

## 脾頭部動静脈奇形の1切除例

奈良県立医科大学第1外科, 同 放射線科\*

杉森 志穂 中島 祥介 金廣 裕道 吉村 淳  
高 濟峯 中野 博重 打田日出夫\*

脾頭部の動静脈奇形(以下, AVM)の1切除例を経験したので報告する。患者は36歳の男性。タール便と激しい上部腹痛を主訴に近医を受診, 精査目的に当科に入院した。入院時検査では, 貧血を認める以外に異常所見はなかった。血管造影検査で, 脾頭部に一致した網目状の血管増生と流入する動脈の拡張, 門脈の早期描出が認められ, 脾頭部 AVM と診断した。超音波カラードップラー法は血管性病変の診断や術中切除範囲の決定に非常に有効であった。幽門輪温存脾頭十二指腸切除術を施行した。摘出標本の病理組織には大小不同の異常血管の集簇を認め, AVM と確診した。

本邦での脾領域の AVM の報告例は, 我々の検索しえた範囲では40例である。消化管出血を主訴とすることが多いが, 複数の流入血管を有し動脈塞栓術では根治的治療とならないことがあり, 全身状態が許す限り切除術が望まれる。

**Key words:** pancreas, arteriovenousmalformation, pylorus preserving pancreaticoduodenectomy

### はじめに

脾動静脈奇形(arteriovenous malformation: 以下, AVM と略記)は消化管出血, 腹痛を主症状とするまれな疾患とされており, 我々が検索しえた範囲では本邦で40例が報告され, 近年の血管造影などの画像診断の発達により, その報告例は増加している。今回, タール便と激しい上腹部痛を主訴として発症し, 術前画像診断で脾頭部 AVM と診断し, 幽門輪温存脾頭十二指腸切除を行った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。

### 症 例

患者: 36歳, 男性

主訴: タール便と激しい上腹部痛

既往歴: 12歳時胃十二指腸潰瘍

家族歴: 特記すべきことなし。

現病歴: 平成4年1月から時折タール便が出現したが放置していた。2月頃からは上腹部痛が出現したため近医を受診し, 胃潰瘍の診断で投薬を受けていた。8月頃より上腹部痛が増強したため胃内視鏡検査を受け, 十二指腸乳頭近傍の潰瘍からの出血が認められた。また腹部 CT にて脾頭部に腫瘤を指摘され, 精査加療目的で当科を受診し, 11月4日入院した。

入院時現症: 眼瞼結膜に軽度の貧血を認めた。腹部は平坦軟で, 腫瘤を触知せず, 心窩部に圧痛を認めた。また, 時折激しい上腹部痛を訴え, 持続硬膜外ブロックを必要とした。

入院時検査成績: Hb 9.4g/dl, RBC  $352 \times 10^4 / \text{mm}^3$  と軽度の貧血を認めた以外には異常は認められなかった。

Pancreatic function diagnostant (PFD) test は 30.3% と低下していた。75g OGTT は正常であった (Table 1)。

上部消化管内視鏡検査: 門歯列より33cmの食道壁

Table 1 Laboratory data on admission

WBC	5,700 /mm <sup>3</sup>	LDH	294 IU/l
RBC	$352 \times 10^4 / \text{mm}^3$	T-BIL	0.1 mg/dl
Hb	9.4 g/dl	$\gamma$ -GTP	23 IU/l
Ht	30.0 %	ChE	345 IU/l
Plt	$24.5 \times 10^4 / \text{mm}^3$	TP	5.8 g/dl
AFP	2.0 ng/ml	Alb	3.9 g/dl
CEA	0.8 ng/ml	Amylaze	173 IU/l
CA19-9	7.6 U/ml	BUN	7 mg/dl
75g-OGTT		Cre	0.8 mg/dl
	Normal pattern	UA	7.0 mg/dl
GOT	13 IU	Na	139 mEq/l
GPT	14 IU	K	4.0 mEq/l
ZTT	1.7 MU	Cl	105 mEq/l
TTT	3.6 IU	FBS	123 mg/dl
ALP	204 IU/l		

