

症例報告

内視鏡的静脈瘤結紮術・バルーン閉塞下逆行性経静脈的塞栓術併用療法で止血し得た十二指腸静脈瘤破裂の1例

松田崇史, 石川 剛, 末永成之, 五嶋敦史, 浜辺功一, 岩本拓也, 橋本真一, 中島好晃¹⁾, 岡田宗正¹⁾, 内田耕一, 寺井崇二, 山崎隆弘, 坂井田功

山口大学大学院医学系研究科消化器病態内科学分野 (内科学第一) 宇部市南小串1丁目1-1 (〒755-8505)

山口大学大学院医学系研究科放射線医学分野 (放射線医学)¹⁾ 宇部市南小串1丁目1-1 (〒755-8505)

Key words : 十二指腸静脈瘤破裂 (Ruptured Duodenal Varices), 内視鏡的静脈瘤結紮療法 (Endoscopic Variceal Ligation), バルーン閉塞下逆行性経静脈的塞栓術 (Balloon-Occluded Retrograde Transvenous Obliteration)

和文抄録

57歳の男性。B型肝炎・肝細胞癌に対して外来経過観察中、下血に対する精査加療目的で当科に緊急入院した。上部消化管内視鏡検査 (EGD) で十二指腸下行脚に静脈瘤が認められたものの活動性出血および血液貯留の所見はなく、下部消化管内視鏡検査・カプセル内視鏡検査・経肛門的ダブルバルーン内視鏡検査においても回腸～結腸内に凝血塊の貯留が認められたのみで出血源の同定には至らなかった。腹部血管造影検査では十二指腸周辺に著明な門脈系-大循環系短絡路の発達認められ、血管造影下CTで十二指腸下行脚付近に造影剤の血管外漏出が疑われた。直後の緊急EGDにより十二指腸静脈瘤破裂と診断し、内視鏡的静脈瘤結紮術 (EVL) にて一次止血に成功した。しかしその2日後に出血性ショックに陥ったため、EVLで止血した上で引き続きバルーン閉塞下逆行性経静脈的塞栓術 (B-RTO) を施行して完全止血を得た。十二指腸静脈瘤破裂は非常に稀な難治性消化管出血であるが、今回我々はEVL・B-RTO併用療法で止血し救命し得た症例を経験したので報告する。

はじめに

十二指腸静脈瘤は門脈圧亢進症に合併する稀な疾患であり、その豊富な血流のために一旦出血を来すと止血処置が困難で致死状況に陥りやすい。一方、出血のリスクや頻度は未だ明らかにされておらず、また静脈瘤からの出血に加え肝予備能も予後に寄与するため、治療の方法・適応に関しては一定の見解が得られていないのが現状である。今回我々は、十二指腸静脈瘤破裂に対し、内視鏡的静脈瘤結紮術 (EVL) ・バルーン閉塞下逆行性経静脈的塞栓術 (B-RTO) 併用療法で止血に成功し救命し得た1例を経験した。

症 例

患 者 : 57歳, 男性.

主 訴 : 下血.

既往歴 : 平成9年 肝細胞癌 (S7-8 20mm, Vp3) に対して肝右葉切除術, 平成19年 肝細胞癌 (S2 24mm) に対して経皮的ラジオ波焼灼療法.

家族歴 : 特記事項なし.

生活歴 : 飲酒歴 : なし, 喫煙歴 : 27歳で禁煙 (禁煙前 ; 1日20本, 7年間).

