

若年者大腸 angiodysplasia の1例

日本医科大学第1外科, 同 病理*

山中洋一郎 恩田 昌彦 田中 宣威 松倉 則夫
 中村 孝 青木 繁政 笹島 耕二 内田 英二
 小林 匡 相本 隆幸 浅野 伍朗*

症例は21歳男性。慢性反復性の下血を主訴に来院し、上腸間膜動脈造影検査にて回結腸動脈末端部の arteriovenous malformation と診断した。下血による高度の貧血が保存的に改善しないため、回盲部切除術を施行した。切除標本の病理組織学的検索では、粘膜固有層と粘膜下組織に壁の薄い小血管の拡張、蛇行が著明で、破綻血管も認められ、盲腸を中心とする回盲部の angiodysplasia と診断した。本症は、高齢者の右側結腸に好発し、血管造影あるいは内視鏡による診断が有用とされている。本邦では若年発症例は非常にまれであり、文献的考察を加え報告した。

Key words: angiodysplasia of young adult, angiodysplasia of the colon, gastrointestinal hemorrhage

はじめに

大腸 angiodysplasia は、高齢者の消化管出血の原因疾患として本邦においても近年報告が増えつつあるが、若年発症例はまれである^{1)~3)}。今回、われわれは21歳の男性に慢性反復性の下血が出現し、血管造影にて大腸 angiodysplasia を診断しえた1例を経験したので報告する。

症 例

患者：21歳，男性。

主訴：下血。

家族歴：特記すべきことなし。

既往歴：特記すべきことなし。

現病歴：昭和61年10月，12月に下血と強い腹痛がみられ，本院救命救急センター，内科受診したが，明らかな異常は指摘されず，原因不明のまま下血は消失した。平成1年12月20日ごろより下血が再発し，21日内科再来，入院となる。

入院時現症：体格中等度。栄養状態，良好。眼瞼結膜，貧血なし。眼球結膜，黄染なし。腹部は平坦，肝脾腫なし。圧痛なし。

入院時検査所見：白血球数 $15,300/\text{mm}^3$ と増加，赤血球数 $369 \times 10^4/\text{mm}^3$ ，Hb 11.4g/dl，Ht 33.8%と軽度の貧血を認めた。血清総蛋白は5.5g/dlと低下し，便潜血は陽性であった (Table 1)。

Table 1 Laboratory data on admission

WBC	15300/mm ³
RBC	$369 \times 10^4/\text{mm}^3$
Hb	11.4 g/dl
Ht	33.8 %
Platelet	$28.9 \times 10^4/\text{mm}^3$
PT	11.6 sec
APTT	36 sec
Fibrinogen	153 mg/dl
TP	5.5 g/dl
Alb	3.7 g/dl
GOT	23 IU/l
GPT	34 IU/l
LDH	290 IU/l
BUN	19 mg/dl
Creatinin	1.0 mg/dl
Na	142 mEq/l
K	3.9 mEq/l
Cl	110 mEq/l
Ca	8.6 mg/dl
CEA, CA19-9	within normal limited
Urinalysis:	normal

緊急大腸内視鏡検査：上行結腸に血液凝塊を認めたが，出血部位は同定できなかった (Fig. 1)。

緊急上腸間膜動脈造影：動脈相で回結腸動脈末端部に濃染像と拡張像を認めた (Fig. 2)。

^{99m}TcRBC シンチグラム：回盲部に集積像がみられ，出血を確認しえた (Fig. 3)。

以上より arteriovenous malformation と診断した

<1990年10月11日受理>別刷請求先：山中洋一郎

〒113 東京都文京区千駄木1-1-5 日本医科大学第1外科

Fig. 1 Colonoscopy showing massive blood coagulation in ascending colon



Fig. 2 Superior mesenteric arteriogram. Arterial phase showing early filling and dilated arteries, indicating area of angiodysplasia in ileocecum (Arrow)

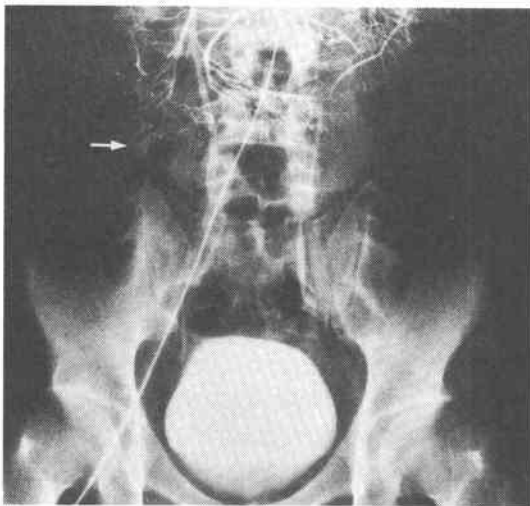


Fig. 3 $^{99m}\text{TcRBC}$ scintigram revealing bleeding region in ileocecum (Arrow)

