

三好麻衣子 大谷 享史

徳島赤十字病院 血管内治療科

要 旨

腹部大動脈ステントグラフト内挿術 (Endovascular aneurysm repair ; EVAR) 後の二次性大動脈十二指腸瘻 (Secondary aortoduodenal fistula ; sADF) は非常に稀であり, その原因は, 持続するエンドリークや大動脈の屈曲で瘤壁が圧迫されて生じる十二指腸への機械的ストレスとされる。症例は82歳, 男性。12年前に腹部大動脈瘤に対し EVAR を施行し, 著明な瘤縮小が得られていた。EVAR 後10年目に発熱と意識障害があり来院した。腹痛や下血など消化器症状はなく, CT では瘤内に air を認めたが, エンドリークは認めなかった。ステントグラフトの血行性感染を疑い, 抗生剤を投与し改善した。2年後に感染の再燃を認め手術を施行した。術中所見で十二指腸が大動脈壁に癒着し, 瘤壁と交通を認めsADFと診断した。ステントグラフトは部分抜去し, リファンピシン浸漬人工血管で置換し, 大網充填・十二指腸部分切除術を併施した。術後1年が経過し, 感染の再燃は認めていない。

キーワード: 二次性大動脈十二指腸瘻, EVAR 後, 感染性腹部大動脈瘤

はじめに

二次性大動脈十二指腸瘻 (Secondary aortoduodenal fistula ; sADF) は腹部大動脈瘤術後の重篤な合併症である。人工血管置換術後の合併症として報告例が散見されるが, EVAR (Endovascular aneurysm repair) 後の報告例は非常に稀である。EVAR 後12年目にsADFを発症した症例を経験したので報告する。

症 例

患 者: 82歳 男性

主 訴: 発熱, 意識障害

既往歴: 68歳時 冠動脈三枝病変に対し心拍動下冠動脈バイパス術 (右内胸動脈-左前下行枝, 左内胸動脈-鈍縁枝, 大動脈-大伏在静脈-後下行枝) を施行, 75歳時 歯周病で歯科治療歴あり, 79歳時 慢性硬膜下血腫に対し血腫除去術を施行。高血圧, 2型糖尿病, 脂質異常症

現病歴: 70歳時に腹部大動脈瘤 (Abdominal aortic

aneurysm : AAA) に対しEVARを施行した。最大瘤径は44mm×49mmで中枢ネックが48mmと長く, 屈曲もなく, IFU (Instruction for use) 内の症例であった (図1)。デバイスはZenith (Cook Inc.,

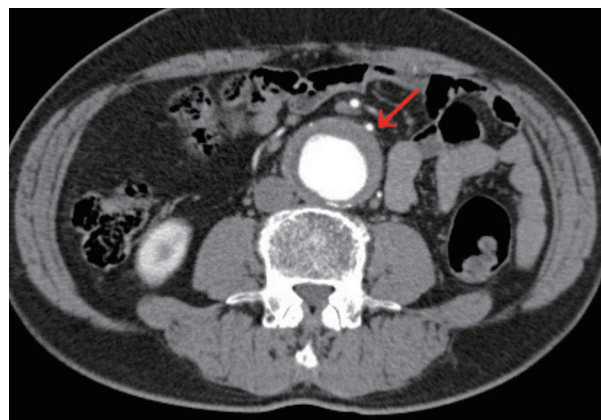


図1 EVAR前の造影CT検査

腎動脈下腹部大動脈に最大径44mm×49mmのAAA (赤矢印) を認める

Bloomington, IN, USA) を使用し (図 2), 術後縮小傾向が得られていた (図 3).

EVAR後臨床経過 (図 4) : EVAR後 7年目

不明熱を認めた. WBC 10720/ μ L, CRP 8.64mg/dLと炎症反応が上昇していたが, 発熱以外の自覚症状はな

かった. 造影CT検査では明らかな感染源は指摘できず, 経食道心エコー検査では, 感染性心内膜炎を疑う所見は認めなかった. ガリウムシンチグラフィでも異常集積はなかった. 自然経過で解熱し, 炎症反応が改善したため経過観察とした.



