

大動脈瘤術後 6 年目に発症した 2 次性大動脈十二指腸瘻の 1 例

中国労災病院外科

大平 真裕 三浦 義夫 佐々木 翠 山口 剛
先本 秀人 小出 圭 江藤 高陽 高橋 信

症例は 80 歳の男性で、原因不明の消化管出血のため当院入院。約 6 年前に腹部大動脈瘤の手術既往あり。消化管内視鏡、CT、血管造影で出血源を確認できなかったが、^{99m}Tc シンチで左上腹部に集積を認めた。大量下血による出血性ショックのため緊急開腹し、大動脈瘤術後の人工血管と十二指腸上行脚との瘻孔と診断し、瘻孔部を切除し単純縫合閉鎖した。術後 14 日目に上部消化管出血を認め、内視鏡で十二指腸水平脚に多発する出血性潰瘍を確認後保存的に止血した。術後 21 日目再び大量出血があり緊急開腹したが、主な出血源は潰瘍ではなく、大動脈十二指腸瘻からの再出血であった。全身状態不良のため単純閉鎖のみで手術を終えたが、術後 4 日目死亡した。剖検所見より大動脈と十二指腸の間に巨大な血腫を形成し十二指腸を圧迫した結果、潰瘍・瘻孔ができたものと推察された。大動脈十二指腸瘻はまれだが致死率が高く、消化器外科医も十分周知しておく必要がある。

はじめに

大動脈腸管瘻は大動脈と腸管内腔に直接交通ができる病態であり、腹部大動脈瘤術後の 1~2% に生じる。発生頻度が低く、診断もつきにくく大量出血を伴うため致死率が非常に高いとされ、腹部大動脈瘤術後の重大な合併症の一つである¹⁾。このたび我々は、大動脈瘤術後 6 年目に発症した 2 次性大動脈十二指腸瘻の 1 例を経験したので若干の文献的考察を加え報告する。

症 例

患者：80 歳，男性

主訴：下血

既往歴：昭和 56 年回盲部腫瘍に対し回盲部切除術（詳細不明）。平成 8 年 3 月腹部大動脈瘤（AAA）に対し Y グラフト置換術。

現病歴：平成 14 年 1 月 9 日、大量の吐血があり近医に緊急入院した。発熱および炎症所見なく上部下部消化管内視鏡、CT を施行するも出血源は不明であった。なおも下血が間欠的に見られ輸血を繰り返しており、平成 14 年 2 月 13 日比較的

Table 1 Laboratory data on admission

WBC	8,900 / μ l	BUN	33 mg/dl
RBC	249×10^4 / μ l	Cre	0.80 mg/dl
Hgb	7.5 g/dl	Na	133 mEq/l
Hct	22.2 %	K	4.6 mEq/l
PLT	22.9×10^4 / mm^3	Cl	99 mEq/l
TP	4.5 g/dl	FBS	142 mg/dl
ALB	2.3 g/dl	CRP	1.4 mg/dl
AST	23 IU/L	PT	119 %
ALT	17 IU/L	APTT	140 %
T-Bil	0.5 mg/dl		

大量の下血を認めたため当院内科へ緊急入院となった。

入院時現症：意識清明，血圧 110/70mmHg，心拍 89/min，体温 37.1，腹部は軟，圧痛・腫瘍は認めない。入院時検査では、貧血（RBC 249×10^4 / μ l，Hb 7.5g/dl）および BUN 33，CRP 1.4 と上昇を認めた（Table 1）。

入院経過：入院直後の^{99m}Tc シンチグラフィーでは注射 10 分後に左上腹部に集積を認め（Fig. 1 a），3 時間後には右下腹部へ移動していた（Fig. 1 b）。翌 14 日の小腸内視鏡では十二指腸水平脚入口部まで観察したが、出血点および凝血塊を認め