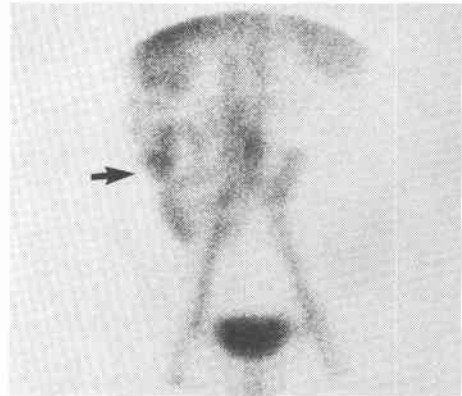
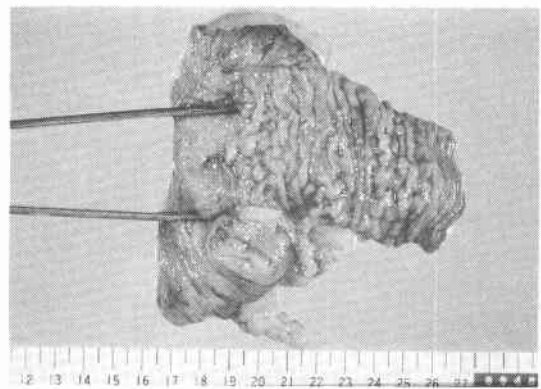


Fig. 4 Resected specimen showing elliptic erosive lesion (5×1mm) of angiodysplasia in ileocecum



が、その間1,200mlの輸血を行っても貧血は改善されず、12月29日には赤血球数 $177 \times 10^4/\text{mm}^3$ 、Hb 5.3g/dl、Ht 16.2%となり、当科に転科し、直ちに緊急手術となる。

手術所見：右傍正中切開により開腹し、消化管を視触診にて検索したところ、回盲部附近に漿膜面より明

らかに指摘できる病変を認めえなかった。回腸末端および盲腸を切開し、粘膜を視診したところ出血巣はみられなかったが、回腸末端部に長径5mm程の暗赤色の平坦な病変を発見したため、回盲部切除術を施行した。

切除標本所見：回腸末端部には、約 $5 \times 2\text{mm}$ の楕円形の平坦なびらん様病変を認めた (Fig. 4)。

病理組織所見：回腸末端部から盲腸の粘膜固有層、粘膜下組織に、一層の内皮細胞に被覆され、高度に拡張、蛇行した血管群が認められた (Fig. 5)。肉眼上びらん様病変にみえた部位では、粘膜上皮は欠損し、粘膜固有層には拡張した血管の破綻による著明な出血とヘモジデリンの沈着がみられ、慢性出血の原因病変であると考えられた (Fig. 6)。

以上より盲腸 angiodysplasia と診断し、臨床的にみられた下血の原因病巣であると判断した。

Fig. 5 Microphotograph showing angiodysplasia. Both erosion of mucosal membrane and dilated vessel that has ruptured (H.E. staining, $\times 25$)

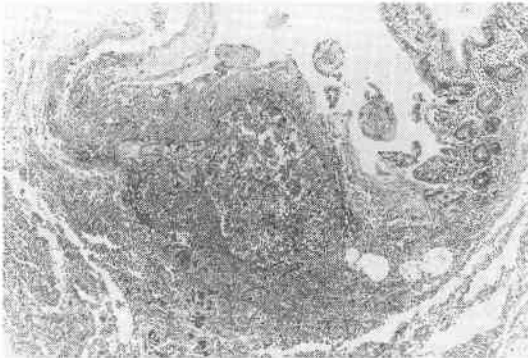
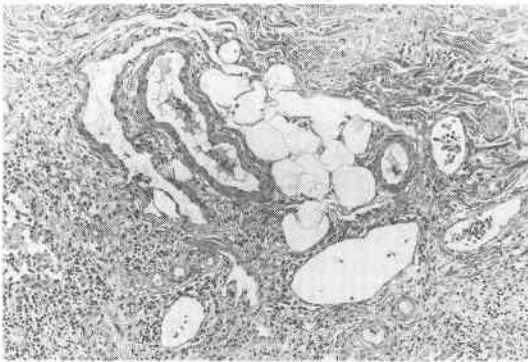


