	No	—	Death	Death in hospital
5	Katsinelos ²⁶⁾	2005	72	M	Melena	GR	3 years	in operation	2 weeks	—	—	—	No	—	Death	Death in hospital
6	Katsinelos ²⁶⁾	2005	69	M	Hematemesis, Melena	GR	7 years	Pathological anatomy	3 days	—	—	—	No	—	Death	Death in hospital
7	Katsinelos ²⁶⁾	2005	73	M	Hematemesis, Melena	GR	3 years	CT	1 month	—	—	—	No	—	Death	Death in hospital
8	Katsinelos ²⁶⁾	2005	72	F	Abdominal pain	GR	4 years	CT	4 days	—	—	—	No	—	Death	Death in hospital
9	Katsinelos ²⁶⁾	2005	73	M	Melena	GR	3 years	EGD	Unknown	—	—	—	No	—	Death	Unknown
10	Katsinelos ²⁶⁾	2005	82	F	Melena	GR	5 years	CT	1 day	—	—	—	No	—	Death	Death in hospital
11	Iwamura ²⁷⁾	2006	79	M	Melena	GR	3 weeks	CT	Unknown	Extra anatomic bypass	Closure of the fistula	Unknown	Yes	Unknown	Death	3 years
12	Oril ²⁸⁾	2007	54	M	Hematemesis, Melena	GR	5 years	CT, Angiography	1 day	<i>In situ</i> grafting	Resection and closure of the fistula	Yes	Yes	21 days	Alive	9 years
13	Nagashima ²⁹⁾	2007	69	M	Cardiopulmonary arrest	GR	6 years and 10 months	Pathological anatomy	—	—	—	—	No	—	Death	Death in hospital
14	Sangawa ¹⁷⁾	2009	77	M	Abdominal pain	GR→EVAR	9 years	CT	One and a half month	<i>In situ</i> grafting	Closure of the fistula	Yes	Yes	39 days	Alive	2 years and 1 month
15	Shintani ³⁰⁾	2009	64	M	Hematemesis	GR	10 years	CT	Unknown	EVAR	None	None	No	About 1 month	Death	4 months
16	Tanaka ³¹⁾	2009	70's	M	Melena	GR	13 years	Pathological anatomy	7 days	—	—	—	No	—	Death	Death in hospital
17	Mizu ³²⁾	2009	68	M	Hematemesis	GR	2 years	CT	Unknown	—	—	—	No	—	Death	Death in hospital
18	Hirano ³³⁾	2009	80	F	Hematemesis, Melena	GR	3 years	CT, EGD	1 month	<i>In situ</i> grafting	Closure of the fistula	Yes	Yes	36 days	Alive	3 years
19	Sakurai ¹⁰⁾	2009	72	M	Melena	GR	6 years	EGD	11 days	Extra anatomic bypass	Duodenectomy	Unknown	Yes	32 days	Unknown	Unknown
20	Tsujimoto ³⁴⁾	2011	73	M	Melena	GR	6 years	CT, US	Unknown	Bridge therapy	Duodenectomy	Yes	Yes	45 days	Alive	Unknown
21	Veraldi ³⁵⁾	2012	71	M	Melena	EVAR	6 years	CT	Unknown	<i>In situ</i> grafting	Closure of the fistula	Unknown	Yes	17 days	Alive	1 year
22	Eto ¹⁸⁾	2012	76	M	Abdominal pain	GR	18 years	CT	1 day	EVAR	Closure of the fistula	Unknown	Yes	34 days	Death	16 months
23	Ogino ³⁶⁾	2013	79	M	Hematemesis	GR	12 years	CT	1 day	<i>In situ</i> grafting	Resection and closure of the fistula	None	Yes	62 days	Unknown	Unknown
24	Otawara ³⁷⁾	2013	60's	M	Unknown	EVAR	Unknown	CT	Unknown	Extra anatomic bypass	Duodenectomy	None	Yes	198 days	Unknown	Unknown
25	Rifu ³⁸⁾	2014	78	M	Hematemesis, Melena	GR	18 years	CT	About 2 months	Extra anatomic bypass	Closure of the fistula	Yes	Yes	21 days	Death	6 years
26	Hashimoto ⁸⁾	2016	81	M	Melena	GR	6 years	CT	Unknown	<i>In situ</i> grafting	Duodenectomy	Yes	Yes	27 days	Alive	6 years and 1 month
27	Hashimoto ⁸⁾	2016	81	M	Fever	GR	7 years	CT	Unknown	<i>In situ</i> grafting	Resection and closure of the fistula	Yes	Yes	33 days	Alive	3 years and 10 months
28	Hashimoto ⁸⁾	2016	85	M	Fever	GR	15 years	CT	Unknown	<i>In situ</i> grafting	Resection and closure of the fistula	Yes	Yes	23 days	Alive	2 years and 9 months
29	Hashimoto ⁸⁾	2016	74	F	Hematemesis, Melena	GR	6 years	in operation	Unknown	<i>In situ</i> grafting	Duodenectomy	Yes	No	—	Death	Death in hospital
30	Hashimoto ⁸⁾	2016	68	M	Fever	GR	5 months	CT	Unknown	<i>In situ</i> grafting	Resection and closure of the fistula	Yes	Yes	26 days	Alive	3 years and 2 months
31	Our case	—	64	M	Hematemesis	GR	7 months	CT, EGD	5 months	Bridge therapy	Closure of the fistula	Yes	Yes	53 days	Alive	5 years
32	Our case	—	80	M	Fever	GR	6 years	in operation	2 years	<i>In situ</i> grafting	Duodenectomy	Yes	Yes	91 days	Death	4 months
33	Our case	—	70	M	Syncope	GR→EVAR	3 years and 8 months	CT	5 days	EVAR	Duodenectomy	Yes	Yes	76 days	Death	7 months