< 2003 年 9 月 24 日受理 > 別刷請求先：大平 真裕
〒737 0193 呉市広多賀谷 1 5 1 中国労災病院外科

Fig. 1 ^{99m}Tc scintigram (a): A significant RI uptake was observed in the left upper quadrant 10 minutes after the injection (arrow). (b): An uptake moved to the right lower quadrant 3 hours later (arrow)

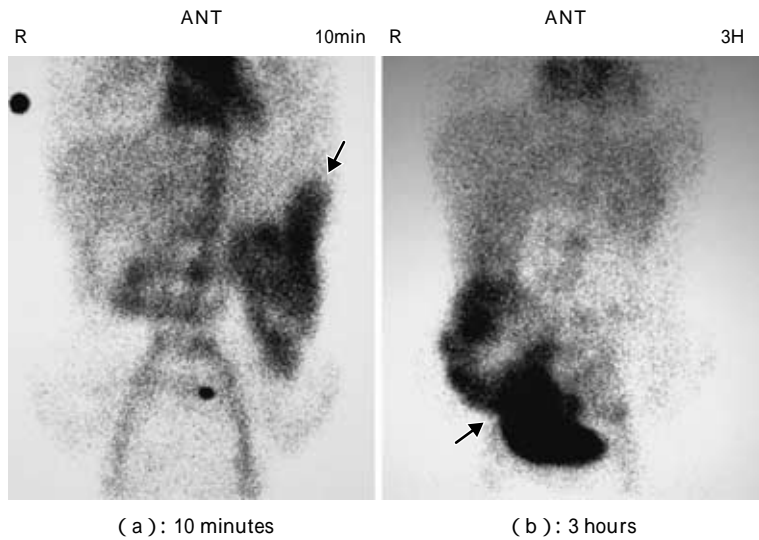
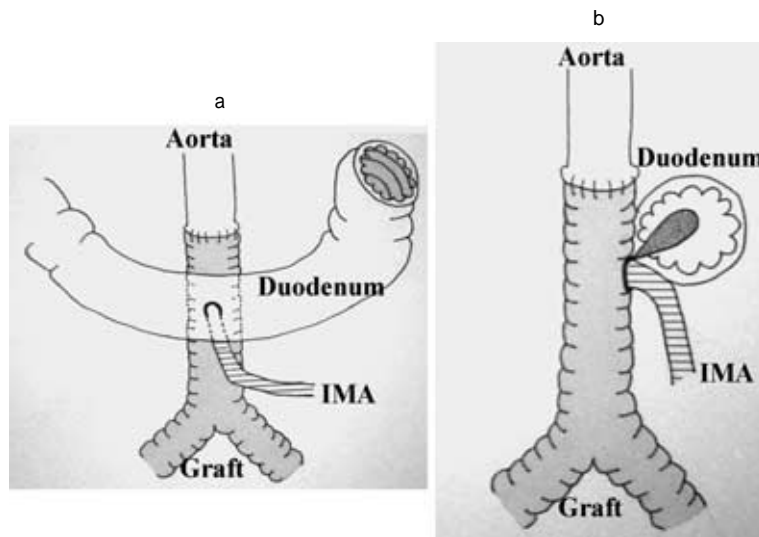


Fig. 2 Schema of the operative findings. An aortoduodenal fistula between the duodenum and the graft where the inferior mesenteric artery (IMA) was reconstructed, was found. (a): frontal view. (b): lateral view.



なかった .15 日再び下血を認めたため緊急血管造影を施行したが , 出血点は確認できなかった . 16 日再び大量の下血があり出血性ショックの状態と

なったため , ^{99m}Tc シンチの所見より上部小腸からの出血と考え緊急開腹した .

手術所見 : 上腹部正中切開で開腹し血液の充満

Fig. 3 Endoscopy findings.(a): Multiple ulcers were found in the third portion of the duodenum(arrow).(b): Bleedings from the ulcers were controlled by clipping and local injection of ethanol.