図 2 EVAR後の造影CT検査
suprarenal stentのあるステントグラフトを腎動脈下から総腸骨動脈にかけて留置



図 3 EVAR後7年目の造影CT検査
エンドリークはなく, 瘤に縮小傾向 (25mm×33mm) を認める

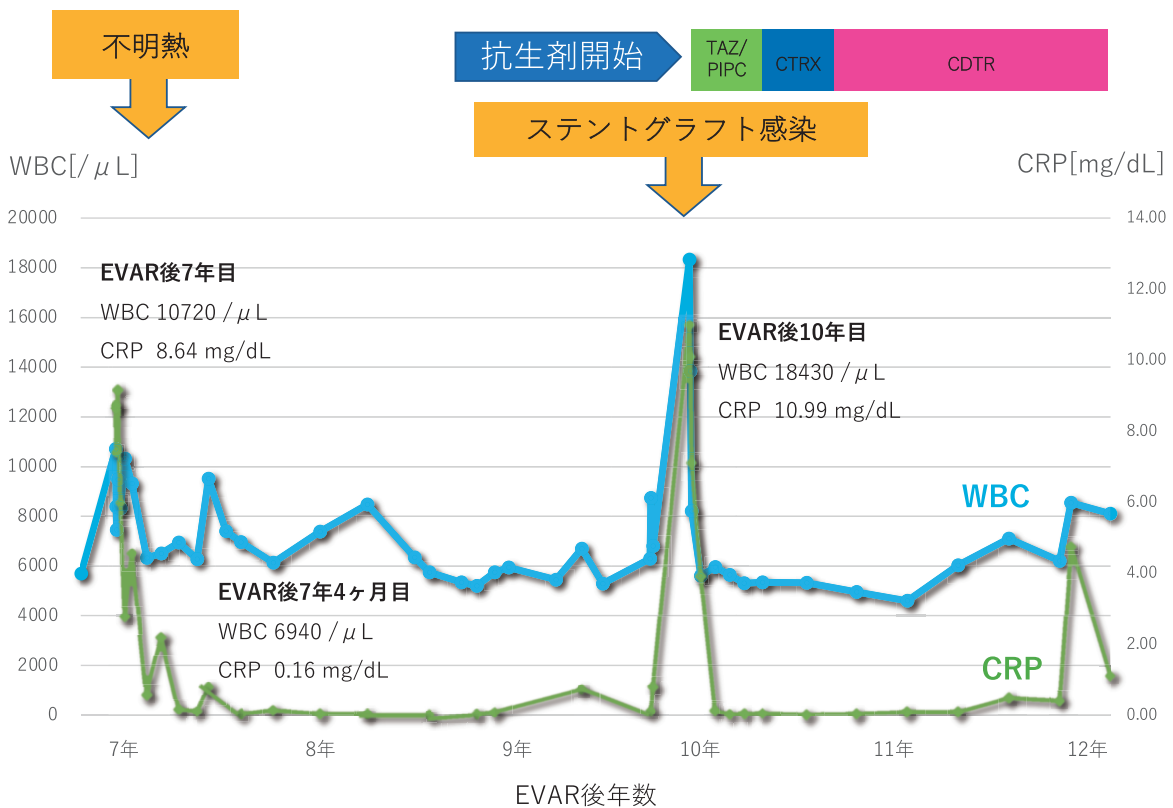


図 4 EVAR後のWBC, CRPの推移

EVAR後7年で不明熱, 10年でステントグラフト感染を疑い抗生剤開始, 12年でステントグラフト感染再燃

EVAR 後7年4か月目

CT (図5) で瘤前面に軟部影を指摘された。発熱なく、WBC 6940/ μ L, CRP 0.16mg/dLと炎症反応の上昇はないため経過観察としたところ、瘤前面の軟部影は自然消失した。

