

症例報告

総胆管に穿破した破裂性膵十二指腸動脈瘤の1例

神戸市立西市民病院外科

木川雄一郎 池田 宏国 仲本 嘉彦 原田 武尚
竹尾 正彦 小縣 正明 山本 満雄

膵十二指腸動脈瘤（以下、PDAA）は近年の interventional radiology の発達に伴い報告例も増えてきつつある。破裂後に診断されることが多く、破裂した場合、出血部位はさまざま、消化管、後腹膜、腹腔内などである。しかし、総胆管への穿破は報告が少なく、極めてまれといえる症例を経験した。症例は56歳の男性で、大酒家で慢性膵炎の既往があった。急性胆嚢炎にて入院し、保存的治療後、腹腔鏡下胆嚢摘出術を行った。術後、膵炎が増悪し、保存的治療にて軽快していたが、8日目に突然吐血した。緊急内視鏡検査で、十二指腸乳頭部からの出血を認め、腹部CTでは総胆管に出血を思わせる像を認めた。ただちに腹部血管造影検査を行ったところ、後上膵十二指腸動脈に仮性動脈瘤と造影剤の血管外漏出を認めた。マイクロコイルを用いた塞栓術が可能で、止血に成功した。総胆管に穿破した例は極めて少なく、文献的考察を加えて報告する。

はじめに

膵十二指腸動脈瘤（以下、PDAA）は、まれな疾患で、腹部内臓動脈瘤の約2%と言われているが¹⁾、近年の interventional radiology の進歩により報告例は増えている。一般的に、臨床症状に乏しいため、多くの場合破裂後に診断されている。破裂した場合の出血部位はさまざま、消化管に穿通したり、後腹膜腔や腹腔内に出血したりする場合が多い。肝外胆管へ穿破した例は極めて少なく、筆者らが医学中央雑誌（キーワード：「膵十二指腸動脈瘤」）とMEDLINE（キーワード：「pancreaticoduodenal artery」,「aneurysm」）にて検索しえたかぎりでは1985年1月から2005年6月までの本邦報告例82例中、3例のみであった^{2)~4)}。今回、後上膵十二指腸動脈（以下、PSPDA）に発生した動脈瘤が破裂し、総胆管に穿破した1例を経験したので文献的考察を加えて報告する。

症 例

患者：56歳、男性

主訴：心窩部痛

既往歴：40歳時より胆石を指摘されていた。高血圧を指摘されたが治療せず。慢性膵炎と言われたことがあったが詳細は不明であった。30年間、毎日焼酎1~2杯の飲酒歴を認めた。

家族歴：特記すべきことなし。

現病歴：2003年4月頃から間欠的に心窩部痛を自覚していた。5月中旬に痛みが増強し、軽快しないため当院救急外来を受診した。

来院時腹部検査所見：心窩部から右季肋部にかけて強い圧痛を認めたが、腹膜刺激症状はなかった。

来院時血液検査所見：WBC 16,500/ μ l, CRP 12.3mg/dl, RBC 401×10^4 / μ l, Hb 13.3g/dl, GOT 16IU/l, GPT 17IU/l, アミラーゼ 87IU/l, 総ビリルビン値 0.9mg/dl と炎症所見を認めたが、貧血はなく、肝酵素、膵酵素は正常で黄疸も認めなかった。

腹部超音波検査、CTでは胆嚢内結石と胆嚢壁の肥厚を認め、急性胆嚢炎の診断で緊急入院となった。

入院後経過：絶食、輸液、抗菌薬投与による保

<2006年7月26日受理>別刷請求先：木川雄一郎
〒653-0013 神戸市長田区一番町2-4 神戸市立西市民病院

Fig. 1 Esophago-gastro-duodenoscopy demonstrated an active bleeding from the papilla Vater (arrow).

