

## 症例報告

# 十二指腸瘻を形成し消化管出血を来した結核性腹部大動脈瘤の1例

久保秀文, 西山光郎, 来嶋大樹, 多田耕輔, 宮原 誠, 秋山紀雄

社会保険徳山中央病院外科 周南市孝田町1-1 (〒745-8522)

**Key words :** Tuberculous aneurysm of Aorta, Aortoduodenal fistula, Hematoemesis

### 和文抄録

今回われわれは十二指腸と瘻孔を形成した結核性腹部大動脈瘤のまれな1例を経験したので若干の文献的な考察を加えて報告する。

症例は63歳の男性で、肺結核の既往はなし。大量の吐下血にて発症し、当院緊急入院した。十二指腸水平脚部からの出血を認め、腹部CTで嚢状腹部大動脈瘤を指摘された。その後、消化管出血によるショックに陥ったため緊急手術となり、人工血管置換術を施行した。術後病理診断で結核性大動脈瘤と診断された。術後、肺結核に準じた化学療法を投与していたが、術後約40日目に大量吐血を来して再入院となり、出血性ショックで死亡した。原因不明の突然の消化管出血では動脈瘤と消化管の瘻孔も疑うべきであり、活動性の結核病変が無くても仮性動脈瘤の原因として結核は考慮に入れるべき疾患の一つである。

### はじめに

腹部大動脈瘤の消化管穿破はまれな病態であるが、大量出血を来して急速にショックに移行することが多いとされている。また術前診断が困難で術後も人工血管の感染や2次的な大出血を伴うこともあり死亡率は高い。腹部大動脈瘤の原因として感染性炎症性疾患が原因であることは比較的まれとされ<sup>1)</sup>、なかでも結核菌を原因とする例は近年極めてまれで

ある。

今回、われわれは結核性の腹部大動脈瘤が十二指腸と瘻孔を形成し、消化管出血を来した症例を経験したので若干の文献的考察を加えて報告する。

### 症 例

患 者：63歳，男性。

主 訴：吐血。

既往歴：2002年より心房細動にてワーファリンを内服中であった。

家族歴：特記事項なし。

現病歴：2009年12月に突然、中等量の暗赤色血液の吐血とタール様の下血を認めたため当院内科へ精査目的で緊急入院となった。上部消化管内視鏡検査では十二指腸水平脚に小潰瘍を認めたが、露出血管はなく明らかな出血は認めなかった。入院後は再出血はなく保存的加療にて10日後に軽快退院した。退院後2日目の早朝に中等量の鮮紅色の吐血とタール様の下血を認め当院内科へ再入院となった。

入院時現症：身長：162cm，体重：51kg，血圧：109/84mmHg，脈拍：90/分，眼瞼結膜に軽度の貧血を認めた。心房細動が存在したが心雑音なく，心エコーでは心駆出率は69%であった。呼吸音では複雑音聴かれず，腹部は平坦，軟で腫瘍や波動を認めなかった。表在リンパ節を触知せず，下腿には浮腫を認めなかった。

入院時血液検査所見：RBC  $266 \times 10^4/\text{mm}^3$ ，Hb 8.0g/dl，Ht 24.5%と貧血を認めたが，炎症反応は陰性でその他，肝・腎機能などに特記すべき所見

はなかった。胸部CTでは両側肺尖に収縮変化を伴う陰影と右肺尖に石灰化像を認めた(図1)。縦隔には腫脹したリンパ節が散在し(図1)、陳旧性の肺結核腫が疑われた。腹部X線像では大腸ガスが見られるのみで腸腰筋陰影も整であり、腫瘤を疑わせる陰影は認めなかった。

上部消化管内視鏡所見：内視鏡検査では十二指腸水平脚部に小潰瘍がありその底部より噴出性の出血を認めた(図2)。

腹部CT：十二指腸水平脚に一致する部位で嚢状の腹部大動脈瘤を認め、CT上は明らかな造影剤の血管外漏出は認めなかったが、菲薄化した血管の外膜に接して十二指腸は癒着していた(図3)。

一次性の腹部大動脈瘤・十二指腸瘻と診断し緊急

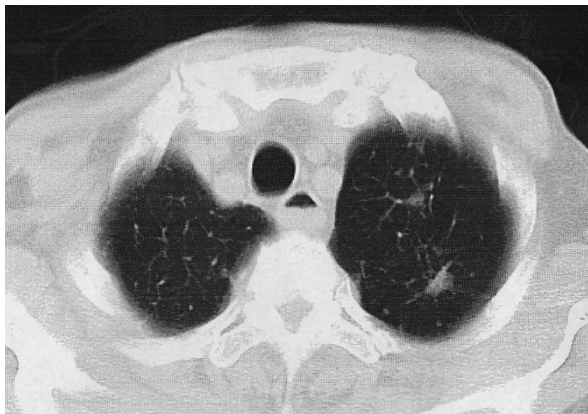


図1 CT scan revealed a few of diffuse military calcifications and some retracted shadows in bilateral fields of lung. That suggested the past infection of tuberculosis.

