

動脈腸管瘻の3例

寒川 顕治¹ 青木 淳^{1,2} 大拙 祐治³

要 旨：動脈腸管瘻の3例を救命し得た。症例1：86歳男性，主訴：下血，診断方法：造影CT。右内腸骨動脈瘤－直腸瘻に対しY型人工血管置換術，Hartmann手術施行。症例2：77歳男性，主訴：腹痛，診断方法：単純CT。ステントグラフト内挿術後の腹部大動脈瘤－十二指腸瘻に対しI型人工血管置換術，瘻孔直接閉鎖術施行。症例3：63歳男性，主訴：人工肛門からの下血，診断方法：造影CT。右腸骨動脈人工血管吻合部仮性瘤－回腸瘻に対しステントグラフト内挿術施行。二期的に大腿－大腿動脈バイパス，人工血管回腸切除術施行。瘻孔切除と血行再建，消化管再建により救命が可能であった。

(J Jpn Coll Angiol, 2009, 49: 423-429)

Key words: arterio-enteric fistula, melena, endovascular aneurysm repair

はじめに

動脈腸管瘻は比較的な疾患であるが，診断，治療ともに困難である。今回われわれは動脈腸管瘻の3例に対し，外科手術あるいはステントグラフト内挿術後に外科手術を行い救命し得た。摘出された組織の病理標本において興味深い知見が得られたので報告する。

症 例

症例1：86歳，男性。

主訴：下血。

既往歴：高血圧，喘息。

現病歴：2005年9月頃から便通異常が出現し，9月16日入院となった。

入院時現症・検査所見：血圧155/107mmHg，脈拍は86/分で整，体温36.2℃。下腹部に10cm大の腫瘤を触知したが圧痛なし。血液生化学検査では，RBC 449×10⁴/μl，Hb 13.3g/dlと貧血はなく，WBC 7600/μl，CRP 2.2mg/dlで軽度の炎症反応を認めた。造影CTでは，最大径右4.5cm，左5cmの両側内腸骨動脈瘤を認め，右内腸骨動脈瘤から連続する径6cmの，嚢胞性腫瘤が直腸を圧排

していた(Fig. 1)。

新鮮な下血を認め，内腸骨動脈瘤直腸瘻と診断し，下血はherald bleedingと判断して緊急手術を行った。

手術：正中で開腹し，腎動脈下の腹部大動脈と両側外腸骨動脈を遮断した。骨盤内は巨大な両側内腸骨動脈瘤により占拠されており，内腸骨動脈瘤のみの処理は不可能であったため遠位腹部大動脈，両側総腸骨動脈を切除した。内腸骨動脈瘤に対しては瘤内縫縮術を行った。右内腸骨動脈瘤から連続する腫瘤はS状結腸末梢から直腸上部と強固に癒着していたため，消化器外科に依頼し，自動吻合器を用いて直腸を腫瘤の肛門側と口側で離断し，一塊として摘出し，直腸末梢側の断端は埋没した。続いてGORE-TEX® 1608人工血管(W. L. Gore&Associates, Inc., Arizona, USA)でY型人工血管置換術を行い，十分に洗浄後，閉腹し，人工肛門を造設するHartmann手術を行った(Fig. 2)。

術後経過：術後2日目にICUを退室し，4日目から経口摂取を開始し，58日目に退院した。2年後肺炎のため死亡したが，それまで再発の兆候はなかった。

病理所見：内腸骨動脈瘤の直腸壁への破裂，穿通所見を認めた(Fig. 3)。直腸の粘膜と粘膜筋板は残存しているが，粘膜は全体に挙上伸展されて虚血性的変化を生じており(Fig. 4)，その結果出血したと考えられた。

¹松山市民病院心臓血管外科²現香川県立中央病院心臓血管外科³松山市民病院病理部

2009年2月13日受付 2009年4月25日受理



Figure 1 Contrast-enhanced computed tomogram of case 1.
Right internal iliac arterial aneurysm (A) and cystic mass (C) compress the rectum (R).