Table 2 The review of 20 cases of sADF regarding their postoperative outcome

	No.	Outcome	Follow-up	Cause of death	Operative method (Aorta)	Operative method (Duodenum)	Graft removal
Recurrence-free cases	1	Alive	10 months	—	<i>In situ</i> grafting	Closure of the fistula	Yes
	2	Alive	Unknown	—	Extra anatomic bypass	Resection and closure of the fistula	Yes
	12	Alive	9 years	—	<i>In situ</i> grafting	Resection and closure of the fistula	Yes
	14	Alive	2 years and 1 month	—	<i>In situ</i> grafting	Closure of the fistula	Yes
	18	Alive	3 years	—	<i>In situ</i> grafting	Closure of the fistula	Yes
	20	Alive	Unknown	—	Bridge therapy	Duodenectomy	Yes
	21	Alive	1 year	—	<i>In situ</i> grafting	Closure of the fistula	Yes
	25	Death	6 years	Lung cancer	Extra anatomic bypass	Closure of the fistula	Yes
	26	Alive	6 years and 1 month	—	<i>In situ</i> grafting	Duodenectomy	Yes
	27	Alive	3 years and 10 months	—	<i>In situ</i> grafting	Resection and closure of the fistula	Yes
	28	Alive	2 years and 9 months	—	<i>In situ</i> grafting	Resection and closure of the fistula	Yes
	30	Alive	3 years and 2 months	—	<i>In situ</i> grafting	Resection and closure of the fistula	Yes
	31	Alive	5 years	—	Bridge therapy	Closure of the fistula	Yes
Recurrence cases	4	Death	1 month	MOF	Resection and closure of the fistula	Resection and closure of the fistula	No
	11	Death	3 years	Hemorrhage	Extra anatomic bypass	Closure of the fistula	Yes
	15	Death	4 months	Sepsis	EVAR	None	No
	22	Death	1 year and 4 months	Sepsis	EVAR	Closure of the fistula	No
	29	Death	3 days	Sepsis	<i>In situ</i> grafting	Duodenectomy	Yes
	32	Death	4 months	Sepsis	<i>In situ</i> grafting	Duodenectomy	Yes
	33	Death	7 months	Sepsis	EVAR	Duodenectomy	No

瘻を EVAR のみに留めた症例 3 は大動脈についての処置が不十分であったと考えられる。

また、術後抗菌薬治療を半永久的に行う必要があるという報告¹⁸⁾もあるが、現状投与期間についてはまだ議論の多いところである^{19)~21)}。

1999 年に Deshpande ら²²⁾が初めて二次性大動脈腸管瘻に対する EVAR 治療例を報告して以降の、2000 年から 2017 年 6 月までの医学中央雑誌で「大動脈十二指腸瘻」と「大動脈腸管瘻」をキーワードとして検索した sADF の報告例に、今回の自験例 3 例を加えた 33 症例をまとめた (Table 1)^{6)8)10)17)18)23)~38)}、全 33 例