<1995年1月11日受理>別刷請求先: 杉森 志穂

〒634 橿原市四条町840 奈良県立医科大学第1外科

に毛細血管の拡張を認めるが明らかな静脈瘤はなかった。また十二指腸乳頭の近傍に fold の集中を伴う潰瘍瘢痕があり、その中央に白苔の付着を認めた。

腹部超音波検査：膵頭部から鉤部にかけて、門脈、上腸間膜静脈を囲むようにして、約5×3cm大の hypoechoic mass を認めた (Fig. 1)。カラードップラー法では、mass に一致して、モザイク状のカラー表示が得られ、一定の方向性をもたない高速度の血流の存在が考えられた。

腹部CT検査：plain CT では、膵頭部から鉤部にかけて、径3cm大の膵とほぼ同様の density の mass を認めた。dynamic CT でこの mass は、大動脈、上腸間膜動脈が濃染している時相で、多結節状に濃染された (Fig. 2)。

腹部MRI検査：膵頭部から鉤部にかけて T1強調では低信号 (Fig. 3)、T2強調では高信号を呈する多胞性の mass を認めた。

腹部血管造影検査：腹腔動脈幹からの造影では、胃

**Fig. 1** Abdominal ultrasonography : there is a hypoechoic mass in the pancreas head. (T)



**Fig. 2** Abdominal CTscan with bolus injection study shows a dense opacification in the pancreas head at early arterial phase.



**Fig. 3** MRI (T<sub>1</sub> emphasis) : There is a low intensity tumor in the pancreas head.



十二指腸動脈の拡張と膵頭部に一致した網目状血管増生、門脈の早期描出を認め (Fig. 4a)、上腸間膜動脈からの造影では、下膵十二指腸動脈の拡張と膵頭部の同様の濃染、門脈の早期描出を認めた (Fig. 4b)。

以上より、胃十二指腸動脈と下膵十二指腸動脈を主な流入血管とし、門脈系へ流出する膵頭部から鉤部にかけての AVM と診断し、11月18日手術を行った。

手術所見：膵臓の形態には異常を認めなかったが、膵頭部後面を中心に上腸間膜静脈の周囲から肝十二指腸間膜内におよぶスポンジ状の腫瘤が存在し、門脈系への流出静脈も認めた。術中超音波検査では術前の所見と同様に、門脈を取り囲むように約4cm大の mass を認め、カラードップラー法ではモザイク状のカラー表示を得た (Fig. 5)。幽門輪温存膵頭十二指腸切除を施行した。術中に門脈圧を測定したが、切除前の門脈圧は9mmHg、切除後は3mmHgであった。

術後経過は良好で、上腹部痛、タール便は消失した。

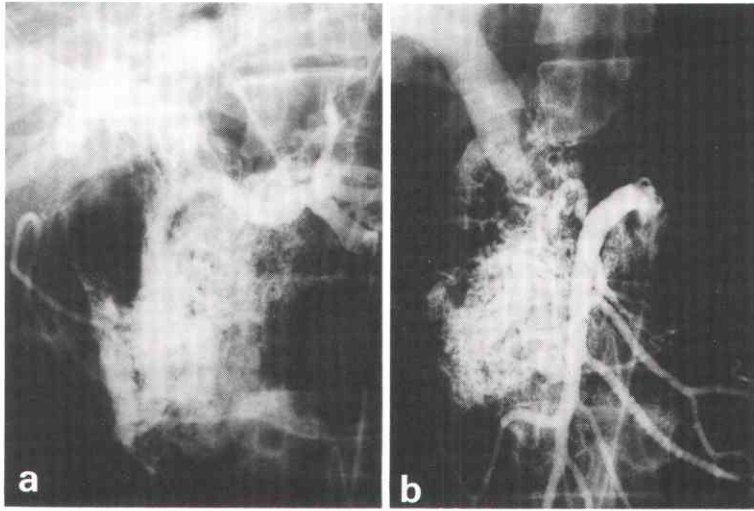
摘出標本：病変部はスポンジ状で、正常膵組織との境界は明瞭ではなかった (Fig. 6a)。また、十二指腸粘膜には径3mm、6mmの2つの小潰瘍が認められた。