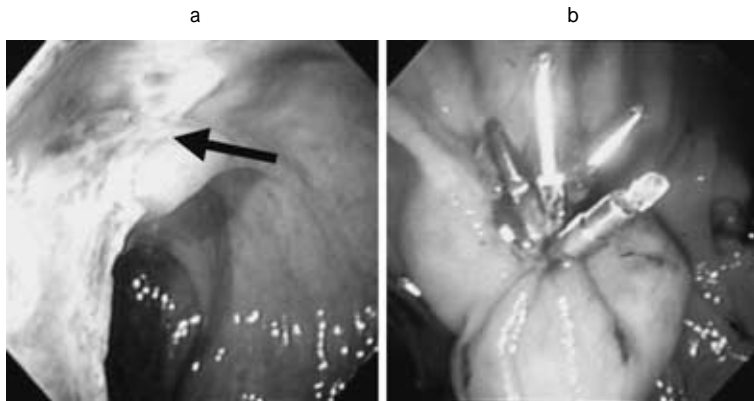
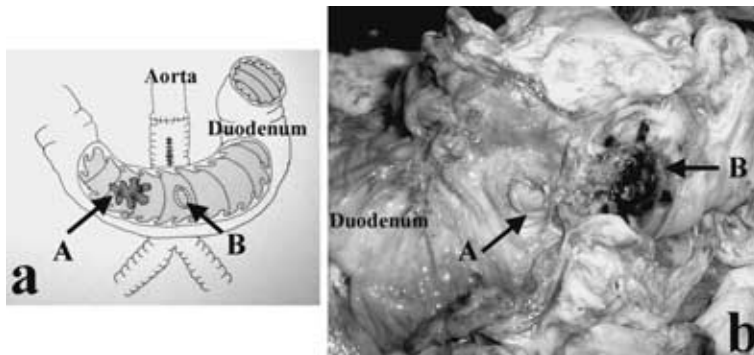


Fig. 4 Operative findings(a)and autopsy findings(b) The bleeding ulcers were sutured (A)but the recurrent fistula (B) was the origin of bleeding.



した空腸を切開し血液を吸引した後、空腸断端より内視鏡を口側に挿入し十二指腸内からの動脈性の出血を確認した。出血部位の十二指腸後壁は大動脈前壁と癒着しており、この時点で大動脈十二指腸瘻と診断した (Fig. 2)。

大動脈をクランプし、十二指腸はリニアカッターで切離後、漿膜筋層縫合を加えた。グラフトは瘻孔周囲をトリミングした後 4-0Prolene にて単純縫合した。瘻孔部は腹部大動脈瘤手術での下腸間膜動脈 (IMA) 再建部であり、IMA を切除すると左半結腸の血行不良となったため左半結腸切除術および横行結腸人工肛門造設術を追加した。

術後経過：第 2 病日に抜管したが、第 9 病日肺

炎・呼吸不全のため再挿管した。再留置していた経鼻胃管から第 14 病日突然出血を認め、緊急内視鏡で十二指腸水平脚に多発する潰瘍性病変および出血を認めた (Fig. 3)。クリップおよびエタノール局注などの内視鏡的止血術を施行するも出血を繰り返し、第 21 病日 (3 月 9 日) 出血性ショックに陥ったため十二指腸潰瘍からの出血と考え緊急手術を施行した。

再手術所見：十二指腸潰瘍からの出血と考えて、傍腹直筋切開で直接十二指腸にアプローチした。十二指腸前壁を切開し直视下に潰瘍の縫縮を行った。しかし、肛門側から血液の流出が持続し、十二指腸後壁の今回の瘻孔縫縮部位からの出血と

考えられた (Fig. 4). しかし、この時点でショック状態であったことと、十二指腸周囲の癒着はひどく剥離が非常に困難であったことから、姑息的に十二指腸内腔から瘻孔縫縮のみ行い手術を終了した。