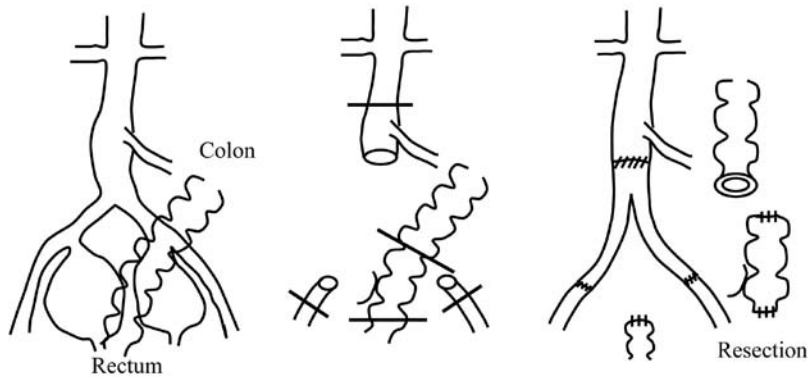


Figure 2 Operative procedure of case 1.
Aorto-iliac artery reconstruction using a bifurcated graft (GORE-TEX® 1608) and Hartmann operation were performed.

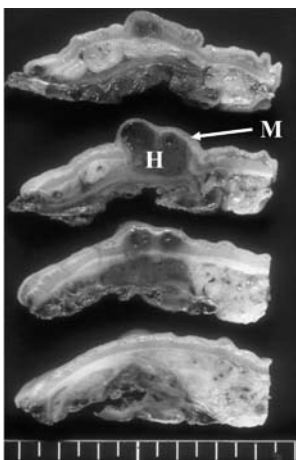


Figure 3 Specimen of the resected rectum.
Rupture and penetration of the aneurysm cause elevation of the rectal mucosa.
H: hematoma, M: rectal mucosa

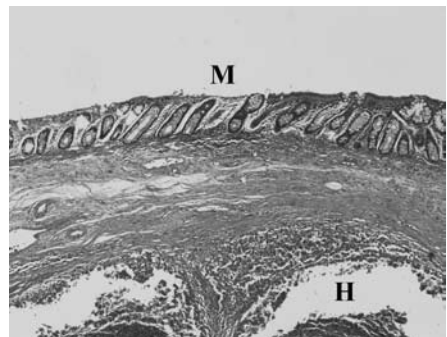


Figure 4 Photomicrogram of the resected rectum.
Ischemic changes of the elevated and compressed mucosa are seen, and are suspected as the cause of hemorrhage.
H: hematoma, M: rectal mucosa (H&E, low magnification)



Figure 5 Computed tomogram of case 2. Inflammation of the periaortic tissue and duodenum (arrows) is seen.

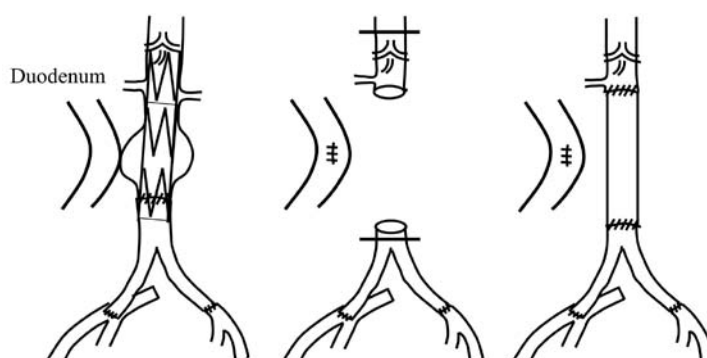


Figure 6 Operative procedure of case 2. Aortic reconstruction using tube graft (GORE-TEX® 16 mm) and direct suture closure of the duodenal fistula were carried out.

症例 2：77歳，男性。

主訴：腹痛。

既往歴：慢性腎不全(透析導入前)，高血圧。

現病歴：1998年他院で腹部大動脈瘤に対しYグラフト置換術施行。その後腎動脈下に径43mmの腹部大動脈瘤が出現し，2006年 8 月23日当院で自作ステントグラフト内挿術[ユービーウーピングラフト™ 30mm(ウベ循環研，東京)+ Gianturco Cook-Z® Stent(Cook Medical, Bloomington, USA)40mm×3 連，中枢側 1 連はbare stent]を施行した。術後endoleakなく経過観察中であつたが，2006年12月 1 日吐血し，内視鏡で出血源は不明で自然に止血した。2007年 1 月18日他院外来を受診中に腹痛からショックとなり，補液を行いつつ当院に救急搬送された。

入院時現症・検査所見：血圧 166/93mmHg，脈拍 94/分，整，体温 36.0℃，上腹部に圧痛あり。血液生化学検

査では，RBC $149 \times 10^4/\mu\text{l}$ ，Hb 4.6g/dlと著明な貧血を認め，WBC $18900/\mu\text{l}$ で炎症反応を認めた。単純CTでは，以前と比べ瘤径の拡大はなかったが，瘤前面を十二指腸が走行する部位の炎症が増強していた(Fig. 5)。慢性腎不全のため術前造影CTは行わなかった。大動脈十二指腸瘻と診断し，緊急手術を行った。