現病歴 : B型肝炎・肝細胞癌に対して当科外来で

経過観察中、平成22年10月3日下血を主訴に近医を受診した。入院後、上部消化管内視鏡検査(EGD)・下部消化管内視鏡検査(CS)が施行されたが出血源が同定できないまま貧血が進行するため、原因不明の消化管出血に対する精査加療目的で10月4日当科に緊急入院した。

入院時現症：身長 159cm, 体重 62kg, 意識 JCS I-1, 血圧 80/42mmHg, 脈拍 120/分(整), 体温 36.8°C, 眼瞼結膜に軽度貧血あり, 眼球結膜に黄染なし, 胸部に異常所見なし, 腹部にベンツ切開の手術痕あり, 腹水・下腿浮腫なし。

入院時血液検査所見(表1)：前医で濃厚赤血球輸血(8単位)が施行されたにもかかわらずRBC $317 \times 10^6/L$, Hb 10.2g/dl, Ht 28.9%と中等度の貧血が認められた。その他, TP 4.1g/dl, Alb 2.3g/dl, T-Bil 1.8mg/dl, D-Bil 0.7mg/dl, AST 255IU/L, ALT 242IU/L, BUN 64mg/dl, Cre 3.10mg/dl, PT% 37.8%と高度の肝腎機能障害が認められた。

EGD(1回目)(図1A-C)：食道・胃に潰瘍性病変, 静脈瘤など出血源となり得る病変は認められず。十二指腸下行脚ファーター乳頭対側に蛇行した連珠状静脈瘤が認められたが, 活動性出血および血液貯留は認められなかった。

CS・カプセル内視鏡検査・経肛門的ダブルバルーン内視鏡検査(図1D)：回腸～結腸内に暗赤色の凝血塊が多量に認められたが, 出血源は同定されなかった。

ダイナミックCT検査(図2)：十二指腸下行脚周囲の静脈瘤や左胃静脈系を供血路とする傍食道静脈瘤が認められたが, 造影剤の血管外漏出など出血源を同定する所見は得られず。

入院後経過：入院時ショック状態にあったため輸血・補液を行いながら入院後2日間で上記の如く各種精査を進めたが出血源の同定には至らなかった。第3病日の消化管出血シンチグラフィで十二指腸あるいは上部空腸からの出血が疑われ, 同日血管造影検査を施行した。上腸間膜動脈造影門脈相(図3A)で十二指腸周辺に著明な静脈瘤(供血路；前下膝十二指腸静脈, 排血路；右精巣静脈)が認められ, 血管造影下CT(CTA)後期相(図3B)で十二指腸下行脚付近に造影剤の血管外漏出が疑われた。直後の緊急EGD(2回目)(図4)にて十二指腸球部より新鮮血が認められ下行脚の静脈瘤は1回目と比し

表1 Laboratory data on admission

TP	4.1	g/dl	CRP	0.39	mg/dl
Alb	2.3	g/dl	Na	131	mmol/dl
BS	124	mg/dl	K	6.0	mmol/dl
T. Bil	1.8	mg/dl	Cl	102	mmol/dl
D. Bil	0.7	mg/dl	WBC	27800	$10^6/L$
AST	255	IU/L	RBC	317	$10^{10}/L$
ALT	242	IU/L	Hb	10.2	g/dl
ALP	157	IU/L	Ht	28.9	%
γ GTP	12	IU/L	Plt	10.4	$10^{10}/L$
LDH	533	IU/L	PT%	37.8	%
BUN	64	mg/dl	PT-INR	1.90	
Cre	3.10	mg/dl			

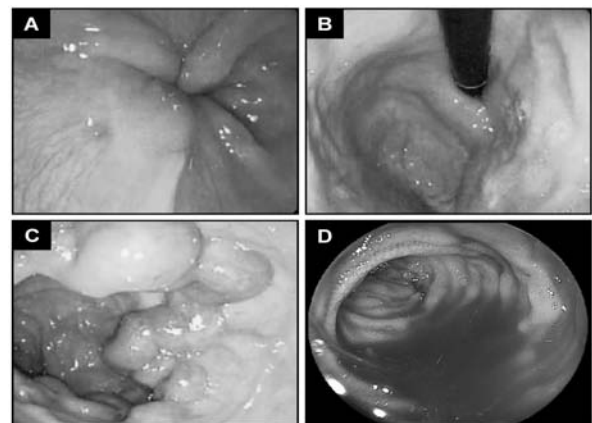


図1 EGD and double-balloon endoscopy on admission (A ; Esophagus, B ; Cardia of stomach, C ; 2nd portion of duodenum, D ; Terminal ileum)

EGD shows no signs of hemorrhage in the esophagus and stomach, but there are duodenal varices without active bleeding in the 2nd portion of duodenum (A-C). Double-balloon endoscopy via the anal demonstrates massive dark red clot in the ileum and colon (D).

