

回腸導管造設術後にストーマ周囲静脈瘤から出血を来たした2例

山崎 琢斗¹, 吉野 喬之¹, 古城 公佑¹, 木村 友和¹
松田 琴絵¹, 磯田 文平¹, 田中 隆造¹, 土屋 春樹¹
志賀 正宣¹, 南雲 義之¹, 池田 篤史¹, 神鳥 周也¹
河原 貴史¹, 星 昭夫¹, 根来 宏光¹, 森 健作²
西山 博之¹

¹筑波大学医学医療系腎泌尿器外科学 (主任教授: 西山博之)

²筑波大学医学医療系放射線診断・IVR 科

TWO CASES OF BLEEDING FROM THE ILEAL
CONDUIT DUE TO ECTOPIC VARICES

Takuto YAMASAKI¹, Takayuki YOSHINO¹, Kosuke KOJO¹, Tomokazu KIMURA¹,
Kotoe MATSUDA¹, Bunpei ISODA¹, Takazo TANAKA¹, Haruki TSUCHIYA¹,
Masanobu SHIGA¹, Yoshiyuki NAGUMO¹, Atsushi IKEDA¹, Shuya KANDORI¹,
Takashi KAWAHARA¹, Akio HOSHI¹, Hiromitsu NEGORO¹, Kensaku MORI²
and Hiroyuki NISHIYAMA¹

¹The Department of Urology, Faculty of Medicine, University of Tsukuba

²The Department of Diagnostic and Interventional Radiology,
Faculty of Medicine, University of Tsukuba

Case 1: A 75-year-old man was emergently admitted to our hospital with a complaint of continuous bleeding from the ileal conduit. The conduit was constructed by a total pelvic resection for sigmoid colon cancer that invaded the urinary bladder 24 years ago. Swollen cutaneous mucosa was seen around the ileal conduit, but no obvious bleeding spot was observed. The contrast-enhanced computed tomographic (CT) scan and 3D visualization revealed varices extending to the abdominal wall. Percutaneous transhepatic embolization successfully stopped the bleeding, but it was needed again after two years. Case 2: A 72-year-old man with a history of open cystectomy and ileal conduit for bladder cancer came to our hospital two years after the surgery, complaining of continuous bleeding from the conduit. The skin around the stoma site was discolored purple, but no obvious bleeding site or bloody urine was observed. The CT scan similar to Case 1 revealed varices in the ileal conduit, and percutaneous transhepatic embolization successfully stopped the bleeding, but it was needed again after five months. After that, three months passed without recurrence.

(Hinyokika Kiyo 70 : 101-106, 2024 DOI: 10.14989/ActaUrolJap_70_4_101)

Key words : Bleeding, Ileal conduit, Ectopic varices, Percutaneous embolization

緒 言 症 例

回腸導管からの出血は術後の晩期合併症として軽微なものを含めるとおおそ10%程度とされている。出血の原因の1つとして異所性静脈瘤の存在が挙げられる。異所性静脈瘤とは、門脈圧亢進を背景とした胃や食道以外に形成された静脈瘤のことを指す。本邦において消化器外科領域でのストーマ周囲静脈瘤の報告は200例を超えるが、回腸導管に限ると20例程度しかない。今回われわれは異所性静脈瘤に伴う回腸導管からの出血に対して、経皮経肝の静脈瘤塞栓術を施行した2例を経験したため、若干の文献学的考察を加えて報告する。

患者1: 75歳, 男性
主 訴: 回腸導管からの出血, 脱力感
既往歴: 2006年より指摘されているアルコール性肝機能障害 (Child Pugh 分類A), 胆石
現病歴: 1990年12月, S状結腸癌・膀胱浸潤に対して低位前方切除術および膀胱全摘・回腸導管造設術が施行された。術後糞路縫合不全を来した横行結腸人工肛門造設術を施行された。2014年1月頃から回腸導管内部から少量の出血を来したが, 5分程度の圧迫にて毎回止血を得られていた。しかし出血の頻度の増加に伴い貧血も進行し体動困難となり, 出血を自覚してから8日後に当院救急外来受診した。

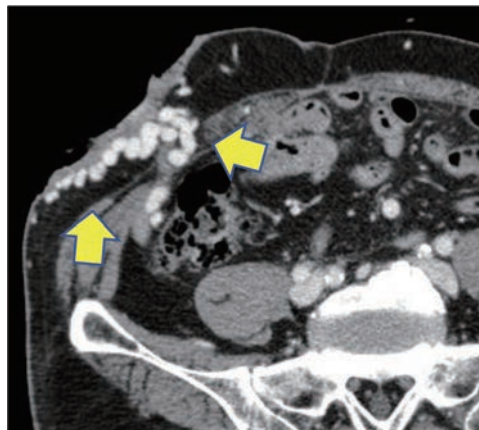


Fig. 1. Swollen cutaneous mucosa seen around the ileal conduit. No obvious bleeding site was observed.