手術：上腹部正中切開で開腹し，腹腔動脈上とYグラフトで腹部大動脈を遮断した。瘤を切開しステントグラフトを除去したところ，瘤の内側に 3×2cm大で十二指腸の粘膜が露出し，一部は瘻孔を形成していた。十二指腸の直接縫合閉鎖を行った。左腎動脈は再建不能であり結紮した。右腎動脈直下からYグラフトまでGORE-TEX® 16mm人工血管で置換し，周囲に大網充填を行い，胃瘻・腸瘻を造設し手術を終了した(Fig. 6)。

術後経過：術中瘻孔から採取した腸液の培養で



Figure 7 Contrast-enhanced computed tomogram of case 3. Pseudoaneurysm at the anastomosis of the right common iliac artery (arrow) is seen.

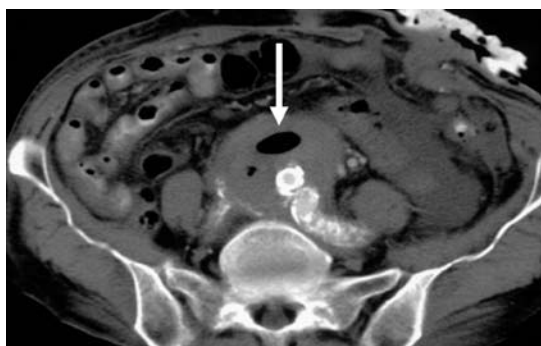


Figure 8 Contrast-enhanced computed tomogram after stent graft deployment. There is no endoleak, however, air exists in the pseudoaneurysm (arrow).

MRSAが検出されたためバンコマイシンを投与した。慢性透析導入となったが、術後5日目より経腸栄養を開始し、7日目にICUを退室し、39日目に転院した。現在術後2年1カ月を経過し、再発の兆候はない。

症例3：63歳，男性。

主訴：人工肛門からの下血。

既往歴：慢性腎不全(透析中)，汎発性腹膜炎。

現病歴：2002年透析導入。2004年11月他院でStanford B型慢性大動脈解離，右腸骨動脈瘤に対し右腸骨動脈人工血管置換術施行。2006年9月直腸穿孔，汎発性腹膜炎に対し人工肛門造設術施行。2008年3月12日人工肛門より下血が生じた。3月17日夜間透析中にショックとなったが輸血により安定した。造影CTで人工血管吻合部仮性瘤の消化管穿通を疑われ3月18日当院に救急搬送された。

入院時現症・検査所見：血圧 180/90mmHg，脈拍 75/分 整，体温 37.4°C。腹部に圧痛なし，血管雑音なし。右下肢の脈拍はやや減弱。血液生化学検査では，RBC $280 \times 10^4/\mu\text{l}$ ，Hb 8.8g/dlと軽度の貧血を認め，WBC $3300/\mu\text{l}$ ，CRP 1.8mg/dlで軽度の炎症反応を認めた。造影CTで右腸骨動脈グラフトの中枢側吻合部に径6cmの仮性瘤を認めた(Fig. 7)。仮性瘤小腸瘻と診断し，局所麻酔下に緊急ステントグラフト内挿術[パルマッツ™ステント P3008(Cordis Corporation, Warren, USA) + GORE-TEX® 5mm人工血管を2セット]を行った。術後下血は止まり，3日後の造影CTでendoleakはなかったが，仮性瘤内にガス像を認め(Fig. 8)，小腸との瘻孔形成あるいは感染と判断し，ステントグラフト内挿術から7日後に手術を行った。

手術：全身麻酔下にまずGORE-TEX® 8mm人工血管で大腿-大腿動脈バイパスを作成した(Fig. 9)。右側後腹膜アプローチで仮性瘤を切開し，人工血管を露出すると，中枢側吻合部が破綻し，ステントグラフトが露出していた。人工血管とステントグラフトを摘出し，腸骨動脈断端を縫合閉鎖した。回腸と仮性瘤の間に瘻孔を認めたため回腸を部分切除し，端々吻合で再建した。十分に洗浄後ドレーンを留置し手術を終了した。