術後経過：術後胃管からの出血は減少したものの、多臓器不全の状態となり3月13日永眠された。

剖検所見：2月16日手術時に大動脈グラフトを縫縮した部分は肉眼的には離開していなかった

ものの、十二指腸の後壁には血腫が存在していた。3月9日の手術時に縫縮した十二指腸潰瘍は水平脚の入口部に存在しており、大動脈グラフト縫縮部からの少量の出血が仮性大動脈瘤となり徐々に十二指腸を圧迫した結果、阻血性的変化として潰瘍・瘻孔形成に至ったと推測された (Fig. 5 β)。さらに、血腫そのものからも十二指腸内へ間歇的に出血を繰り返していたものと思われた。

考 察

大動脈腸管瘻は、大動脈瘤破裂などが原因で大動脈が消化管に直接穿通する1次性のものと、腹部大動脈への人工血管移植後に発生する2次性のものとに分けられる。

2次性大動脈腸管瘻の発生頻度は腹部大動脈瘤術後の0.36~1.6%であり¹⁾、瘻孔の形成部位は約80%が十二指腸であり水平脚に最も多い²⁾。

発生機序としては感染と機械的刺激が考えられている。感染説は人工血管吻合部に感染が生じて吻合部の哆開をきたし、仮性動脈瘤を形成しこれが腸管のびらん・炎症を引き起こして瘻孔を形成するという考えであり、一方、機械的刺激説は人工血管吻合部と腸管が癒着し、大動脈の拍動により腸管にびらんを生じ最終的には穿通が起こる。そして人工血管吻合部に感染が生じて吻合部が哆開し、腸管へ穿破するというものである³⁾。本症例

Fig. 5 Autopsy findings show a giant hematoma(the dotted circle)between the duodenum and the aorta. A probe was inserted in the aortoduodenal fistula (arrow)

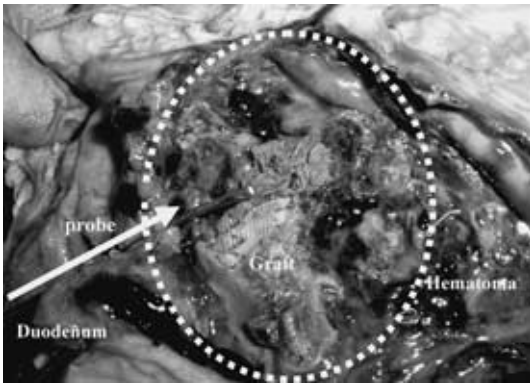
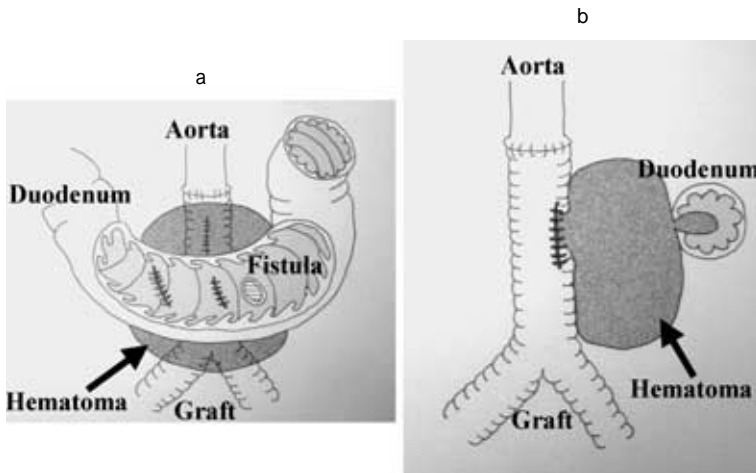


Fig. 6 The schema of autopsy shows a giant hematoma between the posterior wall of the duodenum and the aorta (arrow)(a): frontal view.(b): lateral view.