EVAR 後10年目

発熱と意識障害で救急搬送された。血液検査でWBC 18430/ μ L, CRP 10.99mg/dLと炎症反応の著明な上昇を認め、CT (図6) で瘤内に air が出現しており、ステントグラフト感染が疑われた。この時点で手術を検討したが、suprarenal stentのあるデバイスで全抜去が難しく、抗生剤 (セフトリアキソン; CTRX) での治療を行う方針とした。速やかに解熱し、WBC 5610/

μ L, CRP 3.91mg/dLと炎症反応が改善し瘤内のairも消失したため、抗生剤 (メイアクト; CDTR) の内服を継続し経過観察とした。

EVAR 後12年目

再び発熱と意識障害で救急搬送された。来院時の血液検査でWBC 9400/ μ L, CRP 2.69mg/dLと炎症反応の上昇を認め、CT (図7) で再び瘤内にairを認めたため、ステントグラフト感染の再燃と診断した。

来院時現症: 身長 159.5cm, 体重 54.9kg, BMI 21.49, 意識レベル Japan Coma Scale (JCS) 20, 血圧 114/51mmHg, 脈拍100回/分, 体温39.5°C, SpO2 95% (room air), 呼吸回数 26回/分, 腹部に軽度の圧痛を認めた。

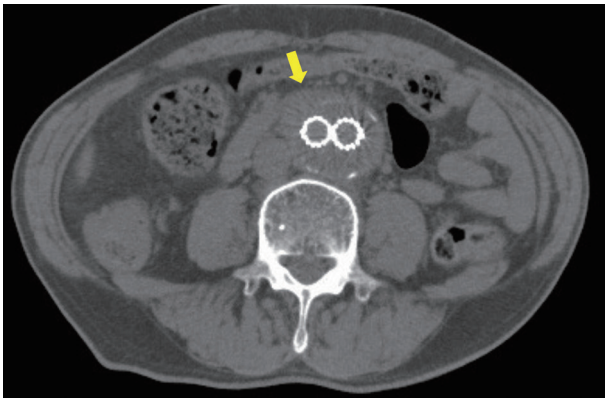


図5 EVAR 後7年4か月目の単純CT検査
瘤前壁に軟部影 (黄色矢印) が出現した

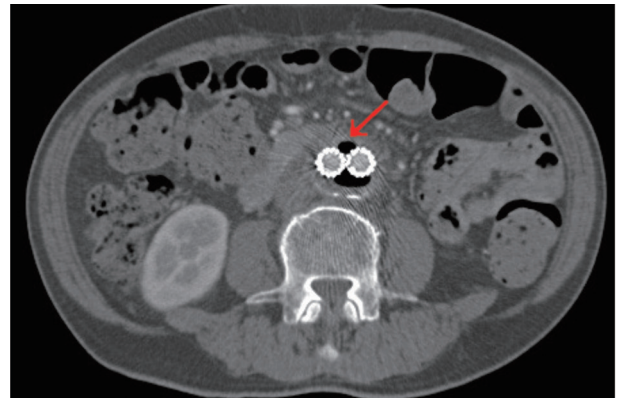


図6 EVAR 後10年目の造影CT検査
瘤はさらに縮小傾向 (25mm×28mm) だが、
瘤内に air (赤矢印) が出現している

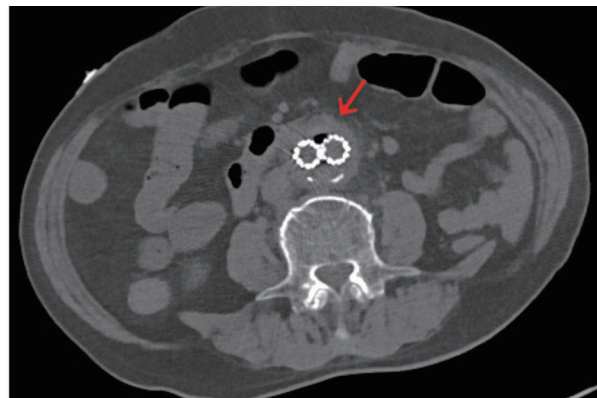


図7 EVAR 後12年目の単純CT検査
瘤は縮小傾向を保ち、
瘤内に air (赤矢印) が再び出現している

来院時血液検査所見(表1):炎症反応の上昇以外に特記すべき所見なし。

培養検査所見:血液培養でグラム陽性桿菌 Actinomyces属と嫌気性菌 Prevotella属・Pravimonas micraを検出

入院後経過(図8):前回のステントグラフト感染時に著効した CTRX にバンコマイシン(VCM)を加えて治療を開始した。入院後腹痛は消失し、下血も認めなかった。血液培養検査で嫌気性菌が検出され、歯科

表1 ステントグラフト感染再燃時の血液検査所見

WBC	9400 / μ L	AST	20 U/L
Neut	91.3 %	ALT	10 U/L
Lymph	8.0 %	ALP	99 U/L
Mono	0.3 %	γ -GTP	16 U/L
Eosino	0.2 %	LDH	182 U/L
Baso	0.2 %	CK	28 U/L
RBC	356 10^4 / μ L	T.Bil	0.8 mg/dL
Hb	9.4 g/dL	D.Bil	0.2 mg/dL
Ht	29.5 %	Amylase	14 U/L
Plt	17.7 10^4 / μ L	Na	137 mmol/L
PT	15.0 sec	K	4.7 mmol/L
PT%	76 %	Cl	105 mmol/L
PT-INR	1.19	BUN	14 mg/dL
APTT	21.0 sec	Cre	0.69 mg/dL
Fib	247 mg/dL	eGFR	82
FDP	17.2 μ g/mL	TP	6.7 g/dL
D-dimer	9.0 μ g/mL	Alb	3.0 g/dL
Glucose	120 mg/dL	CRP	2.69 mg/dL
HbA1c	6.1 %	PCT	0.11 ng/mL
		Lac	3.77 mmol/L

