再建遊離空腸潰瘍に続発した頸動脈破裂症例

竹 本 剛 折 田 浩 志 岡 崎 吉 紘

要旨：症例は70歳，男性。主訴は吐血。自宅で突然の吐血を生じ，救急車にて当院に搬送された。既往歴として，7年前に下咽頭癌に対して放射線治療と右頸部郭清術を施行。4か月前に下咽頭癌再発に対して，咽喉食摘，遊離空腸による再建が施行されている。初診時，すでに止血状態であり，再建遊離空腸からの出血と考え保存的治療を行うも再出血を認め，全身麻酔下の観察で，再建遊離空腸右側の潰瘍と穿孔，それに伴う外頸動脈仮性動脈瘤破裂による出血と診断した。血管内治療で外頸動脈を塞栓して止血を行った後，壊死した遊離空腸の部分切除と大胸筋皮弁による再建を行った。

キーワード：遊離空腸，潰瘍，頸動脈破裂症候群，血管内治療，救済手術

Summary A case of an ulcer and fistula in the transplanted free jejunum of a patient operated for hypopharyngeal cancer:

Tsuyoshi Takemoto, Hiroshi Orita and Yoshihiro Okazaki. Department of Otolaryngology and Head and Neck Surgery, Yamaguchi Grand Medical Center

A 70-year-old man vomited an amount of blood suddenly at home, and was transported to our hospital by ambulance. As a medical history, 7 years earlier, he had undergone radiation therapy and right neck dissection for the treatment of hypopharyngeal cancer. Four months earlier, due to recurrence of hypopharyngeal cancer, he had undergone total pharyngo-laryngo esophagectomy and reconstruction surgery with free jejunum. At the first visit, the bleeding had already stopped, so we considered that the bleeding had occurred at the mucosa of the transplanted free jejunum. However, 28 hours later, he vomited blood again. We examined his transplanted free jejunum under general anesthesia and diagnosed that the transplanted free jejunum had an ulcer and fistula, and bleeding was due to a ruptured aneurysm of the external carotid artery. The external carotid artery was embolized with endovascular treatment and the bleeding was stopped. Two days after embolization, we performed partial resection of the necrotic free jejunum and reconstruction with a pectoral major myocutaneous flap.

Key words: free jejunum, ulcer, carotid blowout syndrome, endovascular treatment, salvage surgery

[Received May 19, 2020, Accepted Sep. 9, 2020]

はじめに

頸部悪性腫瘍に対する手術や放射線治療に続発して生じる頸動脈破裂は carotid blowout syndrome (CBS) と呼ばれており¹⁾，発症すると，生命に直結する重篤な合併症である。発症の原因として，感染に伴う炎症の波及²⁾や，放射線治療に伴う血管の

破綻^{3,4)}などが報告されている。今回われわれは，下咽頭癌に対して咽喉食摘を行い，遊離空腸で再建した患者が，術後約4か月を経過して，再建空腸部に潰瘍と穿孔を来とし，同部位からの感染によると思われる外頸動脈の破裂を経験した。そこで，その発症機序について若干の文献的考察を含めて報告する。

症 例

患者：70歳男性。

山口県立総合医療センター耳鼻咽喉科
[令和2年5月19日受付，令和2年9月9日受理]

主訴：吐血。

現病歴：当院受診5時間前に自宅で突然の吐血を認め、救急車で近医へ搬送された。近医到着時には止血状態であったが、精査加療目的に当科へ搬送された。

家族歴：特記事項なし。

既往歴：喫煙歴 40本42年間。飲酒歴 以前は多飲であったが現在は禁酒。

アルコール性肝炎の治療歴あり。

7年前に下咽頭癌（SCC，右PS，T2N2bM0）に対して化学放射線治療（70Gy，CDDP 100mg/m²を2コース併用）が行われCRとなった。

6年前に右頸部リンパ節再発に対して，右頸部郭清術（レベルⅡ，Ⅲ，Ⅳ，Ⅴ，）を施行された。リンパ節と強く癒着していたため，胸鎖乳突筋，内頸静脈，副神経は合併切除された。頸動脈との癒着は認めなかった。

4か月前に原発巣の再発に対して咽喉食摘，遊離空腸による再建が施行されている。その際，左頸部郭清術（レベルⅡ，Ⅲ，Ⅳ）を併施した。再建血管として，左上甲状腺動脈，左内頸静脈が用いられた。