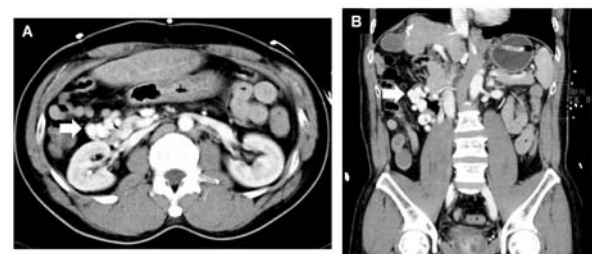


図2 Dynamic CT on admission (A ; axial image, B ; coronal image)

Dynamic CT scan shows duodenal varices (arrow) and collateral veins. The varices are located around the 2nd portion of duodenum.

て明らかに平坦化していた。静脈瘤の最口側に漏出性出血を伴う赤色栓が認められたため、同部に対してEVLを施行した。その後貧血の進行はなく一時止血に成功したと判断して、2日後の午後に根治目的でB-RTOを予定していたが、同日早朝大量下血後に再度ショックに陥ったため緊急EGD（3回目）を施行した。Oリング脱落による前回治療部からの再出血が確認されたため、EVLで止血した上で引き続きB-RTOを施行した。右精巣静脈を排水路とする十二指腸静脈瘤に対して、右内頸静脈アプローチにより5.2Fr. バルーンカテーテル（テルモ・クリニカルサプライ社）を流出静脈に挿入した。流出静脈末梢をバルーンで閉塞しマイクロカテーテル（Boston Scientific社）を静脈瘤近傍まで誘導して、コイル留置後に5% Ethanolamine oleate (EO) with iopamidol（4 ml）と50%ブドウ糖液（3 ml）を注入した（modified B-RTO；図5）。翌日留置カテーテルから造影を行い、供血路、静脈瘤本体、排水路の血栓化が確認されたためカテーテルを抜去し一連の手技を終了した。その後再出血はなく、B-RTO 1週間後のEGDで静脈瘤のブロンズ化が認められた。血液検査所見、全身状態ともに改善したため10月25日に軽快退院した。

退院後経過：退院1ヵ月後・3ヵ月後・6ヵ月後に血液検査・EGD・造影CT検査で経過観察を行ったが、十二指腸静脈瘤再発・食道胃静脈瘤増悪・胸腹水出現・肝機能悪化などは認められず、経過は非常に良好である（図6）。



図3 Angiography (A) and CTA (B)

Angiography reveals duodenal varices (a), with dilated anterior inferior pancreaticoduodenal vein (b) as the feeding vein and dilated right testicular vein (c) as the draining vein. CTA demonstrates extravasation at the 2nd portion of duodenum.

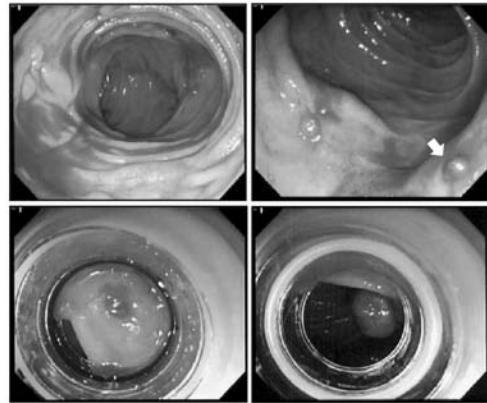


図4 EVL for ruptured duodenal varices
Urgent EGD shows hemorrhage from duodenal varices in the 2nd portion of duodenum. One O-ring is placed on the duodenal varices containing the red plug (allow), resulting in hemostasis.