では初回手術時グラフト周囲に明らかな感染はなく、大動脈の腹側に再建されたIMAが十二指腸後壁と癒着をしていた。また、明らかな仮性動脈瘤の存在は認めなかったことから、動脈拍動による機械的刺激が原因で瘻孔形成をきたしたものと考えられる。

大動脈腸管瘻の3主徴は消化管出血・腹痛・拍動性腹部腫瘤であるが、この3つがすべてそろっているのは25%に満たない¹⁾。特徴的な症状としては、herald bleeding(前兆出血)がある。これは約2/3の症例にみられ、一過性・少量の消化管出血を繰り返す、ひとたび瘻孔の拡大が生じると致死的な大出血に至るといえるものである^{4,5)}。Herald bleeding後には約8割の症例が24時間から1週間以内に致死的な大出血に至るとされ⁶⁾、この期間に診断をつけ手術を行えば救命率は高くなる。本症例でもherald bleedingを約1か月間認めていたにもかかわらず、本疾患に対する認識が全くなく除外診断にもあげられなかったこと、そして、再手術に際してもAAAの既往があり胃十二指腸潰瘍からの出血をみた場合、グラフト吻合部の出血を考えるのは常識ではあるが、出血性十二指腸潰瘍の合併のためグラフト出血からの再出血の可能性を過小評価し出血性ショックに至るまで手術に踏み切れなかったのは大いに反省すべき点である。文献でも胃潰瘍出血と誤認し、生前に大動脈十二指腸瘻の診断に至らなかった例が報告されており⁷⁾、消化管出血の際動脈置換術の既往があればこの疾患をまず念頭に入れておく必要があると思われる。

治療の原則は、出血のコントロール、感染のコントロール(消化管閉鎖・ドレナージ・デブリードマンなど)、感染した人工血管の除去、血行再建である¹⁾。

治療法に関して従来行われてきたのは感染グラフトの完全摘出と感染予防のため非解剖学的な血行再建術である。この術式は理論的には優れているものの、周術期死亡率が高くまた大動脈断端破裂、下肢切断などの術後合併症の率も高くなるとの報告がある^{8,9)}。これに対し近年では、グラフトを完全摘出した後解剖学的に血行再建を行う術式

がなされており、良好な成績を収めているとの報告も見られる¹⁰⁾。また、感染が軽微な症例に関しては、局所修復のみで救命できかつ周術期合併症も少ないと報告されている¹⁰⁾。しかし、非解剖学的な再建の方が良好な成績であるとする報告も見られ¹¹⁾、どの術式が最適かについては、全身状態なども考慮する必要があり、単純に比較するのは難しい。

本症例において、出血性ショックで全身状態が不良であったこと・術前に診断がついていなかったこと・感染が軽微であったこと・腹腔内の癒着がひどかったことを考慮すると局所修復の術式は妥当であったと考える。また、癒着・再発防止のため大綱をグラフト周囲に固定することが推奨されている^{10,12)}が、回盲部切除術後のため大綱の癒着がひどく固定ができなかったために、グラフト周囲に血腫を作り十二指腸を圧迫する結果となった可能性もある。

現段階ではまだ一般的な治療方法ではないものの、全身状態が不良な症例においては、経動脈的にステントを挿入して瘻孔からの出血を一時的に止め、全身状態の回復を待ってから根治術を行うという方法も報告されており¹³⁾、術前に診断がついていて全身状態が不良な場合には試みてもよい治療法であると思われる。