初診時現症：身長169cm，体重56kg。血圧124/80mmHg。意識障害なし。口腔内から咽頭にかけて多量の凝血塊を認めるが明らかな活動性出血なし。

検査所見：血液検査では，WBC 11700/μl，Hb 6.2g/dl，Plt 27.9×10⁴/μl，CRP 8.62mg/dl，総蛋白 6.3g/dl，Alb 3.1g/dl，AST 35U/l，ALT 43U/l，BUN 35mg/dl，Cre 0.74mg/dl，Na 136mmol/l，K 4.9mmol/l，Cl 101mmol/lであり，貧血と炎症反応の上昇を認めた。消化管出血による吐血を疑い，消化器内科にて上部消化管内視鏡検査が施行された。遊離空腸部は凝血塊が充満し，可及的に吸引除去を行ったが十分な観察が困難であった。観察できうる範囲に明らかな出血点は確認できず，また活動性の出血は認めなかった。再建遊離空腸より尾側の食道，胃には明らかな異常は認めなかった。

経 過

遊離空腸からの消化管出血と診断した。全身状態は落ち着いていたため当科入院の上，輸血を行い経過を観察することとした。しかし，受診から28時間後の深夜，突然，大量の口腔内出血を来した。直ちに口腔内を観察したが，大量出血のために明らかな出血点は確認できず，また，活動性の出血が持続するため，咽頭パッキングを行いながら手術室に搬送し，全身麻酔を導入した。全身麻酔導入後，彎曲型直達鏡を用いて咽頭を展開したところ，再建遊離空腸右側に，壊死した腸管粘膜と同部位からの活動

図1 再建遊離空腸右側壁に壊死した腸管粘膜（点線）と深部からの出血を認める。

性出血を認めた（図1）。同部位を圧迫しても止血が得られなかったため腸管粘膜からの出血だけではなく，頸部大血管からの出血を考え，ハイブリッド手術室に患者を移送し，放射線科により緊急血管造影が行われた。その結果，右外頸動脈の仮性動脈瘤と同部位からの出血を確認した（図2A）。このことから，出血の原因として，まず，再建遊離空腸に生じた腸管の潰瘍と穿孔により咽頭瘻が生じ，頸部に感染が起きた。そして，感染が頸動脈へ波及し血管の破綻を生じ，その血液が咽頭瘻を通じて口腔内へ出血した，と考えた。止血を図るため，右外頸動脈をコイルで塞栓することとした。まず頭側を頸動脈レベルで塞栓し尾側に向かい，仮性動脈瘤への流入部を越えるまで塞栓して止血を確認した（図2B）。大量出血により全身状態が不安定であったため，集中治療室に入室して全身状態の改善を図り，2日後にデブリードマンと咽頭瘻の閉鎖を行った。頸部外切開に加え，下顎骨を正中で離断し，mandibular swing approachにて瘻孔部を明視下に置いた。瘻孔から顎下部にかけて膿性貯留液を認めた。頸部を洗浄し，遊離空腸の壊死部分を切除した。右外頸動脈はコイルで塞栓した部分の頭側と尾側で結紮して切除した後，壊死組織を可及的にデブリードマンした（図3）。そして，右大胸筋皮弁を用いて，空腸壁切除部分にパッチして再建し瘻孔を閉鎖した。デブリードマンした死腔には大胸筋皮弁の筋体を充填して手術を終了した。術後は感染拡大を予防するため，SBT/ABPC 9g/day，CLDM 1200mg/dayを12日間投与した。膿性貯留液の細菌検査を行うことを失念していたため，起因菌の同定や薬剤感受性検査は行えなかったが，術創に新たな感染は認めなかったため，選択した抗生剤は感受性を有し

図 2

A : 右外頸動脈に生じた仮性動脈瘤からの出血 (点線)。
B : コイル (▲) 留置により仮性動脈瘤からの出血は認めない。

図 3 mandibular swing approach による術野
壊死した遊離空腸の部分切除と周囲のデブリードマン、洗浄を行った。総頸動脈に血管テープがかけられている。点線の範囲が遊離空腸の切除範囲。

ていたと考え、抗生剤の追加や変更は行わなかった。術後経過は良好で、術後 13 日目に嚥下造影検査を行い、遺漏のないことを確認し、経口摂取を開始した。十分に経口摂取ができることを確認し、第 66 病日に転院した。