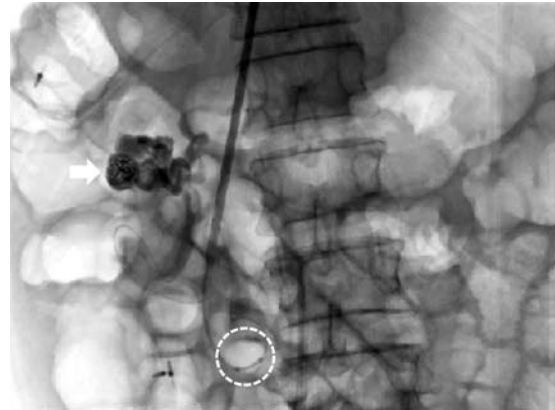


図5 B-RTO

Under balloon occlusion (circle) of the draining vein, sclerosing agents, 5% ethanolamine oleate with iopamidol and 50% glucose solution, are slowly and intermittently infused through the microcatheter until the duodenal varices (allow) and the feeding vein are entirely imaged.

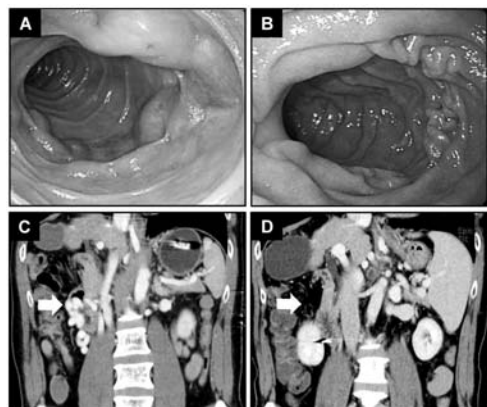


図6 Follow-up EGD (A ; on admission, B ; 6 months after B-RTO) and dynamic CT (C ; on admission, D ; 6 months after B-RTO)

Six months after B-RTO, EGD shows the size of the duodenal varices is markedly reduced, and dynamic CT demonstrates complete thrombosis of the duodenal varices and draining veins.

考 察

門脈圧亢進症では、食道胃静脈瘤に代表される様々な側副血行路が形成される。門脈系の血管は胃から大腸に至る消化管及び腹腔内臓器の静脈系から供血を受けていることより、門脈圧亢進時には全ての腹部内臓器に静脈瘤が形成される可能性がある。食道胃静脈瘤以外のいわゆる異所性静脈瘤は比較的稀な疾患と考えられているが、その発生頻度、部位については十分に解明されていない。日本門脈圧亢進症学会学術委員会で行われた全国アンケート調査(2001年1月1日～2005年12月31日)¹⁾において集積された異所性静脈瘤173例のうち、直腸静脈瘤が77例(44.5%)と最も多く、次いで十二指腸に多く認められた(57例, 32.9%)。十二指腸静脈瘤は1931年にAlberti²⁾によって初めて報告され、本邦では1968年に西岡ら³⁾が報告したのが最初である。出血を契機にEGDで発見されることが多いが、止血状態の場合には、下行脚・水平脚の静脈瘤は見逃されることも少なくない。食道静脈瘤に比べて出血しにくいとされる報告もあるが⁴⁾、その豊富な血流のために一旦出血すると治療に難渋し、致死的になることも少なくない。原因疾患としては本邦では肝硬変症が70%以上、特発性門脈圧亢進症が9%、肝外門脈閉塞症が12%と報告され⁵⁾、約半数が肝外門脈閉塞症によるとされる海外の報告^{2, 6)}とは大きく異なっている。近年、門脈圧亢進症の「原因疾患」と十二指腸静脈瘤の「血行動態および発生部位」の関連性が指摘されており、我が国で大多数を占める肝硬変及び肝後性門脈圧亢進症では脾十二指腸静脈、空腸静脈などが遠肝性血行路として発達し、十二指腸下行脚・水平脚に静脈瘤を形成することが多い。そして、精巣(卵巣)静脈を介し、右腎静脈あるいは下大静脈に排血される^{7, 8)}。一方、欧米で過半数を占める肝前性門脈圧亢進症(肝外門脈閉塞症など)では脾十二指腸静脈などが発達し、十二指腸球部に静脈瘤を形成したあと求肝性に上行し肝内に流入すると考えられている^{7, 9)}。B型肝硬変症を基礎疾患とする本症例においては、上腸間膜静脈の分枝である前下脾十二指腸静脈により供血され、十二指腸下行脚のファーター乳頭対側に静脈瘤が形成されたのち、右精巣静脈を介して右腎静脈に排血される血行動態を呈していた。十二指腸静脈瘤の治療法は未だ

