

大量下血を主訴とし選択的動脈造影にて診断しえた 回盲部動静脈奇形の1例

公立学校共済組合中国中央病院外科

齋藤 信也 坂井 邦典 笠原 潤治 原藤 和泉
折田洋二郎 塩崎 滋弘 浦久保直澄

A CASE OF MASSIVE MELENA FROM ARTERIOVENOUS MALFORMATION OF ILEOCECAL REGION, DIAGNOSED BY SELECTIVE ANGIOGRAPHY

Shinya SAITO, Kunitsune SAKAI, Junji KASAHARA,
Izumi HARAFUJI, Yohjiroh ORITA,
Shigehiro SHIOZAKI and Naozumi URAKUBO

Department of Surgery, Chugoku Central Hospital, The mutual aid
association of public school teachers

索引用語：消化管動静脈奇形，下部消化管出血，選択的動脈造影

I. はじめに

近年，下部消化管出血症例に対し，注腸造影検査や内視鏡検査で，出血部位の確定が困難な症例に対し，血管造影によって，はじめて病変の発見が可能となる疾患の存在が注目されている。そのなかのひとつに，1960年 Margulis¹⁾らによって報告された消化管の動静脈奇形 (arteriovenous malformation) がある。われわれは選択的上腸間膜動脈造影で診断しえ，手術にて治癒せしめた。回盲部の動静脈奇形の1例を経験したので，若干の文献的考察を加えて報告する。

II. 症 例

症例：64歳，男性。

主訴：下血。

家族歴：特記すべきことなし。

既往歴：11歳の時，腎炎。60歳から慢性肝炎と糖尿病で，内科的治療を受けている。

現病歴：1983年1月下旬，下血を認め，2月4日当院内科へ精査目的で入院。以後6月6日退院まで，注腸造影検査3回，大腸ファイバー検査2回，胃十二指腸ファイバー検査1回施行されるも，出血部位は確定できなかった。入院以後下血は認められなかったが，

便潜血反応は強陽性に持続した。患者の都合もあり一時退院し，外来にて経過観察中，11月下旬に再び下血をきたし，11月21日再入院した。再入院後現症：体格中等度，栄養可，血圧108/60mmHg，脈拍74/min，整，眼瞼結膜軽度貧血，皮膚粘膜異常なく，心雑音聴取せず，腹部は平坦，軟，心窩部にて肝を1横指半触知するも，辺縁鋭，軟であった。

臨床検査成績：便潜血反応(+)，白血球数6,300/mm³，赤血球数354×10⁴/mm³，Hb 11.1g/dl，Ht 36.4%，血小板15.5×10⁴/mm³，CRP(-)，ESR 14/26，梅毒反応(-)，血清蛋白総量6.8g/dl，血清アルブミン4.1g/dl，BUN 8.8mg/dl，血清鉄40γ/dl，75g OGTTで，糖尿病型，尿糖(++)，GOT 52u，腎機能，血液凝固能には異常なし。上部消化管内視鏡検査，大腸内視鏡検査を施行するも異常は認めず，12月8日選択的腹部動脈造影施行。

上腸間膜動脈造影所見：動脈相(写真1)で，回結腸動脈結腸枝の末梢に，盲腸壁に沿う異常な血管の集簇を認め，毛細血管相(写真2)で，盲腸壁腸間膜附着側の濃染と，上行結腸に沿う流出静脈の早期出現を認め，静脈相(写真3)で，流出静脈の長期造影を認めた。