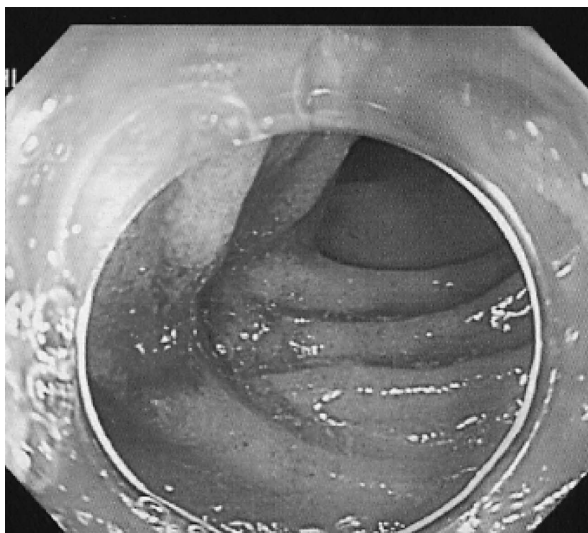


図2 Endoscopy demonstrated a small ulcer in the horizontal portion of the duodenum.

開腹手術を行った。

手術所見：正中切開で開腹したところ、大動脈と十二指腸の間に炎症性の癒着を認めた。腎動脈分岐直下の大動脈を剥離・露出し、この部位で血行遮断した後に瘻孔部の剥離を進めたが癒着が強固であったため、癒着部の口側・肛門側で腸管を各々離断し、側々吻合した。瘻孔部の腸管を含めて動脈瘤は切除し(図4)、腎動脈下大動脈をY型グラフトで血行再建した。グラフトを密着被覆するように大網を授動し充填し固定した。

病理組織学的検査所見：大動脈周囲のリンパ節の構造は破壊され大小様々な壊死巣を認めた(図5a)。また類上皮細胞、多核巨細胞、泡沫細胞が出現し、一部でschwann細胞も増生していた(図5b)。壊死巣においての抗酸菌染色やPAS反応は陰性であ

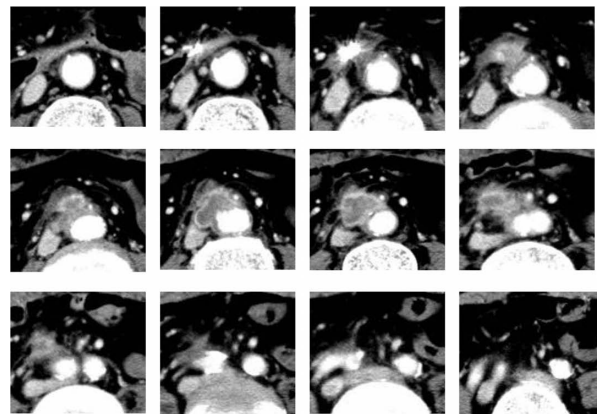


図3 CT scan revealed a pseudoaneurysm, at the level of infra-renal arteries, oppress the horizontal portion of the duodenum.

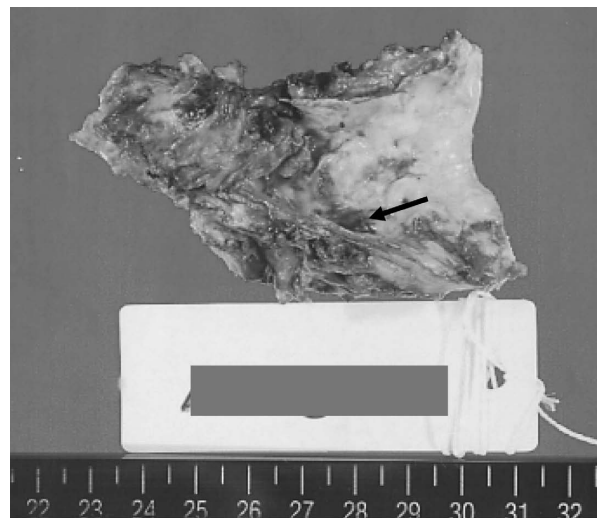


図4 Macroscopic appearance of the abdominal aorta. Arrows indicates the opening of the fistula.