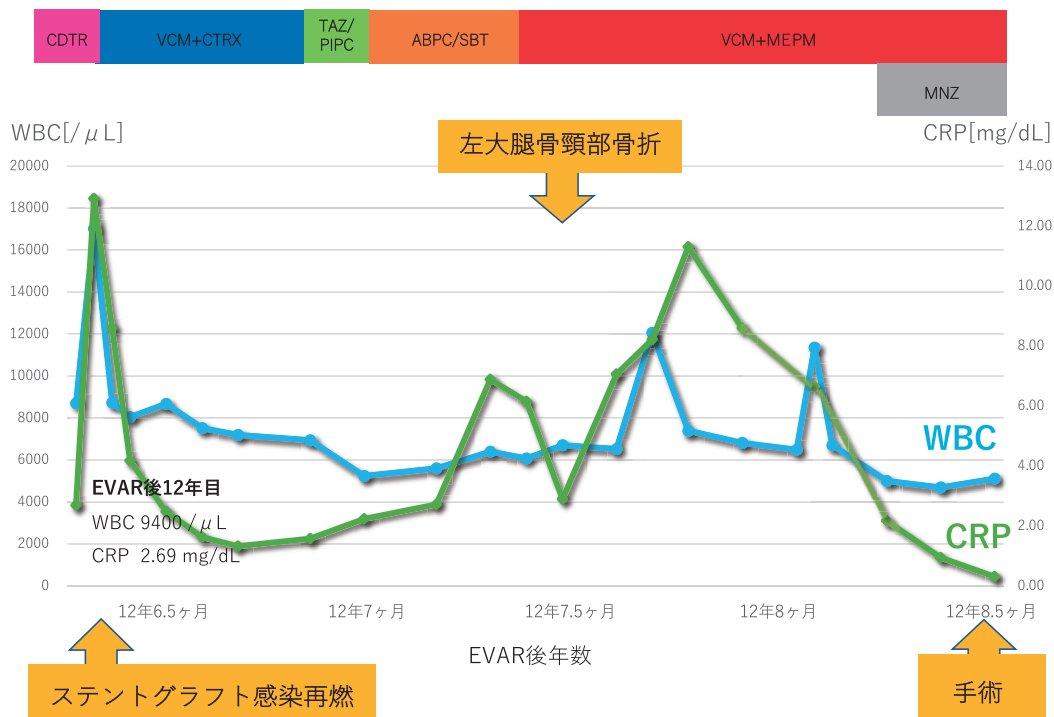


図8 ステントグラフト感染再燃入院後のWBC, CRPの推移

治療歴もあったことから血行性感染を疑い、感受性のあるタゾバクタム/ピペラシリン (TAZ/PIPC) やアンピシリン/スルバクタム (ABPC/SBT) に変更したが効果ないため、メロペネム (MEPM) とVCM, さらにメトロニダゾール (MNZ) を加えて投与したが発熱が続いた。経過中に転倒し、左大腿骨頸部骨折を認めた。ADL維持には人工骨頭挿入術を検討したが、そのためには感染の制御が必要不可欠と考え、ステントグラフト抜去、リファンピシン浸漬人工血管を用いた置換術および大網充填術を施行した。

手術所見 (図9) : 十二指腸は水平脚から上行脚にかけて大動脈壁に強固に癒着しており、大動脈壁を十二指腸側に残して剥離していくと膿汁と腸液が流出したため、sADFと診断した。瘻孔は右脚の部分に接し

ていた (図9A)。十二指腸に対しては部分切除術を行った。大動脈に対してはステントグラフトの全抜去が必要と考えたが、suprarenal stentがあり、全抜去するためには長時間の腹腔動脈上での大動脈遮断が必要となり、過大侵襲であると考えた。また、肉眼的には感染は局所で制御されていると考え、中枢側はステントグラフトのメインボディで遮断し、3ステント以下で離断し抜去した (図9B)。リファンピシン浸漬人工血管 (J graft 22×11mm, 日本ライフライン) で置換 (図9C) し、大網充填術を併施した (図9D)。