病理組織学的所見：病変には大小不同の動脈様、静脈様の異常血管が、混在して密に配列しており、AVM と診断した。病変は膵組織内にとどまらず、十二指腸壁内にも及んでいた (Fig. 6b)。

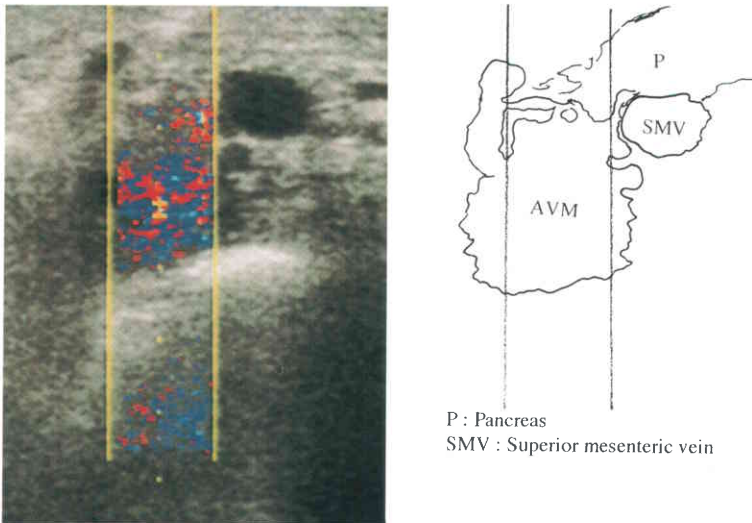
### 考 察

膵臓の AVM はまれな疾患であるが、近年の血管造影の普及によりその報告は次第に増加している。我々が検索しえた範囲では、これまで本邦では40例が報告されている (Table 2)。男女比は3:1と男性に多く、年齢は33歳から73歳、平均53.7歳で、中高年層に多く見られた。消化管の AVM は、原始血管網の遺残によ

**Fig. 4** Celiac (a) and superior mesenteric (b) angiography show marked hyper-vascularity in the pancreas head at early arterial phase. Massive early portal filling of the arterial blood is demonstrated.



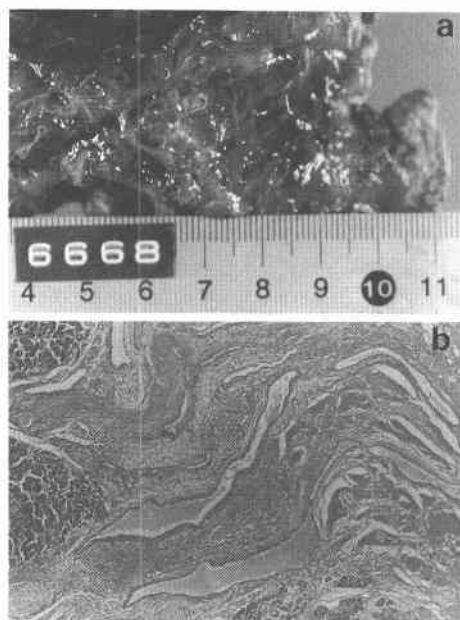
**Fig. 5** Dopple ultrasound shows a mosaic pattern signals in the pancreas head, which is useful to clarify the location of the AVM.



る先天性のものと、腫瘍、炎症や外傷により生じた後天性のものに分類される<sup>1)</sup>。本邦報告例では膵 islet cell tumor 合併の2例以外は全例先天性と考えられた。自験例も、外傷や炎症の既往はなく、先天性のAVMと考えられる。欧米では Rendu-Osler-Weber 病の合併例が多いが、本邦では1例と少数である。初発

症状としては、消化管出血が多く、40例中21例が何らかの消化管出血を主訴として発症している。膵のAVMが消化管出血をおこす機序として、Chuangらは、1) AVMから膵管内への出血、2) 合併する消化管粘膜AVMからの出血、3) 門脈圧亢進による食道胃静脈瘤からの出血の3つを挙げている<sup>2)</sup>。21例中13例

**Fig. 6** a: A cut surface of the resected specimen shows a spongy appearance.  
b: Histology of the resected specimen demonstrates the abundant abnormal vessels.