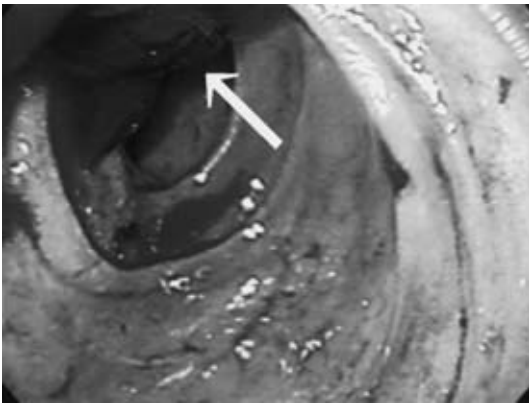
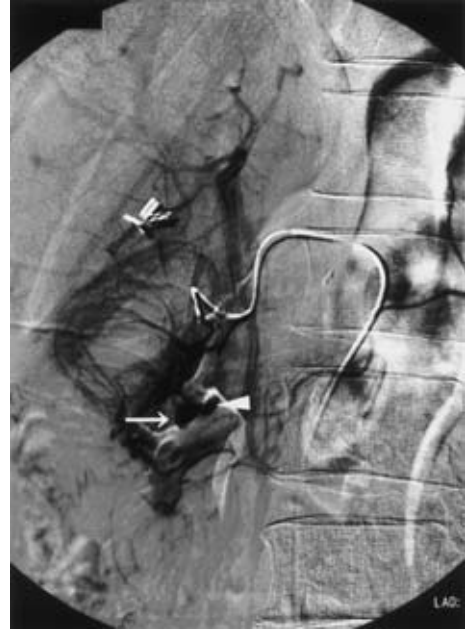


Fig. 2 Abdominal CT showed a high density area in the common bile duct (arrow). Hemobilia was suspected.



存的治療で症状は軽快し、血液検査所見の改善を認めた。第2病日に内視鏡的逆行性胆管造影検査を施行したが、胆管内結石を認めず、第10病日に待機的に腹腔鏡下胆嚢摘出術を行った。胆嚢壁は浮腫性に肥厚し周囲との癒着を認めたが、剥離は容易で、手術は特に問題なく終了した。術後順調に経過していたが、術後3日に上腹部痛が出現し、血液検査でアミラーゼが1,074IU/lと上昇した。緊急CTでは膵頭部から鉤部に腫大があり、急性膵炎の所見を認めた。また、総胆管内に高輝度領域があり、胆道出血が疑われる像もみられたが、

Fig. 3 Abdominal angiography showed the aneurysm of posterior superior pancreaticoduodenal artery 4.5×3mm in size (arrow), and the extravasation of the contrast agent from the aneurysm was seen (arrow head).



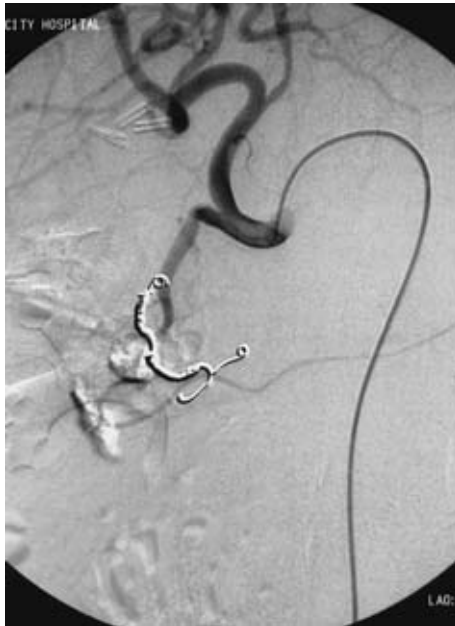
バイタルサインは安定しており、総ビリルビン値0.6mg/dlと黄疸なく、前日のHb値11.1g/dlから10.9g/dlと貧血の進行もなかったため、メシル酸ナファモスタットと抗菌薬を用いた保存的治療を開始した。翌日には症状は軽快し、術後7日に施行した腹部CTでは膵頭部の腫大は改善し、総胆管の高輝度領域も不明瞭化した。ところが、翌術後8日に再び腹痛が出現し、突然吐血した。

吐血後血液検査所見：WBC 22,900/μl, CRP 0.9mg/dl, RBC 305×10⁴/μl, Hb 9.9g/dlと白血球数増多と貧血の進行を認めた。GOT 417IU/l, GPT 461IU/l, LDH 510IU/l, アミラーゼ 485 IU/lと肝酵素、膵酵素の上昇を認めた。総ビリルビン値1.0mg/dlと軽度の上昇を認めた。

上部消化管内視鏡検査所見：胃、十二指腸球部に明らかな出血病変はなかったが、十二指腸乳頭部から活動性の出血を認めた (Fig. 1)。

腹部CT所見：総胆管内に高輝度領域があり、

Fig. 4 A successful microembolization was performed.