Fig. 6 Microphotograph showing angiodysplasia. Clusters of dilated thin-walled vessels in sub-mucosa (H.E. staining, $\times 50$)



術後経過：良好で，再出血はみられず，数回にわたる便潜血検査でも陰性であった。

考 察

下部消化管出血の原因として腫瘍性病変，炎症性腸疾患，大腸憩室症が多いが，近年，特に高齢者の下部消化管出血に大腸 angiodysplasia の報告が増加している^{1)~3)}。

angiodysplasia は Galdabini⁴⁾により命名された疾患であるが，臨床的には広義の arteriovenous malformation の亜型とされており⁵⁾，同義語には vascular ectasia などがある。

本症は欧米では高齢者に好発し，慢性反復性の消化管出血をきたす疾患として知られており，若年者の場合は大腸でもみられるが⁶⁾，むしろ空腸に多いとされている⁷⁾。しかし，本邦における大腸 angiodysplasia は

Table 2 Reported cases of angiodysplasia of colon in young patients in Japan

Reporting investigator	Age	Sex	Location	Diagnostic method	Therapy
1. Yamanaka (1981)	20	F	Rectum	Angiography	Resected
2. Kikuchi (1988)	7	F	Ileum Cecum A. C. T. C.	Angiography Colonoscopy	Resected
3. Present case (1990)	21	M	Ileum Cecum	Angiography	Resected

A. C. : Ascending colon

T. C. : Transverse colon

自験例を含めても今までに48例と少なく¹⁾⁸⁾⁹⁾，そのうち，60歳以上が36例(75%)を占め，若年発症例は7歳，20歳の2例に21歳の本症例を加えて，わずか3例(6%)にすぎない(Table 2)。好発部位は全年齢で見ると，回盲部から上行結腸までが48例中35例(73%)と最も多く，他方，本症例を含めた若年発症の3例では，回盲部(本症例)，回盲部から横行結腸，直腸がそれぞれ1例ずつである。

本症の原因については，高齢者に頻発することから，長年の腸管の収縮と拡張により腸管壁の脈管の退行性変化であろうと考えられており¹⁰⁾，また合併疾患に心，肺，脈管疾患があり，さらに好発部位が終末動脈の回盲動脈であることから，微小循環系での慢性的な低酸素状態を考える説もある¹¹⁾。しかし本症例のように比較的若年者に発見されるものは¹⁾⁶⁾⁸⁾⁹⁾，先天性要因が関与しているのではないかという報告もあり⁵⁾，また約16%は大腸以外で発見されるため⁷⁾，原因の解明はいまだ不十分である。

下部消化管 angiodysplasia の症状は年齢をとわず下血で，本症例のように慢性間歇的に繰返す出血が特徴的であり，他の消化器症状を伴うことは少ない。無症状例も約80%存在し，これらは他疾患検索時に内視鏡あるいは血管造影で発見されている¹²⁾¹³⁾。

診断は，血管造影により異常血管を描出させるか，内視鏡によって鮮紅色の平坦な境界明瞭な血管性病変を確認することによる。本邦若年発症の3例では，いずれも血管造影で診断されており，そのうち1例のみは血管造影で確認された後，内視鏡検査でも認められている。部位診断として，最近では手術時に病巣を容易に確認するため，術中内視鏡を用いて，光の透過により漿膜面から angiodysplasia を同定し切除する方法も試みられている⁷⁾。病理組織学的には，粘膜固有層にブドウの房状の拡張した壁の薄い小血管群が存在

し、粘膜下層の静脈は高度に拡張し、蛇行を示す¹⁴⁾。

治療としては外科的療法、hot-biopsy やレーザー凝固法がなされ、いずれも有効な方法と言われている。欧米では hot-biopsy やレーザー凝固法を用いることが多く、非侵襲的で評価が高いが¹¹⁾、その適応は10mm 以内の病変とされており¹⁵⁾、大量出血例や慢性出血例では手術の適応となる³⁾¹⁰⁾。自験例を含めた本邦48例では、手術が31例(65%)で、経過観察は6例(13%)、hot-biopsy は2例(4%)、レーザー凝固法1例(2%)、その他8例は不明である¹⁾。そのうち若年発症例の3例は、すべて手術例に含まれる。