の年齢は 54～85 歳 (中央値: 73 歳), 男/女: 28/5 例, 主訴は吐血/腹痛/発熱/失神/不明・その他: 21/4/5/1/2 例だった. 腹部大動脈瘤に対しては GR/EVAR/GR・EVAR 両方: 29/2/2 例で, 腹部大動脈瘤の術後 sADF を発症するまでの期間は 3 週間～21 年と多岐にわたった. 診断法は CT が 23 例, 術中診断が 5 例, 病理解剖が 3 例, 上部消化管内視鏡が 2 例で, 4 例では上部消化管内視鏡やエコー, 血管造影が CT による診断の裏付けになっていた. 症状発現から sADF の診断に至るまでの期間は 1 日～2 年とさまざまであった. 診断後手術を行ったのは 24 例で, 大動脈は解剖学的血行再建/非解剖学的血行再建/bridge therapy/EVAR・瘻孔閉鎖: 12/6/2/4 例, 十二指腸は瘻孔単純縫合閉鎖/瘻孔切除+縫合閉鎖/十二指腸水平脚切除+消化管再建/処置なし: 9/7/7/1 例, 大網充填は記載のない 6 例を除くとあり/なし: 14/4 例だった. 手術を行わなかった 9 例は全例救命できなかったが, 手術を行い転機の記事のある 20 例のうち 18 例が 1 次救命することができた. 術後在院日数は記載のないものを除くと 13～198 日 (中央値: 33 日) だった. 転機の記事があった 20 例で, 無再発症例と再発症例・感染再燃症例に分けて比較検討した (Table 2). 再発した場合, 全例死亡という転機をたどり, その原因は 7 例中 5 例が感染によるものだった. また, 十二指腸の術式にかかわらず, 予後は人工血管除去の有無が左右していることが示唆され, 人工血管除去の観点で予後をフローチャートに示した (Fig. 4). 全 33 症例のうち, 治療介入を行い転機の記事がある 20 症例の予後を見ると, 人工血管除去を行った群では行わなかった群と比べ, 十二指腸切除の有無にかかわらず予後が良いことがわかる. これらのことから, sADF は, 消化管出血に対する治療とともに, 異物感染としての感染制御がやはり必須であると考えられる. そして Table 2 にあるように, 再発症例の死亡原因として敗血症や多臓器不全が 7 例中 6 例を占めていること, 無再発症例では全例で人工血管を除去していることから, 感染した異物除去という意味で橋本ら⁸⁾が主張するように人工血管除去が望ましいと考えられる. ただ, sADF 発症時には開腹手術に耐えられないくらい全身状態が安定していない場合もあり, そのような場合には衛藤ら¹⁸⁾が主張するように, EVAR による出血コントロールをまずは行い全身状態を安定させ, その後速やかに開腹手術での人工血管除去による根治を目指す必要があると考えられる.

最後に, sADF という疾患においては, 初発症状の多くが消化器症状であるため診断や治療において血管外科医と消化器外科医が連携して協力する必要がある. 治療方針は, グラフトの再切除が望ましいようだがいまだ確立しておらず今後も検討の余地がある.

利益相反: なし

文献

- 1) Busuttil SJ, Goldstone J. Diagnosis and management of aortoenteric fistulas. *Semin Vasc Surg.* 2001 Dec;14(4):302-11.
- 2) Paaske WP, Hansen HJ. Graft-enteric fistulas and erosions. *Surg Gynecol Obstet.* 1985 Aug;161(2):161-4.
- 3) Saers SJ, Scheltinga MR. Primary aortoenteric fistula. *Br J Surg.* 2005 Feb;92(2):143-52.
- 4) Lawlor DK, DeRose G, Harris KA, Forbes TL. Primary aorto/iliac-enteric fistula-report of 6 new cases. *Vasc Endovascular Surg.* 2004 May-Jun;38(3):281-6.
- 5) Sweeney MS, Gadacz TR. Primary aortoduodenal fistula: manifestation, diagnosis, and treatment. *Surgery.* 1984 Sep;96(3):492-7.
- 6) 大平 真裕, 三浦 義夫, 佐々木 翠, 山口 剛, 先本 秀人, 小出 圭, ほか. 大動脈瘤術後 6 年目に発症した二次性大動脈十二指腸瘻の 1 例. *日本消化器外科学会雑誌.* 2004;37(2):153-8.
- 7) 葛西 猛. 【腹部出血性病変 早期診断と治療】 腹部血管性出血 大動脈腸管瘻. *救急医学.* 2001;25(12):1721-4.
- 8) 橋本 宗敬, 後藤 均, 赤松 大二郎, 清水 拓也, 土田 憲, 河村 圭一郎, ほか. 二次性腹部大動脈腸管瘻に対する解剖学的血行再建の手術成績. *日本血管外科学会雑誌.* 2016;25:1-6.
- 9) Mylona S, Ntai S, Pomoni M, Kokkinaki A, Lepida N, Thanos L. Aorto-enteric fistula: CT findings. *Abdom Imaging.* 2007 May-Jun;32(3):393-7.
- 10) 櫻井 経徳, 吉川 紀雄, 和泉 裕一. 二次性大動脈十二指腸瘻の 1 例. *北海道外科雑誌.* 2009;54(1):22-7.
- 11) 大島 武, 井上 仁, 大島 哲, 南 智仁, 松峯 敬夫. 放射線治療後に発生した大動脈十二指腸瘻の 1 例. *日本臨床外科学会雑誌.* 1999;60(10):2662-6.