胆道出血が示唆された。臍頭部が軽度腫大していたが、前回までのCT所見と大きな変化はなかった (Fig. 2)。

腹部血管造影検査所見：胆道出血の原因精査を目的として緊急血管造影検査を行った。胃十二指腸動脈の選択的造影で、PSPDAに4.5×3mmの動脈瘤と同部からの造影剤の血管外漏出を認めた (Fig. 3)。動脈瘤は乳頭部より2cm程度上方に位置しており、総胆管に穿破し活動性出血を来したと診断した。PSPDAにカテーテルを進め、動脈瘤の近遠位側と瘤内をマイクロコイルにて塞栓した (Fig. 4)。

塞栓術後は再出血なく経過し、腹腔鏡下胆嚢摘出術から30日後に退院となった。

考 察

PDAAは腹部内臓動脈瘤の中でも2%とまれな疾患であるが¹⁾、近年のinterventional radiologyの進歩により報告例が増えている。筆者らの検索では1985年1月から2005年6月までで、本邦報告例は自検例を含めて83例であった (Table 1)。中高年の男性に多く、破裂例は68例 (81.9%)を

Table 1 The profiles of pancreaticoduodenal artery aneurysm in Japan

Year	1985-1995	1996-2005
Numbers of case	28	55
Age (mean)	57.8	57.8
Gender (men : women)	21 : 7	38 : 17
Rupture	23 (82.1%)	45 (81.8%)
Duodenal stenosis	8 (34.8%)	13 (28.9%)
Celiac artery stenosis or occlusion	5 (17.9%)	22 (40%)
Treatment		
Surgery	22 (78.6%)	19 (34.5%)
PD	6 (27.3%)	4 (7.3%)
Resection of aneurysm	5 (17.9%)	9 (16.4%)
Ligation or suture	10 (28%)	5 (9.1%)
Others	1 (3.6%)	1 (1.8%)
TAE	5 (17.6%)	* 34 (61.8%)
Observation	1 (3.6%)	3 (5.5%)

* Surgery was performed after TAE due to re-bleeding in one case

PD : pancreaticoduodenectomy

TAE : transcatheter arterial embolization

占めていた。いったん破裂するとショックに陥ることが多いが、その出血部位によってその他の臨床症状は異なる。消化管内に穿通した場合は吐下血を、腹腔内穿破では急性腹症を呈する。後腹膜への出血では臨床症状が明瞭でないことが多いが、破裂後に血腫が十二指腸を圧排し通過障害を呈する場合がある⁵⁾⁶⁾。今回、検討した破裂例68例のうち21例 (29.5%)に認められた。

PDAAの原因としては膵炎の他に腹腔動脈の閉塞または狭窄、動脈硬化、先天性異常、外傷、感染症などが挙げられる⁷⁾。腹腔動脈の閉塞または狭窄は、膵十二指腸アーケードの血流の増加をもたらして動脈瘤が発生するとされ⁸⁾、本邦報告例の検討でも32.5%にみられており重要な所見と考えられる。また、腹腔動脈が狭窄する原因としては動脈硬化の他に正中弓状韧带压迫症候群があり注意を要する^{9)~11)}。自検例では、腹部血管造影検査で、腹腔動脈の閉塞や狭窄はなく、外傷の既往もなかった。急性胆嚢炎の保存的治療後に腹腔鏡下胆嚢摘出術を施行したが、動脈瘤の発生につながる手術操作はなかった。術後に発症した膵炎に関しては、摘出胆嚢内の結石が約8から15mmとや

Table 2 Reported cases of PDAA ruptured into the common bile duct in Japan

	Author/Year	Age/Sex	Chief complaint	Ruptured artery	Shock	Treatment	Cause	Outcome
Case 1 :	Takagi ²⁾ /1999	62/M	upper abdominal pain	PSPDA	+	total pancreatectomy	acute pancreatitis	alive
Case 2 :	Morita ³⁾ /1999	57/M	bleeding of extrabiliary duct tube	PIPDA	-	TAE	over expanding at balloon dilatation	alive
Case 3 :	Kurisu ⁴⁾ /2005	73/M	bleeding from T-tube	PSPDA	+	TAE	unknown	dead
Our case :		56/M	hematemesis	PSPDA	-	TAE	acute pancreatitis	alive

PSPDA : posterior superior pancreaticoduodenal artery, PIPDA : posterior inferior pancreaticoduodenal artery, TAE : transcatheter arterial embolization