確立されておらず、静脈瘤結紮術¹⁰⁾・十二指腸部分切除術¹¹⁾などの外科的治療や、Percutaneous Transhepatic Obliteration (PTO)¹²⁾・Transjugular Intrahepatic Portosystemic Shunt (TIPS)¹³⁾・B-RTO¹⁴⁾などのInterventional Radiology (IVR)治療が挙げられる。しかし、破裂例では出血量が多い故にショックに陥りやすく全身状態が不良であることが多いため、外科的治療を行う場合非常に侵襲的となる。またIVRの場合も手技が必ずしも容易ではなく、治療に時間を要するため緊急止血法としては選択しにくい。そのため、出血例の治療法としては、出血部位を診断し、すぐに止血治療へと移行できる内視鏡的治療が最も有効と考えられている¹⁵⁾。EVL、EOや α -cyanoacrylateを用いた硬化療法(EIS)、クリッピングなどが行われているが、簡便で低侵襲である反面、効果が一時的で再発・再出血が問題視される。血流が豊富な十二指腸静脈瘤では、内視鏡治療を一次止血法として用い、続いてIVR治療を追加すべきとの報告もある¹⁶⁾。本症例においても1回目のEVLで一次止血には成功したものの、蠕動によると思われるOリングの脱落により再出血を来したため、2回目の治療時にはEVL直後にB-RTOを追加施行することで完全止血を得るに至った。今回選択したEVL・B-RTO併用療法のうちEVLの偶発症発生率は極めて低いが、B-RTOでは門脈圧の減圧路を遮断するため、術後に門脈圧の上昇を来し約50%の症例に食道静脈瘤の増悪が認められると報告されている¹⁷⁾。また短期的な続発症としては血尿・発熱・腎機能障害・胸腹水などが生じる可能性もある¹⁸⁾。本症例においては術後約1年が経過した現段階で食道胃静脈瘤増悪や胸腹水貯留などの続発症は認められておらず、肝機能をはじめとした血液検査所見、全身状態ともに非常に安定しており経過は極めて良好である。なお今回我々が施行した手技は、金川らが報告したB-RTO原法(胃腎シャントをバルーン閉塞した上で、バルーンカテーテルより胃静脈瘤内に5%EOIを注入する手法)¹⁴⁾に種々の技法を加えた変法であり、厳密には「modified B-RTO」と称すべきである。本症例に用いた付加的手技は①マイクロカテーテル併用、②コイル留置、③50%ブドウ糖液併用などであり、より安全かつ確実に手技が遂行できたと思われる。

肝硬変患者の上部消化管出血においては十二指腸

静脈瘤を除外することが重要で、特に本邦では十二指腸下脚・水平脚に静脈瘤を形成することが多いため十二指腸深部まで観察する必要がある。十二指腸静脈瘤は壁外に存在することも多く、一般的に出血の可能性は低いと考えられているが、一方で十二指腸静脈瘤の初回破裂時の死亡率は40%にものほり出血後の予後は極めて不良と言える¹⁹⁾。食道静脈瘤と異なり出血を予知する所見が明確にされていないことから、発赤所見やびらんを伴う静脈瘤に対する予防的治療の可否は今後議論すべき課題である。