以上の所見並びに，回盲部に，炎症性，腫瘍性病変を認めないことより，回盲部動静脈奇形と診断し，1984

<1985年1月16日受理>別刷請求先：齋藤 信也
〒721 福山市西深津町6-3-1 中国中央病院外科

写真1 動脈相

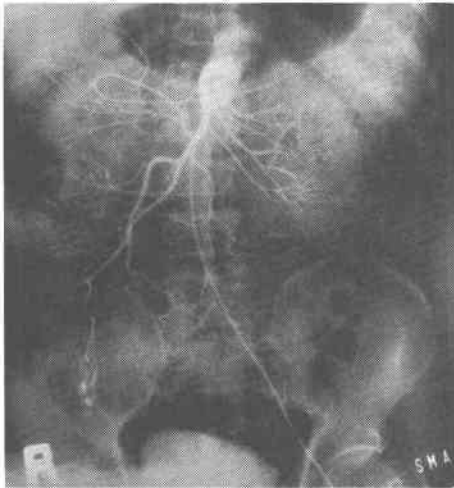


写真3 静脈相

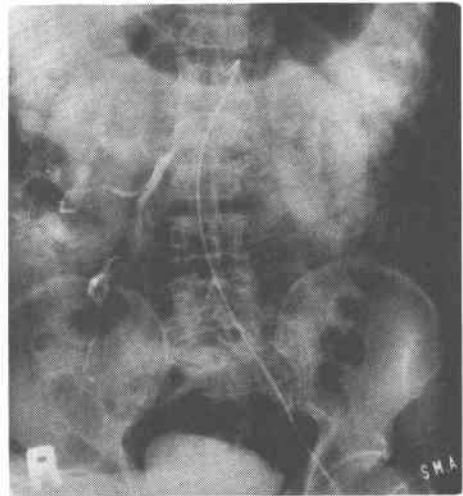


写真2 毛細血管相

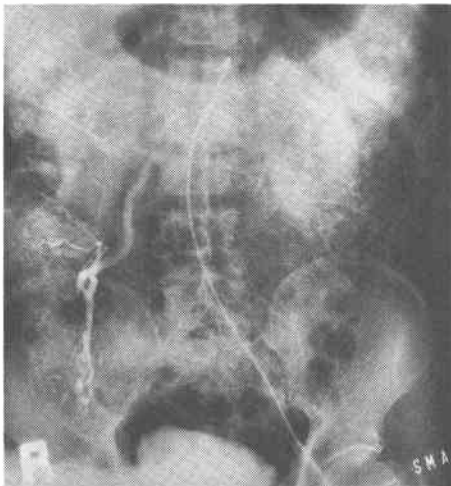
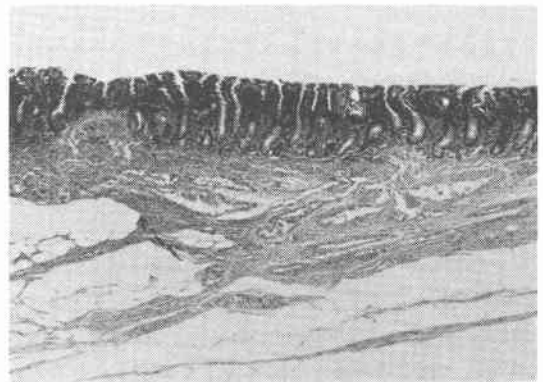


写真4 H-E ×40



年1月13日、手術施行。

手術時所見：術中、栄養動脈、流出静脈の同定はできず、回盲部切除を施行す。他の腹部臓器には異常を認めなかった。

切除標本所見：粘膜面に、腫瘤形成、潰瘍形成、びらん、ポリープなどの異常所見を認めず。

病理組織学的所見：盲腸壁全層にわたり、壁の肥厚した血管が増生し、特に粘膜下層に、不整形で動静脈を区別しがたい血管が血管壁を共有して、集塊を形成しており、一部では粘膜固有層へも波及している。(写真4)一部では、anastomosingを示す血管あり、血管壁の発達は不規則である。また一部には、弾性線維か

ら成る内弾性板の断裂を認めた。

術後経過：術後経過順調にて、2月24日退院。以後外来受診中なるも下血の徴候なし。

III. 考 察

消化管の動静脈奇形は、Marguilis¹⁾が、原因不明の消化管出血例に対し術中血管造影を施行し、血管造影上初めて本症の存在を明らかにし、これを報告して以来、欧米を中心に多数の報告例がみられる^{2)~10)}