**Table 2** Clinical characteristics of 40 patients with AVM of the pancreas

	Variable	No. of patients	
Sex	Male	31	
	Female	9	
Localization	Head	16	
	Body-tail	18	
	Entire pancreas	5	
Chief complaint	Unknown	1	
	G.I. bleeding	21	
	Abdominal pain	6	
	Portal hypertension	2	
	Abdominal discomfort	2	
	Intraabdominal bleeding	1	
	Others	4	
	Unknown	5	
	Complication	Varices	15
		Liver cirrhosis	9
Hepatoma		5	
Duodenal ulcer		4	
AVM of other organs		3	
Pancreas islet-cell tumor		2	
Rendo-Osler-Weber syndrome		1	
Unknown		1	
Treatment	Pancreatic resection	12	
	Operation to portal hypertension	10	
	Transarterial embolization	7	
	Arterial ligation	5	
	Palliative therapy	5	

に食道静脈瘤からの出血，1例に膵管からの出血を認めた。消化管粘膜AVMからの出血例はなかった。Chuangらの挙げた機序以外に，十二指腸潰瘍からの出血が3例，AVMの十二指腸粘膜への露出，十二指腸の広範びらんがそれぞれ出血の原因となっている例が1例ずつあった。食道静脈瘤からの出血例には，肝硬変，肝細胞癌合併例が含まれており，これらの症例では，門脈圧亢進は肝硬変の関与も考えられる。自験例での下血は十二指腸乳頭近傍の潰瘍が原因と考えている。十二指腸潰瘍と膵AVMとの因果関係は明らかではないが，AVMによって十二指腸粘膜に局所的な血行不良が生じるためであろうと考察されている<sup>3)4)</sup>。

膵AVMの診断には，種々の画像診断法が用いられているが，血管造影は本症のような血管性病変の確定診断には必要不可欠である。これまでの報告例の全例に施行されており，なかには，肝腫瘍の精査目的で施行された血管造影検査で膵のAVMが発見された例もある<sup>5)6)</sup>。本症の血管造影での特徴的な所見には，動脈相早期に認められる拡張蛇行した流入動脈と末梢枝の網目状の血管増生，毛細管相における濃染像，続いて流出静脈および門脈が早期に描出されることなどが

あげられる<sup>7)</sup>。自験例では胃十二指腸動脈，下十二指腸動脈の拡張と膵頭部に一致した叢状の濃染，門脈の早期描出を認めた。その他，CTでは特にdynamic CTが有用であり，動脈相早期の病変の濃染と門脈の早期描出が認められる。超音波検査では，膵腫瘤性病変の質的診断は困難なことも多いが，今回はカラードップラー法を用いることにより血管性病変であることを示すことができた。さらに術中に用いたことによって正常膵組織との境界を明瞭にし，大血管との関係も明らかにすることができ，本法は非常に有用であった。

治療法としては外科的切除，経血管カテーテル動脈塞栓術 (transcatheter arterial embolization: 以下，TAE)，血管結紮術などが行われている。一般にAVMは複数の流入動脈を持つことが多く，すべてを塞栓，結紮することは容易ではないことから，積極的に膵組織を含む切除が行われるようになってきている<sup>8)9)</sup>。食道静脈瘤合併症例では全身状態を考慮して第1選択としてTAEや血管結紮術が行われることが多いが，一時的な効果は得られても根治療法ではなく，生命予後は必ずしもよくない<sup>10)</sup>。全身状態不良の場合は塞栓術，

結紮術などでの出血のコントロールを行った後に切除するのもよい方法であると考え、AVM自体は良性の疾患であるが、放置すれば門脈圧亢進症の原因となり、進行する可能性もあり<sup>10)11)</sup>、また脾頭部AVMによる腹腔内大量出血からショックに陥った例<sup>12)</sup>も報告されている。今回、我々は良性疾患である脾頭部AVMに対して、術後の機能温存を考慮して幽門輪温存脾頭十二指腸切除を施行し、良好な結果を得た。本症を診断しえた場合は、全身状態を考慮して可及的早期の外科的切除が適当と考える。