おわりに

十二指腸静脈瘤破裂に対してEVL・B-RTO併用療法が奏効した1例を報告した。食道胃静脈瘤の治療の普及に伴って、今後十二指腸静脈瘤をはじめとする異所性静脈瘤が増加してくることが予想され、症例の蓄積と治療指針の確立が必要と考えられる。

引用文献

- 1) 渡辺勲史, 豊永 純, 於保和彦, 國分茂博, 中村健治, 蓮見昭武, 村重直哉, 田尻 孝. 本邦における異所性静脈瘤の実態 - 全国アンケート調査結果より -. 日門亢会誌 2009 ; 15 : 131-142.
- 2) Alberti W. Uber den rontgenologischen Nachweis von Varizen im Bulbus duodeni. *Fortschr Geb Rontgenstr Nuklearmed Ergänzungsbd* 1931 ; 43 : 60-65.
- 3) Nishioka K, Kanetake Y, Matsui E, Imaeda T. Suspected case of varicose veins of the duodenum. *Rinsho Hoshasen* 1968 ; 13 : 305-312.
- 4) Stephan G, Miething R. Roentgendiagnostik varicoser Duodenalveränderungen bei Portaler Hypertension. *Radiologie* 1968 ; 8 : 90-95.
- 5) 小川明子, 渡辺 心, 大橋 薫, 児島邦明, 深澤正樹, 別府倫兄, 二川俊二, 松本俊治, Hassab手術・十二指腸静脈瘤結紮術が有効であった食道及び十二指腸静脈瘤の1例. 日消誌 2000 ; 97 : 170-174.
- 6) Amin R, Alexis R, Korzis J. Fatal ruptured duodenal varix : a case report and review of literature. *Am J Gastroenterol* 1985 ; 80 : 13-18.
- 7) 渡辺勲史, 加川建弘, 松崎松平, 小泉 淳, 異所性静脈瘤とその治療. 肝・胆・膵 2004 ; 49 : 59-67.
- 8) 阿部和道, 入澤篤志, 小原勝敏, 斎藤文子, 宍戸英夫, 折笠博史, 片倉響子, 高木忠之, 渋谷悟朗, 岩館治代, 若槻 尊, 土屋貴男, 斎藤拓郎, 阿部 幹, 後藤満一, 大平弘正, 粕川禮司, 佐藤由紀夫, 長期経過を追えた肝外門脈閉塞症に合併した十二指腸静脈瘤の1例. 日門亢会誌 2001 ; 7 : 98-102.
- 9) Itzchak Y, Glickman MG. Duodenal varices in extrahepatic portal obstruction. *Radiology* 1977 ; 124 : 619-624.
- 10) 小倉芳人, 渡辺照彦, 田辺 元, 島津久明, 田端峯雄, 溝内十郎, 迫田晃郎, 矢野武志, 大迫政彦, 田中貞夫, 十二指腸静脈瘤出血の2手術例. 日消誌 1993 ; 26 : 2194-2198.
- 11) 古川正人, 中田俊則, 山田隆平, 十二指腸静脈瘤破裂の1治療例. 医療 1986 ; 40 : 245-248.
- 12) Menu Y, Gayet B, Nahum H. Bleeding duodenal varices : diagnosis and treatment by percutaneous portography and transcatheter embolization. *Gastrointest Radiol* 1987 ; 12 : 111-113.
- 13) Vidal V, Joly L, Perreault P, Bouchard L, Lafortune M, Pomier-Layrargues G. Usefulness of transjugular intrahepatic portosystemic shunt in the management of bleeding ectopic varices in cirrhotic patients. *Cardiovasc Intervent Radiol* 2006 ; 29 : 216-219.
- 14) 金川博史, 美馬聰昭, 香山明一, 水尾仁志, 井尻正廣, 田辺利男, 伊藤義雄, 関谷千尋, バルーン下逆行性経静脈的塞栓術 (Balloon-occluded retrograde transvenous obliteration) による胃静脈瘤の1治療例. 日消誌 1991 ; 88 : 1459-1462.
- 15) Matsui S, Kudo M, Ichikawa T, Okada M, Miyabe Y. The clinical characteristics,