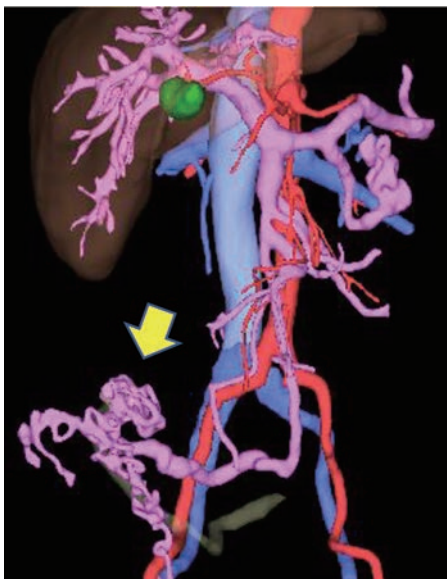
来院時現症：血圧 94/50 mmHg, 脈拍83回/分, 体温 36.6°C, SpO2 97% (room air). 肉眼的に出血点は確認出来なかった. 回腸導管を膨隆した皮膚が囲んでいた (Fig. 1).

来院時検査所見：血液生化学検査所見 WBC 9,900/ μ l, RBC $189 \times 10^4/\mu$ l, Hb 5.7 g/dl, Plt $23.9 \times 10^4/\mu$ l, AST 38 U/l, ALT 36 U/l, T-Bil 0.6 mg/dl, ALP 203 U/l, γ -GTP 104 U/l, Cre 1.11 mg/dl

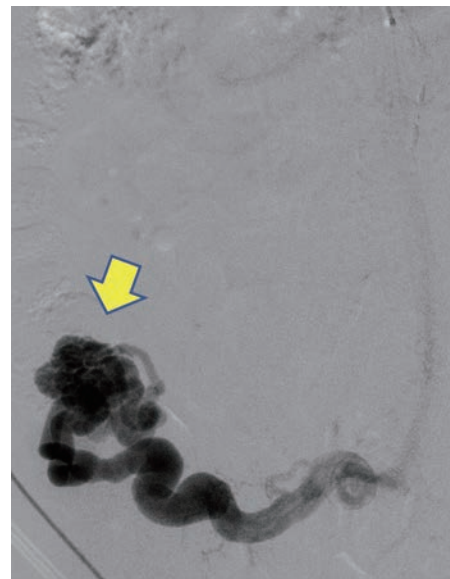
肉眼的に出血点は確認出来なかったが回腸導管周囲皮膚の6時方向からの出血を来していたと患者本人や診察した医師は発言していた. 導管外部からの出血は体表からの圧迫により5分程度で止血を得られたが, 赤血球4単位を輸血した上で同日入院とした. 第2病日に再出血を来とし, 圧迫止血した上で, 再度赤血球4単位の輸血を要した. その後も複数回の出血を



a



b



c

Fig. 2. a: Dilated tortuous veins seen around the ileal conduit extending to the abdominal wall. b: A 3D image created from contrast-enhanced CT images, which shows the abdominal aorta (in red), portal vein (in blue), and hepatic venous system (in purple). The veins in the ileal conduit area appear distorted and form varices, as indicated by arrow. c: Dilated and tortuous varices shown by angiography, as indicated by arrow. They were embolized with coils and a mixture of 17% n-butyl cyanoacrylate and iodized oil.