考 察

頸部悪性腫瘍に対する手術や放射線治療に続発して生じる頸動脈破裂は carotid blowout syndrome (CBS) と呼ばれており¹⁾、発症すると生命に直結する重篤な合併症である。頸動脈に生じた仮性動脈瘤破裂による出血とされており、頭蓋外仮性動脈瘤の発生部位としては、総頸動脈 48%、内頸動脈 50%、外頸動脈 2%との報告がある⁵⁾。仮性動脈瘤

の原因として、炎症²⁾、放射線照射の既往^{3,4)}、頸部手術の既往³⁾、頸動脈への癌浸潤⁶⁾、医源性⁷⁾、などが報告されている。放射線照射により頸動脈に仮性動脈瘤が発生する機序はまだ充分には解明はされていないが、vasa vasorum の閉塞による慢性的変化、不安定な血管壁のアテローム硬化、動脈壁の脆弱化、壊死などが考えられている。また、頸部郭清術で頸動脈が露出されることにより、動脈壁の血流が不足することも血管の破綻の原因と考えられている³⁾。本症例においては、これまでに、放射線照射、頸部郭清術の既往があり、それだけでも頸動脈に仮性動脈瘤が生じる可能性は高かったと思われるが、4 か月前の手術で、右総頸動脈前面までは再度の手術操作が加わったことにより、頸動脈壁への侵襲は大きく、血管壁は脆弱になっていたと考えられる。そこに咽頭瘻による頸動脈への感染が生じた場合、脆弱な動脈に仮性動脈瘤が生じる可能性はさらに高くなると考えられる。

頸部手術により、一次的縫縮、あるいは皮弁を用いて咽頭再建を行った場合、術後に咽頭瘻を生じる部位としては縫合部に最も多いのは明らかと思われる。それは、咽頭粘膜間の、あるいは、咽頭粘膜と皮弁との縫合不全により生じ、その原因として、低栄養、放射線照射の既往、不適切なドレナージによる死腔形成、などが考えられる。これまでに、一次治療としての化学放射線治療⁸⁾、糖尿病の既往⁹⁾、など組織の血流障害を生じる様々な要因が報告されている。しかし、本症例においては、遊離空腸による再建手術から 4 か月が経過しており、その間、経口摂取も問題なくできていたことから縫合不全による咽頭瘻の形成は考えにくい。なにより、全身麻酔下に弯曲型直達鏡を用いて咽頭を展開し、遊離空腸

の咽頭吻合部より尾側に潰瘍形成が確認できたことから、咽頭瘻の原因は遊離空腸に生じた潰瘍と思われる。潰瘍が生じる前に何らかの原因で頸部に仮性動脈瘤が生じた場合、頸部の腫瘍¹⁾、頸部出血³⁾などで発症する人が多いと思われる。仮性動脈瘤が咽頭粘膜を外側から圧迫して咽頭壊死と瘻孔が生じるとすれば、放射線治療後の、脆弱で血流に乏しい粘膜であれば考えられるが、本症例の様に放射線が照射されていない遊離空腸では、その可能性は低いと考えた。一般的に、小腸に生じる非腫瘍性潰瘍の原因として、サイトメガロウイルス腸炎、腸結核、NSAIDs 起因性腸炎、血管炎、腸管バーチェット病などが報告されている¹⁰⁾。また、まれではあるが、腭頭十二指腸切除に伴う挙上空腸に胃酸が原因と思われる潰瘍が生じた報告もある¹¹⁾。本症例のように、再建遊離空腸に生じた潰瘍の報告としては、術後2か月目に生じた出血性潰瘍¹²⁾、遊離空腸に限局的に生じたサイトメガロウイルス腸炎による出血性潰瘍¹³⁾、以前に総頸動脈に留置されていたステントが逸脱し、再建遊離空腸を外側から貫いて穿孔を生じた症例¹⁴⁾、などが散見されるのみであり、非常にまれな病態と思われる。本症例術後の組織学的検査では、癌の再発を認めず、また、サイトメガロウイルス感染を疑う所見も認めなかった。また、胃潰瘍や逆流性食道炎の既往もなく、慢性的な胃酸の逆流による遊離空腸の障害もなかったと推測される。本症例は以前から頸部や肩の痛みに対してNSAIDsを常用していたという既往があり、再建遊離空腸に生じた潰瘍の原因としてはNSAIDs潰瘍の可能性が考えられる。さらに、穿孔も伴っており、本邦における同様の報告は、渉猟した範囲では検索し得ず非常にまれな症例と思われる。

