

膵頭部動静脈奇形の1例

八王子消化器病院, 東京女子医科大学消化器外科*

鈴木 修司 羽生富士夫 田中 精一
 今里 雅之 武雄 康悦 寺本 穂波
 古賀 友之 林 恒男 高崎 健*

膵動静脈奇形は非常にまれな疾患で, 外科的切除にて根治できた1例を経験したので, 文献的考察を加え報告する。症例は49歳の男性, 心窩部痛, 背部痛を主訴に当院受診し, 疼痛の増悪を認めたため入院となった。入院後超音波検査にて膵頭部に低エコー域を認め, ドップラーエコーにて同部に拍動性の速い血流を認めた。MRCPにて総胆管末端の狭窄を認めたため, ERCPを施行し, 胆道出血と総胆管末端の狭窄を確認した。また dynamic CTでは膵頭部に蛇行した血管の増生と同時相の門脈早期濃染を認めた。腹部血管造影検査では動脈相早期より膵頭部に網状新生血管が描出され, 門脈の早期描出も認めたことから, 膵頭部動静脈奇形と診断し, 疼痛除去と胆管狭窄改善目的に全胃幽門輪温存膵頭十二指腸切除術を施行した。病理標本においても拡張した細動静脈を認めた。術後経過は良好であり, 疼痛も完全に除去することができた。

Key words: pancreatic arteriovenous malformation, magnetic resonance cholangiopancreatography, doppler ultrasonography

はじめに

膵動静脈奇形(以下, AVMと略す)は非常にまれな疾患であるが¹⁾²⁾, 近年各種画像診断検査の発達に伴い報告が増加している²⁾³⁾。今回, 我々は心窩部痛, 背部痛を契機に術前診断し, 膵頭十二指腸切除にて根治できた膵頭部 AVM の1例を経験したので報告する。

症 例

症例: 49歳, 男性

主訴: 心窩部痛, 背部痛

家族歴: 特記すべき事なし。

既往歴: 平成6年12月近医に急性膵炎で入院加療。

現病歴: 急性膵炎後全くの無症状であった。平成8年5月下旬より食後に増悪する心窩部痛, 背部痛を自覚した。近医受診し, 外来通院加療するも軽快せず, 6月18日当院紹介受診となった。疼痛強く, 食事も摂取できなくなったため, 7月1日入院となった。

入院時現症: 身長168cm, 体重63kg。貧血, 黄疸なく心肺に異常なし。腹部も異常なく, 圧痛も認めなかった。

入院時検査成績: BUN, Creatinin の軽度上昇, 尿

アミラーゼの軽度上昇, 白血球の上昇を認めたが, リパーゼ, 腫瘍マーカーの異常は認められなかった (Table 1)。

腹部超音波検査: 膵頭部に脈管様構造を示す low echoic area を認め, ドップラーエコーにて膵頭部の脈管様構造中に拍動性の high flow の血流を認めた (Fig. 1, 2)。

Dynamic computed tomography (CT) 検査: 膵頭

Table 1 Laboratory findings

TP	7.1 g/dl	WBC	13,500 μ l
Alb	4.4 g/dl	RBC	490 $\times 10^4$ / μ l
T-Bil	0.4 mg/dl	Hb	15.0 g/dl
D-Bil	0.2 mg/dl	Ht	44.3 %
GOT	34 IU/L	Plt	23.5 $\times 10^4$ / μ l
GPT	20 IU/L	CA19-9	8 U/ML
LDH	375 IU/L	elastase 1	72 NG/DL
ALP	200 IU/L	lipase	32 IU/L
γ -GPT	49 IU/L	SPAN-1	16 U/ML
LAP	138 IU/L	HPT	100 %
BUN	23.6 mg/dl	Fib	288 mg/dl
Cre	1.4 mg/dl	APTT	29.7 sec
AMY	93 IU/L	TT	100 %
U-AMY	1,644 IU/L		
CRP	0.4 mg/dl		

<1998年4月22日受理>別刷請求先: 鈴木 修司

〒192-0904 八王子市子安3-18-1 八王子消化器病院

Fig. 1 Abdominal echo examination showing low echoic area in the pancreas head.

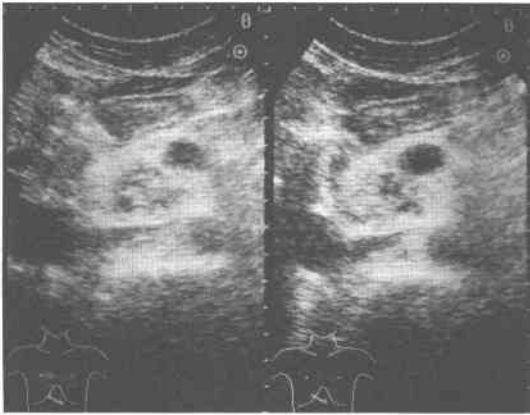


Fig. 2 Doppler echo examination visualizing high blood flow on the area in the pancreas head.