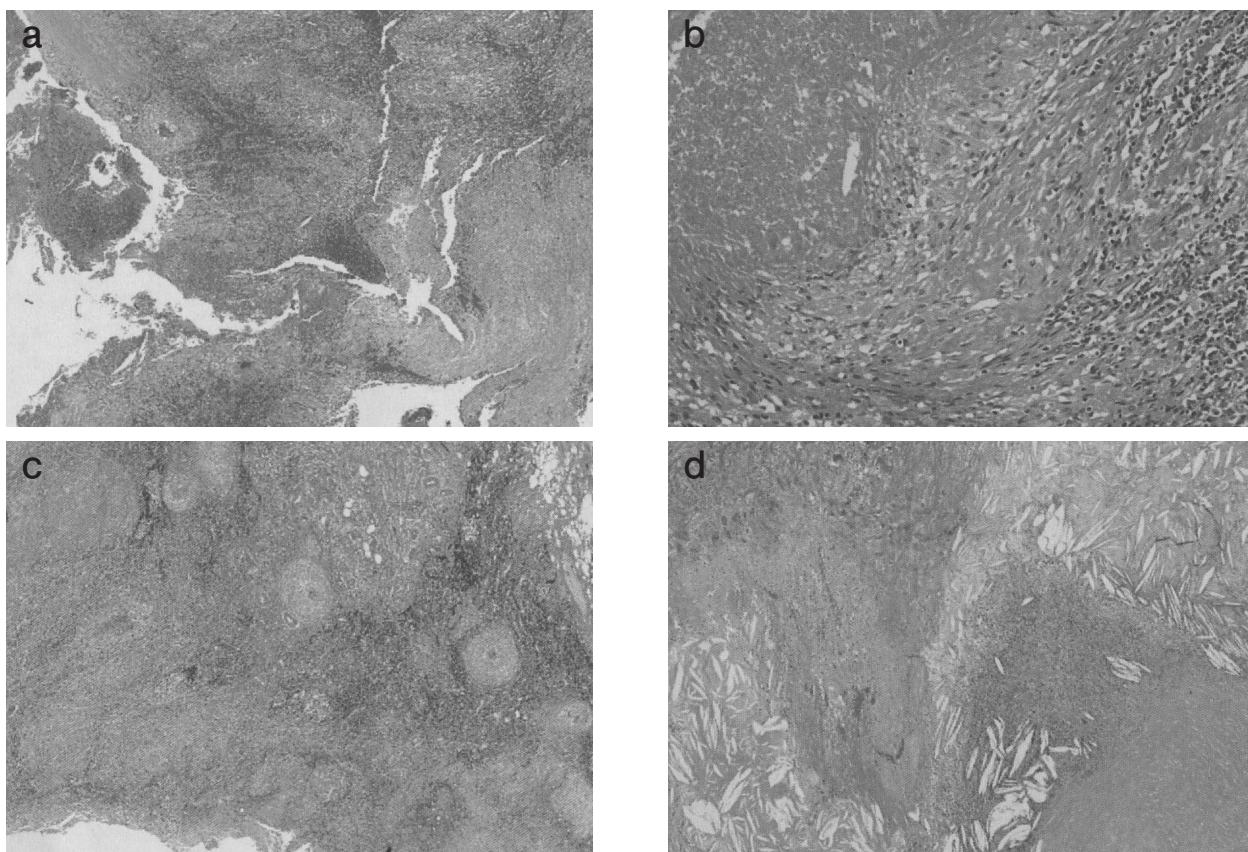


図5 Photomicrograph showing that the wall of the aorta had been destroyed and replaced with tuberculous granulation tissue. (Fig.a, c, d : H.E. stain×4, Fig.b : H.E.stain ×20)

った。

大動脈内膜は中等度から高度に線維性に肥厚し、硝子化、石灰沈着、泡沫細胞の出現、中等度の炎症細胞浸潤、毛細血管の新生、小壊死巣やコレステリンの析出を伴っていた(図5c, 5d)。炎症は動脈壁の中膜を破壊し内膜にまで認められた。以上の所見より病理組織学的に結核性大動脈瘤と診断された。