来たため、第4病日に全腹部造影CTを施行したところ、回腸導管周囲の腹壁まで達する拡張蛇行する脈管を確認でき、回腸導管造設部に発生した異所性静脈瘤と診断した (Fig. 2a)。また取得したCTデータを3D画像解析システム (SYNAPSE VINCENT®; 富士フィルム) で解析し、静脈瘤を可視化した (Fig. 2b)。第6病日に経皮経肝的に肝内門脈を経由して上腸間膜静脈から静脈瘤を17%のn-butyl cyanoacrylate・リピオドールの混和液とコイルを用いて選択的に塞栓した (Fig. 2c)。その後は再出血なく経過していたが、第13病日に施行したフォローの造影CT検査にて塞栓部位より上腸間膜静脈に至るまで血栓が形成されていた。同日より抗凝固療法を開始し、ワーファリン3 mg/日の内服の上で第27病日に退院した。

2年後の2016年8月に再出血を来し全腹部造影CT検査を施行したところ、コイル塞栓した血管近傍に側副血行路の新規増生がみられた。活動性出血は呈していなかったが、再度経皮経肝的静脈瘤塞栓術を施行した。その後の静脈瘤評価目的の全腹部造影CT検査にて再度上腸間膜静脈の血栓形成を認めたため、抗凝固療法を再導入した。その後6年経過したが、再出血は認めていない。

患者2: 72歳, 男性

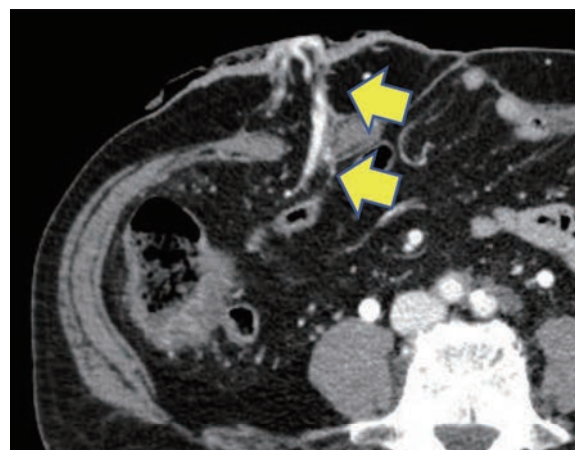
主 訴: 回腸導管からの出血, 脱力感

既往歴: 糖尿病, 高血圧, アルコール性肝硬変 (Child Pugh 分類A), 食道静脈瘤

現病歴: 膀胱癌 cT3N0M0 に対してゲムシタビン+シスプラチン療法を4サイクル施行後の2020年6月に開腹膀胱全摘除術および回腸導管造設術を施行した。病理結果は, UC, pT3bN0, HG (G3) であり, 経過観察を行っていた。2022年3月に回腸導管内部からの出血を自覚したが自然と止血した。しかし2週間後に連日の回腸導管内部からの出血を来し当院救急外来



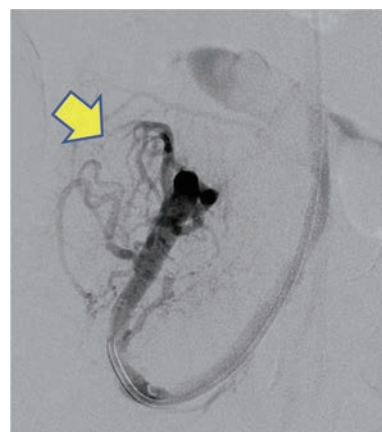
Fig. 3. Purple discoloration of the skin around the ileal conduit suggested the presence of subcutaneous varices.



a



b



c

Fig. 4. a: Dilated veins seen in the ileal conduit area by CT. b: A 3D image created from contrast-enhanced CT images, which shows the abdominal aorta (in red), portal vein (in blue), and hepatic venous system (in purple). The veins in the ileal conduit area appear distorted and form varices, as indicated by arrow. c: Dilated and tortuous varices shown by angiography, as indicated by arrow. They were embolized with coils and a mixture of 25% n-butyl cyanoacrylate and iodized oil.

を受診した。

来院時現症：血圧 113/44 mmHg, 脈拍74回/分, 呼吸数14回/分, 体温 36.7°C. 回腸導管からの活動性出血はなく黄色透明な尿の流出を確認した。回腸導管周囲の皮膚が所々紫色に変色していた (Fig. 3)。

来院時検査所見：血液生化学検査所見 WBC 7,400/ μ l, RBC 196×10^4 / μ l, Hb 6.1 g/dl, Plt 13.0×10^4 / μ l, AST 21 U/l, ALT 25 U/l, T-Bil 0.7 mg/dl, Cre 1.17 mg/dl