部に蛇行した血管の増生を認め、モヤモヤとした濃染像と同時相において門脈の早期濃染を認めた。また総胆管の軽度拡張を認めた (Fig. 3)。

Magnetic resonance cholangiopancreatography (MRCP)検査：膵管には異常を認めず、総胆管末端の狭窄を認めた (Fig. 4)。

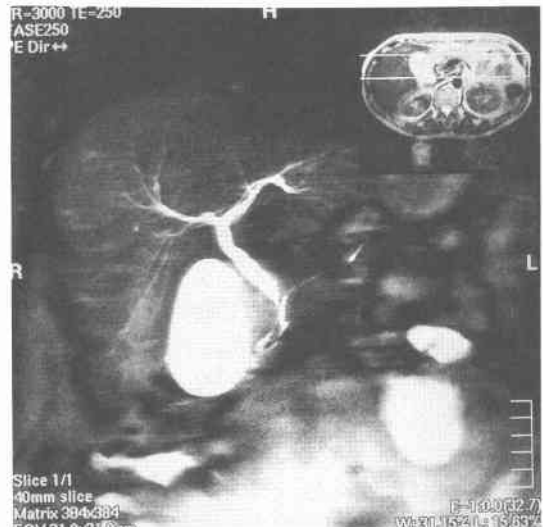
Endoscopic retrograde cholangiopancreatography (ERCP)検査：内視鏡を十二指腸第2部に挿入すると乳頭部より出血を認めた。造影すると膵管の異常は認めなかったが、総胆管末端の狭窄と総胆管内に欠損像を認め、凝血塊を疑った。この際に内視鏡的経鼻胆道ドレナージ (ENBD) による胆汁細胞診を2回施行したが、陰性であった (Fig. 5)。

腹部血管造影検査：腹腔動脈造影において胃十二指腸動脈より膵頭部に蛇行し拡張した血管の増生を認

Fig. 3 At early phase of abdominal dynamic computed tomography (CT), the pancreas head was strongly enhanced and portal vein was enhanced.



Fig. 4 Magnetic resonance cholangiopancreatography demonstrating stenosis of the common bile duct.



め、早期相より門脈の描出を認め、上腸間膜動脈造影においても早期相より下腔十二指腸動脈を介して膵頭部の血管増生と門脈の描出を認めた (Fig. 6)。

以上のことから膵頭部 AVM と診断し、背部痛、心窩部痛の除去と総胆管狭窄の改善のため、9月24日手術を施行した。開腹所見では膵頭部表面に肉眼的に異常は認めなかった。胆道鏡で総胆管を観察しつつ胃十二指腸動脈を結紮したが、総胆管の狭窄、膵動静脈奇形によると考えられる総胆管内部の凹凸、発赤は変化

Fig. 5 Endoscopic retrograde cholangiopancreatography showing stenosis of the common bile duct.



せず、根治性を考え、全胃幽門輪温存脾頭十二指腸切除を施行した。

切除標本では総胆管狭窄部に潰瘍形成を認め、病理標本では脾内胆管周囲の線維化した組織と拡張した細動脈や細静脈の増生を認めた (Fig. 7)。

術後経過は良好で、経口摂取は術後第10病日より開始し、疼痛も除去しえた。現在でも食事摂取も問題なく、職場復帰しており、疼痛の再発は認めていない。

考 察

脾 AVM は1968年 Halpern ら¹⁾によって初めて報告されて以来、我々が検索しえた報告例は自験例を含め53例であった^{2)~18)}。この成因は先天性、後天性に分けられるが、先天性の多くは原始血管網遺残による先天奇形で、特に Rendu-Osler-Weber 病を高率に合併することが知られている。後天性では脾炎、外傷、腫瘍、門脈圧亢進症などが関与していると報告されている^{9)~12)}。

本症報告例をまとめると、男性39例、女性14例であり、男性に多い傾向を示していた。発生部位は頭部21例、体部10例、体尾部11例、尾部3例、頭体部3例、頭・尾部2例、全体3例となっており、頭部に多い傾

Fig. 6 A celiac arteriogram (a) and a superior mesenteric arteriogram (b) shows a racemose vascular network in the head of pancreas and portal vein was demonstrated at the early phase.

