

真性多血症で大網 mycotic aneurysm 破裂により 多量の腹腔内出血を来した 1 例

函館赤十字病院外科, 北海道大学第 1 病理¹⁾, 北海道病理組織センター²⁾, 北海道大学第 2 外科³⁾

吉田 秀明 枝澤 寛 野納 邦昭 鎌田 剛
柴田 雅彦¹⁾ 吉木 敬¹⁾ 伊藤 哲雄²⁾ 加藤 紘之³⁾

症例は63歳の女性。2年前から真性多血症のため近医で年2回瀉血を受けている。1998年9月25日、7時頃急に腹痛が出現し近医受診,急性腹症の診断で当科に紹介された。白血球数47,600/mm³,赤血球数600万/mm³,Ht 44.0%,Hb 14.2g/dl,Plt 110万/mm³。CTで大網の部分的肥厚と多量の腹水を認めた。全麻下に開腹したところ,多量の腹腔内出血(推定2,000ml)と右胃大網動脈の一大網枝に沿った血腫を認め,これを出血源と判断し切除した。病理組織診では,結節性多発動脈炎および Segmental Mediolytic Arteritis との鑑別が問題となったが,最終的に ruptured mycotic aneurysm が妥当と考えられた。

はじめに

大網の血管が破裂し腹腔内に出血する非外傷性大網出血の報告はきわめて少ない。われわれは,急性腹症で緊急開腹術の結果,右胃大網動脈の一大網枝からの出血と判明し,病理組織診断で mycotic aneurysm の破裂と診断された症例を経験したので報告するとともに,過去の文献的報告を集計した。

症 例

症例は63歳の女性。30年前に帝王切開,8年前から癩癩で内服(パルブロ酸)を続けている。また,2年前から真性多血症のため近医で内服(アスピリン,ペントキシフィリン)と年2回瀉血を受けているが,4か月前の血液検査では赤血球数600万/mm³,ヘモグロビン濃

度16.1g/dl,ヘマトクリット51.1%,白血球数20,000/mm³,血小板数85万/mm³と,コントロールは不良であったと推察される。1998年9月20日頃から腹部膨満感と腹痛が出現し,次第に増強してきたため同25日朝,近医を受診,急性腹症の診断で16時過ぎに当科に紹介された。

入院時現症:意識清明,表情苦悶様,強い下腹部痛あり,筋性防御を認めたが,血圧150/82mmHg,脈拍数は80/分と,安定していた。

血液生化学検査:白血球数47,600/mm³,赤血球数600万/mm³,ヘマトクリット44.0%,ヘモグロビン濃度14.2g/dl,血小板数110万/mm³で,検査数値からは貧血を認めなかったが,白血球数,血小板数に比べ,ヘ

Table 1 Laboratory data on admission

WBC 47,600/mm ³ (neutro 95.9%, Ly 2.6, Mono 1.3, Eos 0.1)
RBC 600 × 10 ⁴ /mm ³ (reticulo 26.0%) Hb 14.2 g/dl, Ht 44.6 %
Platelet 110.8 × 10 ⁴ /mm ³
bleeding time 2 min, coagulation time 9 min 30 sec, PT 12.7 sec, APTT 31.3 sec, TT 130 %
fibrinogen 338 mg/dl, FDP 5.6, AT-III 100.8 %
T.P. 5.8 g/dl, T.Bil. 0.7 mg/dl, GOT 21 IU/l, GPT 12 IU/l, LDH 536 IU/l
Uric acid 7.8 mg/dl, BUN 27.6 mg/dl, Cr 1.6 mg/dl
Na 137 mEq/l, K 4.2 mEq/l, Cl 94 mEq/l, Ca 4.6 mEq/l,
CRP 2.95 mg/dl

マトクリットとヘモグロビン濃度が低いと考えられた。その他、肝機能、腎機能などに異常を認めなかった (Table 1)。

腹部単純 X 線検査：下腹部陰影の軽度の増強を認めるが、psoas line は明瞭で free air, niveau を認めない (Fig. 1)。

腹部 X 線 CT：小腸、腸間膜の間に充填した腹水と考えられる high density の不整形領域が存在する。おもに腎レベル以下右側に多く、肝周囲にはわずかに

Fig. 1 Abdominal X-ray film on admission.