一方、本邦では下山田¹¹⁾の報告以来、自験例を含め、18例の報告を認めた(表1)²²⁾²³⁾。年齢分布は20歳から70歳におよび、13例が50歳以上であった。性別では男性7例、女性11例で1:1.6と女性にやや多くみられた。主訴は消化管出血とそれに伴う貧血症状がほとんどの例に認められ、輸血を要した例もあった。病悩期間は最長15年、最短2週で、確定診断に至るまで長期間を

表1 本邦における消化管動静脈奇形報告例

| No | 報告者 | 年齢 | 性 | 主 訴 | 病歴期間 | 発 生 部 位 |
|----|--------|----|---|-------------|-------|------------|
| 1 | 下 山 田 | 52 | ♀ | 間歇的消化管出血 | 長 期 間 | 空 腸 |
| 2 | 古 川 | 70 | ♀ | 貧 血 | 15年 | 空腸・回腸・肝 |
| 3 | 松 本 | 63 | ♀ | 下血、貧血 | 1年3ヶ月 | 上行結腸 |
| 4 | 小 笠 原 | 57 | ♀ | 心悸亢進 | 1年2ヶ月 | 十二指腸 |
| 5 | 小 山 | 27 | ♂ | 吐・下血 | | 胃 |
| 6 | 天 目 | 50 | ♀ | 下血、左上腹疼痛 | 3年 | 空 腸 |
| 7 | 伊 間 | 40 | ♂ | 吐・下血 | 2週 | 空腸・上腸間膜 |
| 8 | 土 江 | 67 | ♀ | ターレ便 | | 回 盲 部 |
| 9 | 小坂(敬明) | 37 | ♀ | 眩暈、全身倦怠感 | 3ヶ月 | 回 腸 |
| 10 | 小 坂 | 63 | ♂ | 心 窩 部 痛 | | 十 二 指 腸 |
| 11 | 横 井 | 68 | ♀ | 下血、眩暈 | 8年 | 空腸、回腸、横行結腸 |
| 12 | 横 岡 | 58 | ♀ | 吐血、腹痛 | | 大 腸 |
| 13 | 山 中 | 20 | ♀ | 排便時出血 | 14年 | 直 腸 |
| 14 | 三 好 | 67 | ♂ | 吐 血 | 6年 | 胃 |
| 15 | 小 沢 | 36 | ♀ | 貧血、下血、全身倦怠感 | | 空 腸 |
| 16 | 草 野 | 54 | ♂ | 下 血 | 5年 | 空 腸 |
| 17 | 草 野 | 26 | ♂ | 下 血 | | 空 腸 |
| 18 | 自 験 例 | 64 | ♂ | 下 血 | 1年 | 回 盲 部 |

要し、頻回の検査が行われた例が多かった。発生部位は小腸が11例と最も多く、次いで結腸5例、胃2例、直腸1例、肝1例、上腸間膜1例であった。

動静脈奇形は病理学的に腫瘍性血管病変とは明確に区別されるべき疾患単位として確立されているが、消化管の動静脈奇形は報告者により、Arteriovenous malformation (Reuter)¹²⁾, arteriovenous anastomosis (Edi)¹³⁾, teleangiectasias (Rutter)¹⁴⁾, angiodysplasia (Nasbaum)¹⁵⁾, Vascular ectasia (Boley)¹⁶⁾などと表記されており、発生機序も含め概念上、多少差異がみられる。しかしこれらはすべて、血管造影上その特徴的な所見により確定診断がなされており、以上を一括して消化管動静脈奇形 (arteriovenous malformation) と呼ぶことにする。造影上の所見としては、Baum¹⁷⁾らが、①動脈相での異常小動脈の集簇、②毛細血管相での血管腔への造影剤の集中と腸管壁の濃染、③流出静脈の早期濃染、④静脈相後期までの流出静脈の造影、の4点をあげているが、他に動静脈の伴走、流出静脈の拡張、蛇行などがあげられる。