若年者の下部消化管出血の原因として大腸 angiodysplasia はまれであり、本症を当初から念頭に置くことは難しいため、診断が困難になることが考えられる。若年者の場合、検査法としては、内視鏡検査に比べ血管造影の方がより有用と思われる。また、治療としては現在までのところ、全例に外科的治療がなされているが、病変が小さく、出血量の少ない早期に診断されれば、非観血的治療法も有用と思われる。

文 献

- 1) 坂 充, 小野重明, 平原美孝ほか: 大腸 angiodysplasia の1例. *Gastroenterol Endosc* 32: 125-130, 1990
- 2) 平野治和, 清光義則, 安田清平ほか: 上腸間膜動静脈奇形 (angiodysplasia) の1治験例. *外科診療* 28: 120-123, 1986
- 3) 固武健二郎, 小山靖夫, 関口忠司ほか: 直腸 Angiodysplasia の1例. *日本大腸肛門病学会誌* 40: 297-302, 1987
- 4) Galdabini J: Case records of the Massachusetts General Hospital: Case 36-1974. *N Engl J Med* 129: 569-575, 1974
- 5) Moore JD, Thompson NW, Appelman HD et al: Arteriovenous malformations of the gastrointestinal tract. *Arch Surg* 111: 381-389, 1976
- 6) Allison DJ, Hemingway AP: Angiodysplasia: Does old age begin at nineteen? *Lancet* II: 979-980, 1981
- 7) Lau WY, Wong SY, Yuen WK et al: Intraoperative endoscopy for bleeding angiodysplasias of small intestine. *Surg Gynecol Obstet* 168: 341-344, 1989
- 8) 山中若樹, 岡本英三, 桑田圭司ほか: 内痔核出血とまぎらわしい直腸動静脈奇形の1治験例. *日消病会誌* 78: 1293-1297, 1981
- 9) 菊地安徳, 菊地 秀, 斎藤俊博ほか: 7歳児にみられた結腸 angiodysplasia の経験. *日消病会誌* 85: 1578, 1988
- 10) Boley SJ, Brandt LJ: Vascular ectasias of the colon-1986. *Dig Dis Sci* 31: 26S-42S, 1986
- 11) Rogers BHG: Endoscopic diagnosis and therapy of mucosal vascular abnormalities of the gastrointestinal tract occurring in elderly patients and associated with cardiac, vascular, and pulmonary disease. *Gastrointest Endosc* 26: 134-138, 1980
- 12) Richter JM, Hedberg SE, Athanasoulis CA et al: Angiodysplasia clinical presentation and colonoscopic diagnosis. *Dig Dis Sci* 29: 481-485, 1984
- 13) Höchter W, Weingart J, Kühner W et al: Angiodysplasia in the colon and rectum. Endoscopic morphology, localization and frequency. *Endoscopy* 17: 182-185, 1985
- 14) Mitsudo SM, Boley SJ, Brandt LJ et al: Vascular ectasias of the right colon in the elderly: A distinct pathologic entity. *Hum Pathol* 10: 585-600, 1979
- 15) Howard OM, Buchanan JD, Hunt RH: Angiodysplasia of the colon experience of 26 cases. *Lancet* II: 16-19, 1982

A Case of Angiodysplasia of the Colon in Youth

Yoichiro Yamanaka, Masahiko Onda, Noritake Tanaka, Norio Matsukura, Takashi Nakamura,
Shigemasa Aoki, Koji Sasajima, Eiji Uchida, Tadashi Kobayashi,
Takayuki Aimoto and Goro Asano*

First Department of Surgery, Nippon Medical School

*Department of Pathology, Nippon Medical School

A 21-year-old Japanese man complained of chronic recurrent gastrointestinal bleeding. Superior mesenteric arteriography revealed an arterio-venous malformation in the ileocecum, and ileocecal resection was performed. Histologically, the lesion was ileocecal angiodysplasia mainly in the cecum. The area of angiodysplasia contained

numerous dilated and tortuous thin-walled vessels, one of which was ruptured, in the mucosal and the submucosal areas. The predominant site of bleeding intestinal angiodysplasia is the cecum or ascending colon in elderly patients, for whom selective visceral angiography (SVA) and colonoscopy are commonly used for diagnosis. What makes this case noteworthy is that the patient was young and the presence of colonic angiodysplasia was revealed only after SVA identified the lesion.

Reprint requests: Yoichiro Yamanaka First Department of Surgery, Nippon Medical School
1-1-5 Sendagi, Bunkyo-ku, Tokyo, 113 JAPAN
