

血管内ステントグラフト留置により 止血しえた尿管動脈瘻の1例

倉本 朋未^{1*}, 村岡 聡¹, 西川 徹¹

松本 佳也², 魚川 享資³

¹市立岸和田市民病院泌尿器科, ²市立岸和田市民病院産婦人科

³市立岸和田市民病院放射線科

A CASE OF URETEROARTERIAL FISTULA SUCCESSFULLY TREATED WITH ENDOVASCULAR STENT GRAFT

Tomomi KURAMOTO¹, Satoshi MURAOKA¹, Toru NISHIKAWA¹,
Yoshinari MATSUMOTO² and Kyosuke UOKAWA³

¹The Department of Urology, Kishiwada City Hospital

²The Department of Obstetrics and Gynecology, Kishiwada City Hospital

³The Department of Radiology, Kishiwada City Hospital

We report a case of right uretero-external iliac artery fistula. A 46-year-old woman diagnosed with left ovarian cancer with peritoneal dissemination underwent simple hysterectomy, bilateral adnexal removal, partial omentectomy and appendectomy. Sixteen months after the operation, a computed tomography scan showed right hydronephrosis due to the development of tumor within the pelvis. A ureteral stent was placed into the right ureter in order to preserve renal function. The ureteral stent was replaced at regular intervals. Five months after the ureteral stent placement, the patient was hospitalized urgently with gross hematuria. She was diagnosed with right uretero-external iliac artery fistula based on the angiographic examination that was conducted to detect the source of hemorrhage. She was treated successfully with endovascular stent grafting in the right external iliac artery. She has since shown no episode of hematuria.

(Hinyokika Kyo 65 : 299-303, 2019 DOI : 10.14989/ActaUrolJap_65_7_299)

Key words : Ureteroarterial fistula, Ureteral stent, Endovascular stent graft

緒 言

尿管動脈瘻とは、尿管と腸骨動脈や大動脈などの間に瘻孔形成を来とし、間欠的に多量の血尿を生じときに致命的となる疾患である。尿管カテーテル長期留置、骨盤内手術の既往、放射線治療が尿管動脈瘻の主要なリスクファクターである。近年、尿管動脈瘻の治療は低侵襲なものに移行しており、血管内ステントグラフトによる血管内治療の有用性が報告されている。今回われわれは、右尿管右外腸骨動脈瘻に対し血管内ステントグラフト留置術により止血しえた1例を経験したので報告する。

症 例

患 者 : 46歳, 女性.

主 訴 : 肉眼的血尿.

既往歴 : 特記すべきことなし.

現病歴 : 2015年10月, 他院より腹水症で当院に紹介受診となった. CA 125 9,200 U/ml と著明高値, 腹水

細胞診は adenocarcinoma であった. 精査の結果, 左卵巣癌・腹膜播種の診断で当院婦人科に入院となり化学療法を施行した (パクリタキセル+カルボプラチン). 2016年1月, 単純子宮摘出術・両側付属器切除術・大網部分切除術・虫垂切除術を受けた. 組織は high grade serous carcinoma, pT3cN0M0 であった. 術後化学療法 (パクリタキセル+カルボプラチン) を施行するも2017年5月再発, 骨盤内の腫瘍により右水腎が出現した. 右腎機能温存のため2017年10月経尿道的右尿管ステント (6 Fr 24 cm サイドホールあり) を留置し, 以降当科外来で約2カ月間隔の定期ステント交換を行っていた. 腸閉塞を繰り返すため2017年11月当院外科で空腸横行結腸バイパス術を施行した. 2018年3月右腰背部痛, 肉眼的血尿を認め当院へ救急搬送され婦人科に緊急入院となった.

入院時検査所見 : 血液一般 : WBC 10,760/ μ l, RBC 348 \times 10⁴/ μ l, Hb 10.6 g/dl, Ht 32.9%, PLT 21.5 \times 10⁴/ μ l. 血液生化学 : Na 138 mEq/l, K 4.2 mEq/l, Cl 89 mEq/l, P 3.4 mEq/l, BUN 20 mg/dl, Cr 0.67 mg/dl, AST 218 IU/l, ALT 224 IU/l, LDH 321 IU/l, CRP 1.45 mg/dl.