病理組織所見 : 動脈壁と十二指腸壁の外膜に炎症細胞浸潤を認めた。十二指腸壁には膿瘍を形成しており、十二指腸粘膜に一部波及し潰瘍形成が見られた。

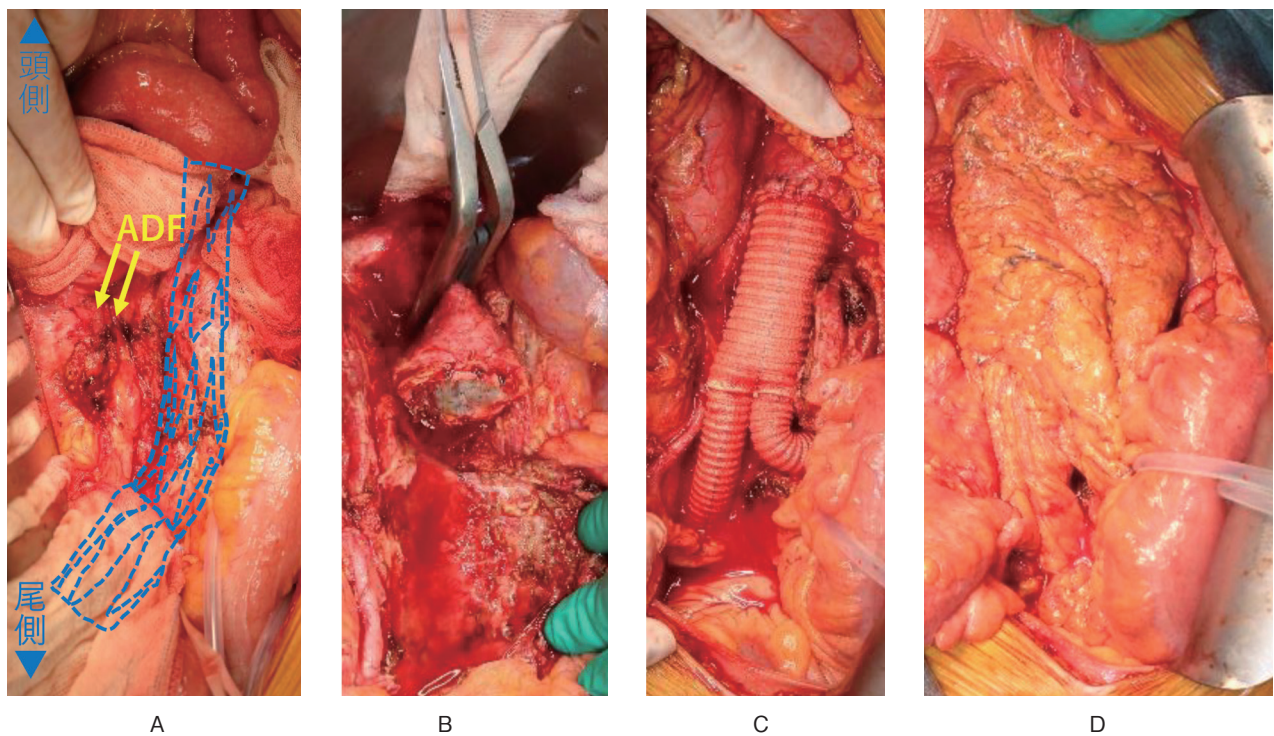


図9 術中写真 A: ステントグラフトの右脚 (青点線) 付近の十二指腸と瘤壁に交通がありsADF (黄色矢印) と診断
 B: 中枢側を遮断しステントグラフト3ステント以下で離断
 C: リファンピシン浸漬人工血管で置換
 D: 人工血管を取り巻くように大網充填

術後経過：CT（図10）で吻合部に仮性瘤や液体貯留など感染を示唆する所見を認めなかった。術中採取した検体の培養のうち、膿汁と抜去したステントグラフトから *Stenotrophomonas maltophilia* と *Enterococcus faecium* を検出した。抗生剤はABPC/SBTとVCMに