認めるのみである。CT 値からは血性腹水が疑われた (Fig. 2)。

以上の所見から、何らかの原因による腹腔内出血と判断し、緊急開腹術を施行した。

手術所見：全身麻酔下に正中切開で開腹すると、多量の腹腔内出血 (推定2,000ml) を認めた。さらに、腹腔内を詳細に検索したところ、右胃大網動脈の一大網枝に沿って大網内血腫を認めたため、これを出血源と判断し正常部を含め切除した。切除標本の肉眼所見では、当該動脈の中枢側・末梢側は径1mm で異常を認めなかったが (Fig. 3 a)、周囲に血腫を伴う約15cmの部分は血栓・拡張・血管壁構造の破壊を認め、血管内腔の同定が困難であった (Fig. 3 b)。

病理組織診断：出血を来した動脈枝は筋性動脈が主体で、血栓形成と血管壁の断裂・消失、周囲の好中球主体の炎症細胞浸潤を認める (Fig. 4~6)。特に中膜～外弾性板の間あるいは外弾性板内に断裂がみられる。断裂部から連続して動脈壁全層の消失が見られるところもある。結節性多発動脈炎 (以下、PN と略記)、segmental mediolytic arteritis (以下、SMA と略記)、mycotic aneurysm との鑑別が必要と考えられた。血管径が大きすぎること、fibrinoid necrosis を欠くこと、周囲の小動脈に急性～癒痕期までの動脈炎の所見を欠くことから PN は否定された。また好中球を含む炎症像が強いことや、近傍の動脈壁の中膜平滑筋の変性が乏しいことから SMA の可能性は低いと考えられた。菌塊は証明されないものの、瘤状に拡張した血管病変で一

Fig. 2 Abdominal X-ray CT scan showed high density ascites.

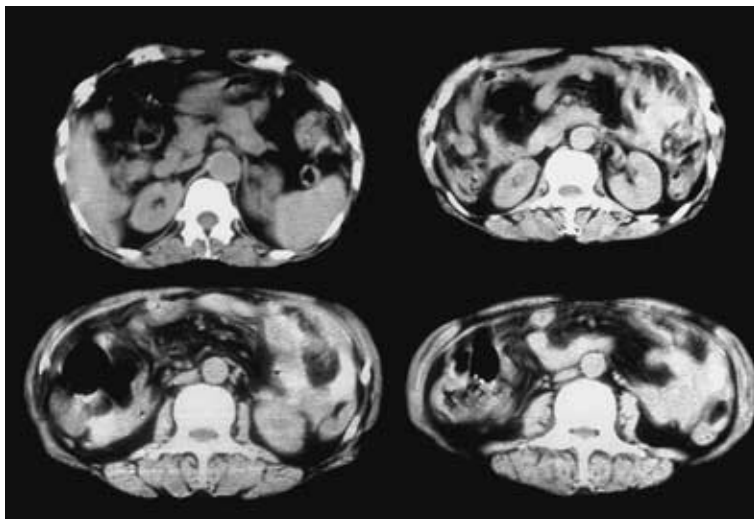


Fig. 3 Resected left margine of the omentum showing the bleeding aneurysm (arrow ; b) The proximal portion of the same artery is intact(arrow ; a).

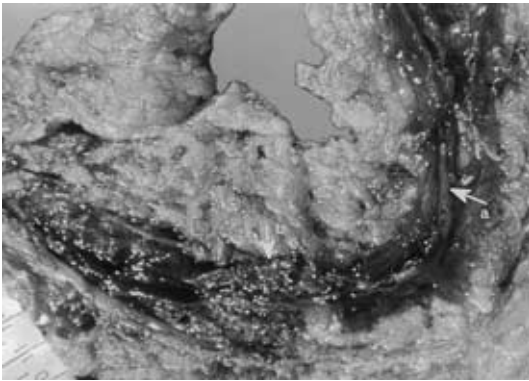


Fig. 4 Histological features of the aneurysm. The intima is torn away and small fragments of the media are observed. The aneurysm contains fresh thrombus and shows massive neutrophil infiltration. There is no change in the neighboring artery. (Elastica-Von-Gieson stain, original magnification $\times 40$)