* 現 : 新宮市立医療センター泌尿器科

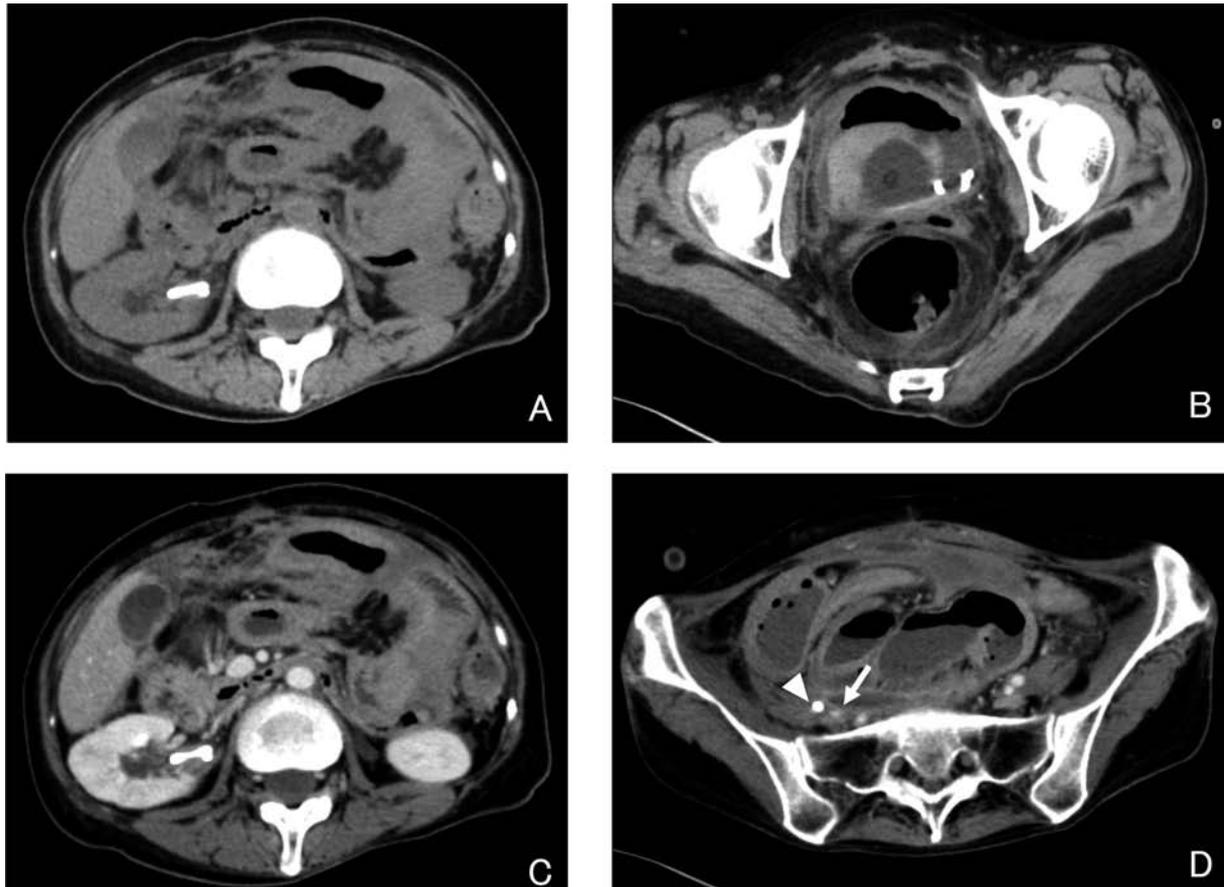


Fig. 1. CT scan showing bladder filled with blood clots. There was no source of bleeding in upper urinary tracts (A, B: plane CT, C, D: contrast enhanced CT, arrow head: ureteral stent, arrow: right external iliac artery).

経過：入院後膀胱タンポナーデとなり膀胱灌流を開始した。入院時のCTでは出血源を指摘できず (Fig. 1)。膀胱灌流を継続するも血尿改善せず、血塊による膀胱留置カテーテルの閉塞を認め頻回の膀胱洗浄を行った。貧血も進行し、計6回、合計照射赤血球液20単位の輸血を必要とした。

右季肋部痛が出現し、高熱が持続するためCTを撮影したところ、壊疽性胆嚢炎の診断で入院9日目に緊急開腹胆嚢摘出術を施行した。その後も血尿が持続す

るため、入院12日目に膀胱鏡検査を施行した。右尿管ステント周囲に凝血塊付着を認めたが膀胱内に明らかな出血源は確認できなかった。出血源精査のため同日血管造影検査を施行したところ、右外腸骨動脈に仮性動脈瘤を認め右尿管右外腸骨動脈瘻と診断した (Fig. 2)。

治療方針を放射線科医、産婦人科医と検討した結果、低侵襲である血管内治療が最良であろうとの結論に至った。しかし、尿管動脈瘻治療に保険適応のある



Fig. 2. Angiography A: KUB. B: Angiography demonstrates a pseudoaneurysm of right external iliac artery (arrow) at crossing of right ureter.