- 12) Topel I, Stehr A, Steinbauer MG, Piso P, Schlitt HJ, Kasprzak PM. Surgical strategy in aorto-esophageal fistulae: endovascular stentgrafts and in situ repair of the aorta with cryopreserved homografts. *Ann Surg.* 2007 Nov;246(5):853-9.
- 13) van Olfen TB, Knippenberg LH, van der Vliet JA, Lastdrager WB. Primary aortoenteric fistula: report of six new cases. *Cardiovasc Surg.* 2002 Dec;10(6):551-4.
- 14) 坂下 英樹, 藤野 隆之. 吐・下血で発症した一次性大動脈十二指腸瘻の 1 例. *日本血管外科学会雑誌.* 2014;23(4):792-5.
- 15) 石川 和徳, 緑川 博文, 菅野 恵, 小野 隆志, 森島 重弘. 一次性大動脈腸管瘻の 1 救命例. *日本心臓血管外科学会雑誌.* 2008;37(2):144-6.
- 16) 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.
- 17) 寒川 顕治, 青木 淳, 大膳 祐治. 動脈腸管瘻の 3 例. *脈管学.* 2009;49(5):423-9.
- 18) 衛藤 弘城, 吉鷹 秀範, 都津川 敏範, 杭ノ瀬 昌彦, 津島 義正, 石田 敦久, ほか. 二次性大動脈腸管瘻に対するステントグラフト内挿術. *日本心臓血管外科学会雑誌.* 2012;41(5):270-5.
- 19) Danneels MI, Verhagen HJ, Teijink JA, Cuypers P, Nevelsteen A, Vermassen FE. Endovascular repair for aorto-enteric fistula: a bridge too far or a bridge to surgery? *Eur J Vasc Endovasc Surg.* 2006 Jul;32(1):27-33.
- 20) Leonhardt H, Mellander S, Snygg J, Lönn L. Endovascular management of acute bleeding arterioenteric fistulas. *Cardiovasc Intervent Radiol.* 2008 May-Jun;31(3):542-9.
- 21) Lindblad B, Holst J, Kölbel T, Ivancev K. What to do when evidence is lacking—implications on treatment of aortic ulcers, pseudoaneurysms and aorto-enteric fistulae. *Scand J Surg.* 2008;97(2):165-73.
- 22) Deshpande A, Lovelock M, Mossop P, Denton M, Vidovich J, Gurry J. Endovascular repair of an aortoenteric fistula in a high-risk patient. *J Endovasc Surg.* 1999 Nov;6(4):379-84.
- 23) 半田 和義, 大江 大, 酒井 信光, 高屋 潔. 腹部大動脈十二指腸瘻の 1 例. *日本臨床外科学会雑誌.* 2000;61(9):2352-6.
- 24) 伊藤 生二, 窪田 敬一, 小暮 洋暉, 佐藤 直毅, 岩崎 喜実, 岡 慎二, ほか. 腹部 CT が有用であった二次性腹部大動脈十二指腸瘻の 1 例. *日本消化器外科学会雑誌.* 2001;34(6):586-9.
- 25) 真鍋 隆宏, 市川 由紀夫, 井元 清隆, 戸部 道雄, 山崎 一也, 矢野 善己, ほか. 炎症性腹部大動脈瘤術後 1 ヶ月に生じた大動脈十二指腸瘻の外科治療例. *日本心臓血管外科学会雑誌.* 2001;30(4):200-2.
- 26) Katsinelos P, Paroutoglou G, Papaziogas B, Beltsis A, Mimidis K, Pilpilidis I, et al. Secondary aortoduodenal fistula with a fatal outcome: report of six cases. *Surg Today.* 2005;35(8):677-81.
- 27) 岩室 雅也, 小川 恒由, 塩出 純二, 糸島 達也. 二次性大動脈十二指腸瘻の 1 例. *岡山済生会総合病院雑誌.* 2006;38:57-62.
- 28) 織井 恒安, 日置 正文, 家所 良夫, 遠藤 直哉, 清水 一雄. 二次性大動脈十二指腸瘻の 1 治験例. *日本血管外科学会雑誌.* 2007;16(7):809-14.
- 29) 永島 道雄, 登坂 淳, 横井 宏佳, 大竹 一信, 横田 忠明, 田淵 正樹, ほか. 一過性の意識消失で受診して帰宅後, 心肺機能停止状態となり救急搬送された大動脈十二指腸瘻の 1 症例. *小倉記念病院紀要.* 2007;39(1):39-40.
- 30) 新谷 恒弘, 三岡 博, 東 茂樹. 感染を伴う大動脈瘤破裂症例に対する緊急ステントグラフト内挿術. *脈管学.* 2009;49(5):405-9.
- 31) Tanaka S, Kameda N, Kubo Y, Obatake N, Wakasa T, Ohsawa M, et al. Secondary aortoduodenal fistula caused on the suture line of the wrapping. *Pathol Int.* 2009 Aug;59(8):598-600.
- 32) 水 大介, 佐竹 悠良, 鈴木 啓之, 徳田 剛宏, 許 智榮, 林 卓郎, ほか. 腹部大動脈十二指腸瘻の 1 例. *日本臨床救急医学会雑誌.* 2009;12(5):501-5.
- 33) 平野 佑樹, 松本 秀年, 関 博章, 安井 信隆, 嶋田 昌彦, 石川 廣記. 腹部大動脈瘤術後に発生した大動脈十二指腸瘻の 1 例. *日本臨床外科学会雑誌.* 2009;70(9):2654-8.
- 34) Tsujimoto T, Hirai T, Kitaoka H, Hata M, Nishio K, Okuchi K, et al. Secondary aortoduodenal fistula identified by ultrasonography. *J Med Ultrason.* 2011 Jul;38(3):161-5.
- 35) Veraldi GF, Gottin L, Genco B, Bricolo A, Tasselli S, Faggian G, et al. Aorto-duodenal fistula on an aortic endograft: a rare cause of late conversion after endovascular aneurysm repair. *Gen Thorac Cardiovasc Surg.* 2012 Jun;60(6):350-4.
- 36) 萩野 秀光, 池谷 佑樹, 向山 尚子, 三宅 克典. ダメージコントロールが有効であった腹部大動脈-十二指腸瘻手術の 1 例. *日本血管外科学会雑誌.* 2013;22(6):915-8.
- 37) 大田原 正幸, 尾原 秀明, 藤井 琢, 関本 康人, 北川 雄光. 大動脈十二指腸瘻に対する緊急ステントグラフト術後に根治術を施行した 1 例. *手術.* 2013;67(12):1789-92.
- 38) 利府 数馬, 大木 伸一, 三澤 吉雄. 腹部大動脈瘤術後 18 年で発生した大動脈腸管瘻の 1 例. *日本臨床外科学会雑誌.* 2014;75(1):60-3.