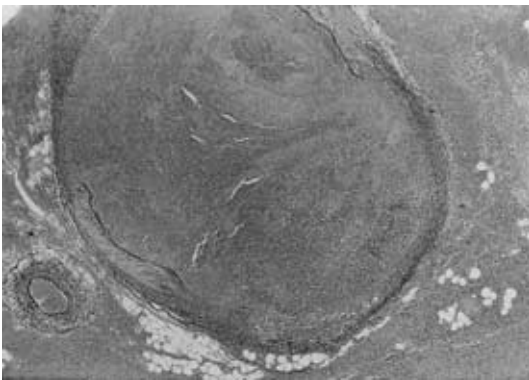


Fig. 5 High magnification photograph of the Fig. 4 showing massive neutrophil infiltration and dissection between the external elastic lamina and the adventitia(Elastica-Von-Gieson stain, original magnification $\times 100$)

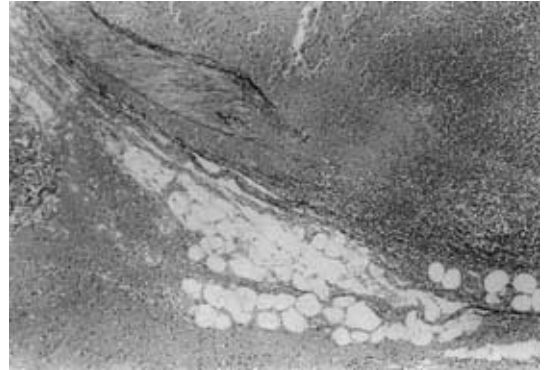
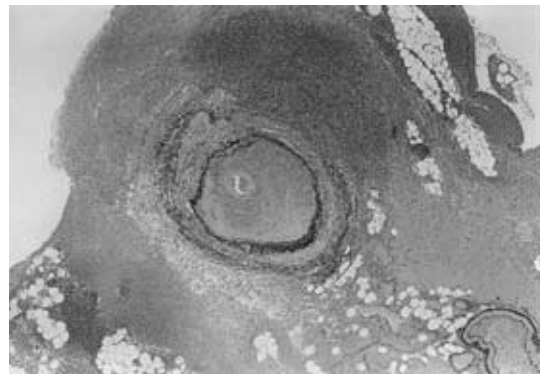


Fig. 6 The proximal portion of the omental artery. The arterial structures are well preserved while the artery is filled with thrombus. Massive neutrophil infiltration is also observed.(Elastica-Von-Gieson stain, original magnification $\times 40$)



部に好中球の目立つ炎症像を持ち，血栓形成と血管壁の破綻をみるという組織学的特徴から mycotic aneurysm の破裂とするのがもっとも妥当と考えられた。

術後経過：回復は良好で輸血も行わなかった。病理組織診断を得た後，以下の全身精査を施行した。

心エコー：右心房と右心室内に発達した muscle band と考えられる直径約1cm の高輝度エコーを認めるが，血栓や菌塊は認めなかった (Fig. 7)。

動脈造影：腹腔動脈およびその分枝，上腸間膜動脈，腎動脈，冠動脈，すべてに有意所見を認めなかった。

血液培養，カンジダ抗原・ β -D グルカンは陰性，ま

た，自己免疫疾患を示唆する抗核抗体・抗 DNA 抗体・LE テスト・LE 細胞・血性補体価などはすべて陰性であった。白血球数 $20,040/\text{mm}^3$ ，CRP $0.00\text{mg}/\text{dl}$ ，血小板数 $68.7\text{万}/\text{mm}^3$ で，活動性の感染源はないものと判断し，入院1か月後に退院した。