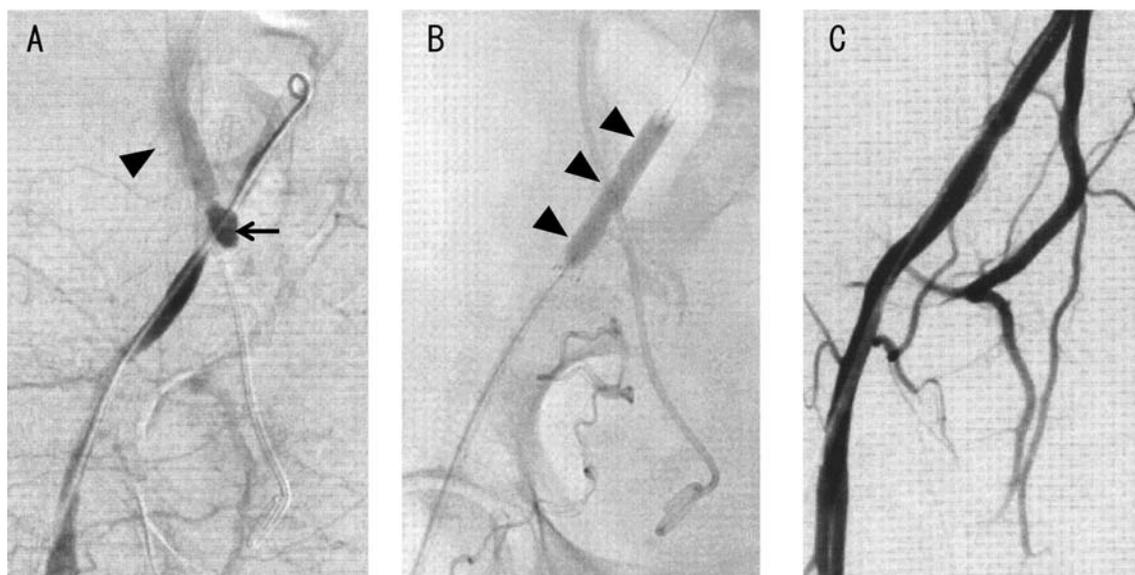


Fig. 3. Endovascular treatment for ureteroarterial fistula. A: Pre-intervention angiography shows the pseudoaneurysm of right external iliac artery (arrow). Extravasation of the contrast material into the right ureter (arrow head) was confirmed. B: Arteriography demonstrates right external iliac artery placement of endovascular stent (arrow head). C: After placement of endovascular stent, extravasation into the right ureter disappeared.

血管用ステントグラフト留置術治療は当院では行えず(使用資格を持った医師が不在のため), 当院放射線科医から他院へ治療の依頼を行い治療の承諾を得た. 当院での血管造影検査から3日後に放射線科医同乗で他院へ搬送し, 右外腸骨動脈に血管内ステントグラフト(ゴア社®, バイアバーン® 8 mm, 50 mm)を留置した(Fig. 3). 治療後血尿は消失した. 血管内ステントグラフト留置3日後に右尿管ステントを抜去したところ, 右腰背部痛, 発熱, 右水腎症を認めた. 閉塞性腎盂腎炎の診断で経皮的右腎瘻造設術を施行した. 血管

内ステントグラフト留置36日目に自宅退院(在宅緩和療法)となった.

原疾患の進行により血管内ステントグラフト留置78日後に自宅で永眠された.

考 察

尿管動脈瘻は尿管と腸骨動脈や大動脈の間に瘻孔を形成する稀な疾患で, 突発的に間欠的な多量の血尿を呈し, ときに致死的となる疾患である.