診察中に収縮期血圧 70 mmHg 台とショックバイタルを呈したため、赤血球輸血 2 単位施行し緊急入院した。出血源精査目的に第 1 病日に回腸導管内の内視鏡検査を施行したが、明らかな出血源は確認出来なかった。造影 CT 検査の施行にて、回腸導管部の静脈の拡張が認められ、同部位の静脈瘤に伴う回腸導管出血と診断した (Fig. 4a)。また患者 1 と同様に CT データを 3D 画像解析システムで静脈瘤を可視化した (Fig. 4b)。第 4 病日に待機的に経皮経肝的に門脈分枝よりアプローチして 25% の n-butyl cyanoacrylate・リピオドールの混和液を用いて静脈瘤塞栓術を施行した (Fig. 4c)。その後は再出血なく経過し第 7 病日に退院した。

退院 5 カ月後の 9 月にストーマパウチ 2 袋分程度の回腸導管出血を来し、再度救急外来受診した。同日施行した造影 CT 検査上では回腸導管部位の拡張静脈は見られるが活動性の出血は呈していなかった。前回の出血の経過や今回の出血量を踏まえ、入院し再び経皮的に静脈瘤塞栓術を施行した。処置後は貧血の進行なく第 3 病日に退院した。

塞栓後さらに 5 カ月経過した時点で再度回腸導管からの出血を自覚し、同日救急外来受診の上で圧迫止血にて止血を得た。後日造影 CT にて評価すると回腸導管部の静脈瘤は再度拡張傾向であった。再出血のリスクも懸念されたため、予定入院の上で回腸導管の内部から回腸静脈に直接アプローチして静脈瘤塞栓術を施行した。塞栓術は大過なく終了し、処置翌日に退院した。

考 察

回腸導管造設術後、ストーマや導管自体からの出血の発生率は、軽微なものも含めると術後早期で 2 % 程度、晩期で 10 % 程度とされている¹⁾。回腸導管からの大量出血の鑑別として、上部尿路再発や導管内腫瘍性病変、動脈尿管瘻、Dieulafoy 潰瘍²⁾や異所性静脈瘤が挙げられる。なかでも赤血球輸血を要するほどの大量出血を繰り返す原因としては異所性静脈瘤が多いとされている³⁾。

異所性静脈瘤とは胃・食道以外に形成された静脈瘤のことを指すが、その多くは基礎疾患として門脈圧亢

進症を背景に有している。原因としては肝硬変を始めとする肝疾患や特発性門脈圧亢進症、下大静脈の器質的閉塞などが挙げられる。本症例は 2 症例とも背景に Child Pugh 分類 A 相当のアルコール性肝硬変があり、さらに 2 症例目は食道静脈瘤も有していたため門脈圧亢進症に伴う異所性静脈瘤の発達が原因と考えられた。

異所性静脈瘤の出血は、静脈瘤出血全体の 5 % を占めるとされている⁴⁾。回腸導管に限ると本邦では 20 例程度の報告しか見られないが、消化器外科領域においては、ストーマ周囲静脈瘤は少なくとも 200 例程度報告されており珍しいものではない。事実として異所性静脈瘤の発生部位は十二指腸が 17 %、小腸が 17 %、大腸が 14 %、直腸が 8 %、腹膜が 9 %、そしてストーマは 26 % を占め、最も多いとされている⁴⁾。ストーマ周囲静脈瘤の発生源として明らかなものはないが、他部位の異所性静脈瘤と比較し回腸導管部は切離した腸管を再度繋げる中で血流の環流障害を来しやすく、静脈瘤形成の頻度が高いのではないかと考えられる。他文献では、遊離された回腸の腸管膜の栄養血管に何らかの狭窄や圧迫が生じた結果静脈瘤が形成されるのではないかという報告も見られた³⁾。

ストーマ周囲静脈瘤は繰り返す出血が特徴的であるが、致死率は 3 ~ 4 % と他の静脈瘤出血と比べると著しく低い⁵⁾。

ストーマ周囲静脈瘤の診断方法としては、パウチを外して観察することが重要である。パウチ内の貯留物を検査しても診断には至らないが、ストーマとその周囲の皮膚の外観はパウチを取り外すことでその変化は明らかであることが多い。ストーマ粘膜は鬱血し、導管周囲の皮下出血に伴う周囲皮膚の紫色の変色や怒張した静脈が皮膚の膨隆として確認される⁶⁾。画像検査としてはドップラー超音波検査や造影 CT 検査が静脈瘤の同定に有用である。ドップラー超音波検査は CT 検査より簡便であり、門脈系の評価のみならず背景肝の精査も併せて行うことが出来るため最初に行うべき検査と言える。しかし大量出血を呈して救急搬送されてきた場面では、より迅速に診断に至る造影 CT 検査が用いられるのが現実的である。門脈圧亢進の評価に 3D 可視化技術を用いた報告は多くないが^{7,8)}、先行研究によりその有用性が評価されている⁹⁾。