本症例は、当院に搬送された際、消化管出血による吐血が疑われて、消化器内科が先ず検査を行い、その後に当科へ入院した経緯がある。受診時、すでに止血状態ではあったが、遊離空腸による再建を行っていたことや、放射線照射歴、頸部郭清術の施行歴があることからCBSを念頭に置いて初療に当たってれば、造影CTなどで血管の評価を行い、初診時に外頸動脈の仮性動脈瘤が診断できた可能性がある。そうすれば、その時点ですぐに血管内治療を行い、深夜の急変は避けることができたと反省している。今後は、頭頸部癌治療後の患者の口腔内出血に関しては、その治療歴等からCBSによる出血も念頭に置く必要があると考えた。

ま と め

再建遊離空腸に穿孔を生じ、同部位からの感染からCBSを発症した症例を報告した。咽頭瘻の原因としてNSAIDs潰瘍からの穿孔の可能性があると思われた。頭頸部癌治療後の患者は、その治療歴により種々の治療後合併症が起きる可能性を念頭に置き診療を行うことが重要と考えた。

当論文の要旨は、第30回頭頸部外科学会（2020年1月、宜野湾市）にて口演した。

筆者は申告すべき利益相反を有しない。

文 献

- 1) 岩室康司, 西川智文, 梶原基弘: 頸動脈破裂による仮性動脈瘤に対しステントグラフトにより治療した1例. *Neurosurg Emerg*, 17: 194-198, 2012.
- 2) 宇野匡祐, 浅香大也, 岡野 晋, 他: 浸潤性副鼻腔真菌症による内頸動脈仮性動脈瘤破裂をきたした1例. *耳展*, 55: 28-35, 2012.
- 3) Hanakita S, Iijima A, Ishikawa O, et al: Treatment of a cervical carotid pseudoaneurysm that occurred years after laryngectomy and irradiation of a neck tumor. *Neurol Med Chir* 51: 588-591, 2011.
- 4) 花田有紀子, 笹井久徳, 鎌倉 綾, 他: 放射線治療後に内頸動脈仮性動脈瘤を発症した1症例. *日耳鼻*, 116: 606-611, 2013.
- 5) 郷良秀典, 飯尾 里, 古川昭一, 他: 総頸動脈瘤の1治験例. *日臨外医会誌*, 52: 2343-2345, 1991.
- 6) 守田誠司, 中川儀英, 井上茂亮, 他: 咽頭癌による鼻腔・咽頭からの大量出血に対してSengstaken-Blake-more tubeによる止血の1例. *JJAAM*, 15: 8-12, 2004.
- 7) 北川裕章, 松本賢治, 納賀克彦, 他: 医源性仮性頸動脈瘤の1例. *日臨外医会誌*, 54: 2183-2187, 1993.
- 8) 篠崎 剛, 西野 宏, 金沢英哲, 他: 喉頭全摘出後咽頭皮膚瘻についての検討. *頭頸部外科*, 17: 249-254, 2007.
- 9) 志賀清人, 小川武則, 加藤健吾: 当科における喉頭全摘術後の合併症の検討. *喉頭*, 23: 22-25, 2011.
- 10) 佐野弘治, 大川清孝, 中内脩介, 他: サイトメガロウイルス (CMV) 小腸炎の臨床像と内視鏡像. *胃と腸*, 54: 505-514, 2019.
- 11) 渡辺一輝, 藤井義郎, 山本晋也, 他: 腭頭十二指腸切除術後に挙上空腸輸入脚から出血した1例. *日臨外医会誌*, 71: 1850-1854, 2010.
- 12) 羽馬宏一, 蓑田涼生, 鮫島靖浩, 他: 当科において遊離空腸再建を行った下咽頭癌症例の検討. *耳喉頭頸*, 73: 703-706, 2001.
- 13) 道津 充, 川田晃弘, 大里康雄, 他: 下咽頭癌術後の移植遊離空腸に難治性多発潰瘍を形成した1例. *頭頸部外科*, 14: 105-108, 2004.
- 14) 南 和彦, 久場潔実, 井上 準, 他: 放射線治療後の総頸動脈仮性動脈瘤が破裂した下咽頭癌例. *耳鼻臨床*, 111: 687-692, 2018.