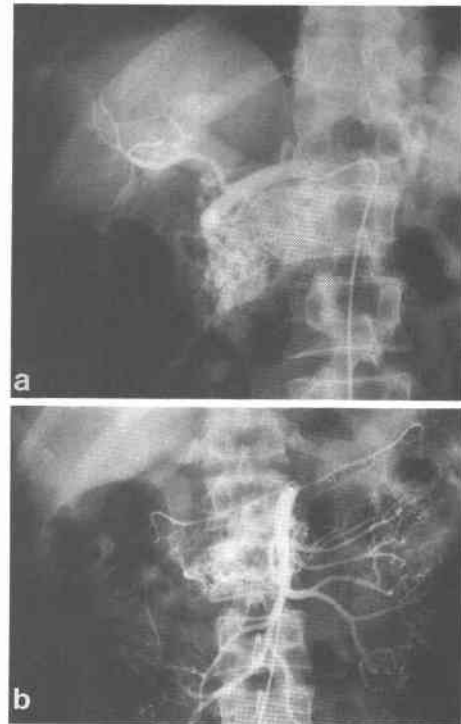


Fig. 7 Microscopic view of the resected pancreas head revealing the dilated arteries and veins.



向を示し、本症例も頭部に限局していた。またこれらの症例で Rendu-Osler-Weber 病を合併した症例は6例で、悪性腫瘍との合併も7例に認め、このうち肝細胞癌は5例と最も多かった。この肝細胞癌は基礎疾患に門脈圧亢進症、肝硬変を伴っていた。本症例には合

併疾患は認めず、門脈圧亢進症、肝硬変も認めなかった。

症状は消化管出血25例、心窩部痛10例、左季肋部痛2例、腹満2例、黄疸1例、無症候性10例、吐血2例、下血1例認めている。

AVMの消化管出血の原因には、1) 合併する門脈圧亢進症に伴う食道胃静脈瘤出血によるもの、2) 消化管へのAVM自体の破綻によるもの、3) AVMによる難治性十二指腸潰瘍からの出血によるもの、4) AVMから脾管内に出血するもの、5) AVMから胆管内に出血するものに分類される⁷⁾。本症例の主訴は心窩部痛であるが、ERCPにて胆道出血を認めることから、心窩部痛は胆道出血に由来するものと考えられた。

脾AVMの診断には血管造影検査は不可欠で、動脈相における流入血管の拡張、蛇行、末梢枝の網状血管増生、毛細管相における濃染像ならびに還流静脈の早期出現が特徴的所見である¹⁸⁾。本症例でも胃十二指腸動脈の拡張、脾頭部の網状血管増生、蛇行、門脈の早期出現を認めた。また超音波検査でも病巣部に一致した小円形無エコーとして拡張脈管の描出とカラードプラーにて同部の拍動を伴う脈管の乱流の描出が診断に有用とされ⁴⁾、本症例も同様の所見を示した。dynamic CTでは大動脈、脾、門脈本幹がほぼ同時相に描出され、early phaseにおける病巣部の濃染、門脈本幹の早期描出などが特徴的所見とされている¹²⁾。本症例でもdynamic CTにて同様の特徴的な所見を示した。ERCPでは特徴的な所見は認めないが⁵⁾、本症例では脾内胆管の狭窄と胆道出血を認めた。

組織学的にはAVM病変は大小不同で不規則な血管より構成されており、病理組織上AVMを構成する血管を動脈類似のもの(Arterial type: A type)、静脈類似のもの(Venous type: V type)、中間型のもの(Intermediate type: I type)の3型に分類し報告されている⁸⁾。本症例では動脈および静脈類似血管が約半々に認めたことから中間型と考えた。

本症の治療は外科的切除が基本的である⁴⁾⁵⁾が、過大な侵襲の手術に及ぶ症例が多いため、基礎疾患による保存的治療を選択したものや無症状のため放置した症例も多い。このため報告例でも外科的治療は22例になされているが、保存的治療も22例に及んでいた。また塞栓術は8例になされ、神経叢ブロックも1例になされたが、症状の改善に寄与しない症例が多かった。また脾頭部AVMは、脾頭十二指腸切除6例、Hassab手術2例、流入血管結紮術1例、胃空腸吻合1例、脾体

尾部切除1例、塞栓術5例、保存的治療も5例になされた。本症例は、疼痛と総胆管狭窄の改善、脾頭部AVM病変の完全除去を考え、全胃幽門輪温存脾頭十二指腸切除を施行することができた。本症例のごとく有症状例に対し外科的切除が根治的であるが、疾患の程度・合併疾患などにより他の治療を選択せざるをえない症例も多く認めた。