文 献

- 1) Busuttill SJ, Goldstone J : Diagnosis and management of aortoenteric fistulas. *Semin Vasc Surg* 14 : 302-311, 2001
- 2) 小田恵夫, 河原 栄, 小川滋彦ほか : 十二指腸に穿孔した動脈硬化性腹部大動脈瘤破裂の2剖検例。病理と臨 11 : 353-359, 1993
- 3) 明元克司, 永井 晃, 杉山茂樹ほか : Y型人工血管置換術後に発生した大動脈・十二指腸瘻の1救命例。手術 41 : 1851-1854, 1987
- 4) Capaldo GR, Amin RM : Aortoduodenal fistula. Two case reports and a review of the literature. *J Cardiovasc Surg* 37 : 567-570, 1996
- 5) Szilagyi DE, Smith RF, DeRusso FJ : Contribution of abdominal aortic aneurysmectomy to prolongation of life. *Ann Surg* 164 : 678-699, 1966
- 6) Steffes BC, O Leary JP : Primary aortoduodenal fistula : A case report and review of the literature. *Am Surg* 46 : 121-129, 1980

- 7) 河原邦光, 岡田 恵, 林 輝子ほか: 胃癌と急性胃粘膜病変を合併した原発性大動脈十二指腸瘻の1例検例. 臨病理 49 : 77-81, 2001
- 8) Kuestner LM, Reilly LM, Jicha DL et al : Secondary aortoenteric fistula : Contemporary outcome with use of extraanatomic bypass and infected graft excision. J Vasc Surg 21 : 184-196, 1995
- 9) Vollmar JF, Kogel H : Aorto-enteric fistulas as postoperative complication. J Cardiovasc Surg 28 : 479-484, 1987
- 10) Thomas WEG, Baird RN : Secondary aorto-enteric fistulae : towards a more conservative approach. Br J Surg 73 : 875-878, 1986
- 11) Menawat SS, Gloviczki P, Serry RD et al : Management of aortic graft-enteric fistulas. Eur J Vasc Endovasc Surg 14 : 74-81, 1997
- 12) Hung L, David KC, Ronald MG et al : Secondary aortoduodenal fistula. Surgery 130 : 526-527, 2001
- 13) Schlensak C, Doenst T, Spillner G et al : Palliative treatment of a secondary aortoduodenal fistula by Stent-Graft placement. Thorac Cardiovasc Surg 48 : 41-42, 2000

A Case of Secondary Aortoduodenal Fistula, 6 Years after Abdominal Aortic Surgery

Masahiro Ohira, Yoshio Miura, Midori Sasaki, Tsuyoshi Yamaguchi,
Hidetō Sakimoto, Kei Koide, Takaaki Etou and Makoto Takahashi
Department of Surgery, Chugoku Rosai Hospital

An 80-year-old man, who had undergone a graft replacement for an abdominal aortic aneurysm 6 years ago, was admitted for repeated intermittent gastrointestinal bleeding of unknown origin. Upper and lower fiberoptic examinations, CT, and angiography failed to detect the bleeding site. ^{99m}Tc scintigraphy showed an uptake in the left upper quadrant. With no definite diagnosis, the patient underwent emergency surgery due to massive bleeding. An aortoduodenal fistula (ADF) was found and excised, followed by simple closure of the duodenum and aorta. On postoperative day (POD) 14, he again suffered gastrointestinal bleeding. Endoscopy showed multiple bleeding ulcers in the third portion of the duodenum. Despite endoscopic procedures such as clipping and local injection of ethanol, he had a massive hemorrhage on POD 21. Reoperation showed bleeding from ulcers and a recurrent ADF. Due to his poor general condition, he underwent suture ligation of the ulcers and ADF inside the duodenum. He died of multiple organ failure four days later. Autopsy found a giant hematoma between the duodenum and aorta that was a result of recurrent ADF and may have caused ischemic change in the duodenum resulting in multiple ulcers. ADF is a rare but lethal complication of aortic reconstructive surgery that vascular and gastroenterological surgeons must bear in mind as a possible cause of gastrointestinal bleeding.

Key words : aortoduodenal fistula, aortoenteric fistula, complication after abdominal aortic surgery

[Jpn J Gastroenterol Surg 37 : 153-158, 2004]

Reprint requests : Masahiro Ohira Department of Surgery, Chugoku Rosai Hospital
1-5-1 Hirotagaya, Kure, 737-0193 JAPAN