術後経過：術翌日にICUを退室し，術後4日目から経口摂取を開始した。右後腹膜に膿瘍を形成したが，穿刺ドレナージで軽快し，38日目に転院した。7カ月後脳幹出血で死亡したが，それまで再発の兆候はなかった。

病理所見：分化した平滑筋を染めるカルデスモン染色を行い検討した。瘻孔部では粘膜筋板と固有筋層を含む完全な回腸壁の断裂による穿孔が認められた(Fig. 10)。

考 察

動脈腸管瘻は動脈瘤，感染症^{1,2)}，悪性腫瘍³⁾，外傷の原因として起こる一次性と，人工血管置換術後に吻合部と主に十二指腸の間の瘻孔として生じる二次性に分けられる。一次性動脈腸管瘻は腹部大動脈瘤の0.91%に合併し，十二指腸への穿通が80%以上で，消化管出血の原因の0.18%とされる⁴⁾。二次性動脈腸管瘻の頻度は0.4%から4%で⁴⁾，いずれも比較的な疾患である。内腸骨動脈瘤はその位置関係から大腸，尿管，静脈等の周辺臓器への穿通が生じ得，症例1では直腸に穿通した一次性であった。症例2については，術中所見で瘻孔は

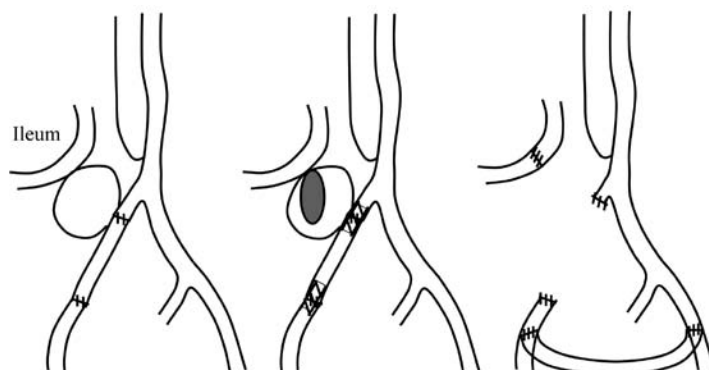


Figure 9 Operative procedure of case 3.
Femoro-femoral artery bypass (GORE-TEX® 8 mm), extirpation of the graft, and resection and anastomosis of the ileum were performed.

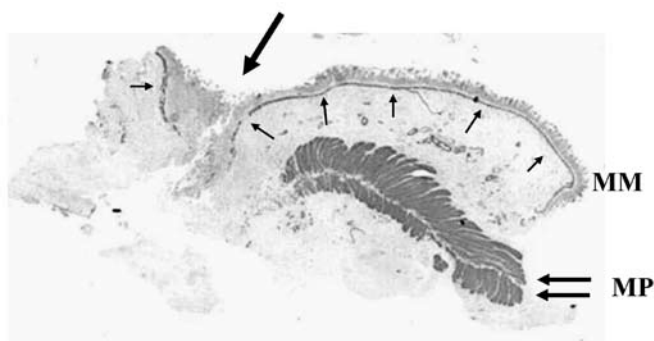


Figure 10 Microphotograph of the resected ileum.
Disruption of the muscular mucosa and proper muscle layer at the fistula (arrow) is seen.
MM: muscular mucosa (small arrows), MP: proper muscle layer (double arrow)
(Caldesmon immunostain, low magnification)

前回の人工血管吻合部ではなく、ステントグラフト内挿術後の真性瘤と十二指腸との間に存在した。慢性腎不全があり、術前造影CTを行っていないためこの時点でのendoleakの有無は不明である。ステントグラフト内挿術後、endoleakがない症例に腹部大動脈瘤-空腸瘻が発生したとの報告があり⁵⁾、症例 2 は二次性と考えた。動脈腸管瘻はステントグラフト術後経過良好な症例にも発生しうる合併症として注意すべきである⁵⁾。症例 3 は右腸骨動脈吻合部の仮性瘤が回腸に穿通していた。吻合部仮性瘤の発症に汎発性腹膜炎からの感染が関与した可能性があると思われる。