なお，感染源の検索と多血症に関しては当院内科で検索・治療を続けている。

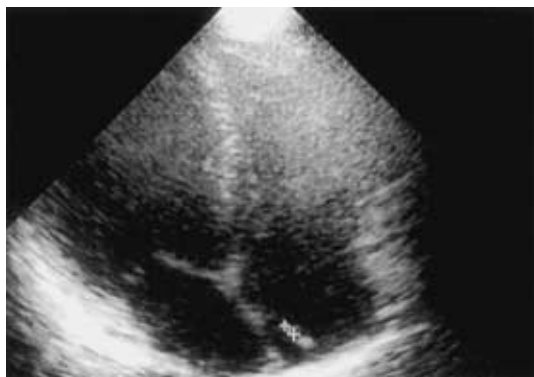
考 察

外傷および医原性を除く大網の血管の破綻による腹腔内出血の報告はきわめてまれで，Medline で検索した限りでは，過去10年間で10例に過ぎない。その内

Table 2 Reported cases of ruptured aneurysm of the Omentum

Authors	year	Age/Sex	concomitant disease	diameter	Histology	outcome
Aschwanden ¹⁾	1989	73 y male		80 mm	fibromuscular dysplasia	death
Ambrosetti ²⁾	1990	61 y male		8 mm	cystic medial necrosis	alive
Heritz ³⁾	1990	68 y male	SLE		segmental mediolytic arteritis	alive
Juvonen ⁴⁾	1994	70 y female	SLE	5 × 10 mm	segmental mediolytic arteritis	alive

Fig. 7 Postoperative echocardiogram (4 chamber view) shows no evidence of infectious endocarditis. The markers indicate muscle band in the right atrium.



訳は動脈瘤破裂4例^{1)~4)}、特発性捻転1例⁵⁾、特発性梗塞1例⁶⁾、悪性新生物4例^{7)~10)}であり、血管病変に起因するものはわずか4例である (Table 2) .

Aschwanden ら¹⁾の症例は、腹部大動脈瘤破裂を疑い緊急開腹したところ、大網の動脈に生じた巨大な動脈瘤の破裂と判明したが、出血により失っている。組織像は fibromuscular dysplasia であった。Ambrosetti ら²⁾の報告は、大網の末端部動脈の動脈瘤の破裂で、術前に動脈造影を施行し、出血源を特定できている。開腹時、われわれの症例と同様に出血は止まっており、術後経過は良好であった。切除標本の組織像は cystic medial necrosis を示していた。Heritz ら³⁾、Juvonen ら⁴⁾も、SMA による大網動脈末端部の動脈瘤の破裂・腹腔内出血例を報告しているが、破裂血管が細小であったこと、術前血管造影により確実に診断できたことなどから、救命に成功している。なお、これらの症例は、全身性エリテマトーデスを基礎疾患としているため、胃十二指腸動脈、脾動脈、腎動脈など、他の部位にも動脈瘤が認められ、SLE の治療と合わせ注意深い経過観察が必要と述べている。

Kleinsasser¹¹⁾は文献上83例の abdominal apoplexy を集計しているが、それによると、発生頻度は胃動脈17%、中結腸動脈13%、脾動脈・上腸間膜動脈が各8%、出血源不明が28%となっている。血管病変の組織像は高齢者では粥状硬化が¹²⁾、若年者では先天奇形が多いとされるが、まれながら fibrodysplasia, SMA, cystic medial necrosis なども報告されている。最近は PN が増加しつつあり、年間1~2例報告されている¹⁾。

われわれの症例も、PN および SMA との鑑別が問題となった。PN は、fibrinoid necrosis を欠くこと、周囲の小動脈に急性期~癒痕期までの動脈炎所見を認めないことから否定された。さらに、中膜平滑筋の変性が明らかでないこと、強い好中球浸潤を伴うことから SMA とするよりも組織像からは mycotic aneurysm がより妥当な診断と考えられた。推測であるが、真性多血症のコントロールが不十分であったことが基盤となり、微少血栓および易感染性を引き起こして本病態が発症した可能性がある。