CASE REPORT

Secondary Aortoduodenal Fistula: Report of 3 Cases

Norihiro Matsuura¹⁾, Kazumasa Fujitani¹⁾, Rie Nakatsuka¹⁾, Susumu Miyazaki¹⁾,
Katsuki Danno¹⁾, Takamichi Komori¹⁾, Masaaki Motoori¹⁾, Masaki Kashiwazaki¹⁾ and
Kazuhiro Iwase¹⁾

¹⁾Department of Gastroenterological Surgery, Osaka General Medical Center

Secondary aortoduodenal fistula (sADF) is a rare but very serious cause of gastrointestinal hemorrhage, difficult to diagnose, and a potentially fatal disease. We report 3 patients with aortic prostheses who were hospitalized for gastrointestinal bleeding due to sADF, and discuss their clinical diagnosis, treatment, and final results. All of them underwent surgical interventions and were successfully rescued once, but two of them succumbed due to postoperative infectious complications. In cases of gastrointestinal hemorrhage after aortic prostheses, clinical suspicion of sADF and an early diagnostic abdominal CT scan with anticipation of its high sensitivity and specificity for sADF are crucial. Early surgical intervention with removal of prosthetic aortic graft should be considered to control systemic infections and survival.

Key Words: aortoduodenal fistula, aortoenteric fistula, gastro intestinal bleeding

[Jpn J Gastroenterol Surg. 2018;51(6):406-414]

Reprint requests: Norihiro Matsuura Department of Gastroenterological Surgery, Osaka General Medical Center
3-1-56 Mandaihigashi, Sumiyoshi-ku, Osaka, 558-8558 JAPAN

Accepted: January 24, 2018

© 2018 The Japanese Society of Gastroenterological Surgery