や大きめのコレステロール結石7個で、膵炎発症時に黄疸もないことから、落下結石が膵炎の原因とは考えにくい。来院時のCTをretrospectiveに検討したところ、明らかな膵十二指腸動脈瘤は指摘できなかったが、膵鉤部がやや腫大しており、嗜好歴とあわせて、来院時より慢性膵炎を合併していた可能性が高い。術後3日の急性膵炎発症時のCTですでに胆道出血を認めるため、以前からの慢性膵炎が動脈瘤の発生に関与していると考えられた。

一方、胆道出血の原因としては、外傷、胆石、炎症、血管系の異常、腫瘍などが挙げられる¹²⁾。近年は医原性の胆道出血が多く報告されており、本邦でも経皮経肝胆道ドレーナージ術後や胆道系の手術後に、肝内あるいは右肝動脈などに仮性動脈瘤が発生し、破裂することで胆道出血を来した例が報告されている^{13)~15)}。しかしながら、PDAAの穿破による胆道出血は、今回検討した83例の中でも自検例を含め4例(4.8%)^{2)~4)}でまれな病態といえる。この4例の概要をTable 2に示すが、動脈瘤の局在はいずれも後膵十二指腸動脈で、解剖学的にも総胆管に穿破しうる部位であった。また、1例に死亡例を認めた。

欧米の報告では、1984年にIbrahimら¹⁶⁾が、下膵十二指腸動脈瘤が膵管に穿破して胆道出血を来した例を報告しているが、筆者らがMEDLINEで検索しえたかぎり、PDAAが総胆管に穿破した例は、1895年にFergusonら¹⁵⁾の報告をみるのみである。

PDAAの治療としては、近年、interventional radiologyの進歩に伴い、塞栓術を第1選択として

いる報告が多くなっている。今回、検討した本邦報告例では1985年から1995年までは外科治療が78.6%、TAEが17.6%であったのに対し、1996年から2005年ではそれぞれ、34.5%、61.8%とTAE施行例が増加していた。外科的治療を選択した症例では出血点の同定が困難なために膵頭十二指腸切除術を必要とした症例が10例あった。それに比べて、塞栓術は森田ら³⁾の報告によると瘤消失率、止血率とも手術より勝っており、合併症発生率、死亡率も少ないため侵襲が少なく有効な治療法と考える。本症例では、PSPDAにカテーテルを挿入することができ、動脈瘤の近遠位側を塞栓することで止血に成功した。また、塞栓術による血流障害のために膵炎が再燃することはなかった。仮性動脈瘤の場合、血管壁は脆弱で容易に破綻するために瘤内のみを塞栓するより瘤の近遠位側を塞栓することが望ましいと思われる。しかしながら、血管の屈曲や蛇行が強い場合や、腹腔動脈閉塞例では、技術的にカテーテルの挿入が困難で、塞栓術が施行しえない場合もある。このような症例は約13%に存在するとされ³⁾、常に外科的治療を要する可能性があると考えられる。

以上から、本症例のように原因不明の胆道出血を認めた場合は、まれな病態ではあるがPDAAの存在を念頭において血管造影検査を行い、動脈瘤の有無を確認する必要があると考える。また、瘤の存在が確認できた場合は、まず塞栓術を試み、不能な場合は速やかに外科的治療を行うべきであると考えられた。

文 献

- 1) Stanley JC, Wakefield TW, Graham LM et al :