変更し、MNZやバクトラミン（ST）、レボフロキサシン（LVFX）を3剤目に加えながら経静脈的投与を6週間行い、以後LVFXの経口投与に移行し継続した。術後1年経過し、薬疹出現のため抗生剤は中止したが、感染の再燃は認めていない。

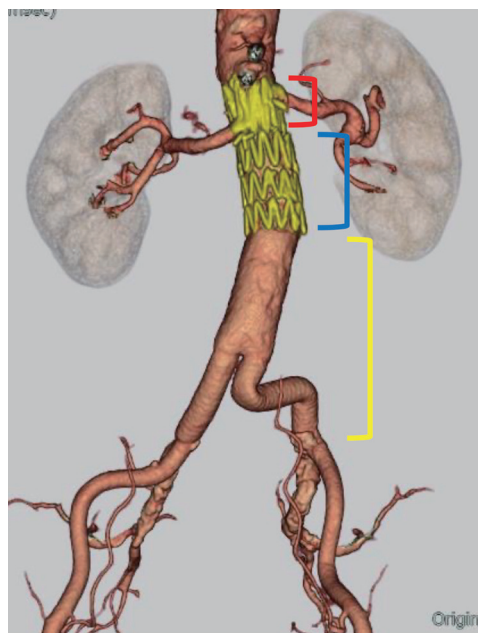


図10 術後の造影CT検査

ステントグラフト Mainbody の suprarenal stent（赤括弧）と3ステント（青括弧）が残存
その末梢は人工血管（黄色括弧）で置換している

考 察

sADFは、AAAに対する人工血管置換術後の0.3～3%に起こる稀な合併症¹⁾であり、人工血管中枢吻合部と十二指腸の癒着により十二指腸に瘻孔を生じ、感染・大出血を併発する致死的な合併症である。近年EVAR症例数の増加に伴い、EVAR後のsADFの報告例も見られるが、その頻度は0.46%と極めて稀であり²⁾、検索しうる限り本邦報告例は2023年7月までで18例であった。