本症例は 2 症例とも回腸導管周囲皮膚の変色や膨隆など典型的な所見を呈しており出血の原因として異所性静脈瘤の存在を想起するのは難しくなく、造影 CT およびその 3D 再構築像で回腸導管周囲の拡張した静脈 (門脈) を認め確定診断に至った。導管周囲皮膚の膨隆は通常は赤紫色のような色調を呈するが、症例 1 は白色の膨隆を呈していた。これはおそらく回腸導管造設後の慢性的な経過により静脈瘤に伴う皮膚の変性

を呈しているのではないかと考えられた。一方で症例2のようにストーマ内の観察目的に内視鏡検査を実施されることが多いが、ストーマの粘膜面には粗大な静脈瘤形成は認めず、確定診断には至らない⁶⁾。上部消化管内視鏡検査で胃食道静脈瘤を認めれば背景の門脈圧亢進症の診断に繋がることはある。

ストーマ周囲静脈瘤は出血を契機に発見されることが多いが、診断に至るまではしばしば時間を要する。BRET J SPIER らのレビューによると先行出血から診断に至るまでは少なくとも1カ月要しており、最長で13年要した症例も見られた⁶⁾。診断に時間を要する原因として、初期の段階では異所性静脈瘤を想定できていない他に、診察時には止血している場面が多いことが挙げられる。活動性に出血を来している場合は同日の画像精査を考慮するが、短期間の出血エピソードのみではストーマとパウチとの物理的接触やストーマの炎症が原因であると誤解してしまうと考えられる。本症例の2例においても最初に出血を呈してから、最終的な診断に至るまで2週間程度を要した。

治療法は保存的なものから観血的処置まで多岐にわたる。最も簡便な方法としては出血点の圧迫・凝固である。その他の保存的加療としては内視鏡的硬化療法が挙げられる。しかし保存的加療を行った患者は74%とかなりの高頻度で処置後の再出血を来すという報告がある¹⁰⁾。自験例の症例1においても、圧迫止血は一時的な効果しかなかった。内視鏡的硬化療法の報告はあるがストーマの壊死や狭窄を生じる可能性があり、結果的にストーマの萎縮やパウチとの密封性の低下をもたらすため推奨されていない^{6,11)}。侵襲度が比較的高い治療法として、静脈瘤塞栓術、経血管的・外科的なシャント造設術、ストーマ再形成術などが挙げられる。

静脈瘤塞栓術や経血管的なシャント造設術などIVR治療の報告が近年見られる。経皮的塞栓術は、責任血管である異所性静脈瘤の塞栓により止血を得る方法で、経皮経肝的なアプローチの他、エコー下に直接経皮的に静脈瘤を穿刺、塞栓する方法が報告されている。塞栓術中は造影剤を用いての血流評価を適宜行い、コイルやリピオドールなどの塞栓物質を詰めた上で、静脈瘤への血流が遮断されていることを確認する。異所性静脈瘤塞栓では、門脈圧亢進は改善されないため側副血行路の増生に伴う静脈瘤再形成の可能性はあるが、自験例と同様に、再出血に対する治療も可能である^{12,13)}。Thanilaのレビューによると、静脈瘤塞栓術を施行した患者の中でフォローアップが途絶えた人や処置後早期に亡くなってしまった人を除くと全例再発を来していた。また静脈瘤塞栓術後から再出血までの期間は処置後23~29年の範囲の中で中央値は7.8カ月であり、本症例においては2症例とも再発に

至るまでの期間としては想定内であると言える¹⁴⁾。

IVR治療によるシャント造設術は、経頸静脈肝内門脈体循環シャント(Transjuglar Intrahepatic Porto-systemic Shunt; 以下TIPS)と呼ばれる手技で、胃食道静脈瘤や難治性腹水に対して有効とされており、異所性静脈瘤についても海外からの報告はある。ただTIPSは、末期肝硬変や重度の肝性脳症を伴っている場合は増悪させる危険性があり適応は慎重にせざるを得ない¹⁵⁾。