Alfidiら¹⁸⁾は血管造影上の所見により、これを4型に分類しているが、本例はその1型に相当するものと考えられる。

Mooreら¹⁹⁾は消化管動静脈奇形を、1型；孤立性で右半結腸に限局し、発症が55歳以上で、術中に視診、触診にて確認しえないもの、2型；1型より大きく、主として小腸に発生し、50歳以下で発症し、先天的要因が考えられるもの、3型；遺伝性出血性末梢血管拡張症 (Rendu-Osler-Weber 病) に伴うもの、の3型に分類している。欧米における報告例では、1型が最も

多く、Talmanら¹⁰⁾は52例を報告している。Lewiら²⁰⁾は診断困難な慢性の消化管出血の原因の25%までが、1型の動静脈奇形であると述べている。本症も1型の基準をすべて満たすが、本邦ではこのような1型の典型例の報告は少ない。本邦報告例についてみると、発生部位としては、小腸に多く発生年齢も50歳以下が9例みられ、むしろ2型が多いのではないかと考えられる。さらには、Mooreの基準で分類できない例もみられ、後述する発生機序を考えあわせると、この分類も再検討の余地があると思われる。

発生機序については、Boley¹⁶⁾は腸管壁の粘膜下静脈が筋層において筋肉の収縮に伴う間歇的な外圧を受け、その結果上昇した静脈圧がまず細静脈におよび、さらには、precapillary sphincterの機能が廃絶されるに至って動静脈奇形が発生すると推論している。一方、Galloway²¹⁾らは、大動脈弁狭窄症に下部消化管出血を合併する頻度が高く、その一因として右半結腸の動静脈奇形の存在を指摘しているが、Baum¹⁷⁾は心血管疾患に基づく、low cardiac outputが腸管粘膜の虚血をもたらし、それが粘膜下の動静脈瘻、ひいては血管拡張の形成を促進させるのではないかと推論し、Boleyと同様、動静脈奇形は、後天性疾患ではないかと述べている。本邦報告例では、心収縮期雑音を聴取している例はあるものの、明らかな弁膜症などの心疾患合併症の報告はない。

消化管動静脈奇形を、腹部血管造影上特徴的な所見を示す一つの症候群としてとらえるならば、これをすべて、後天性疾患として説明することは出来ず、Moore分類の1型の発生機序としてこれを採り、2型には別の機序を考えるべきであろう。一方Moore分類の1型に属するものは、一つの疾患単位として確立されてよいものと考えられ、これこそが、血管造影が唯一の診断手段となるという意味で、狭義の消化管動静脈奇形と言ってよいのではないかとと思われる。

自験例は本邦では珍しい、典型的なMoore分類の1型の例であるが、今後、原因不明の消化管出血に対し、血管造影が積極的に施行されるようになるにつれ、このような欧米型のMoore 1型の報告例も増加するものと考えられる。また、消化管動静脈奇形に対するMoore分類も再検討する必要があるものと考えられる。

IV. ま と め

従来、原因不明とされてきた消化管出血症例のなかに、腹部血管造影によって、はじめて診断可能となる

疾患として、消化管動静脈奇形の報告が増加しつつある。われわれは、その血管造影上の特徴ならびに分類について述べてきたが、最後に、原因不明の消化管出血症例に対する腹部血管造影の重要性を強調して稿を終えたい。