人工血管置換術後のsADFの発生機序としては、感染説と機械的刺激説が考えられている。感染説は、人工血管吻合部に感染が生じて吻合部が破綻して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機序である。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が生じて最終的には穿通し、そして人工血管吻合部に感染が生じて吻合部が破綻し腸管へ穿破するという機序である^{3), 4)}。EVARでは手術による剥離操作がなく、人工物が血管内に留まるため、人工血管置換術後に比べてsADFは起こりにくいとされており、その発生機序は未だ不明な点が多い。持続するエンドリーク、大動脈の屈曲、デバイスのmigrationなどで瘤壁が圧迫され生じる十二指腸への機械的ストレスが原因であるという説が報告されている^{2), 5)}。

sADFの3主徴は消化管出血・腹痛・拍動性腹部腫瘍であり、特徴的な症状としてherald bleeding(前兆出血)がある。一過性に少量の消化管出血を繰り返す、一度瘻孔の拡大が生じると大出血に至るというもので、約2/3の症例に認められる⁶⁾。しかし、自然止血があり得ることと好発部位が遠位十二指腸であることからsADFを上部消化管内視鏡検査から指摘することは難しく、そのため消化管内視鏡検査の正診率は13～38%と報告⁷⁾されている。造影CTは有用であり、大動脈周囲の軟部組織の肥厚、液体貯留、仮性動脈瘤、瘤内のairなどが特徴的な所見である⁸⁾。

sADFの治療の原則は、出血のコントロールと感染のコントロールである。出血のコントロールとしては、穿孔部に一時的にステントグラフト留置を行うこともある。感染のコントロールとしては、感染したデバイスの全抜去および血行再建が必要であり、穿孔した十二指腸に対して切除や瘻孔の閉鎖などが必要

である^{4)～10)}。デバイスの除去に関しては全抜去が望ましいが、本症例のようなsuprarenal stentのあるステントグラフトの症例は難しい場合が多い。十二指腸の処理のみ行い、ステントグラフトを温存し経過良好であったとの報告¹¹⁾もある。血行再建に関しては従来デバイス抜去・大動脈離断および腋窩大腿動脈バイパスによる非解剖学的血行再建が行われてきたが、大動脈遠位断端の破綻やグラフト閉塞の問題があり、近年では解剖学的血行再建を行う報告¹²⁾が多く見られ、その成績も良好である。付加的手技として大網充填術があり、有効と報告^{13), 14)}されている。

本症例では、屈曲のない大動脈で、術後のエンドリークはなく、著明な瘤縮小が得られており、EVAR後の経過は良好であった。発熱は認めるものの典型的な消化器症状(腹痛、下血など)を呈することがなく、また、歯科治療歴があったこと、血液培養検査から嫌気性菌が検出されたことから血行性感染を疑い、術前のsADFの診断に至らなかった。今回の症例でsuprarenal stentがなければ、比較的容易にデバイスの全抜去が可能であると考えられ、デバイスの選択は慎重に行わなければならない。経過の良い症例も遠隔期に合併症を起こすことがあり、永続的なfollow upが必要と考えられる。

結 語

本症例においては、大動脈は屈曲がなく、術後のエンドリークも認めなかった。さらに瘤は縮小傾向であり、これまで報告されているsADFの原因には該当しなかった。しかし、AAA術後では、人工血管置換術後でもEVAR後でも、十二指腸が近接していることからsADFの鑑別も念頭におく必要がある。

利益相反

本論文に関して、開示すべき利益相反なし。

引用文献

- 1) Paaske WP, Hansen HJ : Graft-enteric fistulas and erosions. Surg Gyn Obst 1985 ; 161 : 161-4
- 2) Kahlberg A, Rinaldi E, Piffaretti G, et al : Results from the multicenter study on aortoenteric