#### 文 献

- 1) Halpern M, Turer AF, Citron BP et al: Hereditary hemorrhagic teleangiectasia -- An angiographic study of abdominal visceral angiodysplasia associated with gastrointestinal hemorrhage. *Radiology* 90: 1143-1149, 1968
- 2) Chuang VP, Dulmano CM, Walter JH et al: Angiography of pancreatic arteriovenous malformation. *Am J Roentgenol* 129: 1015-1018, 1977
- 3) Grannis FW, Foulk WT, Miller WT et al: Diagnosis and management of an arteriovenous fistula of pancreas and duodenum. *Mayo Clin Proc* 48: 780-782, 1973
- 4) Hines JR, Styker SJ, Neiman HL et al: Intraoperative angiography in intestinal angioplasty. *Surg Gynecol Obstet* 152: 453-460, 1981
- 5) 野村益代, 松川滋夫, 安田敏男ほか: 脾動静脈奇形の1例. *臨床内科* 2: 1355-1359, 1987
- 6) Uchino A, Ishino Y, Ohno M et al: Arteriovenous malformation of the pancreas associated with mesenteric varices: Case report and review of the literature. *Radiat Med* 7: 6-9, 1989
- 7) 森田 稜, 斎藤博哉, 篠原正裕ほか: 脾動静脈奇形の臨床, 画像的検討. *胆と脾* 19: 605-613, 1988
- 8) Mizutani N, Masuda Y, Naito N et al: Pancreatic arteriovenous malformation in a patient with gastrointestinal hemorrhage. *Am J Gastroenterol* 76: 141-144, 1981
- 9) 橋本光代, 山田直行, 福地創太ほか: 十二指腸傍乳頭部潰瘍と総胆管十二指腸瘻を合併した脾頭部動静脈奇形の1例. *日消病会誌* 80: 1469-1500, 1983
- 10) 小島俊也, 城田東湖, 掛井 信ほか: 著名な門脈圧亢進を示した脾動静脈奇形の1剖検例. *日消病会誌* 84: 1855-1858, 1987
- 11) 岩井裕子, 生田目公夫, 池田忠明ほか: 脾頭部動静脈奇形に合併した胃静脈瘤の2症例. *昭和医学会誌* 51: 226-230, 1991
- 12) 堀井淳史, 山本博史, 木村 昇ほか: 腹腔内に出血を来した脾頭部の動静脈奇形の1例. *日臨外医会誌* 53: 1956-1961, 1992

### A Resected Case of Arteriovenous Malformation at the Pancreas Head

Shiho Sugimori, Yoshiyuki Nakajima, Hiromichi Kanehiro, Atsushi Yoshimura,  
Saiho Ko, Hiroshige Nakano and Hideo Uchida\*  
The First Department of Surgery and Radiology\*, Nara Medical University

A case of arteriovenous malformation (AVM) of the pancreas head is described. A 36-year-old man was admitted to our hospital with complaints of tarry stool and severe epigastralgia. Laboratory studies revealed anemia only. Abdominal ultrasonography, CT scan, and MRI demonstrated a tumor in the pancreas head. The celiac trunk and superior mesenteric angiography revealed a hypervascular lesion in the pancreas head and early filling of the portal vein. The diagnosis of AVM was obtained. Doppler ultrasound was useful not only to diagnose the AVM, but also to determine the range of resection. Pylorus-preserving pancreaticoduodenectomy was performed. Histological examination of the resected specimen revealed abundant abnormal vessels including arteries and veins. AVM in the pancreatic region is a relatively rare condition. To our knowledge, only 40 cases have been reported in Japan. In many cases, gastrointestinal bleeding was present. Since AVM has multiple feeding arteries, transarterial embolization is not always effective, but surgical resection would be a radical treatment.

**Reprint requests:** Shiho Sugimori First Department of Surgery, Nara Medical University  
840 Shijo-cho, Kashihara, 634 JAPAN