尚、術後の血液培養、喀痰培養、ツベルクリン反応は全て陰性であった。家族歴にも結核感染者は認められなかった。

術後経過：術後第20病日目に軽快退院した。術後のグラフト感染対策として抗生剤レボフロキサシン(3T 3×/day) および抗結核療法として肺結核に準じ、イソニアジド(INH 300mg/day)、リファンピシン(RFP 450mg/day)、エタンブトール(EB 750mg/day)、ピラジナミド(PZA 1500mg/day)の2ヵ月間投与を開始した。術後第40病日目に突然、大量の吐血を来して緊急再入院となった。緊急CTを施行したが、大動脈のグラフトに明らかな再発瘤や解離所見、造影剤漏出像などは認めなかった(図

6)。上部消化管の緊急内視鏡検査では胃内に多量の黒色残渣の貯留を認め十二指腸空腸吻合部の肛門側に小潰瘍を認めたが(図7)、明らかな動脈性の出血は見られなかった。その後も大量吐血が持続し、

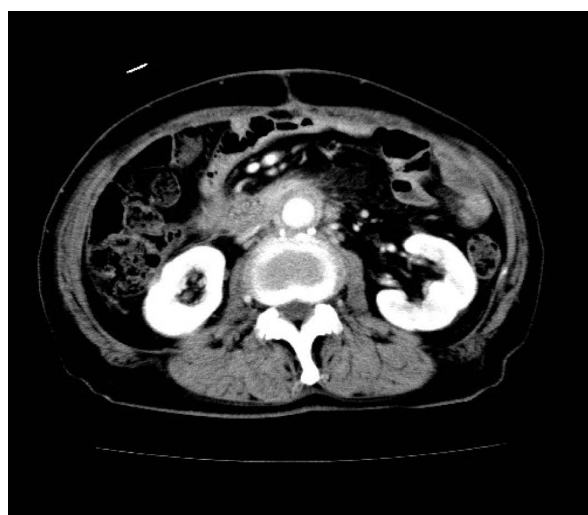


図6 CT scan on re-admission showed no pseudoaneurysm and no leakage of contrast agents at the level of the anastomosis of the graft.

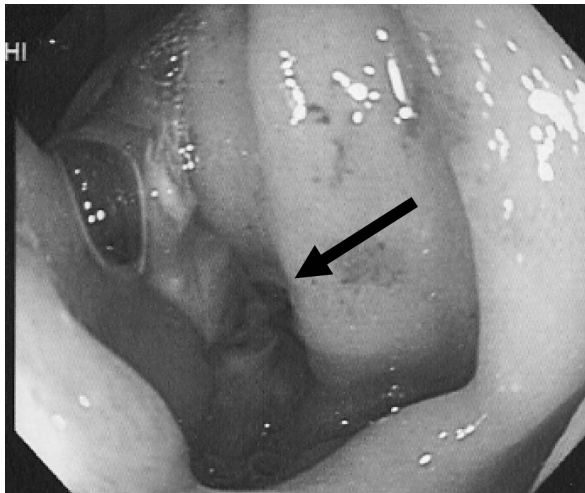


図7 Endoscopy demonstrated a small ulcer in the anal side of duodeno-jejuno-anastomosis. But there was no active bleeding.

挿管処置を行い人工呼吸器管理下に大量輸血投与などを行ったが、ショック状態を脱することなく再入院翌日に死亡退院した。

## 考 察

結核性大動脈瘤は近年の診断や治療法の確立による結核罹患の減少に伴い、極めて稀とされており、Parkhurstら<sup>1)</sup>によると全大動脈瘤338例中、結核性はわずか1例(0.3%)と報告されている。本邦での手術報告例は現在までわれわれが医学中央雑誌にて「結核性」「腹部大動脈瘤」「手術」をキーワードとして調べ得た限り、腹部大動脈瘤では自験例を含めて13例のみであった。このうち10例で人工血管置換術が行われ、3例でパッチ閉鎖が行われていた<sup>3-6)</sup>。Longら<sup>7)</sup>の結核性動脈瘤41例の検討では98%が嚢状動脈瘤であるとされ、急速に増大するため破裂の危険が高いとされる。手術予後も術後感染などの問題から、通常の動脈硬化性大動脈瘤に比べて不良とされている。砂田ら<sup>2)</sup>の手術例の集計でも15例中7例が術後3日から19ヵ月のあいだに死亡しており、本疾患の根治手術の困難性を示している。