- Clinical importance and management of splanchnic artery aneurysm. *J Vasc Surg* **3** : 836—840, 1986
- 2) 高木 融, 鶴井 茂, 多村幸之進ほか: 膵十二指腸動脈瘤破裂の1例. *Ther Res* **20** : 3120—3124, 1999
 - 3) 森田 穰, 長谷川貴, 花輪 眞ほか: 膵十二指腸動脈瘤に対する経カテーテル動脈塞栓術. *IVR 会誌* **14** : 334—342, 1999
 - 4) Kurisu A, Matsuki M, Kawachi Y et al : Rupture of a pancreaticoduodenal artery aneurysm into the common bile duct resulting in fatal suppurative cholangitis : report of a case. *Surg Today* **35** : 94—96, 2005
 - 5) 森本芳和, 田中康博, 山本重孝ほか: 十二指腸狭窄をきたした膵十二指腸動脈瘤破裂の1例. *日腹部救急医学会誌* **22** : 953—958, 2002
 - 6) 小野澤真弘, 西川秀司, 高木貴久子ほか: 膵十二指腸動脈瘤破裂による後腹膜血腫により十二指腸狭窄をきたした1例. *日消誌* **98** : 837—841, 2001
 - 7) Call DP, Ierardi R, Kerstein MD et al : Aneurysms of the pancreaticoduodenal arteries : a change in management. *Ann Vasc Surg* **12** : 286—291, 1998
 - 8) Quandalle P : Pancreaticoduodenal artery aneurysms associated celiac axis stenosis : report of two cases and review of the literature. *Ann Vasc Surg* **4** : 540—545, 1990
 - 9) Ogino H, Sato Y, Banno T et al : Embolization in a patient with ruptured anterior inferior pancreaticoduodenal arterial aneurysm with median arcuate ligament syndrome. *Cardiovasc Intervent Radiol* **25** : 318—319, 2002
 - 10) 福田篤志, 山本一治, 松田裕之ほか: 正中弓状韧带压迫症候群に合併した下膵十二指腸動脈瘤の1例. *日臨外会誌* **64** : 642—645, 2003
 - 11) Sandlom P : Hemorrhage into the biliary tract following trauma : “traumatic hemobilia”. *Surgery* **24** : 571—586, 1948
 - 12) 長屋昌樹, 窪田 俊, 明石勝也: 胆道出血を伴った外傷性肝仮性動脈瘤破裂の2例. *日消外会誌* **37** : 175—180, 2004
 - 13) 辻 秀樹, 榊原堅式, 三井 章ほか: PTCD後の肝動脈仮性動脈瘤破裂: TAEで胆道出血の止血に成功した1例. *日腹部救急医学会誌* **23** : 1103—1108, 2003
 - 14) 小切匡史, 吉田昭和, 野田秀樹ほか: 医原性胆道出血—動脈塞栓術が有効であった, 仮性動脈瘤による胆道出血の1例. *日消誌* **83** : 108—112, 1986
 - 15) Furguson F : Aneurysm of pancreaticoduodenal artery. *Proc NY Pathol Soc* : 24, 1895
 - 16) Ibrahim MA, Chan KM, Waldbaum JR et al : Endoscopic diagnosis of psudohemobilia resulting from a pancreaticoduodenal artery pseudoaneurysm. *Gastrointest Endosc* **30** : 347—349, 1984

A Case of Pancreaticoduodenal Artery Aneurysm Ruptured into the Common Bile Duct

Yuichiro Kikawa, Hirokuni Ikeda, Yoshihiko Nakamoto, Takehisa Harada,
Masahiko Takeo, Masaaki Ogata and Mitsuo Yamamoto
Department of Surgery, Kobe Nishi City Hospital

A case of hemobilia caused by a ruptured pancreaticoduodenal artery aneurysm (PDAA) is reported. The case was a 56-year-old man with a habit of heavy drinking and a history of chronic pancreatitis. He was initially admitted for acute cholecystitis with gallstones and underwent a laparoscopic cholecystectomy after medical treatments. The operative procedure was uneventful. On postoperative day 3, however, he suffered from acute pancreatitis. Medical treatments seemed to be effective, but he experienced sudden hematemesis on postoperative day 8. A gastrointestinal endoscopy revealed active bleeding from the papilla of Vater. Computed tomography showed an increased density in the common bile duct and swelling of the pancreatic head. An abdominal angiography demonstrated a pseudoaneurysm of the posterior superior pancreaticoduodenal artery and extravasation of the contrast medium at the site of the aneurysm. Under a diagnosis of PDAA ruptured into the common bile duct, embolization using micro-coils was performed and the bleeding was stopped. The patient improved after the embolization, and re-rupture did not occur thereafter. PDAA is a rare type of abdominal visceral artery aneurysm, and hemobilia caused by a ruptured PDAA is very rare. Eighty-two cases of previously reported PDAA are reviewed.

Key words : pancreaticoduodenal artery aneurysm, hemobilia, TAE

[*Jpn J Gastroenterol Surg* 40 : 307—312, 2007]

Reprint requests : Yuichiro Kikawa Department of Surgery, Kobe Nishi City Hospital
2-4 Ichibancho, Nagata-ku, Kobe, 653-0013 JAPAN

Accepted : July 26, 2006