症状としては消化管出血、疼痛、拍動性腫瘍が古典

的三徴として有名であるが、これらの典型的な三徴を示すのは 0~40%と少ない^{6,7)}。約 2/3 の症例で特徴的なherald bleedingが致死的な大出血に先行する^{2,3)}。Herald bleedingから致死的な大出血までの時間は70%の症例で6時間以上であり、50%で24時間以上、29%では1週間以上であると報告されており、比較的長時間たってから大出血が始まる例が多い⁸⁾。自験例でもherald bleedingから大出血あるいは手術までの期間は、症例 1 は 2 日、症例 2 は 6 週間、症例 3 は 6 日とかなりばらつきがあった。症例 2 と 3 は一時出血性ショックとなったが、補液や輸血により安定した状態で搬送された。

動脈腸管瘻に対する外科治療の方法は瘻孔が十二指

腸、空腸にある場合と大腸にある場合で分けて考えるべきである。大動脈-十二指腸・空腸瘻は、動脈側の処理は瘤切除、あるいは直接縫合閉鎖を行う^{4,6)}。腸管側は瘻孔の二重閉鎖を行い可能なら大網充填を追加する^{4,6)}。血行再建の方法として、腎動脈下の腹部大動脈の閉鎖+腋窩-大腿動脈バイパスは大動脈閉鎖部の破裂やバイパス閉塞による下肢切断の頻度が高く³⁾、死亡率は40~70%であり術野の汚染が高度な場合を除いては選択されない^{3,4,7,8)}。In situのYあるいはIグラフトによる人工血管置換術が死亡率15~40%であり現在の標準術式と思われる^{3,6,7,8)}。これに対し大動脈・腸骨動脈-大腸瘻では瘤切除や内腸骨動脈に対する瘤内縫縮術を行い⁹⁾、腸管側の処理は縫合閉鎖^{2,9,10)}、減圧のためのストーマ造設⁹⁾、あるいはHartmann手術^{9,11)}が行われ、可能なら大網充填が追加される。血行再建の方法としては大腿-大腿動脈バイパス^{1,2,9)}、腋窩-大腿動脈バイパス、胸部大動脈-大腿動脈バイパス¹¹⁾、in situの人工血管置換術などがあるが、救命しえた症例報告が散見されるのみであり標準的な術式や手術成績は明らかではない^{9~11)}。自験例でも上記の方針に従い症例に応じた血行再建、消化管再建を行った。

症例3において、瘻孔部にステントグラフトを留置することにより一時的な止血が可能であった。最終的には仮性瘤の感染により根治術が必要になったが、大量出血、ショック、大量輸血となった症例を、待機手術にできた意義は大きいと考えられる。最近感染性大動脈瘤に対するステントグラフト治療の報告が散見されるが、動脈腸管瘻に対しステントグラフトのみで治療が可能かどうかは今後の検討が必要である。

動脈腸管瘻の治療において、人工血管への感染のコントロールが大きな問題となる。手術手技的には、症例1の剥離は直腸が穿孔しない程度にとどめ、自動吻合器を用いて瘤壁と直腸を一塊で摘出した。症例3ではまずFFバイパスを行い、創閉鎖後感染した仮性瘤と腸管の処理を行った。また全例で感染に比較的強いとされるePTFE(expanded polytetrafluoroethylene)人工血管を使用した¹²⁾。大網充填は可能な限り行う方針であるが、症例2のみに施行できた。また全例で術後早期からの腸管を用いた栄養管理の方針とし、症例2では術中に腸瘻を造設した。術後抗菌剤は、いずれの症例も術後4週間投与した時点で好中球減少や血小板減少等の副作用により中止せざるを得なかったが、感染の再燃を認めていない。

症例1の摘出標本では直腸の粘膜面に明らかなびらんや潰瘍はなかったが、右内腸骨動脈瘤の破裂、直腸壁への穿通を認め、粘膜筋板直下に達した血腫により圧排、挙上された粘膜に虚血性変化を認めた。このことからこの症例の下血は虚血による粘膜自体からの出血と考えられた。症例3では回腸粘膜と固有筋層が完全に断裂した瘻孔部の摘出標本が得られた。動脈腸管瘻におけるherald bleedingの機序として、動脈瘤の一時的な腸管内への破裂と腸管壁のれん縮や血圧低下、血栓形成による止血が考えられているが^{36,7)}、証明はされていない。また切除標本で、動脈瘤に接した腸管粘膜に慢性虚血を示唆する粘膜の萎縮と上皮の再生を認めた報告もある¹³⁾。Herald bleedingから大出血までの時間が症例によりばらつきがある理由として、完全な瘻孔を形成する以前に虚血になった粘膜から出血している可能性が考えられる。