1980年以前の致死率は69%と高かったが, 新たな診

Table 1. Clinical features of 119 cases of ureteroarterial fistula in Japan

性別	男性: 60 女性: 58	
年齢(平均)	69歳(33-88)	
原疾患	子宮癌	37
	直腸癌	32
	膀胱癌	28
	その他	動脈瘤7, 後腹膜線維症4, 前立腺癌3など
骨盤内手術の既往		105
尿路変向術		42
放射線治療歴あり		52
尿管カテーテル留置例		95
尿管カテーテル留置期間	平均値: 31.8 M 中央値: 18 M	
治療(第一選択)	血管内ステントグラフト留置術	59
	血管バイパス術	10
	血管塞栓術	6
	瘻孔閉鎖術	5
	腎尿管全摘除術	5
	複数治療組み合わせ	26
転帰	生存	58
	死亡	15(うち治療関連死9例)

断方法や治療方針が報告され、近年では死亡率は減少傾向にあり、Van den Bergh らの139例のレビューでは死亡率は13%であった¹⁾。

医学中央雑誌のデータベースによると本邦での尿管動脈瘻の報告(会議録も含む)は1987年以降、自験例を含め119例であった²⁻⁶⁾(Table 1)。平均年齢69歳、骨盤内手術の既往105例、放射線照射の既往52例、尿管ステント留置95例で平均ステント留置期間は31.8カ月、中央値は18カ月であった。

本症例の尿管動脈瘻発症は尿管ステント留置5カ月目とやや早期であった。本邦の報告例を検討したが、早期発症例と晩期発症例で背景因子に明らかな差は認められなかった。尿管動脈瘻の主要な危険因子として骨盤内手術の既往、尿管ステント留置、放射線治療が挙げられる。橋本らによると多因子となるほど本疾患を発症するリスクは上がると考えられている²⁾。

尿管動脈瘻の発生機序として、手術や放射線などにより尿管と腸骨動脈の交差部位で線維化、癒着が生じ、動脈の拍動による圧が慢性的、持続的に動脈壁、尿管壁双方に加わり、動脈壁の壊死が生じ仮性動脈瘤、瘻孔が形成されると考えられている²⁾。本症例では骨盤内手術後の影響に加え初診時から腹膜播種があり、尿管周囲組織が脆弱になっていた可能性がある。そこに尿管ステント留置による刺激が加わったことが原因で仮性動脈瘤が生じ、瘻孔形成につながったと考える。

尿管動脈瘻の診断方法は、造影CT、尿路造影、血管造影がある。各検査での尿管動脈瘻の検出率は造影CTで42%、尿路造影で49%、血管造影で69%と報告されている⁷⁾。しかし、血管造影は血栓で瘻孔が閉鎖している場合には偽陰性となりえる。瀬賀らは、逆行性尿路造影と動脈造影を同時に行うことで血管との位置関係を明らかにし、瘻孔部を同定できる可能性があると報告している⁵⁾。本症例について診断をえるまでに時間を要した。入院後早期に膀胱鏡を施行し、膀胱内からの出血を否定し血管造影を行っておれば、早期に診断をつけられたのではないかと反省している。

尿管動脈瘻の治療として、開腹手術、動脈塞栓、血管内治療などがある。感染のコントロールが可能であれば比較的低侵襲な血管内ステントグラフト留置が主流となって来ている。2000年以降から血管内ステントグラフト治療の報告が増えている。本疾患を発症する患者は放射線治療や骨盤内手術後の症例が多く、低侵襲の血管内ステントグラフト治療が第一選択となることが多い。本邦119例の集計で、2000年以前の報告例(17例)では血管内ステントグラフト治療の報告は認めず、2000年以降は治療の第一選択として最多であった。

本症例で使用したバイアバーンステントグラフトは

2016年12月に血管損傷に対して認可・保険収載された(使用できる施設の条件あり)。Expanded polytetrafluoroethylene (ePTFE) コーティングされた Nitinol ステントで複雑性病変、特に長区間の病変において有効であると考えられている。バイアバーンステントグラフトの利点として柔軟性・追従性とデリバリーシステムの正確性が挙げられる⁸⁾。バイアバーンステントグラフトが保険収載されるまで、本邦では末梢血管に対して使用可能なステントグラフトはなかった。そのため、尿管動脈瘻に対する血管内ステントグラフト治療では胆管用ステントグラフトや自作ステントグラフトを使用していた²⁾。

血管内ステントグラフト治療の合併症としては再出血、下肢の合併症、グラフト感染などがある^{9,10)}。グラフトへの感染は致死的となる可能性があるため適応は慎重に考慮する必要がある。