予防策として、背景疾患として門脈圧亢進症を伴う肝疾患を有している場合は、尿路変向を行う際に回腸導管ではなく尿管皮膚瘻の選択も良いと考えられる。仮にすでに静脈瘤を形成している場合は、物理的刺激に伴い出血する場合もあるためストーマへの刺激の少ない装具の選択や皮膚面への保護材の使用が望ましい^{15,16)}。

結 語

異所性静脈瘤により回腸導管からの出血を来した2例を経験した。造影CT検査で診断し経皮的血管塞栓術による止血を得た。門脈圧亢進を来すような肝障害症例に回腸導管を造設した場合は、その後の異所性静脈瘤の発生に注意する必要がある。塞栓術後の異所性静脈瘤再発に対しても経皮的血管塞栓術は有効だった。

なおこの論文の要旨は第123回日本泌尿器科学会茨城地方会において発表した。

文 献

- 1) Douglas M: Use of intestinal segments in urinary diversion. In: Campbell-Walsh urology. Edited by Wein AJ, Kavoussi LR, Partin AW, et al. 11th ed, Volume 3, pp 6997-6999, Elsevier, Philadelphia, 2016
- 2) 真殿佳吾, 米田 傑, 谷川 剛, ほか: 回腸導管に発生したDieulafoy潰瘍の1例. 泌尿紀要 **57**: 29-31, 2011
- 3) 中川勝弘, 向井雅俊, 植村元秀, ほか: 回腸導管ストーマ静脈瘤の1例. 泌尿紀要 **51**: 463-465, 2005
- 4) Norton ID, Andrews JC and Kamath PS: Management of ectopic varices. Hepatology **28**: 1154-1158, 1998
- 5) 菅野 宏, 中島紳太郎, 北川和男, ほか: 胃静脈瘤塞栓術後に難治性出血を来したストーマ静脈瘤の1例. 日本大腸肛門病会誌 **65**: 376-381, 2012
- 6) Spier BJ, Fayyad AA, Leucey MR, et al.: Bleeding stomal varice: case series and systematic review of the literature. Clin Gastroenterol Hepatol **6**: 346-352, 2008
- 7) Watanabe Y, Osaki A, Waguri N, et al.: The first case of balloon-occluded retrograde transvenous oblite-

- ration and partial splenic embolization for gastric varices in situs inversus abdominus. *Clin J Gastroenterol* **14**: 656-661, 2021
- 8) Matsuo K, Lee SW, Tanaka R, et al.: A successful case of varix of the left gastroepiploic vein preoperatively diagnosed by 3D-CT angiography and resected by laparoscopy: a case report. *Medicine (Baltimore)* **100**: e25347, 2021
- 9) Wei ZJ, Zhu X, Yu HT, et al.: Severe hematuria due to vesical varices in a patient with portal hypertension: a case report. *World J Clin Cases* **9**: 4810-4816, 2021
- 10) Grundfest-Broniatowski S and Fazio V: Conservative treatment of bleeding stomal varices. *Arch Surg* **118**: 981-985, 1983
- 11) Yao DH, Luo XF, Zhou B, et al.: Ileal conduit stomal variceal bleeding managed by endovascular embolization. *World J Gastroenterol* **19**: 8156-8159, 2013
- 12) 石橋恵美, 湯浅貢司, 松村武史, ほか: 肝硬変に伴う直腸癌術後回腸導管に発生した静脈瘤に対する経皮経肝的静脈瘤塞栓術 (Percutaneous transhepatic obliteration; PTO) を施行した 1 例. *島根中病医誌* **46**: 47-52, 2021
- 13) 飯尾浩之, 渡辺隆太, 福本哲也, ほか: 門脈圧亢進症に伴う回腸導管静脈瘤の 1 例. *西日泌尿* **74**: 344-347, 2012
- 14) Thanila A Macedo, James C Andrews, et al.: Ectopic Varices in the Gastrointestinal Tract: short- and long-term outcomes of percutaneous therapy. *Cardiovasc Intervent Radiol* **28**: 178-184, 2005
- 15) Kishimoto K, Hara A, Arita T, et al.: Stomal varices: treatment by percutaneous transhepatic coil embolization. *Cardiovasc Intervent Radiol* **22**: 523-525, 1999
- 16) 原田俊子, 百合 恵, 恒松明美, ほか: ストーマ静脈瘤の診断的要点と局所管理について. *STOMA* **3**: 136-140, 1990

(Received on July 11, 2023)

(Accepted on November 13, 2023)