- endoscopic treatment, and prognosis for patients presenting with duodenal varices. *Hepatogastroenterology* 2008 ; 55 : 959-962.
- 16) Bosch A, Marsano L, Varilek GW. Successful obliteration of duodenal varices after endoscopic ligation. *Dig Dis Sci* 2003 ; 48 : 1809-1812.
- 17) Nakamura S, Torii N, Yatsuji S, Konishi H, Kishino M, Taniai M, Tokushige K, Hashimoto E, Shiratori K. Long-term follow up of esophageal varices after balloon-occluded retrograde transvenous obliteration for gastric varices. *Hepatol Res* 2008 ; 38 : 340-347.
- 18) Shimoda R, Horiuchi K, Hagiwara S, Suzuki H, Yamazaki Y, Kosone T, Ichikawa T, Arai H, Yamada T, Abe T, Takagi H, Mori M. Short-term complications of retrograde transvenous obliteration of gastric varices in patients with portal hypertension : effects of obliteration of major portosystemic shunts. *Abdom Imaging* 2005 ; 30 : 306-313.
- 19) Khouqeer F, Morrow C, Jordan P. Duodenal varices as a cause of massive upper gastrointestinal bleeding. *Surgery* 1987 ; 102 : 548-552.

A Case of Ruptured Duodenal Varices Treated by Combination Therapy of Endoscopic Variceal Ligation and Balloon-occluded Retrograde Transvenous Obliteration

Takashi MATSUDA, Tsuyoshi ISHIKAWA, Shigeyuki SUENAGA, Atsushi GOTO, Kouichi HAMABE, Takuya IWAMOTO, Shinichi HASHIMOTO, Yoshiteru NAKASHIMA¹⁾, Munemasa OKADA¹⁾, Koichi UCHIDA, Shuji TERAJ, Takahiro YAMASAKI and Isao SAKAIDA

Gastroenterology and Hepatology (Internal Medicine I), Yamaguchi Graduate School of Medicine, 1-1-1 Minami Kogushi, Ube, Yamaguchi 755-8505, Japan
1) Radiology (Radiology), Yamaguchi Graduate School of Medicine, 1-1-1 Minami Kogushi, Ube, Yamaguchi 755-8505, Japan

SUMMARY

A 57-year-old male with hepatitis B virus-related liver cirrhosis, who had undergone right lobectomy and radiofrequency ablation for hepatocellular carcinoma, was admitted to our department for the purpose of examination and treatment of melena. Esophagogastroduodenoscopy (EGD) on admission showed duodenal varices without active bleeding in the 2nd portion of duodenum. In addition, total colonoscopy, capsule endoscopy, and double-balloon endoscopy via the anal demonstrated massive dark-red clot in the ileum and colon, but not pointed out a source of bleeding. Thereafter, the angiography via superior mesenteric artery revealed large portal-systemic shunts around the duodenum and computed tomography during arteriography showed extravasation at the 2nd portion of duodenum. Urgent EGD enabled us to diagnose as ruptured duodenal varices and endoscopic variceal ligation (EVL) was successfully performed. However, two days later, he suffered from hemorrhagic shock because of rebleeding of duodenal varices and balloon-occluded retrograde transvenous obliteration (B-RTO) after second EVL finally led to complete hemostasis. We report this rare case of ruptured duodenal varices treated by combination therapy of EVL and B-RTO in a cirrhotic patient.