本症例では血管内ステントグラフト留置前の尿沈渣は WBC 100個~/HPF、尿培養は *Enterococcus faecalis* 3+ で尿路感染を伴った状態であった。薬剤感受性テスト結果で感受性ありの抗菌剤は ABPC, IDM, LVFX, TEIC, VCM, LZD だった。血液培養は陰性であった。緊急入院時 38°C の発熱を認め主科の婦人科より MEPM を投与された。MEPM は血管内ステントグラフト挿入後も投与を継続した。MEPM を使用した理由は、前回好中球減少時の治療に使用し効果があったためである。しかし、MEPM 投与を継続しても炎症反応が十分低下しないため CT 検査を行い、急性壊疽性胆嚢炎と診断し、胆嚢摘出術を施行した。胆嚢摘出術後も 38.5°C 以上の発熱が続き、胆汁培養で感受性のあった VCM を追加した。感染が持続している状態であり、血管内ステントグラフト留置術が感染の新たなフォーカスとなりうるリスクはあったが、担癌状態、複数回の手術の既往もあり、外科的治療は不可能と考え、ステントグラフト留置術を選択した。ステントグラフト挿入後の感染予防のため抗菌剤使用を継続し、結果として抗菌剤長期投与となった。

血管内ステントグラフトの治療成績は Okada らによると平均548日の観察期間で血尿再発は36%、1年無再発生存率76.2%、2年無再発生存率40.6%、1年、2年疾患特異的生存率85.7%である¹¹⁾。まとまった報告が少ないため、長期成績に関しては今後の検討が必要であると考えられる。

本症例は血管内ステントグラフト留置78日後に死亡という結果となったが、長期観察例では血管内ステントグラフト留置術後の血尿、発熱などの症状や CT などでもエンドリークの有無などを注意深く経過観察していく必要がある。

結 語

尿管動脈瘻に対し血管内ステントグラフト留置により止血しえた1例を経験した。骨盤内手術や尿管ステント留置, 放射線治療の既往のある症例で血尿が出現した場合は本疾患を疑い, 早急な検査・治療を行う必要がある。

文 献

- 1) van den Bergh RC, Moll FL, de Vries JP, et al.: Arterioureteral fistula: unusual suspects-systematic review of 139 cases. *Urology* **74**: 251-255, 2009
- 2) 橋本 士, 清水信貴, 豊田信吾, ほか: 長期尿管ステント留置により生じた右外腸骨動脈尿管瘻の1例. *泌尿紀要* **60**: 269-273, 2014
- 3) 村井亮介, 窪田成寿, 井本勝治, ほか: 尿管皮膚瘻造設術後に発生した尿管動脈瘻に対し血管内ステントグラフト治療を繰り返した1例. *泌尿紀要* **59**: 647-650, 2013
- 4) 松田亜季, 桃原祥人, 佐藤安南, ほか: 子宮体癌術後再発に対する放射線治療後の尿管動脈瘻に対して, ステントグラフト留置術により止血し得た1例. *東京産婦会誌* **65**: 223-227, 2016
- 5) 瀬賀雅康, 内藤美帆, 伏木 淳, ほか: 子宮頸癌治療後18年経過して右総腸骨動脈尿管瘻を来たし治療に難渋した1例. *東京産婦会誌* **66**: 534-538, 2017
- 6) 吉田 誉, 菅野幹雄, 黒部裕嗣, ほか: 膀胱全摘術後の腸骨動脈尿管動脈瘻の1例. *外科* **80**: 196-198, 2018
- 7) Pillai AK, Anderson ME, Reddick MA, et al.: Ureteroarterial fistula: diagnosis and management. *AJR Am J Roentgenol* **204**: W592-W598, 2015
- 8) Boufi M, Belmir H, Hartung O, et al.: Emergency stent graft implantation for ruptured visceral artery pseudoaneurysm. *J Vasc Surg* **53**: 1625-1631, 2011
- 9) 井上 享, 山崎六志, 佐藤吉泰, ほか: 診断・治療に難渋した腸骨動脈尿管瘻の1例. *西日泌尿* **75**: 324-327, 2013
- 10) 御厨彰義, 保科克行, 加藤雅明, ほか: 尿管動脈瘻と吻合部動脈瘤への血管内治療の1例. *日心臓血管外会誌* **41**: 144-147, 2012
- 11) Okada T, Yamaguchi M, Muradi A, et al.: Long-term results of endovascular stent graft placement of ureteroarterial fistula. *Cardiovasc Intervent Radiol* **36**: 950-956, 2013

(Received on December 12, 2018)
(Accepted on March 8, 2019)