結 論

動脈腸管瘻の3例を経験し、いずれも救命し得た。瘻孔切除と血行再建、消化管再建を適切に行うことで救命可能な症例があり、ステントグラフトは一時的な止血に有用である。Herald bleedingの機序の一つとして虚血性となった消化管粘膜からの出血が考えられる。

本論文の要旨は第49回日本脈管学会総会(2008年10月25日、東京)において発表した。

文 献

- 1) Matsuura K, Takahara Y, Sudo Y et al: A case of fistula of the right common iliac aneurysm to the appendix. *Ann Vasc Surg*, 2002, **16**: 768-770.
- 2) Ingu A, Takagi N, Izumiyama O et al: Isolated iliac artery aneurysmocolonic fistula with pericolic abscess. *Ann Vasc Surg*, 2002, **16**: 663-665.
- 3) Lawlor DK, DeRose G, Harris KA et al: Primary aorto/iliac-enteric fistula: report of 6 new cases. *Vasc Endovascular Surg*, 2004, **38**: 281-286.
- 4) Voorhoeve R, Moll FL, de Letter JAM et al: Primary aortoenteric fistula: report of eight new cases and review of the literature. *Ann Vasc Surg*, 1996, **10**: 40-48.
- 5) Ueno M, Iguro Y, Nagata T et al: Aortoenteric fistula after endovascular stent grafting for an abdominal aortic aneurysm: report of a case. *Surg Today*, 2006, **36**: 546-548.
- 6) van Olffen TBM, Knippenberg LHA, van der Vliet JA et al:

- Primary aortoenteric fistula: report of six new cases. *Cardiovasc Surg*, 2002, **10**: 551–554.
- 7) Tareen AH, Schroeder TV: Primary aortoenteric fistula: two new case reports and a review of 44 previously reported cases. *Eur J Vasc Endovasc Surg*, 1996, **12**: 5–10.
 - 8) Sweeney MS, Gadacz TR: Primary aortoduodenal fistula: manifestation, diagnosis, and treatment. *Surgery*, 1984, **96**: 492–497.
 - 9) Katoh J, Shindo S, Kina S et al: Rupture of an isolated internal iliac artery aneurysm into the rectum: report of a case. *Surg Today*, 1995, **25**: 554–556.
 - 10) Karkos CD, Oshodi TO, Vimalachandran D et al: Internal iliac aneurysm rupture into the rectum following endovascular exclusion: an unusual cause of massive lower gastrointestinal bleeding. *J Endovasc Ther*, 2002, **9**: 907–911.
 - 11) Ihaya A, Chiba Y, Kimura T et al: Primary aortosigmoid fistula treated by descending thoracic aortofemoral bypass. *J Cardiovasc Surg (Torino)*, 2000, **41**: 325–327.
 - 12) Schmitt DD, Bandyk DF, Pequet AJ et al: Bacterial adherence to vascular prostheses. A determinant of graft infectivity. *J Vasc Surg*, 1986, **3**: 732–740.
 - 13) Nicolaou DD, Mysko WK: Enteric fistulization of a common iliac artery aneurysm: an unusual cause of gastrointestinal hemorrhage and shock. *Am J Emerg Med*, 1996, **14**: 272–275.

Surgical Correction of Arterio-enteric Fistula: Report of Three Cases

Kenji Sangawa,¹ Atsushi Aoki^{1,2} and Yuji Ohtsuki³

¹Department of Cardiovascular Surgery, Matsuyama Shimin Hospital, Ehime, Japan

²Department of Cardiovascular Surgery, Kagawa Prefectural Central Hospital, Kagawa, Japan

³Department of Pathology, Matsuyama Shimin Hospital, Ehime, Japan

Key words: arterio-enteric fistula, melena, endovascular aneurysm repair

Three cases of arterio-enteric fistula were repaired successfully. Patient 1 had a right internal iliac aneurysm with rectal fistula, and bifurcated grafting and Hartmann operation were done. Pathological examination revealed ischemic changes in elevated rectal mucosa, suggesting that herald bleeding might be due to mucosal bleeding caused by ischemia. Patient 2 had an abdominal aortic aneurysm with duodenal fistula after EVAR. Tube grafting and direct suture closure of the duodenal fistula were done. Patient 3 had anastomotic pseudoaneurysm with ileal fistula after graft replacement of the right iliac arterial aneurysm. He underwent EVAR emergently, followed by femoro-femoral bypass and resection of the graft and ileum. Their postoperative courses were uneventful. (J Jpn Coll Angiol, 2009, **49**: 423–429)