結核性大動脈瘤の発症経路として血行性や隣接部病変からの直接波及が挙げられているが、実際には動脈周囲のリンパ節や膿瘍からの直接浸潤が多く、すなわち結核性リンパ節炎、結核性胸膜炎、脊椎炎などから大動脈外膜に病変が波及し、結核性大動脈炎を惹起し大動脈瘤を形成するとされている<sup>2, 7)</sup>。

本疾患の治療方針は古くから強力な化学療法と病変部大動脈瘤の切除が勧められている<sup>8)</sup>。ただし、術前診断が得られれば強力な抗結核薬を投与して術前に結核感染の活動性を抑制しておくべきともされている<sup>9)</sup>。特にin situで血行再建を行う場合には重要であると考えられる。手術方法としては文献的には人工血管置換が多いが、パッチ閉鎖や動脈瘤と大動脈との間の交通口の直接閉鎖も施行されている。感染源の除去という観点からは健常部も含めて大動脈を切除し、人工血管置換を行う方法が理想ではあるが、炎症のため癒着が著しく病変部の全切除が困難な症例に対しては、仮性動脈瘤のみ切除し、健常な部分を利用してパッチ閉鎖を行う術式も妥当性があり支持されており<sup>10)</sup>、両者の優劣は不明である。

また、本症例では術後の動脈瘤壁の組織検査で結核感染が診断されたが、それ以外の検査所見では活動性の結核感染を疑わせるものはなかった。臨床的には胸部CTで肺結核感染の既往が疑われたが胸部の自覚症状などはなかった。術中は視触診上、腸管に明らかな異常は認めず、術後に施行した大腸内視鏡検査でも異常は認めず、消化管結核の存在は否定的であった。結核性の腹部大動脈瘤では術後に強力な化学療法を加えても再発する危険性が高いとされており<sup>2)</sup>、秋山ら<sup>3)</sup>は動脈瘤の再発例には臨床上、結核を疑わせる所見がなくても結核性を原因とする症例が潜在している危険性を指摘している。本症例でも他の異常所見はなかったが、術後に抗生剤と化学療法を継続投与していたにもかかわらず、再出血し死亡した。腹部CTで吻合部周囲に明らかな再発瘤、解離所見、術部の炎症性変化が増悪した所見などはなく、また血液所見での炎症反応も認めなかったが、結核により脆弱した動脈瘤壁は二次感染を惹起しやすく術部周囲で再出血を起こした可能性は否定できない。本症例において人工血管を大網被覆処理したが、るいそうのため大網が薄く被覆が完全ではなかったことで機械的刺激が腸管への再穿孔を来した可能性もあると考えられる。また内視鏡検査で十二指腸空腸吻合部の肛門側に小潰瘍も存在していたため新たに発生した吻合部潰瘍が出血の原因なのかも知れない。いずれにしても本症例での再出血の原因を特定するのは困難であった。

腹部大動脈瘤が消化管と瘻孔形成し、破裂穿孔することは多く報告されているが、結核性大動脈瘤に

においては少なく腹部大動脈瘤に限れば、本邦において自験例を含めて3例が報告されている<sup>11, 12)</sup>にすぎず、きわめて稀である。

結核性大動脈瘤に遭遇することは近年極めて稀であるが、本症例のようにいったん発症すると手術を施行しても再発しやすく、致命的な転帰をとることが多いとされる<sup>2, 8)</sup>。

消化性潰瘍など明らかな既往がなく、突然の吐血を来す患者では大動脈瘤と消化管瘻孔の存在も疑うべきである。また、活動性の結核病巣や明らかな肺結核の既往がなくても仮性動脈瘤の原因として結核は考慮に入れなければならない疾患の一つである。この予後不良な結核性大動脈瘤を確実に早期診断し、治療法を確立させることが今日において重要な課題であると思われる。

### 謝 辞

稿を終えるにあたり、本症例の病理診断に関してご指導いただきました当院病理部部长 山下吉美先生に、また各種画像診断にご協力頂いた当院内科および当院放射線科の諸先生方に深く感謝申し上げます。