- fistulization after stent grafting of the abdominal aorta (MAEFISTO) . J Vasc Surg 2016 ; 64 : 313-20
- 3) 明元克司, 永井晃, 杉山茂樹, 他 : 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 1987 ; 41 : 1851- 4
 - 4) Busuttil SJ, Goldstone J : Diagnosis and management of aortoenteric fistulas. Semin Vasc Surg 2001 ; 14 : 302-11
 - 5) Ruby BJ, Cogbill TH : Aortoduodenal fistula 5 years after endovascular abdominal aortic aneurysm repair with the Ancure stent graft. J Vasc Surg 2007 ; 45 : 834- 6
 - 6) Capaldo GR, Amin RM : Aortoduodenal fistula. Two case reports and a review of the literature. J Cardiovasc Surg 1996 ; 37 : 567-70
 - 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) Mylona S, Ntai S, Pomoni M, et al : Aorto-enteric fistula : CT findings. Abdom Imaging. 2007 ; 32 : 393- 7
 - 9) 柳清洋佑, 栗本義彦, 丸山隆史, 他 : 腹部大動脈瘤-腸管瘻に対する治療戦略. 日血管外会誌 2021 ; 30 : 189-93
 - 10) 明石英俊, 下河辺久陽 : 腹部大動脈腸管瘻・人工血管腸管瘻の治療. 日血管外会誌 2020 ; 29 : 185-92
 - 11) Joshi G, Ogbudinkpa C, Stecher J, et al : Treatment of post-evar aortoduodenal fistula without endograft excision. Vasc Endovascular Surg 2021 ; 55 : 282- 5 .
 - 12) Oderich GS, Bower TC, Hofer J, et al : In situ rifampin-soaked grafts with omental coverage and antibiotic suppression are durable with low reinfection rates in patients with aortic graft enteric erosion or fistula. J Vasc Surg 2011 ; 53 : 99-106
 - 13) 西村修, 近藤慎浩, 内藤和寛, 他 : 腹部大動脈瘤術後の十二指腸穿孔による人工血管感染に対する大網充填術の1治験例. 日血管外会誌 2008 ; 17 : 635- 8
 - 14) Coselli JS, Crawford ES, Williams TW Jr, et al : Treatment of postoperative infection of ascending aorta and transverse aortic arch, including use of viable omentum and muscle flaps. Ann Thorac Surg. 1990 ; 50 : 868-81

Secondary aortoduodenal fistula after endovascular aneurysm repair : a case report

Maiko MIYOSHI, Takashi OTANI

Division of Endovascular Surgery, Japanese Red Cross Tokushima Hospital

Secondary aortoduodenal fistula (sADF) after endovascular aneurysm repair (EVAR) is very rare ; it is usually caused by mechanical stress on the duodenum due to pressure on the aneurysm wall secondary to persistent endoleak or aortic bending. Herein, we report the case of an 82-year-old man who had undergone EVAR for an abdominal aortic aneurysm 12 years ago and had exhibited remarkable sac shrinkage. The patient developed fever and impaired consciousness 10 years after EVAR. Computed tomography revealed air density in the aneurysm. The patient had no abdominal pain, bleeding, or endoleak ; therefore, we suspected stent graft infection. Antibiotics were administered followed by which the patient's condition improved. As the infection recurred, the patient underwent surgery 2 years later. Operative findings showed that the duodenum was adherent to the aortic wall and a fistula was formed with the aneurysm wall, leading to the diagnosis of sADF. The stent graft was partially removed, and rifampicin-soaked graft replacement, omental packing, and partial resection of the duodenum were performed. The patient has no recurrence of infection 1 year post surgery.

Keywords : secondary aortoduodenal fistula, after endovascular aneurysm repair, infected abdominal aortic aneurysm

Japanese Red Cross Tokushima Hospital medical journal 29 : 74-82, 2024