本論文の要旨は1984年7月、第24回日本消化器外科学会総会において発表した。

文 献

- 1) Margulis AR, Heinbecker P, Bernard HR: Operative mesenteric arteriography in the search for the site of bleeding in unexplained gastrointestinal hemorrhage. *Surgery* 48 : 534—539, 1960
- 2) Klein HJ, Alfydi RJ, Meaney TF et al: Angiography in the diagnosis of chronic gastrointestinal bleeding. *Radiology* 98 : 83—91, 1971
- 3) Gennant HK, Ranninger K: Vascular dysplasia of the ascending colon. Report of two cases and review of the literature. *AJR* 115 : 349—354, 1972
- 4) Corry RJ, Bartlett MK, Cohen RB: Erosions of the cecum. *Am J Surg* 119 : 106—110, 1972
- 5) Case records of the Massachusetts General Hospital (case 36 1974). *N Engl J Med* 291 : 569—575, 1974
- 6) Cavett CM, Selby JH, Hamilton JL et al: Arteriovenous malformation in chronic gastrointestinal bleeding. *Ann Surg* 185 : 116—121, 1977
- 7) Fowler DL, Fortin D, Wood WG et al: Intestinal vascular malformations. *Surgery* 86 : 377—385, 1979
- 8) Seedy PF, Fulton RE, Atwell DT: Angiographic evaluation of patients with chronic gastrointestinal bleeding. *AJR* 123 : 338—347, 1975
- 9) Crichlow RW, Mosenthal TW, Spiegel PK, et al: Arteriovenous malformation of the bowel. An obscure cause of bleeding. *Am J Surg* 129 : 440—448, 1975
- 10) Talman EA, Dixson DS, Gutierrez FE: Role of arteriography in rectal hemorrhage due to arteriovenous malformations and diverticulosis. *Ann Surg* 190 : 203—213, 1979
- 11) 下山田弘明, 中田幸之助, 野口輝彦ほか: 消化管大量出血の1治験例 (選択的動脈造影にて診断し得た空腸血管奇形). *日消外会誌* 8 : 294, 1975
- 12) Reuter SR, Redman HC: *Gastrointestinal angiography*. 2nd ed. Philadelphia, WB Saunders, 1977, p237—248
- 13) Edie RN, Brennan JT Jr: Colonic hemorrhage from arteriovenous anastomosis. Report of a case. *Arch Surg* 99 : 674—675, 1969
- 14) Rutter AG: Submucous teleangiectasias of the colon. *Lancet* 21 : 1077, 1956
- 15) Nasbaum M, Baum S, Blakemore WS: Clinical experience with the diagnosis and management of gastrointestinal hemorrhage by selective mesenteric catheterization. *Ann Surg* 170 : 506—514, 1969
- 16) Boley SJ, Samartano R, Adams A: On the nature and etiology of vascular ectasis of the colon. Degenerative lesion of aging. *Gastroenterology* 72 : 650—660, 1977
- 17) Baum S, Athanasoulis CA, Galdabini J et al: Andiodysplasias of the right colon: A case of gastrointestinal bleeding. *AJR* 129 : 789—794, 1977
- 18) Alfydi RJ, Esselstyn CD, Tarar R et al: Recognition and angio-surgical detection of arteriovenous malformation of the bowel. *Ann Surg* 174 : 573—582, 1974
- 19) Moore JD, Thompson NW, Appelman HD et al: Arteriovenous malformations of the gastrointestinal tract. *Arch Surg* 111 : 381—389, 1976
- 20) Lewi HJE, Glendhill T, Glimour HM et al: Arteriovenous malformations of the intestine. *Surg Gynecol Obstet* 149 : 712—716, 1979
- 21) Galloway SJ, Casarella WJ, Shimkin PM: Vascular malformations of the right colon as a cause of bleeding in patients with aortic stenosis. *Diag Radiol* 113 : 11—15, 1974
- 22) 天目純生, 笠原小五郎, 高橋正年ほか: 選択的動脈造影で診断した, 空腸壁動静脈形成異常 (Arteriovenous malformation) の1例. *胃と腸* 14 : 103—108, 1979
- 23) 横井香平, 吉富久吉, 大場 清ほか: 小腸・大腸に多発した動静脈奇形の1例. *消外* 5 : 369—373, 1982