文 献

- 1) Aschwanden M, Schmid P : Ruptured aneurysm of the greater omentum in fibromuscular dysplasia. *Vasa* 18 : 157-161, 1989
- 2) Ambrosetti P, Robert J, Erne M et al : Ruptured Aneurysm of the Omentum. *Acta Chir Scand* 156 : 187-188, 1990
- 3) Heritz DM, Butany J, Johnston KW et al : Intraabdominal hemorrhage as a result of segmental mediolytic arteritis of an omental artery: case report. *J Vasc Surg* 12 : 561-565, 1990
- 4) Juvonen T, Niemela O, Reinilla A et al : Spontaneous intraabdominal haemorrhage caused by segmental mediolytic arteritis in a patient with systemic lupus erythematosus. *Eur J Vasc Surg* 8 : 96-100, 1994
- 5) Nihei Z, Kojima K, Uehara K et al : Omental bleeding with spontaneously derotated torsion. *Jpn J Surg* 21 : 700-702, 1991
- 6) Patier JL : An idiopathic segmental infarct of the

- greater omentum : a new case with massive hemoperitoneum. *Rev Clin Esp* 190 : 430-431, 1992
- 7) Bankier AA, Stanek C, Hubsch P : Benign solitary schwannoma of the greater omentum : A rare case of acute intraperitoneal bleeding-Diagnosis by CT. *Clin Radiol* 51 : 517-518, 1996
- 8) Rye BA, Christiansen E, Larsen LG : Acute bleeding from leiomyosarcoma of the greater omentum. *Tumori* 75 : 296-298, 1989
- 9) elAllame L, Belkhaty S, Chkoff L et al : Spontaneous hemoperitoneum complicating intraperitoneal paraganglioma. *J Chir* 126 : 242-247, 1989
- 10) Ritossa C, Destefano I, Giuli P : Hemoperitoneum caused by cavernous angioma of the omentum. *Minerva Chir* 44 : 907-908, 1989
- 11) Kleinsasser LJ : Abdominal apoplexy. Report of two cases and review of the literature. *Am J Surg* 120 : 623-628, 1970
- 12) Rosengart TK, Pass H, Cannon R et al : Ruptured gastroepiploic artery aneurysm and vascular collapse in a patient with thoracic aneurysm. *J Cardiovasc Surg* 30 : 514-516, 1989
- 13) 福田直人, 館花明彦, 吉良邦彦ほか : 急性腹症で発症し小腸壊死をきたした結節性多発動脈炎の1例. *日臨外会誌* 59 : 2300-2304, 1998

Rupture of Mycotic Aneurysm of the Greater Omentum in a Patient with Polycytemia Vera

Hideaki Yoshida, Hiroshi Edasawa, Kuniaki Yanou, Tuyoshi Kamada, Masahiko Shibata¹⁾, Takashi Yoshiki¹⁾, Tetsuo Itoh²⁾ and Hiroyuki Katoh³⁾

Department of Surgery, Hakodate Red Cross Hospital ¹⁾First Department of Pathology, Hokkaido University

²⁾Hokkaido Histopathological center ³⁾Second Department of Surgery, Hokkaido University

A 63 year old woman was admitted with severe abdominal pain of 9 hours duration. Past medical history included a polycytemia vera for two years. Laboratory measurements were as follows : white blood cell $47.6 \times 10^3/\text{mm}^3$, red blood cell $600 \times 10^4/\text{mm}^3$, hematocrit 44.0%, hemoglobin 14.2g/dl, platelet $100 \times 10^4/\text{mm}^3$. Abdominal X-ray CT scan showed a high density ascites. Intraoperatively, 2,000 ml of intraabdominal haemorrhage and a massive hematoma in the free margin of the omentum were noted. Histological examination of the resected omentum revealed a ruptured mycotic aneurysm.

Key words : rupture of omental artery aneurysm, intraabdominal haemorrhage, polycytemia vera

[*Jpn J Gastroenterol Surg* 33 : 362-366, 2000]

Reprint requests : Hideaki Yoshida Second Department of Surgery, Hokkaido University School of Medicine
N 14, W 5 Kita-ku, Sapporo, 060 8648 JAPAN