本論文の要旨は第9回日本肝胆膵学会総会(東京)にて発表した。

文 献

- Halpen M, Turner AF, Citron BP: Hereditary hemorrhagic telangiectasia. An angiographic study of abdominal visceral angiodysplasias associated with gastrointestinal hemorrhage. *Radiology* 90: 1143-1149, 1968
- Takiguchi N, Ichiki N, Ishige H et al: Pancreatic arteriovenous malformation involving adjacent duodenum in a patient with gastrointestinal bleeding. *Am J Gastroenterol* 90: 1151-1154, 1995
- Tano S, Ueno N, Ueno T et al: Pancreatic arteriovenous malformation with duodenal ulcer. *Dig Dis Sci* 41: 1232-1237, 1996
- 今野英一, 宮本 岳, 下谷麻里子ほか: カラードプラー法が病態把握に有用であった脾動静脈奇形の1例. *日消病会誌* 92: 1799-1803, 1995
- 青木哲哉, 大川清孝, 佐野弘治ほか: 繰り返す下血を主訴とした脾頭部動静脈奇形の1例. *Gastroenterol Endosc* 39: 1440-1445, 1997
- 小澤 広, 田中 武, 佐伯俊一ほか: 肝癌精査中に偶然発見された無症候性脾動静脈奇形の1例. *臨床内科* 12: 139-142, 1997
- 山本 博, 松枝和宏, 脇谷勇夫ほか: 十二指腸出血を来した脾動静脈奇形の1例. *Gastroenterol Endosc* 39: 226-232, 1997
- 布野健一, 梅沢卓也, 石沢共樹ほか: 脾動静脈奇形の3症例. *昭和医会誌* 51: 236-241, 1991
- Uchino A, Ishino Y, Ohno M et al: Arteriovenous malformation of the pancreas associated with mesenteric varices. *Radiat Med* 7: 6-9, 1989
- Kato T, Takahashi M, Okawada T et al: Pancreatic arteriovenous malformation treated by transcatheter embolization. *Radiat Med* 9: 19-21, 1991
- Kato H, Kojima T, Okushiba S et al: Bleeding esophageal varices associated with pancreatic arteriovenous malformation. *World J Surg* 15: 57-61, 1991
- Miura Y, Kato Y, Seiko R et al: Arteriovenous

- malformation of the pancreas associated with hepatocellular carcinoma. *Dig Dis Sci* 37 : 1619—1623, 1992
- 13) 赤木史郎, 巻幡栄一, 木本光則ほか: 肝細胞癌に対する精査中, 偶然発見された膵動静脈奇形の1例. *臨放線* 40 : 725—727, 1995
- 14) 松岡勇二郎, 大友 邦, 牧田幸三ほか: 膵動静脈奇形の1例. *臨放線* 32 : 347—350, 1987
- 15) 森田 稔, 斉藤博哉, 篠原正裕ほか: 膵動静脈奇形の臨床・画像的検討. *胆と膵* 9 : 605—613, 1988
- 16) 石田陽一, 澤武紀雄, 北野 均ほか: 膵動静脈奇形の1例. *胆と膵* 4 : 1559—1563, 1983
- 17) 野村益世, 松川滋夫, 安田敏男ほか: 膵動静脈奇形の1例. *臨消内科* 8 : 1355—1359, 1987
- 18) Chuang VP, Pulmano CM, Walter IF et al: Angiography of pancreatic arteriovenous malformation. *Am J Roentogenol* 129 : 1015—1018, 1977

A Case of Arteriovenous Malformation (AVM) of the Pancreas Head

Shuji Suzuki, Fujio Hanyu, Seiichi Tanaka, Tomoyuki Imazato, Yasuyoshi Takeo,
Honami Teramoto, Tomoyuki Koga, Tsuneo Hayashi and Ken Takasaki*
Hachioji Digestive Disease Hospital

*Institute of Gastroenterology, Tokyo Women's Medical College

Pancreatic arteriovenous malformation (AVM) is a very rare disease. A case of pancreatic AVM which could be treated by surgical resection is reported. A 49-year-old man was referred with epigastralgia and increasing back pain. Abdominal ultrasound examination revealed a low echoic lesion in the head of the pancreas with rapid blood flow dopplar signals. Stenosis of the distal end of the common bile duct and bleeding through the orifice of the Papilla of Vater, which could be identified also by magnetic resonance cholangiopancreatography, were shown by ERCP. Dynamic computed tomography demonstrated a hypervascular lesion of the pancreas head. Celiac and superior mesenteric angiography showed a typical racemose vascular network with early identification of the portal venous system. All of these findings confirmed the diagnosis of pancreatic AVM. As a radical treatment for this patient, pylorus preserving pancreatoduodenectomy was the choice for complete removal of the arteriovenous fistulous networks inside the pancreas head. Microscopic examination of the resected specimens revealed numerous dilated arteriovenous fistulous vessels within the pancreas parenchyma. The surgery resulted in complete disappearance of pain just after the operation. There has been no recurrence of symptoms or the imaging diagnostic signs.

Reprint requests: Shuji Suzuki Hachioji Digestive Disease Hospital
3-18-1 Koyasu, Hachioji-city, 192-0904 JAPAN