### 文 献

- 1) Parkhurst GF, Decker JP. Bacterial aortitis and mycotic aneurysm of the aorta. A report of twelve cases. *Am J Pathol* 1955 ; 31 : 821-835.
- 2) 砂田輝武, 勝村達喜, 木村穂積, 林 逸平, 金子克也, 安原正雄, 戸田完治, 山根正隆, 高橋俊二郎, 杉本誠起, 大庭 治. 結核性胸部大動脈瘤の治療経験とその臨床像に対する考察. *日胸外会誌* 1973 ; 21 : 823-831.
- 3) 秋山芳伸, 松原健太郎. 結核性仮性腹部大動脈瘤の1例. *日心血外会誌* 2008 ; 37 : 174-176.
- 4) Shikata H, Nagayoshi Y, Takeuchi K, Ueda Y, Sakamoto S, Kanno M, Matubara J. Successful surgical treatment of an infrarenal abdominal pseudoaneurysm caused by tuberculosis : Report of a case. *Surg Today* 2005 ; 35 : 991-995.
- 5) 藤田一彦, 星 讓, 玉舎優希, 岩垣明隆, 後藤功, 長谷川滋人, 辻 求, 関庚火華, 佐々木進次郎, 花房俊昭. 結核性仮性大動脈瘤を合併した肺結核の1例. *呼と循* 2004 ; 52 : 859-862.
- 6) Wada S, Watanabe Y, Shiono N, Masuhara H, Hamada S, Ozawa T, Fujii T, Yokomuro H, Kawasaki M, Yoshihara K, Koyama N. Tuberculous abdominal aortic pseudoaneurysm penetrating the left psoas muscle after BCG therapy for bladder cancer. *Cardiovasc Surg* 2003 ; 11 : 231-235.
- 7) Long R, Guzman R, Greenberg H, Safneck J, Hershfield E. Tuberculous mucotic aneurysm of the aorta. *Chest* 1999 ; 115 : 522-531.
- 8) Volini FI, Olifield RC, Thompson JR, Kent G. Tuberculosis of the aorta. *JAMA* 1962 ; 181 : 78-83.
- 9) 大貫雅裕, 野々山真樹, 前村大成, 紺野 進, 船津秀夫, 堀江昌平. 大量咯血した結核性胸部大動脈瘤の1手術治験例. *日胸外会誌* 1991 ; 39 : 1102-1105.
- 10) Ohtsuka T, Kotsuka Y, Yagyu K, Furuse A, Oka T. Tuberculous pseudoaneurysm of the thoracic aorta. *Ann Thorac Surg* 1996 ; 62 : 1831-1834.
- 11) 鎌田 皇, 加賀谷寿孝, 友利玄一, 杉本 裕, 久保明良, 水口國雄, 山崎悦子. 十二指腸に破裂穿孔した結核性腹部大動脈瘤の1例. *内科* 1989 ; 64 : 961-963.
- 12) 高橋賢二, 丸山 章, 相内 晋, 百川 健, 藤田 孟. S状結腸へ破裂穿孔した結核性腹部大動脈瘤の1例. *日外会誌* 1986 ; 87 : 99-104.

## **A Case of Tuberculous Aneurysm of Aorta Which Caused an Aortoduodenal Fistula and Bleeding.**

Hidefumi KUBO, Mituo NISHIYAMA,  
Daiki KIJIMA, Kosuke TADA,  
Makoto MIYAHARA and Norio AKIYAMA.

Department of Surgery, Tokuyama Central  
Hospital, 1-1 Koda-cho, Shyunan, Yamaguchi 745-  
8522, Japan

### **SUMMARY**

We present a rare case of tuberculous aneurysm of which formed the aortoduodenal fistula. A 63-year-old man was admitted to our hospital with massive hematoemesis and melena on emergency. He had no history of lung tuberculosis. An urgent endoscopic examination revealed the bleeding from the third portion of the duodenum. A CT scan demonstrated a saccular type of abdominal aortic aneurysm. The patient fell into hemorrhagic shock with re-bleeding, so emergency laparotomy was performed and revealed an abdominal aortic aneurysm with aortoduodenal fistula at the level of third portion. The aneurysm was resected and replaced by a graft. Pathological examination showed that the aneurysm was caused by tuberculosis. After the surgery, anti-tuberculosis drugs had been given for about forty days. He was admitted again with sudden massive hematoemesis and fell into hemorrhagic shock and died. We should consider the possibility of an aneurysm-intestinal fistula in patients with hematoemesis and melena of unknown origin. Despite of no history of active tuberculosis, we should consider that tuberculosis cause an aortic false aneurysm.